

UNIVERSITE SORBONNE NOUVELLE-PARIS 3
École Doctorale 622 : Langage et Langues
Laboratoire de Phonétique et Phonologie (UMR 7018)

THESE

En vue de l'obtention du grade de docteur en phonétique

Présentée par
Nathalie LÉVÊQUE

Distinction entre maladies du motoneurone :
Les marqueurs acoustiques, révélateurs de profils dysarthriques différents

Sous la direction de Cécile FOUGERON et de Gaëlle BRUNETEAU

Soutenue à Paris le 3 novembre 2023 devant le jury composé de :

Marina Laganaro (rapporteur), Professeur à l'Université de Genève

Liziane Bouvier (rapporteur), Professeur à l'Université Mc Gill, Québec

David Grabli (examinateur), Professeur Universitaire Praticien Hospitalier, Hôpital de la Pitié-Salpêtrière, Paris

Claire Pillot-Loiseau (présidente de jury et examinatrice), Professeur, Université Sorbonne Nouvelle, Paris 3

Cécile Fougeron (directrice de la thèse), directeur de recherche CNRS, LPP, Paris

Gaëlle Bruneteau (co-directrice de la thèse), Professeur Universitaire Praticien Hospitalier, Hôpital de la Pitié-Salpêtrière, Paris

2023

**Distinction entre maladies du motoneurone :
les marqueurs acoustiques, révélateurs de profils dysarthriques différents**

Nathalie Lévêque

Distinction entre maladies du motoneurone :
les marqueurs acoustiques, révélateurs de profils dysarthriques différents

Cette thèse étudie les apports de l'exploration de la parole dans le diagnostic différentiel entre les trois principales maladies du motoneurone de l'adulte, la sclérose latérale amyotrophique (SLA), la sclérose latérale primitive (SLP) et la maladie de Kennedy (MK). La parole de locuteurs contrôles et de patients présentant ces maladies a été comparée, au travers de quatre dimensions : la phonation ; la précision articulatoire étudiée sous l'angle acoustique et perceptif ; les aspects temporels dans des tâches de performance et dans la parole continue (lecture et spontané) ; et l'organisation du discours explorée au travers de la durée des continuums de parole et des pauses dans le spontané. Cette thèse met en évidence des marqueurs acoustiques détectant la présence d'une dysarthrie, avec notamment une hypoarticulation retrouvée dans toutes les populations présentant une dysarthrie, et des aspects temporels très perturbés dans les populations SLA et SLP. Par ailleurs, ce travail identifie des marqueurs acoustiques diagnostiques, discriminant les profils dysarthriques entre eux. Le profil dysarthrique des populations SLA et SLP se distingue clairement de celui de la population MK. Bien que très similaires, nos résultats montrent des différences dans le profil dysarthrique des populations SLA et SLP, soulevant des effets probablement plus importants de la perturbation de la programmation des gestes articulatoires dans la SLP, et de l'instabilité articulatoire dans la SLA. Ce travail ouvre des perspectives d'approfondissement dans la caractérisation de chacun de ces profils dysarthriques.

Mots clés : maladies du motoneurone, profils dysarthriques, dimension de la parole, marqueurs diagnostiques

Distinguishing between motor neuron diseases : acoustic markers reveal different dysarthric profiles

This dissertation studies the contribution of speech exploration to differential diagnosis between the three main motor neuron diseases of adults, amyotrophic lateral sclerosis (ALS), primary lateral sclerosis (PLS) and Kennedy's disease (KD). The speech of control speakers and of patients with these diseases was compared along four dimensions: phonation; pneumo-phonatory coordination; articulatory precision studied from acoustic and perceptual angles; temporal aspects in performance tasks and in continuous speech (reading and spontaneous); and speech organization explored through the duration of speech continua and pauses in spontaneous speech. This thesis highlights acoustic markers detecting the presence of dysarthria, notably hypoarticulation found in all dysarthric populations, and highly disturbed temporal aspects in the ALS and PLS populations. This study also identifies diagnostic acoustic markers that discriminate between dysarthric profiles. The dysarthric profile of the ALS and PLS populations clearly differs from that of the KD population. Although very similar, our results show differences in the dysarthric profile of the ALS and PLS populations, pointing to the probable greater effects of disrupted programming of articulatory gestures in PLS, and articulatory instability in ALS. This work opens up prospects for further characterization of each of these dysarthric profiles.

Keywords: motor neuron disease, dysarthric profiles, speech dimension, diagnostic markers

REMERCIEMENTS

Un immense merci à Cécile Fougeron pour avoir encadré ce travail de très longue haleine ! Merci pour ta patience et pour ton enseignement de la rigueur scientifique tout au long de ce cheminement. Le monde de la maladie n'est pas forcément attrayant, et je te remercie infiniment pour l'intérêt que tu portes à la parole pathologique, à l'encadrement des travaux des cliniciens, aux enseignements que tu donnes aux étudiants en orthophonie, et bien sûr à la conception de cet outil qu'est MonPaGe. Ta contribution apporte énormément au monde de l'orthophonie, aux cliniciens, et in fine aux patients.

Je remercie infiniment Gaëlle Bruneteau pour avoir co-encadré cette thèse. Merci pour ta lecture méticuleuse de ce travail et tes conseils clairs et structurants. Je profite de ces remerciements pour te dire que c'est un vrai plaisir de travailler à tes côtés.

Je remercie également le FNRS (Fond National Suisse de Recherche Scientifique)-Projet Synergia MoSpeeDi (subside FNS CRSII5_173711), ainsi que l'APHP (Assistance Publique Hôpitaux de Paris)-Appel à projets internes 2017 GH Pitié-Salpêtrière (Étude Speech-ALS, NI17040J, IDRCB : 2017-A03151), qui ont en partie financé cette thèse.

J'exprime ma gratitude envers les membres de mon jury. Merci à Liziane Bouvier et Marina Laganaro mes rapporteurs. Merci à mes examinateurs, David Grabli et Claire Pillot-Loiseau. Claire, tu as été mon maître de stage, il y a bien longtemps maintenant à l'hôpital Laennec. Sache que c'est toi qui a allumé l'étincelle de la phonétique clinique dans mes oreilles, un grand merci à toi !

Je remercie tous les neurologues du centre SLA et autres maladies du motoneurone de l'hôpital de la Salpêtrière, les Docteurs François Salachas, Nadine Le Forestier, Pierre-François Pradat, Timothée Lenglet, Adèle Hesters, Maria del Mar Amador, et bien sûr le Professeur Gaëlle Bruneteau, qui m'ont adressé leurs patients, avec confiance, et qui m'ont soutenue et encouragée dans l'aboutissement de ce travail.

C'est avec une certaine émotion que je pense aux 71 patients qui m'ont donné leur accord pour que je capture leur « parole malade ». Merci à vous, où que vous soyez aujourd'hui, sachez que vous avez fait avancer le monde de la recherche sur la connaissance des dysarthries.

Je remercie tous mes collègues de l'hôpital de la Salpêtrière, médicaux et paramédicaux, qui m'ont encouragée, de près ou de loin, dans ce projet.

Mes remerciements s'adressent bien sûr aussi à Ariane, Nathalie, Thomas, anciens étudiants en orthophonie qui ont fait leur mémoire de fin d'études dans le centre SLA les années passées. Leurs travaux ont contribué à l'avancée de cette thèse.

Merci à Michaela Pernon, qui m'a prêté ses oreilles dans la cotation du score perceptif.

Je remercie Claire Della-Vedova et Marie Vaugoyeau qui m'ont fait aimer les statistiques et m'ont montré les coulisses passionnantes de R.

Un grand merci à Jeanne Fichou, orthophoniste en devenir, et correctrice de ma thèse en un temps record, entre deux randonnées !

Je tiens vivement à remercier Martha Boeglin, pédagogue extraordinaire, dont les techniques pour organiser le « chaos des idées » me servent au quotidien maintenant !

Je remercie également Brice Barber, qui m'a aidée à surpasser mes doutes dans ma capacité à mener à bien ce travail !

Merci à toute ma famille, pour votre soutien dans l'endurance de ce travail. Je sais que vous attendez tous cette phrase : « j'ai fini ! ».

Merci ma Cléo chérie pour ta patience. Ton post-it affiché dans mon bureau « courage maman, tu vas y arriver, je t'aime » m'a bien aidée ! Tu as tellement vu ta maman devant son ordinateur durant toute ta petite enfance, que tu as pris le parti d'en faire de magnifiques dessins ! A nous les voyages, les sorties, les virées entre filles maintenant !

« Maman, devant son ordinateur »



A toi Gildas, mon époux, nous partageons le goût du son, toi dans les contrebasses, moi dans la parole distordue, nous nous comprenons au travers de ces sons, aussi différents soient-ils ! merci mille fois pour ton infallible soutien, tu as été un roc, en vrai breton, supportant vents et tempêtes dans ce vrai marathon.

TABLE DES MATIÈRES

INTRODUCTION GENERALE	15
CHAPITRE 1. État de l'art.....	16
1.1. <i>Les maladies du motoneurone</i>	<i>17</i>
1.1.1. Les motoneurones centraux et périphériques	17
1.1.2. Les maladies du motoneurone étudiées dans cette thèse.....	18
1.1.3. Quel est l'intérêt de comparer ces trois maladies ?.....	23
1.2. <i>Les dysarthries dans les maladies du motoneurone</i>	<i>25</i>
1.2.1. L'étage glottique.....	26
1.2.2. La précision articulatoire	30
1.2.3. Le débit de parole et articulatoire dans les trois types de dysarthrie	36
1.2.4. L'organisation du discours : l'étude des pauses et des continuums de parole entre ces pauses.....	39
1.3. <i>La caractérisation des profils dysarthriques : une histoire de dimensions et de tâches de parole</i>	<i>42</i>
1.3.1. Définitions : la caractérisation d'un profil	42
1.3.2. Le profil dysarthrique dans la SLA : un protocole de screening de tous les étages de la parole ..	43
1.3.3. La Parole : mais de quoi parle-t-on ?.....	44
1.4. <i>A quoi sert cette thèse ?.....</i>	<i>48</i>
CHAPITRE 2. Méthode : des populations, du matériel linguistique et des descripteurs de parole	49
2.1. <i>Les populations et leur enregistrement</i>	<i>49</i>
2.1.1. La population présentant une dysarthrie	49
2.1.2. La population contrôle.....	51
2.1.3. Les conditions d'enregistrement	53
2.2. <i>Le matériel linguistique : les sept tâches de parole explorées et les consignes aux locuteurs.....</i>	<i>53</i>
2.2.1. La production d'un /a/ court (étude sur la voix dans le chapitre 3)	54
2.2.2. La production du temps maximum de phonation sur un /a/ tenu (TMP) (étude sur la voix dans le chapitre 3).....	54
2.2.3. La lecture d'une phrase (étude sur la voix du chapitre 3 et sur les aspects temporels du chapitre 5)	54
2.2.4. La production de « diadococinésies » (DDK) (étude sur les aspects temporels, chapitre 5)	54
2.2.5. La production de « pseudo-mots » (étude sur les mesures perceptives de l'articulation, chapitre 4)	55
2.2.6. La production de séquences de glides (étude sur les mesures acoustiques de l'articulation et les mesures temporelles, chapitre 4 et 5).....	57
2.2.7. La parole spontanée (étude sur l'organisation du discours, chapitre 6, sur les mesures temporelles, chapitre 5).....	58
2.3. <i>Les descripteurs par dimension de la parole.....</i>	<i>59</i>
2.3.1. Les descripteurs de la voix (étudiée dans le chapitre 3)	59
2.3.2. Les descripteurs de la précision articulatoire (étudiée dans le chapitre 4)	61
2.3.3. Les descripteurs des aspects temporels de la parole (étudiés dans le chapitre 5).....	70
2.3.4. Les descripteurs de l'organisation du discours dans la parole spontanée (étudiée dans le chapitre 6)	73
2.3.5. Récapitulatif des dimensions, des tâches et des descripteurs de parole étudiés	76
CHAPITRE 3. Résultats sur les caractéristiques acoustiques de la voix : une grande variabilité des profils	78

3.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses	78
3.2. Résultats sur les caractéristiques vocales.....	79
3.2.1. Jitter_aa	79
3.2.2. Shimmer_aa	80
3.2.3. HNR_aa	81
3.2.4. SDPitch_aa	81
3.2.5. Pitch Mélanie	82
3.2.6. SDPitch_Mélanie.....	83
3.2.7. TMP	83
3.3. Que retenir des aspects liés à la voix dans cette étude ?.....	84
CHAPITRE 4. Résultats sur l'articulation : la SLA, une population aux aspects segmentaux plus vulnérables..	85
4.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses	85
4.2. Imprécisions segmentales jugées perceptivement dans les pseudo-mots	86
4.2.1. En fonction de la structure syllabique (STR_SYLL).....	86
4.2.2. En fonction de la position du stimulus (POS_STIM)	87
4.2.3. En fonction du lieu d'articulation des consonnes linguales (LIEU)	89
4.2.4. En fonction de certaines consonnes linguales (CONS)	89
4.2.5. En fonction de la longueur et la complexité du pseudo-mot (LONG).....	90
4.3. Les mesures cepstrales dans les séquences /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/	92
4.3.1. La modulation cepstrale (MOD_CEPST).....	93
4.3.2. La variabilité de la modulation cepstrale (VAR_CEPST).....	94
4.4. Que retenir des aspects liés à l'articulation dans cette étude ?.....	96
4.4.1. Résumé des résultats sur l'imprécision articulatoire jugée perceptivement	96
4.4.2. Résumé des résultats de l'analyse acoustique de la dimension articulatoire	97
CHAPITRE 5. Résultats sur les aspects temporels : un débit lent et une flexibilité limitée dans le contrôle du débit articulatoire, dans les populations SLA et SLP	99
5.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses	99
5.2. Résultats concernant le débit articulatoire dans différentes tâches de parole.....	101
5.2.1. La durée des transitions (DUR_TRANS)	101
5.2.2. Le débit articulatoire dans des tâches de performance	103
5.2.3. Le débit articulatoire et le nombre de mots dans la parole continue	107
5.2.4. La flexibilité du contrôle du débit est-elle la même dans toutes les populations ?.....	111
5.3. Que retenir des aspects liés au débit articulatoire ?.....	114
5.3.1. Les marqueurs discriminants	114
5.3.2. Les marqueurs spécifiques.....	114
CHAPITRE 6. Résultats sur l'organisation du discours dans la parole spontanée : une proportion du temps passé en pause plus importante dans les populations SLA et MK	115
6.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses	115
6.2. Résultats concernant l'organisation du discours	116
6.2.1. Les mesures effectuées sur les continuums de parole entre les pauses (UIP)	116
6.2.2. Les mesures effectuées sur les pauses	118
6.3. Que retenir des aspects liés à l'organisation du discours ?.....	120
6.3.1. Les marqueurs discriminants et spécifiques de l'organisation du discours.....	120
6.3.2. Les marqueurs similaires de l'organisation du discours	120
CHAPITRE 7. Discussion : Caractérisation des profils dysarthriques dans les maladies du motoneurone.....	121
7.1. Un récapitulatif des marqueurs acoustiques discriminants et spécifiques : cartes infographiques par population	121

7.1.1. Le profil dysarthrique dans la maladie de Kennedy (MK)	122
7.1.2. Le profil dysarthrique dans la sclérose latérale amyotrophique (SLA)	123
7.1.3. Le profil dysarthrique dans la sclérose latérale primitive (SLP)	124
7.2 L'articulation : révélatrice de la présence d'une dysarthrie et des spécificités distinguant les profils dysarthriques	125
7.2.1. L'hypoarticulation touche-t-elle tous les locuteurs dysarthriques ?	125
7.2.2. L'instabilité de l'articulation touche-t-elle tous les locuteurs dysarthriques ?	127
7.2.3. Une imprécision des consonnes linguales perçue dans toutes les populations présentant une dysarthrie	128
7.2.4. Les troubles de la résonance nasale dans les maladies du motoneurone	131
7.2.5. Des stratégies de coarticulation anticipatoire altérées uniquement chez les dysarthriques ?	132
7.2.6. Les troubles de l'organisation et de la planification de la parole : une piste pour discriminer la SLA de la SLP ?	134
7.3. La perturbation des aspects temporels, un marqueur diagnostique de l'atteinte centrale	137
7.3.1. Quels sont les effets de l'atteinte périphérique sur les aspects temporels de la parole ?	137
7.3.2. Une perturbation globale des aspects temporels dans les populations SLA et SLP	138
7.4. La dimension vocale : des pistes à approfondir	141
7.4.1. Comment expliquer la grande variabilité des descripteurs de la qualité vocale ?	141
7.4.2. Un shimmer bas : le marqueur diagnostique d'une adduction trop importante des cordes vocales ?	142
7.4.3. La variabilité de la hauteur de la voix dans la population MK : la piste endocrinienne à creuser ?	143
7.5 L'organisation du discours : l'élévation de la proportion de temps passé en pause, comme marqueur diagnostique d'une composante flasque dans la dysarthrie	144
7.6 Résumé des apports de la thèse	147
CONCLUSION GENERALE : Et alors ?	149
BIBLIOGRAPHIE	150
ANNEXES	168
1) Liste des patients : données cliniques	168
2) Les critères diagnostiques de l'El Escorial révisés	170
3) Les critères consensuels de diagnostic de la SLP	170
4) Items du sous-score bulbaire de l'ALS FRS	171
5) Le nombre de stimuli testés dans les pseudo-mots	171
6) Les publications de l'équipe sur l'étude des MFCC dans les séquences de glides	172

LISTE DES FIGURES

FIGURE 1 LOCALISATION DES MOTONEURONES CENTRAUX ET PERIPHERIQUES ET CONSEQUENCES DE LEURS ATTEINTES, D'APRES ROWLAND & SHNEIDER (2001) ET SWINNEN & ROBBERECHT (2014). LA FIGURE DE GAUCHE MONTRE LA LOCALISATION DES DEUX TYPES DE MOTONEURONES (UPPER MOTOR NEURONS = MOTONEURONES CENTRAUX ; LOWER MOTOR NEURONS = MOTONEURONES PERIPHERIQUES), AINSI QUE LES ETAGES DE LA MOELLE EPINIERE INNERVANT CHACUN DES TERRITOIRES DU CORPS. LA FIGURE DE DROITE MONTRE LA LOCALISATION DE CHACUN DES TYPES DE MOTONEURONE ET LISTE LES SIGNES CLINIQUES ASSOCIES A CHACUNE DES ATTEINTES (MOTONEURONES CENTRAUX EN BLEU ET MOTONEURONES PERIPHERIQUES EN ROUGE).	17
FIGURE 2 LES DEUX TYPES DE MOTONEURONES ATTEINTS DANS LA SLA D'APRES ROWLAND & SHNEIDER (2001). LA PARTIE GAUCHE DE LA FIGURE REPRESENTE LA LOCALISATION DU MOTONEURONE CENTRALE, DANS LE CORTEX MOTEUR. L'INFLUX NERVEUX EST ENSUITE RELAYE AUX MOTONEURONES PERIPHERIQUES (PARTIE DROITE DE LA FIGURE) SITUE A DIFFERENTS ETAGES : - DANS LE BULBE (MEDULLA SUR LA FIGURE QUI VEUT DIRE MOELLE ALLONGEE) CONTRIBUANT A L'ACTIVATION DES MUSCLES DE LA SPHERE DITE « BULBAIRE » C'EST-A-DIRE ORO-PHARYNGO-LARYNGEE ET - DANS LA MOELLE EPINIERE, CONTRIBUANT A L'INNERVATION DES MUSCLES DES MEMBRES INFERIEURS ET SUPERIEURS	20
FIGURE 3 REPRESENTATION SPECTROGRAPHIQUE DE LA SEQUENCE /UJUUJ/ PRODUITE PAR UN LOCUTEUR PRESENTANT UNE SLA. SUR CE SPECTROGRAMME, ON OBSERVE CLAIREMENT LES MOUVEMENTS DE F2, REFLETANT LES MOUVEMENTS ANTERO-POSTERIEURS DE LA LANGUE, NECESSAIRES A LA PRODUCTION REPRESENTATION SPECTROGRAPHIQUE DE LA SEQUENCE /UJUUJ/ PRODUITE PAR UN LOCUTEUR PRESENTANT UNE SLA. SUR CE SPECTROGRAMME, ON OBSERVE CLAIREMENT LES MOUVEMENTS DE F2, REFLETANT LES MOUVEMENTS ANTERO-POSTERIEURS DE LA LANGUE, NECESSAIRES A LA PRODUCTION DE LA SEQUENCE /UJUUJ/. AU DEMARRAGE DE LA SEQUENCE, F2 EST BAS, REFLETANT UNE POSITION POSTERIEURE DE LA LANGUE LORS DE LA PRODUCTION DE LA VOYELLE /U/. PUIS ON OBSERVE UNE ELEVATION DE F2, LORSQUE LA LANGUE VA S'ANTERIORISER POUR PRODUIRE LE SON /j/, PUIS UN ABAISSMENT DE F2 POUR REVENIR A LA PRODUCTION DE /U/, ET AINSI DE SUITE SUR TOUTE LA DUREE DE LA SEQUENCE.	58
FIGURE 4 ILLUSTRATION DE L'EXTRACTION DES MFCCs, ETAPE PAR ETAPE : SUR LA PREMIERE LIGNE ON OBSERVE DEUX FENETRES CONSECUTIVES DE 25 MS. SUR LA SECONDE LIGNE ON OBSERVE L'APPLICATION DE LA TRANSFORMEE DE FOURIER. SUR LA TROISIEME LIGNE, ON OBSERVE LA PONDERATION DU SPECTRE D'AMPLITUDE SELON L'ECHELLE DE MEL. ON PEUT OBSERVER SUR LA QUATRIEME LIGNE LA CONVERSION DU SPECTRE A L'AIDE DE LA TRANSFORMEE EN COSINUS DISCRETE. ENFIN, LA DERNIERE LIGNE MONTRE LA DIFFERENCE D'ENERGIE CEPSTRALE ENTRE DEUX FENETRES.	67
FIGURE 5 COMPARAISON DU JITTER_AA ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.....	79
FIGURE 6 COMPARAISON DU SHIMMER_AA ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE. POUR LES HOMMES, LES LETTRES SUR LE GRAPH REPRESENTENT LA SIGNIFICATIVITE DES DIFFERENCES ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS QUI PARTAGENT UNE MEME LETTRE ONT UN SHIMMER_AA QUI N'EST SIGNIFICATIVEMENT PAS DIFFERENT. AU CONTRAIRE, SI DEUX POPULATIONS NE PARTAGENT PAS UNE MEME LETTRE, ALORS LEUR SHIMMER_AA EST SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENT.	80
FIGURE 7 COMPARAISON DU HNR_AA ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.....	81
FIGURE 8 COMPARAISON DU SDPITCH_AA ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.....	82
FIGURE 9 COMPARAISON DU PITCH MELANIE (EN HERTZ) ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.	82
FIGURE 10 COMPARAISON DU SDPITCH_MELANIE ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.	83
FIGURE 11 COMPARAISON DU TMP (EN SECONDES) ENTRE LES POPULATIONS POUR LES FEMMES (A GAUCHE) ET LES HOMMES (A DROITE). RAPPELONS QUE LA MK NE TOUCHE QUE LES HOMMES. LE LOSANGE CENTRAL REPRESENTE LA MOYENNE.	84
FIGURE 12 JUGEMENT PERCEPTIF DES STIMULI (CORRECT/INCORRECT) DANS CHAQUE STRUCTURE SYLLABIQUE (CV A GAUCHE, CCV AU CENTRE ET CCCV A DROITE) ET DANS CHAQUE POPULATION	87
FIGURE 13 JUGEMENT PERCEPTIF DES CONSONNES SINGLETONS (CORRECT/INCORRECT) EN FONCTION DE LEUR POSITION DANS LE MOT (A L'ONSET INITIAL DU MOT A GAUCHE ET EN CODA FINALE DU MOT A DROITE) DANS CHAQUE POPULATION.....	88
FIGURE 14 JUGEMENT PERCEPTIF DES CLUSTERS TOUS CONFONDUS CCV ET CCCV (CORRECT/INCORRECT) EN FONCTION DE LEUR POSITION DANS LE MOT (A L'ONSET INITIAL DU MOT A GAUCHE ET EN CODA FINALE DE MOT A DROITE) DANS CHAQUE POPULATION	89
FIGURE 15 JUGEMENT PERCEPTIF DES CONSONNES ANTERIEURES A GAUCHE ET POSTERIEURES A DROITE (CORRECT/INCORRECT) DANS CHAQUE POPULATION	89

FIGURE 16 JUGEMENT PERCEPTIF DES CONSONNES /s-z/ A GAUCHE, /l/ AU MILIEU ET /ʁ/ A DROITE (CORRECT/INCORRECT) DANS CHAQUE POPULATION	90
FIGURE 17 JUGEMENT PERCEPTIF DES CONSONNES DANS LES PSEUDO-MOTS « KITOUKITOU » A GAUCHE ET « MENABAINBAN » A DROITE (CORRECT/INCORRECT) DANS CHAQUE POPULATION	91
FIGURE 18 JUGEMENT PERCEPTIF DES CONSONNES DANS LES MOTS « DADADA » A GAUCHE ET « TATATA » A DROITE (CORRECT/INCORRECT) DANS CHAQUE POPULATION.....	92
FIGURE 19 COMPARAISON DE LA MODULATION CEPSTRALE MOYENNE ENTRE LES SEQUENCES (/AJAJAJ/, /UJUJUUJ/ ET /WIWIWI/) POUR CHAQUE POPULATION. LES BARRES DE DISPERSION AUTOUR DES MOYENNES REPRESENTENT LES INTERVALLES DE CONFIANCE..	94
FIGURE 20 COMPARAISON DE LA VARIABILITE DE LA MODULATION CEPSTRALE ENTRE LES SEQUENCES (/AJAJAJ/, /UJUJUUJ/ ET /WIWIWI/) POUR CHAQUE POPULATION. LES BARRES DE DISPERSION AUTOUR DES MOYENNES REPRESENTENT LES INTERVALLES DE CONFIANCE.....	95
FIGURE 21 COMPARAISON DES DUREES MOYENNES DES TRANSITIONS EN FONCTION DES SEQUENCES (/AJAJAJ/, /UJUJUUJ/ ET /WIWIWI/) POUR CHAQUE POPULATION. LES BARRES DE DISPERSION AUTOUR DES MOYENNES REPRESENTENT LES INTERVALLES DE CONFIANCE.....	102
FIGURE 22 DEBIT ARTICULATOIRE (EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE) POUR CHAQUE POPULATION (CTRL, MK, SLA ET SLP) ET POUR CHAQUE AMR_CV (/BA/, /DE/ ET /GO/)	104
FIGURE 23 DEBIT ARTICULATOIRE (EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE) POUR CHAQUE POPULATION (CTRL, MK, SLA ET SLP) ET POUR CHAQUE AMR_CCV (/KLAKLAKLA/ ET /TɛATɛATɛA /).	105
FIGURE 24 DEBIT ARTICULATOIRE (EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE) POUR CHAQUE POPULATION (CTRL, MK, SLA ET SLP) ET POUR CHAQUE ENCODAGE (AMR_CV ET SMR_CV).....	107
FIGURE 25 COMPARAISON DU DEBIT ARTICULATOIRE (EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE) MESURE DANS LA LECTURE ENTRE LES POPULATIONS. LES MOYENNES QUI PARTAGENT UNE MEME LETTRE NE SONT PAS SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENTES. AU CONTRAIRE, SI DEUX MOYENNES NE PARTAGENT PAS UNE MEME LETTRE, ALORS ELLES SONT SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENTES.	108
FIGURE 26 COMPARAISON DU DEBIT ARTICULATOIRE (EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE) MESURE EN SPONTANE ENTRE LES POPULATIONS. IL N'Y A PAS DE DIFFERENCE SIGNIFICATIVE ENTRE LES POPULATIONS QUI PARTAGENT UNE MEME LETTRE. EN REVANCHE, LES POPULATIONS NE PARTAGEANT PAS LA MEME LETTRE ONT UN DEBIT ARTICULATOIRE QUI EST SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENT.	109
FIGURE 27 COMPARAISON DU NOMBRE DE MOTS PRODUITS PAR UIP, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS NE PARTAGEANT PAS LA MEME LETTRE ONT UN NOMBRE DE MOTS PRODUITS PAR UIP QUI EST SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENT. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.	110
FIGURE 28 COMPARAISON DE LA VARIABILITE DU NOMBRE DE MOTS PRODUITS PAR UIP, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS PARTAGEANT LA MEME LETTRE ONT UNE VARIABILITE DE LA DUREE DES UIP SIMILAIRE. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.....	111
FIGURE 29 NUAGE DE POINTS ET COEFFICIENT DE CORRELATION DE PEARSON ENTRE LES TACHES AMR_CV, SMR_CV ET LECTURE CHEZ LES CONTROLES.	112
FIGURE 30 CORRELOGRAMME REPRESENTANT LES COEFFICIENTS DE CORRELATION DE PEARSON ENTRE LES TACHES AMR_CV, SMR_CV, DEBT_LECT, ET DEB_SPONT AINSI QUE LEUR SIGNIFICATIVITE DU TEST D'EGALITE A ZERO, DANS LES POPULATIONS PRESENTANT UNE DYSARTHRIE (MK, SLA ET SLP). SONT AUSSI REPRESENTES SUR CETTE FIGURE LES NUAGES DE POINTS ET LA DISTRIBUTION DE LA VARIABLE DEBIT ARTICULATOIRE DANS CHAQUE TACHE ET DANS CHAQUE POPULATION. POUR LES NUAGES DE POINTS, L'ABSCISSE CORRESPOND A LA TACHE MENTIONNEE DANS LE TITRE DES COLONNES ET L'ORDONNEE CORRESPOND A LA TACHE RAPPORTEE DANS LES LIGNES. PAR EXEMPLE DANS LE GRAPH MONTRANT LE NUAGE DE POINTS PRESENTE DANS LA PREMIERE COLONNE ET LA DEUXIEME LIGNE, L'ABSCISSE REPRESENTE LE NOMBRE DE SYLLABES DANS LA TACHE AMR_CV ET L'ORDONNEE, LE NOMBRE DE SYLLABES DANS LA TACHE SMR_CV. ON OBSERVE QUE LA MAJORITE DES POINTS SONT LOCALISES DANS LA PARTIE SUPERIEURE DU GRAPH, REFLETANT UN DEBIT ARTICULATOIRE PLUS RAPIDE DANS LA TACHE SMR_CV COMPARE A LA TACHE AMR_CV POUR LA MAJORITE DES LOCUTEURS. LE COEFFICIENT DE CORRELATION ENTRE CES DEUX TACHES, GLOBAL ET DETAILLE POUR CHAQUE GROUPE, FIGURE DANS LA PREMIERE LIGNE, DEUXIEME COLONNE.	113
FIGURE 31 COMPARAISON DE LA DUREE DES UIP, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS PARTAGEANT LA MEME LETTRE ONT UNE DUREE DES UIP SIMILAIRE. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.	117
FIGURE 32 COMPARAISON DE LA VARIABILITE DE LA DUREE DES UIP, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS PARTAGEANT LA MEME LETTRE ONT UNE VARIABILITE DE LA DUREE DES UIP SIMILAIRE. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE. .	117
FIGURE 33 COMPARAISON DE LA DUREE DES PAUSES, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS PARTAGEANT LA MEME LETTRE ONT UNE DUREE DES UIP SIMILAIRE. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.	118
FIGURE 34 COMPARAISON DE LA VARIABILITE DE LA DUREE DES PAUSES, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS PARTAGEANT LA MEME LETTRE ONT UNE VARIABILITE DE LA DUREE DES PAUSES SIMILAIRE. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.	119

FIGURE 35 COMPARAISON DU TEMPS CUMULATIF PASSE EN PAUSE SUR LA DUREE TOTALE DE PAROLE, ENTRE LES POPULATIONS. LES POPULATIONS NE PARTAGEANT PAS LA MEME LETTRE ONT UN RAPPORT DE CE TEMPS PASSE EN PAUSES QUI EST SIGNIFICATIVEMENT DIFFERENT. LE LOSANGE CENTRAL CORRESPOND A LA MOYENNE.	120
FIGURE 36 LOCALISATION ET FRONTIERES DES CORTEX MOTEUR ET PREMOTEUR EN IMAGERIE FONCTIONNELLE (MAYKA ET AL., 2006). LE CORTEX SENSORI-MOTEUR COMPREND LE CORTEX MOTEUR PRIMAIRE (M1 OU AIRE DE BRODMANN 4) ET LE CORTEX SOMATOSENSORIEL (S1 OU AIRES DE BRODMANN 1, 2 ET 3). LE CORTEX PREMOTEUR EST COMPOSE DES AIRES PRE-MOTRICE SUPPLEMENTAIRE (PRE-SMA) ET MOTRICE SUPPLEMENTAIRE (SMA). NOTE : PMV = SUBDIVISION DU CORTEX PREMOTEUR LE LONG DU PLAN VENTRAL ; PMD = SUBDIVISION DU CORTEX PREMOTEUR LE LONG DU PLAN DORSAL	136

LISTE DES TABLEAUX

TABLEAU 1 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LES TROUBLES DE LA VOIX. * : LES AUTEURS PRÉCISENT QUE LE SYNDROME PSEUDOBULBAIRE DANS CETTE ÉTUDE EST DÉFINI COMME L'ASSOCIATION D'UNE DYSARTHRIE SPASTIQUE, DYSPHAGIE, REFLEXES PATHOLOGIQUES ALLANT DANS LE SENS D'UNE ATTEINTE CENTRALE AU NIVEAU DE LA SPHERE ORO-PHARYNGO-LARYNGÉE ET ENFIN LABILE EMOTIONNELLE.	29
TABLEAU 2 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR L'IMPRÉCISION ARTICULATOIRE PERÇUE DANS LA SLA	32
TABLEAU 3 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LE LIEN ENTRE LA DYSARTHRIE FLASQUE ET LES MESURES DE FORCE DES ARTICULATEURS...	33
TABLEAU 4 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LES ÉTUDES ACOUSTIQUES ET CINÉMATIQUES MONTRANT LE DYSFONCTIONNEMENT DES ARTICULATEURS DANS LA SLA.....	34
TABLEAU 5 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LES ÉTUDES ACOUSTIQUES ET CINÉMATIQUES MONTRANT LE DYSFONCTIONNEMENT DES ARTICULATEURS CHEZ DES PATIENTS PRÉSENTANT UNE DYSARTHRIE SPASTIQUE	35
TABLEAU 6 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LES ÉTUDES AYANT ÉTUDIÉ LE DÉBIT (ARTICULATOIRE ET/OU DE PAROLE) DANS LA DYSARTHRIE FLASQUE ET SPASTIQUE.....	37
TABLEAU 7 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR LES ASPECTS TEMPORELS DE LA PAROLE DANS LA SLA	38
TABLEAU 8 REVUE DE LA LITTÉRATURE SUR L'ORGANISATION DU DISCOURS EN TERMES DES PAUSES ET DES CONTINUUMS DE PAROLE INTER-PAUSES	41
TABLEAU 9 PROTOCOLE D'ÉVALUATION DE L'ATTEINTE BULBAIRE DANS LA SLA MIS AU POINT PAR YUNUSOVA (2011) ET RÉALISANT LE PROFIL DYSARTHRIQUE DES PATIENTS EN FONCTION DES ALTERATIONS DE CE QUE LES AUTEURS DE CE PROTOCOLE APPELLENT « LES SOUS-SYSTEMES » DE LA PAROLE.....	43
TABLEAU 10 DESCRIPTION DES DONNÉES CLINIQUES POUR LA POPULATION PRÉSENTANT UNE DYSARTHRIE : SEXE (N (M/F) : NOMBRE D'HOMMES ET DE FEMMES ; AGE (MOYENNE (M), ÉCART TYPE (ET), ET ÉTENDUE) ; DURÉE MOYENNE D'ÉVOLUTION DEPUIS LE DÉBUT DE LA MALADIE EN MOIS ; SCORE PERCEPTIF DE LA BECD ; SOUS-SCORE BULBAIRE DE L'ALSFRS ; ET SOUS-TYPE DE LA DYSARTHRIE. (NOTES : M = MASCULIN ; F = FÉMININ ; BECD = BATTERIE D'ÉVALUATION CLINIQUE DE LA DYSARTHRIE ; ALSFRS = ALS FUNCTIONAL RATING SCALE-REVISED ; MK = MALADIE DE KENNEDY ; SLA = SCLÉROSE LATÉRALE AMYOTROPHIQUE ; SLP = SCLÉROSE LATÉRALE PRIMITIVE). LE TYPE DE LA DYSARTHRIE (FLASQUE, MIXTE, OU SPASTIQUE) DE CHAQUE PATIENT A ÉTÉ DÉTERMINÉ PAR L'AUTEUR DE CETTE THÈSE, SUR LA BASE DES CARACTÉRISTIQUES DE LA PAROLE CORRESPONDANT À CHAQUE SOUS-TYPE DE DYSARTHRIE DE LA CLASSIFICATION DE DARLEY (DARLEY ET AL., 1969A)	51
TABLEAU 11 PRÉSENTATION DES TROIS GROUPES DE CONTRÔLE : N (M/F) = NOMBRE DE PARTICIPANTS INCLUS DANS L'ÉTUDE, M = LES HOMMES ET F = LES FEMMES ; AGE : M = LA MOYENNE, ET = L'ÉCART TYPE, L'ÉTENDUE = AGE MINIMAL ET MAXIMAL ; DIMENSIONS ET TÂCHES DE PAROLE ENREGISTRÉES DANS CHAQUE GROUPE ; CHAPITRE DANS LEQUEL EST ÉTUDIÉ LA DIMENSION OU LA TÂCHE DE PAROLE MENTIONNÉE	52
TABLEAU 12 PSEUDO-MOTS DANS LESQUELS LA PRÉCISION SEGMENTALE DES CONSONNES SIMPLES EN POSITION INITIALE, MÉDIANE ET FINALE, A ÉTÉ ÉVALUÉE.	56
TABLEAU 13 LISTE DES 8 PSEUDO-MOTS UTILISÉS POUR EXPLORER L'EFFET DE LA LONGUEUR ET DE LA COMPLEXITÉ SUR LA PRÉCISION SEGMENTALE.....	56
TABLEAU 14 PSEUDO-MOTS DANS LESQUELS LA PRÉCISION SEGMENTALE DES VOYELLES A ÉTÉ ÉVALUÉE.....	57
TABLEAU 15 PSEUDO-MOTS DANS LESQUELS A ÉTÉ ÉVALUÉE LA PRÉCISION ARTICULATOIRE DES CLUSTERS PRODUITS EN ONSET ET EN CODA DE MOT.	57
TABLEAU 16 NOMBRE DE STIMULI (N) ÉVALUÉS PAR POPULATION ET PAR STRUCTURE SYLLABIQUE. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.	64
TABLEAU 17 NOMBRE DE STIMULI (N) ÉVALUÉS PAR POPULATION ET EN FONCTION DE LA POSITION DES CONSONNES SIMPLES ET DES CLUSTERS DANS LE MOT (ONSET ET CODA DE MOT). MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.	64
TABLEAU 18 NOMBRE DE STIMULI (N) ÉCOUTÉS PAR POPULATION POUR LES CONSONNES ANTERIEURES /t,d,n,l,s,z /ET POSTÉRIEURES /k,g/. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.	65
TABLEAU 19 NOMBRE DE STIMULI (N) ÉCOUTÉS PAR POPULATION POUR LES CONSONNES /s,z/, /l/ET /ʃ/. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.	65
TABLEAU 20 NOMBRE DE STIMULI (N) ÉCOUTÉS PAR POPULATION ET PAR PSEUDO-MOT. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.....	65
TABLEAU 21 RÉCAPITULATIF DES DIMENSIONS, DES DESCRIPTEURS ET DES TÂCHES ÉTUDIÉES DANS CETTE THÈSE, AINSI QU'UNE BRÈVE DESCRIPTION DES MESURES.	77
TABLEAU 22 COMPARAISON MULTIPLE DU SHIMMER_AA ENTRE LES PAIRES DE POPULATIONS POUR LES HOMMES (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	80

TABLEAU 23 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION PAR SEQUENCE SUR LA MODULATION CEPSTRALE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	94
TABLEAU 24 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION PAR SEQUENCE SUR LA VARIABILITE DE LA MODULATION CEPSTRALE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	95
TABLEAU 25 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION PAR SEQUENCE SUR LA DUREE DES TRANSITIONS (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	102
TABLEAU 26 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR SEQUENCE PAR POPULATION SUR LA DUREE DES TRANSITIONS (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	102
TABLEAU 27 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION PAR AMR_CV SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	104
TABLEAU 28 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR AMR_CV PAR POPULATION SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	104
TABLEAU 29 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION PAR AMR_CCV SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	106
TABLEAU 30 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR AMR_CCV PAR POPULATION SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	106
TABLEAU 31 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	107
TABLEAU 32 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE MESURE DANS LA LECTURE DE LA PHRASE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	108
TABLEAU 33 RESULTATS DE L'ANALYSE DES CONTRASTES DU FACTEUR POPULATION SUR LE DEBIT ARTICULATOIRE MESURE DANS LE SPONTANE (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	110
TABLEAU 34 COMPARAISON DU NOMBRE DE MOTS PAR UIP ENTRE LES POPULATIONS (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	110
TABLEAU 35 MOYENNE ± DEVIATION STANDARD DU DEBIT ARTICULATOIRE EN NOMBRE DE SYLLABES PAR SECONDE, MESURE DANS QUATRE TACHES DIFFERENTES. * : $p < 0.001$: COMPARAISON AVEC LA POPULATION CONTROLE. ATTENTION : POUR RAPPEL LA POPULATION CONTROLE N'EST PAS LA MEME DANS LA TACHE DU SPONTANE ET LES AUTRES TACHES (DDK ET LECTURE).	112
TABLEAU 36 COMPARAISON DU RAPPORT DU TEMPS DE PAUSES SUR LE TEMPS TOTAL DE LA PRISE DE PAROLE, ENTRE LES POPULATIONS (ESTIMATION, ERREUR STANDARD, VALEURS DE T ET P).	120
TABLEAU 37 LISTE DES PATIENTS INCLUS DANS L'ETUDE ET LEURS DONNEES CLINIQUES : LE SEXE, L'AGE, LA PATHOLOGIE (SLA = SCLEROSE LATERALE AMYOTROPHIQUE, SLP = SCLEROSE LATERALE PRIMITIVE, MK = MALADIE DE KENNEDY), LA DUREE APPROXIMATIVE DE L'EVOLUTION DE LA MALADIE EN MOIS, LA FORME DE DEBUT DE LA MALADIE (S = FORME SPINALE ET B = FORME BULBAIRE), LE SOUS-SCORE BULBAIRE DE L'ALS FUNCTIONAL RATING SCALE-REVISED (ALSFRRS-R) SUR /12 (12 = PAS D'ATTEINTE), LE SCORE PERCEPTIF DE LA BATTERIE D'ÉVALUATION CLINIQUE DE LA DYSARTHRIE /20 (0 = NORMAL), LA SEVERITE DE LA DYSARTHRIE DEFINIE PAR LE SCORE PERCEPTIF DE LA BECD (1-6 : DYSARTHRIE LEGERE ; 7-13 : DYSARTHRIE MODERE) ET LE TYPE DE LA DYSARTHRIE.	170
TABLEAU 38 APPRECIATION DE L'EXTENSION DE LA MALADIE DANS LA SLA (NOMBRE DE TERRITOIRES ATTEINTS).....	170
TABLEAU 39 APPRECIATION DE L'EXTENSION DE LA MALADIE DANS LA SLP (NOMBRE DE TERRITOIRES ATTEINTS).....	171
TABLEAU 40 : NOMBRE DE CONSONNES SIMPLES EVALUEES PAR POPULATION. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N =15.	171
TABLEAU 41 NOMBRE DE CONSONNES EVALUEES DANS LES MOTS LONGS PAR POPULATION. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N =15.	171
TABLEAU 42 NOMBRE DE VOYELLES ECOUTEES PAR POPULATION. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N =15.....	171
TABLEAU 43 NOMBRE DE STIMULI ECOUTES PAR CLUSTER ET PAR POPULATION. MK : N = 18 LOCUTEURS ; SLA : N = 36 ; SLP : N = 15.	171

INTRODUCTION GENERALE

L'approfondissement de la caractérisation des profils dysarthriques dans les trois principales maladies du motoneurone de l'adulte pourrait contribuer à leur diagnostic différentiel. En effet, le diagnostic différentiel médical entre ces trois maladies affectant les motoneurons centraux et/ou périphériques dans la sclérose latérale amyotrophique (SLA), la sclérose latérale primitive (SLP) et la maladie de Kennedy (MK), est parfois difficile à poser. Des chercheurs, de toutes les disciplines confondues, travaillent à identifier des marqueurs diagnostiques fiables, permettant de caractériser avec précision ces trois maladies, et à relier ces marqueurs aux atteintes périphérique et/ou centrale des motoneurons. La comparaison des dysarthries dans ces maladies pourrait ainsi contribuer à apporter une brique à l'édifice des recherches visant à affiner leur diagnostic différentiel. La problématique de cette thèse est donc la suivante : comment discriminer les profils dysarthriques de ces trois maladies du motoneurone à l'aide de marqueurs de parole pertinents ? L'objectif de ce travail de recherche est d'identifier des marqueurs acoustiques discriminants, c'est-à-dire distinguant la parole de ces trois populations présentant une dysarthrie de celle d'une population contrôle et des marqueurs acoustiques spécifiques, c'est-à-dire distinguant la parole des trois populations présentant une dysarthrie entre elles. La production de différentes tâches de parole, couvrant 4 dimensions de la parole, sera comparée entre les populations. Les dimensions de parole explorées dans cette thèse sont la phonation, la précision articulatoire évaluée d'un point de vue perceptif et acoustique, les aspects temporels de la parole et l'organisation du discours étudiée sous l'angle des continuums de parole et des pauses dans le spontané. Après avoir exposé l'état de l'art de notre thématique, nous présenterons la méthodologie utilisée dans cette thèse. Puis, nous rapporterons les résultats pour chaque dimension de parole. Enfin, nous discuterons nos résultats.

CHAPITRE 1. État de l'art

Les maladies du motoneurone englobent un ensemble de maladies neurodégénératives affectant les motoneurones périphériques et/ou les motoneurones centraux. La maladie de Kennedy (MK) touche exclusivement les motoneurones périphériques, la sclérose latérale primitive (SLP) affecte uniquement les motoneurones centraux (Gordon et al., 2006) et la sclérose latérale amyotrophique (SLA) est définie comme une maladie affectant les deux types de motoneurones. Du fait de cette mixité de l'atteinte motoneuronale dans la SLA, il existe une hétérogénéité des profils cliniques en fonction de la prédominance de l'atteinte périphérique ou centrale (Charcot & Joffroy, 1869; Ince et al., 1998).

L'atteinte du motoneurone, qu'elle soit périphérique ou centrale, peut toucher tous les territoires du corps humain, dont la sphère oro-pharyngo-laryngée. Dans ce cas, une dysarthrie, ou trouble moteur de la parole, est systématique. La présence de cette dysarthrie est d'ailleurs couramment rapportée dans ces trois pathologies (Atsuta et al., 2006; Banno et al., 2017; Bede & Finegan, 2018; Finegan, Chipika, Shing, et al., 2019; Miyata et al., 2019; Pedroso et al., 2018; Praline et al., 2008; Querin et al., 2018; Tomik et al., 2006; M. R. Turner et al., 2020; Yunusova et al., 2019).

Mais comment la dysarthrie se caractérise-t-elle dans les maladies du motoneurone ? Ce premier chapitre va relater l'état des connaissances sur les types de dysarthrie associés aux différentes maladies du motoneurone et de manière plus générale, sur la caractérisation de profils dysarthriques. Dans un premier temps, nous allons définir les trois maladies du motoneurone explorées dans cette thèse et expliquer pourquoi il est intéressant de les comparer. Dans un deuxième temps, nous nous pencherons sur les types de dysarthrie associés à ces maladies du motoneurone. Troisièmement, nous explorerons les manières de caractériser un profil dysarthrique, surtout du point de vue des tâches de parole investiguées. Enfin, dans la dernière section de ce chapitre, nous exposerons le résumé des questions de recherche de cette thèse ainsi que ses objectifs.

1.1. Les maladies du motoneurone

1.1.1. Les motoneurones centraux et périphériques

Les motoneurones ou neurones moteurs sont des cellules nerveuses qui commandent les muscles de la motricité volontaire. Les maladies étudiées dans cette thèse sont concernées par l'atteinte d'un ou deux types de motoneurones, centraux et/ou périphériques, qui sont situés à des niveaux différents dans le système nerveux (Figure 1).

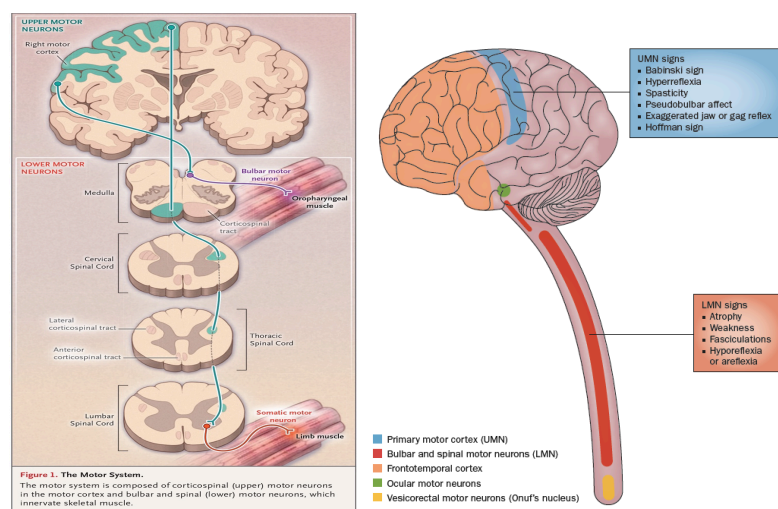


Figure 1 Localisation des motoneurones centraux et périphériques et conséquences de leurs atteintes, d'après Rowland & Shneider (2001) et Swinnen & Robberecht (2014). La figure de gauche montre la localisation des deux types de motoneurones (upper motor neurons = motoneurones centraux ; lower motor neurons = motoneurones périphériques), ainsi que les étages de la moelle épinière innervant chacun des territoires du corps. La figure de droite montre la localisation de chacun des types de motoneurone et liste les signes cliniques associés à chacune des atteintes (motoneurones centraux en bleu et motoneurones périphériques en rouge).

1.1.1.1. Les motoneurones centraux

Les motoneurones centraux sont situés dans le cerveau au niveau d'une région dédiée à la motricité volontaire appelée le cortex moteur. Les motoneurones centraux reçoivent l'ordre d'exécution du mouvement et le transmettent au tronc cérébral et à la moelle épinière. Les signes cliniques évocateurs d'une dégénérescence des motoneurones centraux, ou atteinte centrale, sont les suivants : l'atteinte motrice se traduisant par une parésie motrice (paralysie) sans amyotrophie ; la vivacité des réflexes ; des signes de Hoffman et Babinski ; la spasticité et le clonus (Brooks et al., 2000).

Une dégénérescence des motoneurones centraux situés dans la voie cortico-bulbaire entraîne un ***syndrome pseudobulbaire***. La voie cortico-bulbaire relie le cortex moteur aux noyaux des nerfs crâniens qui sont situés dans le tronc cérébral. Une telle dégénérescence a des conséquences sur les

mouvements dédiés au territoire de la sphère oro-pharyngo-laryngée. Les signes centraux, ou signes pseudobulbaires, que l'on peut déceler au niveau de la sphère oro-pharyngo-laryngée sont : un ralentissement des mouvements oro-pharyngo-laryngés, un clonus de la mâchoire, une vivacité des réflexes massétérin et nauséux, des bâillements à répétition et de la spasticité. A cela s'ajoute une labilité émotionnelle (Bede & Finegan, 2018; Brooks et al., 2000). Cette labilité est retrouvée chez les patients présentant une SLA à prédominance centrale et chez les patients présentant une SLP (Finegan, Chipika, Li Hi Shing, et al., 2019).

1.1.1.2. Les motoneurones périphériques

Les motoneurones périphériques sont localisés dans le tronc cérébral et la moelle épinière. Ils sont connectés directement aux muscles à qui ils transmettent l'ordre d'effectuer un mouvement. La dégénérescence des motoneurones périphériques, ou atteinte périphérique, se caractérise par la présence d'une faiblesse musculaire avec amyotrophie (fonte musculaire), des crampes, des fasciculations et une diminution de la vivacité des réflexes. L'électromyographie (EMG) objective des signes de dénervation musculaire électro-physiologique, preuve de la présence d'une atteinte périphérique (Rowland & Shneider, 2001; Swinnen & Robberecht, 2014).

Une dégénérescence des motoneurones périphériques au niveau du tronc cérébral aura des conséquences sur les mouvements de la sphère oro-pharyngo-laryngée : c'est le **syndrome bulbaire**. Une atteinte périphérique touchant ce territoire entraîne les signes bulbaires suivants : fasciculations, amyotrophie et faiblesse musculaire retrouvées au niveau de la face, de la mâchoire, de la langue, du voile du palais et du larynx (Brooks et al., 2000).

1.1.2. Les maladies du motoneurone étudiées dans cette thèse

1.1.2.1. La maladie de Kennedy (MK) : une maladie du motoneurone périphérique

i- Épidémiologie

William R Kennedy a décrit les signes de la MK en 1966 à la Mayo Clinic. Elle est décrite comme une maladie du motoneurone périphérique. Il s'agit d'une maladie neurodégénérative rare de transmission récessive liée à l'X. Elle est causée par la répétition anormalement élevée d'un triplet CAG (cytosine-adénine-guanine) dans le premier exon du gène appelé AR, localisé sur le chromosome X. Le gène AR porte les informations pour produire le récepteur aux androgènes (hormones masculines). Normalement, le nombre de répétitions de ce triplet CAG ne dépasse pas 34. Une expansion supérieure à 38 est pathologique. Le diagnostic n'est donc pas que clinique puisqu'il repose surtout sur

une analyse biologique moléculaire sur prise de sang. Cette analyse cible la recherche d'expansion de répétition de triplets CAG dans le gène AR (nombre de triplets CAG>38).

On considère actuellement que la prévalence de cas de MK est de 1,6/100000. Cette prévalence est 5 fois plus faible que celle de la SLA. Alors que 6000 à 8000 patients présentent une SLA en France, 1600 environ présentent une MK. Néanmoins, le nombre de MK est vraisemblablement sous-estimé puisque qu'il est probable que des cas de MK ne soient pas diagnostiqués. Une étude a ainsi montré qu'au moins 2% des patients diagnostiqués SLA présentent en fait une MK (Parboosingh et al., 1997). Cette maladie débute entre l'âge de 30 ans et 60 ans et elle ne touche généralement que les hommes. La transmission récessive liée à l'X implique que les femmes qui ont un exemplaire du gène muté, ne manifestent généralement pas la maladie, mais ont 50 % de risque de transmettre la mutation à leurs enfants (filles et garçons). La progression de la maladie est tellement lente que la médiane de survie décroît à peine (Chahin et al., 2008).

Les patients présentent des symptômes en lien avec une atteinte du motoneurone périphérique (amyotrophie, fasciculations, crampes, perte de force) qui touche tous les territoires (membres inférieurs, membres supérieurs, région oro-pharyngo-laryngée). Elle débute souvent par une atteinte motrice proximale aux membres inférieurs, accompagnée de crampes musculaires et de fasciculations, entraînant une fatigabilité à la marche. L'atteinte bulbaire, détaillée dans le paragraphe ci-dessous est généralement plus tardive. L'atteinte neurologique peut s'accompagner de manifestations endocriniennes avec gynécomastie (prolifération bénigne de la glande mammaire de l'homme) et hypogonadisme (synthèse insuffisante des hormones sexuelles) (Finsterer & Soraru, 2016; Kennedy et al., 1968; Querin et al., 2018). Classiquement, il n'y a pas de troubles cognitifs dans cette pathologie.

ii- Manifestations de la maladie au niveau du territoire oro-pharyngo-laryngé dans la MK

L'atteinte bulbaire suit généralement l'atteinte des membres inférieurs, (Atsuta et al., 2006) mais l'atteinte inaugurale bulbaire, c'est-à-dire touchant en premier la région oro-pharyngo-laryngée, est possible (Praline et al., 2008). Des signes bulbaires sont retrouvés chez tous les patients (Chahin et al., 2008), mais restent généralement d'intensité modérée, ne nécessitant pas le recours à une gastrostomie ou à des outils de communication alternative comme cela peut être le cas dans la SLA. La perte de force musculaire caractérise cette maladie. On retrouve cette perte de force dans la langue relativement tôt dans la progression de la maladie, avant même l'apparition de signes fonctionnels telle que la dysphagie (Mano et al., 2014). On retrouve dans ce territoire les signes caractéristiques habituels en lien avec l'atteinte du motoneurone périphérique : amyotrophie et fasciculations linguales, péri-orales et au niveau du menton (J.-H. Lee et al., 2005; Mariotti et al., 2000; Vandenberghe et al., 2009). Sans que l'on comprenne encore bien les mécanismes de ce phénomène, on retrouve des spasmes laryngés chez environ la moitié des patients MK (Sperfeld et al., 2005; Tanaka et al., 2014). Quelques cas de mâchoires tombantes ont été rapportés (Larsen & Smith, 2005; Sumner & Fischbeck, 2002).

Les conséquences fonctionnelles de l'atteinte bulbaire sont la dysphagie et la dysarthrie, cette dernière étant présente chez 2/3 des patients (J.-H. Lee et al., 2005). En pratique clinique, on constate que la dysarthrie reste souvent légère à modérée malgré des signes cliniques marqués observés au niveau du territoire oro-pharyngo-laryngé (J.-H. Lee et al., 2005).

Le motoneurone périphérique se situant au niveau de la voie finale commune, la dysarthrie est de type flasque selon la classification de Darley (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975).

1.1.2.2. La sclérose latérale amyotrophique (SLA) : atteinte des motoneurones périphériques ET centraux

i- Épidémiologie

La SLA a été décrite par Jean-Martin Charcot en 1869 à l'hôpital de la Salpêtrière. Cette maladie touche à la fois les motoneurones centraux et périphériques (Figure 2). La maladie survient généralement de façon sporadique mais il existe environ 10% de formes génétiques.

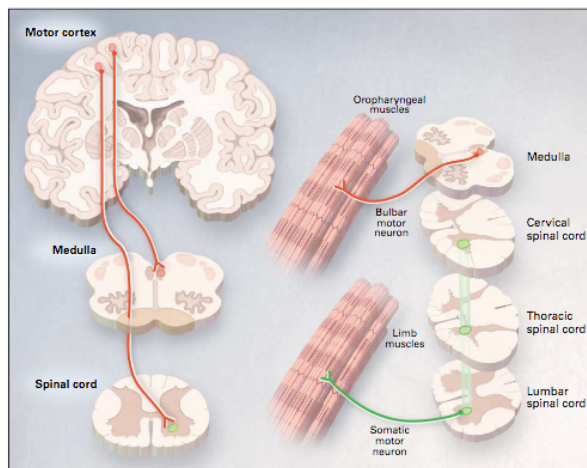


Figure 2 Les deux types de motoneurones atteints dans la SLA d'après Rowland & Shneider (2001). La partie gauche de la figure représente la localisation du motoneurone central, dans le cortex moteur. L'influx nerveux est ensuite relayé aux motoneurones périphériques (partie droite de la figure) situés à différents étages : - dans le bulbe (Medulla sur la figure qui veut dire moelle allongée) contribuant à l'activation des muscles de la sphère dite « bulbaire » c'est-à-dire oro-pharyngo-laryngée et - dans la moelle épinière, contribuant à l'innervation des muscles des membres inférieurs et supérieurs

Le diagnostic de SLA repose sur l'identification clinique de signes d'atteinte des motoneurones centraux et périphériques, sur le nombre de territoires touchés et sur les résultats de l'électromyogramme objectivant une souffrance des motoneurones périphériques. Les critères diagnostiques de la SLA ont été définis en 1994 par la Fédération Mondiale de Neurologie (critères dit de l'El Escorial) (Brooks, 1994) et révisés en 1998 (Airlie House) (Brooks et al., 2000). Ces critères consensuels de diagnostic de la SLA figurent en annexes. L'expertise du neurologue est de rechercher

cliniquement des signes évocateurs d'une atteinte des motoneurones centraux et périphériques et de préciser le nombre de territoires touchés parmi les 4 territoires anatomiques potentiellement touchés : bulbaire, cervical (membres supérieurs et respiration), lombaire (membres inférieurs) et thoracique.

La SLA est la maladie la plus fréquente des maladies du motoneurone de l'adulte. Elle touche 6000 à 8000 personnes en France avec une incidence annuelle (nombre de nouveaux cas par an) proche de 2.5 pour 100 000 habitants (Couratier et al., 2016). Cette maladie débute en moyenne à l'âge de 65 ans (Logroscino et al., 2008). Il existe une faible prépondérance masculine (sex ratio proche de 1,5/1). Le mode de début spinal, c'est-à-dire que les membres supérieurs et/ou inférieurs sont touchés en premier, est le plus fréquent. Un début des symptômes au niveau de la sphère bulbaire est rapporté dans 25-30 % des cas environ. Ce mode de début est plus fréquent chez les femmes que chez les hommes. Associée à l'atteinte motrice, une atteinte cognitivo-comportementale est également présente dans 30 à 50% des cas, et 15% des patients remplissent les critères diagnostiques de démence fronto-temporale au cours de l'évolution de la maladie (Ringholz et al., 2005).

Au contraire de la MK et de la SLP, la SLA est rapidement évolutive, avec une survie moyenne typiquement de 3 à 5 ans, à partir des premiers symptômes moteurs (Rowland & Shneider, 2001). Cependant, le profil évolutif varie d'un patient à l'autre et également chez un même patient au cours du temps.

Du fait de la mixité de l'atteinte périphérique et centrale, la présentation clinique de la SLA est hétérogène, en fonction de la prédominance de l'une ou de l'autre atteinte. Cette hétérogénéité rend parfois le diagnostic difficile, surtout au début de la progression de la maladie, quand les signes cliniques et électro-physiologiques sont incomplets.

ii- Manifestations de la maladie au niveau du territoire oro-pharyngo-laryngé dans la SLA

Dans la SLA, le territoire oro-pharyngo-laryngé est touché de manière inaugurale chez 25 à 30% des patients. Cette forme s'appelle la SLA à forme de début « bulbaire »¹. Ce phénotype bulbaire est associé à une progression plus rapide de la maladie (Chio et al., 2009) et touche plus les femmes que les hommes (M. R. Turner et al., 2010).

L'atteinte du territoire oro-pharyngo-laryngé, ou « bulbaire », se développe avec la progression de la maladie même dans les formes spinales et finit par concerner la quasi-totalité des patients. Une atteinte de ce territoire entraîne les signes cliniques habituels en lien avec l'atteinte périphérique (amyotrophie et fasciculations linguales) et/ou centrale (réflexe massétéren vif, clonus de la mâchoire). Les profils sont cependant hétérogènes avec une prédominance centrale ou périphérique possible. La labilité émotionnelle est habituelle dans la SLA, marquant la présence d'une atteinte pseudobulbaire (Brooks et al., 2013; M. R. Turner et al., 2010). Les conséquences fonctionnelles de l'atteinte bulbaire sont

¹ A noter ici que le terme de « bulbaire » signifie que la sphère oro-pharyngo-laryngée est concernée par une atteinte, que celle-ci soit centrale et/ou périphérique.

désastreuses sur la parole et sur la déglutition. La littérature montre que la durée médiane de la perte totale de la fonction depuis le début des symptômes est de 18 mois pour la parole et de 13 mois pour la déglutition avec pose d'une gastrostomie (M. R. Turner et al., 2010).

La dysarthrie est le mode d'entrée dans la maladie dans 30% des cas et se développe chez plus de 80% des patients. Elle évolue jusqu'à l'impossibilité de pouvoir communiquer oralement (Londral et al., 2015). D'après la classification de Darley (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975), du fait de la mixité de l'atteinte des motoneurones périphériques et centraux, la dysarthrie est qualifiée de mixte, c'est-à-dire à la fois en lien avec l'atteinte des motoneurones périphérique (= dysarthrie flasque) et des motoneurones centraux (= dysarthrie spastique). Mais la dysarthrie dans la SLA n'est pas forcément perçue comme de type mixte tout au long de la progression de la maladie : elle peut être perçue comme flasque ou spastique, surtout au début de la progression de l'atteinte bulbaire. Même quand elle est identifiée comme mixte, un type peut prédominer.

Il existerait en fait une variabilité importante de la dysarthrie chez des patients présentant une SLA qui sont à un même stade d'évolution globale de la maladie, probablement due à la part plus ou moins importante du syndrome pseudobulbaire (Robert et al., 1999).

1.1.2.3. La sclérose latérale primitive (SLP) : une maladie du motoneurone central

i) Épidémiologie

C'est également Jean-Martin Charcot qui a décrit cette maladie à la fin du XIX^{ème} siècle et l'a nommée SLP pour la distinguer de la SLA (Pringle et al., 1992). Mais c'est Erb qui a suggéré que cette maladie était une entité à part entière. Il s'agit d'une maladie qui touche exclusivement les motoneurones centraux. Le diagnostic clinique de SLP repose sur des critères de diagnostic décrits dans un consensus remis à jour en 2019 (Pringle et al., 1992; M. R. Turner et al., 2020). Ces critères cliniques sont les suivants : début des signes insidieux, progression lente, examen neurologique ne mettant en évidence que des signes d'atteinte du motoneurone central et examen électro-physiologique excluant une souffrance des motoneurones périphériques. Sans apparition de signes d'atteinte périphérique, qui signeraient un diagnostic de SLA, un diagnostic de SLP probable est posé au bout de 2 ans d'évolution, et un diagnostic de SLP définie est posé au bout de 4 ans d'évolution. Les critères consensuels du diagnostic de SLP figurent en annexes.

L'incidence de la SLP est de 1/100 000 habitants. Le nombre de personnes atteintes en France est estimé à 500 ou 600 (<https://portail-sla.fr>). L'âge moyen de début de cette maladie est aux alentours de 50 ans (donc plus jeune que dans la SLA) avec une faible prédominance masculine, comme dans la SLA (Singer et al., 2005; M. R. Turner et al., 2020). Bien que la maladie devienne handicapante avec sa progression, le pronostic vital n'est pas directement mis en jeu. La durée de survie après le

diagnostic est estimé à 15-20 ans. La spasticité et la vivacité des réflexes sont invariablement retrouvées dans la SLP (Fournier et al., 2016; Pringle et al., 1992; M. R. Turner et al., 2020).

ii) *Manifestations de la maladie dans le territoire oro-pharyngo-laryngé dans la SLP*

Il n'existe à notre connaissance pas de données sur l'histoire naturelle de l'évolution de l'atteinte pseudobulbaire dans la SLP, mais un certain nombre d'études rapportent la présence d'une dysarthrie dans cette maladie (Becker et al., 2007; Pringle et al., 1992; Tartaglia et al., 2007; Tomik et al., 2008). Pour la majorité des patients les signes inauguraux se font au niveau des membres inférieurs. Cependant, pour une minorité de patients, le mode de début pourrait être pseudobulbaire avec apparition insidieuse d'une dysarthrie et amplification de l'émotivité (Becker et al., 2007; Gordon et al., 2006; Singer et al., 2005).

On retrouve les signes cliniques centraux habituels chez les patients présentant une atteinte pseudobulbaire (massétérin vif, clonus éventuel de la mâchoire et labilité émotionnelle) (Finegan, Chipika, Li Hi Shing, et al., 2019; Gordon et al., 2006; Pringle et al., 1992; Tomik et al., 2008).

Les conséquences fonctionnelles entraînent une dysarthrie, qui devient sévère avec la progression de la maladie. De manière surprenante, nous notons empiriquement qu'à un stade même avancé de la maladie, il existe un net contraste entre la sévérité de la dysarthrie et la dysphagie. En effet, la dysphagie reste relativement discrète durant la progression de la maladie et n'impose pas de pose de sonde de gastrostomie à long terme, alors que la dysarthrie peut évoluer jusqu'à l'inintelligibilité, obligeant l'utilisation d'une communication alternative.

1.1.3. [Quel est l'intérêt de comparer ces trois maladies ?](#)

Tout l'enjeu de comparer ces trois maladies découle du diagnostic différentiel. Comme nous l'avons vu plus haut, ces trois maladies ont une origine commune : la dégénérescence des motoneurones. Elles font donc toutes les trois partie des maladies du motoneurone. Du fait de l'hétérogénéité des profils cliniques retrouvés dans la SLA, le diagnostic différentiel, surtout au début de la progression de la maladie, est difficile à réaliser. Nous avons déjà mentionné qu'au moins 2% des patients présentant une MK sont diagnostiqués à tort comme présentant une SLA (Parboosingh et al., 1997). Cependant, la confirmation du diagnostic de MK se réalise principalement sur une analyse biologique moléculaire. Le diagnostic ne repose donc pas que sur une expertise clinique. En revanche, le diagnostic de SLP est plus subjectif dans la mesure où il repose principalement sur une évaluation clinique (M. R. Turner et al., 2020). En début d'évolution de la maladie, différencier la SLP d'une forme de SLA à prédominance centrale, et vice versa, reste une gageure. Le débat sur la reconnaissance de la SLP comme une maladie à part entière ou comme une forme frontière de la SLA à prédominance centrale,

resurgit régulièrement dans la littérature (Finegan, Chipika, Shing, et al., 2019; Gordon et al., 2006; Le Forestier, 2001; Pringle et al., 1992).

L'intérêt de comparer ces trois maladies est donc d'affiner le diagnostic différentiel pour deux raisons principales. Tout d'abord pour les patients eux-mêmes : nous l'avons vu, la médiane de survie entre ces trois maladies est très différente puisque la SLA est une maladie le plus souvent mortelle à court terme, alors que la SLP et la MK ne le sont pas. Donner un diagnostic précis oriente le patient dans son projet de vie. D'autre part, l'imprécision clinique du diagnostic et le doute permanent sur ce possible chevauchement entre SLP et SLA à prédominance centrale, fournit un obstacle pour des inclusions dans des protocoles de recherche et dans des essais thérapeutiques (M. R. Turner et al., 2020). Ces obstacles peuvent être source de grande frustration pour les patients qui se sentent mis en marge du fait d'un doute diagnostic. Deuxièmement, l'intérêt de caractériser précisément ces trois maladies sous tous leurs angles est primordial pour la recherche fondamentale. En effet, comparer des maladies, c'est identifier des différences et des similarités entre elles. Le besoin d'affiner le diagnostic différentiel pousse la communauté des chercheurs à caractériser les biomarqueurs reflétant les mécanismes neuro-physio-pathologiques spécifiques de chacune de ces maladies (Bede & Pradat, 2019). La MK et la SLP sont à priori des modèles purs d'atteinte des motoneurones périphériques pour la première versus centraux pour la seconde. L'intérêt de comparer précisément la MK, la SLA et la SLP, repose sur la possibilité d'étudier les conséquences fonctionnelles de ces deux types d'atteinte motoneuronale dans un continuum. Identifier les biomarqueurs de ces deux atteintes isolées, centrale et périphérique, pourraient à terme contribuer à préciser les différents phénotypes existant dans la SLA.

Évaluer la parole dans les maladies du motoneurone reflète l'intégrité ou l'atteinte du territoire oro-pharyngo-laryngé. Repérer des marqueurs acoustiques en lien avec chacun des profils dysarthriques de ces maladies contribuerait au diagnostic différentiel du type de dysarthrie. En effet, ce diagnostic différentiel de la dysarthrie, n'est pas toujours aisé à réaliser au niveau perceptif, d'autant plus dans la dysarthrie mixte de la SLA. Des marqueurs spécifiques de l'atteinte centrale versus périphérique dans la parole pourraient alimenter le panel des biomarqueurs mis en exergue dans les autres domaines que celui de la parole.

Cette thèse est la première à confronter ces trois maladies du motoneurone d'un point de vue de la parole. Elle caractérisera donc les profils dysarthriques dans deux modèles purs respectivement d'atteinte du motoneurone périphérique et du motoneurone central, ainsi que dans un modèle mixte, central et périphérique.

1.2. Les dysarthries dans les maladies du motoneurone

Les données de la littérature sur la dysarthrie dans les maladies du motoneurone sont hétérogènes. La SLA est la maladie la plus explorée des trois car c'est la plus courante et les publications sont foisonnantes. En revanche, la littérature sur la dysarthrie dans la MK et la SLP est quasiment inexistante. C'est d'ailleurs ce qui donne toute l'originalité au design de notre étude car nous pourrions collecter des données encore jamais explorées. Comme nous l'avons déjà évoqué plus haut, la classification des dysarthries la plus utilisée encore actuellement est la classification de Darley (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975). Cette classification repose sur une description perceptive des anomalies touchant les différentes dimensions de la parole (respiration, phonation, résonance, articulation, prosodie), dans différents groupes cliniques de patients (cérébelleux, parkinsoniens, SLA...). Mais ces groupes pathologiques rassemblaient des patients dont les caractéristiques cliniques ont été peu ou pas décrites dans les travaux de Darley. Par exemple, il est juste rapporté que le groupe « ataxique » présentait des signes cliniques d'atteinte cérébelleuse sans préciser l'étiologie (neurodégénérative, vasculaire, toxique, tumorale...) ni les territoires touchés (Auzou et al., 1998). L'absence de diagnostic précis est probablement liée aux techniques exploratoires d'alors, moins développées qu'aujourd'hui et au manque de consensus sur les critères diagnostiques. De ce fait, certains patients ont peut-être été inclus dans des groupes pathologiques que l'on considérerait aujourd'hui comme erronés. Par exemple, des patients présentant des syndromes parkinsoniens « atypiques » (comme par exemple l'atrophie multisystématisée ou la paralysie supranucléaire progressive) ont pu être mélangés avec des patients présentant une maladie de Parkinson idiopathique. Aujourd'hui, on sait que les patients présentant une maladie de Parkinson idiopathique présentent une dysarthrie hypokinétique, alors que les patients présentant des syndromes parkinsoniens « atypiques » ont souvent une dysarthrie de type mixte. De même des patients présentant une SLP ou une MK ont pu être mélangés avec des patients ayant une SLA.

Concernant la dysarthrie flasque, elle est la conséquence d'une atteinte localisée au niveau de la voie finale commune. Cette voie finale commune comprend le motoneurone périphérique, le nerf périphérique, la jonction entre le nerf et enfin le muscle lui-même. Le groupe de la dysarthrie flasque est donc très hétérogène, et ce groupe mériterait sans doute une sous-classification. Le groupe de la dysarthrie spastique est décrit comme plus homogène, même si les étiologies touchant le système nerveux central sont variées (vasculaire, neurodégénératif...). D'après la classification de Darley, la dysarthrie spastique est la conséquence d'une atteinte bilatérale du motoneurone central.

Puisque la dysarthrie est présumée être uniquement spastique dans la SLP alors qu'elle est mixte dans la SLA, une distinction correcte entre ces deux types peut aider les neurologues dans le diagnostic différentiel entre ces maladies (Duffy, 2019). Dans les sections qui vont suivre, nous présentons une

revue de la littérature, exposant les données répertoriées concernant la SLA et les quelques données au sujet de la MK et de la SLP. Quand nous n'aurons pas de références à rapporter concernant la MK et la SLP précisément, nous élargirons la revue de la littérature aux données concernant plus globalement les dysarthries flasque et spastique, toutes pathologies confondues. Voici donc une revue de la littérature exposant les dysfonctionnements de la parole dans ces trois maladies, ou dans les types de dysarthrie associés. Nous présenterons cette revue selon les 4 dimensions de la parole explorées dans cette thèse : l'étage glottique, l'articulation, le débit et l'organisation prosodique.

1.2.1. L'étage glottique

Certaines des études mentionnées dans cette sous-section sont synthétisées dans un tableau se situant à la fin de la sous-section.

1.2.1.1. Quelles sont les perturbations acoustiques de la voix dans la dysarthrie flasque et la MK ?

Rappelons que la principale conséquence de l'atteinte périphérique est la perte de force musculaire. Dans la classification de Darley (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975), le timbre vocal est perceptivement décrit comme soufflé. Par ailleurs, les auteurs décrivent dans ce type de dysarthrie, des inspirations audibles suggérant une fermeture de la glotte à l'inspiration.

Concernant la dysarthrie de type flasque, on retrouve dans la littérature, des valeurs anormalement élevés du jitter et du shimmer, chez des patients ayant une paralysie unilatérale des cordes vocales en lien avec une paralysie récurrentielle (Uloza et al., 2005). Le timbre vocal est jugé perceptivement voilé et cette qualité de timbre est corrélée avec les anomalies acoustiques du spectre moyen à long terme (Hammarberg et al., 1984). Enfin l'amplitude de la f_0 en lecture et la variabilité de cette f_0 sont réduites (Murry, 1978).

Plus précisément dans la MK, la dimension vocale ne semble être altérée que chez certains patients et le TMP (temps maximum de phonation sur un /a/ tenu) est normal (Fougeron et al., 2022). La littérature rapporte des valeurs du jitter, shimmer et HNR (Harmonic to Noise Ratio) plus basses chez les patients présentant des spasmes laryngés, en comparaison avec les patients qui ne présentent pas de spasmes laryngés (Tanaka et al., 2014).

1.2.1.2. Quelles sont les perturbations acoustiques de la voix dans la SLA

Les troubles de la phonation dans la SLA ne sont ni uniformes, ni spécifiques (Duffy, 2019; Strand et al., 1994). Cette hétérogénéité est d'une part sans doute en lien avec le stade d'évolution de l'atteinte

dite bulbaire² au moment où les études sont réalisées. En outre, elle s'explique peut-être par la diversité des profils phénotypiques dans la dysarthrie, de prédominance spastique ou flasque (Duffy, 2019). Cette hétérogénéité s'exprime par exemple au niveau de la fréquence fondamentale. Deux études ont montré que la f_0 chez les femmes pouvait être soit plus haute, soit plus basse que la f_0 des contrôles (J. F. Kent et al., 1992; Strand et al., 1994). Autre indicateur reflétant la variabilité du fonctionnement glottique et/ou respiratoire au sein de cette population, le temps maximum de phonation (TMP), supposé donner des indications sur la coordination pneumo-phonatoire. Si certaines études montrent un TMP similaire entre les contrôles et les patients SLA (J. F. Kent et al., 1992), d'autres montrent un TMP diminué chez les patients SLA (R. D. Kent et al., 1991; L. O. Ramig et al., 1990). Les valeurs du jitter et du shimmer peuvent aussi varier dans la SLA (Strand et al., 1994). Enfin, une étude a montré que le HNR ne permettait pas de distinguer une population contrôle de deux populations SLA, avec et sans trouble de la parole (Green et al., 2013).

Les études longitudinales montrent néanmoins qu'avec la progression de la maladie, les valeurs du jitter et du shimmer tendent à augmenter et celles du HNR et du TMP à diminuer (R. D. Kent et al., 1991; L. O. Ramig et al., 1990). Alors qu'aucun signe clinique bulbaire n'est encore décelable, certaines études montrent que les valeurs de jitter et shimmer sont anormalement élevées chez certains patients SLA, et que l'amplitude de la f_0 est réduite. Les auteurs suggèrent que ces valeurs sont peut-être de bons indicateurs d'une atteinte bulbaire latente. (Robert et al., 1999 ; Silbergleit et al., 1997).

La variabilité des valeurs de jitter, shimmer et HNR s'exprime également dans des études longitudinales : d'une session d'enregistrement à l'autre, on retrouve une variabilité dans les mesures, avec des directions des valeurs n'allant pas forcément dans le sens attendu (R. D. Kent et al., 1991). Cette variabilité se retrouve aussi au travers de différents essais sur des /a/ (Silbergleit et al., 1997) ou encore au sein de la même production d'un /a/ tenu. Les auteurs attribuent ces variabilités à une fluctuation de l'instabilité vocale chez ces patients, en lien peut-être avec la fatigue.

Les études s'accordent pour dire que l'amplitude de la modulation de f_0 est diminuée dans la SLA avec une perte des possibilités, notamment pour monter dans les aigus (Allison et al., 2017; L. O. Ramig et al., 1990; Rong et al., 2015).

Enfin, le dysfonctionnement du plan glottique se reflète au travers d'études, plus précisément orientées vers l'intelligibilité. Il s'avère que le contraste de voisement est l'un des contrastes les plus touchés, particulièrement chez les hommes (Kent Raymond D. et al., 1990; Riddel et al., 1995) perturbant l'intelligibilité. Les auteurs ne précisent pas le sens des erreurs (sonorisation ou désonorisation).

² Le terme de « bulbaire » dans cette partie est utilisé au sens large, c'est-à-dire qu'il désigne la présence d'une atteinte du territoire oro-pharyngo-laryngé, sans précision du phénotype à prédominance périphérique ou centrale.

1.2.1.3. Quelles sont les perturbations acoustiques de la voix dans la dysarthrie spastique et dans la SLP ?

Les études qui portent spécifiquement sur les perturbations vocales dans la dysarthrie spastique sont rarissimes et concernent surtout des populations de patients cérébro-lésés (Patel & Campellone, 2009). Cette étude montre une amplitude de la f₀ diminuée. Certaines études mentionnent juste la présence d'une dysarthrie caractérisée comme spastique en référence à la classification de Darley, sans plus de précision sur les caractéristiques vocales de ces patients (Clark et al., 2014; Tomik et al., 2008). Une seule étude, celle de Clark, porte sur la dysarthrie spastique avec un groupe de patients SLP dans leur cohorte (n = 12/25). La caractéristique vocale prédominante d'un point de vue perceptif chez tous leurs patients est la voix dite « serrée ».

La classification de Darley décrit la voix comme monotone, rauque et forcée, et dont la hauteur est basse.

Type de dysarthrie	Auteur	Nombre patients/(contrôles) dans l'étude	Description de la population	Étiologies	Matériel linguistique	Précisions sur le design de l'étude et les mesures étudiées	Principaux résultats
DYSARTHRIE FLASQUE	(Hammarberg et al., 1984)	16	10 femmes et 16 hommes	Paralysie récurrentielle unilatérale d'origines diverses	Lecture d'un texte	Évaluation intra-patient en pré/post injection de Téflon ; Étude perceptive par 10 juges LTAS (long-term average spectrum)	Évaluation en pré-injection : voix jugée soufflée et hypofonctionnelle corrélée avec les mesures du spectre moyen à long terme.
	(Uloza et al., 2005)	50/88 (+ autres groupes pathologiques)	Femmes	Paralysie récurrentielle unilatérale d'origines diverses	/a/ tenu	Jitter, shimmer et HNR	Jitter, shimmer et HNR anormalement élevés comparés à des contrôles
	(Murry, 1978)	20/20 (+ autres groupes pathologiques)	Hommes	Dysphonie paralytique (origine non spécifiée)	Lecture d'une phrase	Amplitude de f ₀	Réduction de l'amplitude de f ₀ et de la stabilité de f ₀ en lecture
	(Tanaka et al., 2014)	39/0	Hommes	Maladie de Kennedy	/a/ pendant 5 secondes	Patients avec spasmes laryngés versus patients sans spasme Jitter, shimmer, HNR	Jitter, Shimmer et HNR plus élevés chez les patients sans spasmes laryngés (23/39)
DYSARTHRIE MIXTE DANS LA SLA	(L. A. Ramig et al., 1988)	1/1	Homme	SLA	Temps maximum de phonation sur /a/ x3	Étude longitudinale sur 5 sessions échelonnées sur 6 mois. Jitter, shimmer et TMP	Le jitter et le shimmer augmentent et le temps maximum de phonation diminue avec la progression de l'atteinte bulbaire.
	(Riddell et al., 1995)	29/0	14 patients bulbaires (10 femmes et 4 hommes) et 15 non bulbaires (8 femmes et 7 hommes)	SLA	Test d'intelligibilité sur des mots	Étude des contrastes altérés	Contraste de voisement particulièrement touché chez les hommes
	(Kent Raymond D. et al., 1990)	25/0	Que des hommes dont certains n'ont pas d'atteinte bulbaire (le nombre n'est pas mentionné)	SLA	Test d'intelligibilité sur des mots	Étude des contrastes altérés	Le contraste phonétique le plus touché est le contraste de voisement.
	(R. D. Kent et al., 1991)	1	Une femme dysarthrique avec des signes bulbaires	SLA	Temps maximum de phonation	Étude longitudinale (7 sessions) échelonnée sur 2 ans : jitter,	Globalement une dégradation des différentes mesures au fil de la progression avec cependant une

						shimmer, TMP	variabilité d'une session à l'autre dans toutes les mesures.
	(J. F. Kent et al., 1992)	10/19	Que des femmes dont certaines n'ont pas d'atteinte bulbaire (le nombre n'est pas mentionné).	SLA	Temps maximum de phonation sur la voyelle /a/	Jitter, shimmer, HNR, TMP, f0	Valeurs de jitter et shimmer augmentées ; HNR diminué. La moyenne du TMP est identique (= 11.8) entre les patientes et les contrôles. La f0 sur le /a/ tenu montre les deux tendances (soit f0 plus haute, soit f0 plus basse que les contrôles)
	(Silbergleit et al., 1997)	20/26	5 femmes et 15 hommes ; Pas d'anomalie de la voix en perceptif ; pas de dysarthrie perceptible ; pas de signe bulbaire évident	SLA	3 x /a/ et /i/ pendant 3 secondes à trois hauteurs différentes (confortable, grave et aigue), glissando	Jitter, shimmer, HNR, leur variabilité ; amplitude de f0	Jitter élevé dans la SLA ; tendance du shimmer élevé dans SLA mais non significatif ; pas de différence au niveau du HNR ; variabilité du jitter, shimmer et HNR plus grande dans SLA. Amplitude de f0 en semitons plus large chez les contrôles.
	(Strand et al., 1994)	4/1	Femmes ; modification de la parole rapportée ; anomalies vocales perçues par les auteurs.	SLA	Temps maximum de phonation sur /a/ ; Lecture de phrases avec un mot accentué dans une phrase cadre « say---again »	f0 mesurée sur le /a/ et la lecture ; jitter, shimmer et HNR mesurés en trois points sur le /a/ (à 500 ms du début, au milieu et à 500 ms de la fin).	La f0 est très variable entre les quatre femmes mais ¾ ont une f0 plus grave que la f0 des femmes du groupe contrôle. Variabilité du jitter et du shimmer dans les 4 cas.
	(Robert et al., 1999)	63/40	Femmes dont 40 avec signes bulbaires et 23 sans signe d'atteinte bulbaire	SLA	/a/ tenu	Jitter, shimmer	Jitter et shimmer anormalement élevés chez les patientes bulbaires comparées aux patientes non bulbaires et aux contrôles. Jitter et shimmer anormalement élevés chez les patientes non bulbaires comparées aux contrôles.
	(Green et al., 2013)	20/10	10 patients SLA sans trouble de parole (6 hommes et 4 femmes), 10 patients SLA avec trouble de parole (5 hommes et 5 femmes)	SLA	/a/ tenu	HNR	Pas de différence significative du HNR entre les trois groupes
DYSARTHRIE SPASTIQUE	(Clark et al., 2014)	25/0	18 femmes et 7 hommes	Différentes pathologies dégénératives étiquetées (SLP : n = 12, syndrome pseudobulbaire* (voir note) : n = 6 et dysarthrie spastique progressive : n = 7	Non précisé	En perceptif	Référence à la classification de Darley décrivant la voix comme serrée
	(Patel & Campellone, 2009)	12/12	3 femmes et 9 hommes	Patients cérébro-lésés	Lecture de 5x cinq phrases constituées de quatre mots monosyllabiques. Le locuteur, en fonction de scénario, doit focaliser l'accent sur l'un des quatre mots.	Étude de la f0 et de l'intensité	Amplitudes de f0 et de l'intensité réduites chez les patients dysarthriques
	(Tomik et al., 2008)	4/0	2 femmes et 2 hommes	SLP	Non précisé	En perceptif	¼ patient est dysarthrique et la dysarthrie est caractérisée par les auteurs de spastique sans précision sur la voix

Tableau 1 Revue de la littérature sur les troubles de la voix. * : les auteurs précisent que le syndrome pseudobulbaire dans cette étude est défini comme l'association d'une dysarthrie spastique, dysphagie, réflexes pathologiques allant dans le sens d'une atteinte centrale au niveau de la sphère oro-pharyngo-laryngée et enfin labilité émotionnelle.

Pour résumer, on peut dire qu'il existe peu de données sur le profil vocal des populations MK et SLP.

Pour la SLA, les données de littérature montrent une grande variabilité des profils vocaux au travers

des études. Dans cette thèse, nous explorons le profil vocal de nos trois populations, au travers de paramètres caractérisant trois aspects du fonctionnement glottique et respiratoire : le timbre vocal, la hauteur vocale et la coordination pneumo-phonatoire.

Observons à présent les données de la littérature sur la précision articulatoire dans ces types de dysarthrie, d'une part d'un point de vue perceptif, et d'autre part d'un point de vue acoustique et cinématique.

1.2.2. La précision articulatoire

1.2.2.1 L'imprécision articulatoire jugée perceptivement

i) L'imprécision articulatoire perçue dans la dysarthrie flasque et la dysarthrie spastique

Comme nous l'avons vu plus haut, la dysarthrie flasque est consécutive d'une atteinte au niveau de la voie finale commune. Les lésions peuvent donc concerner le motoneurone périphérique, le nerf périphérique, la jonction entre le nerf et enfin, le muscle lui-même. Les étiologies sont donc diverses et les tableaux cliniques très hétérogènes. L'hétérogénéité dépend par exemple des paires crâniennes touchées, de leur atteinte isolée ou concomitante, latérale ou bilatérale... Une atteinte du V, le nerf trijumeau innervant la mâchoire, pourra limiter les mouvements d'aperture de la mâchoire, altérant irrémédiablement tous les phonèmes, tant consonantiques que vocaliques. Une atteinte du VII, le nerf facial innervant la face et les lèvres, aura des conséquences sur les consonnes labiales et le trait d'arrondissement des voyelles. Une atteinte des nerfs IX et X, contribuant à l'innervation du voile du palais, aura pour conséquence une rhinolalie. La rhinolalie affecte de façon majeure la précision articulatoire en substituant éventuellement les consonnes et voyelles orales par leurs homologues nasales avec des conséquences délétères sur l'intelligibilité. Enfin, une atteinte du XII, le nerf hypoglosse innervant la langue, altérera toutes les consonnes linguales, mais aussi le contraste entre les voyelles. Tant dans la MK que dans la SLA, les territoires musculaires innervés par ces paires crâniennes peuvent être touchés.

La littérature sur la MK mentionne généralement la présence d'une dysphonie, parfois d'une dysarthrie, sans plus de détail. Les patients sont souvent cliniquement décrits comme présentant surtout une dysphonie, avec une voix qualifiée de « nasonnée » suggérant que le voile du palais est dysfonctionnel. Une étude a montré une corrélation entre un score objectif de nasalance et une hypernasalité évaluée sur une échelle perceptive par deux juges dans une cohorte de 23 patients présentant une MK. 14 patients sur 24 sont jugés comme présentant une hypernasalité, de légère à

sévère (Tanaka et al., 2019). Une publication récente (Fougeron et al., 2022) a rapporté que la dimension articulatoire, évaluée perceptivement, est l'une des plus altérée dans la MK.

Au contraire de la dysarthrie flasque, la dysarthrie spastique ne s'explique pas par l'atteinte, isolée ou concomitante, unilatérale ou bilatérale, de structures individuelles. La dysarthrie spastique s'associe à une perturbation des patrons de mouvements, qui touche généralement tous les sphincters du tractus vocal. Toutes les dimensions de la parole sont donc en général altérées, même si ces altérations ne sont pas uniformes (Duffy, 2013). Ce type de dysarthrie est donc plus homogène. Dans la classification de Darley, les trois critères déviants caractérisant l'altération de la dimension articulatoire sont : l'imprécision des consonnes, la distorsion des voyelles et l'hypernasalité.

A notre connaissance, il n'existe pas d'étude traitant de l'imprécision articulatoire perçue dans la SLP.

ii) *L'imprécision articulatoire perçue dans la SLA*

Dans la SLA, une étude a montré que le jugement perceptif de l'altération des consonnes linguales antérieures est corrélé aux mesures cinématiques de la langue, suggérant que le jugement perceptif de l'imprécision articulatoire est fiable pour détecter l'atteinte bulbaire dans la SLA (Waito et al., 2017). Les trois contrastes phonétiques les plus touchés dans la SLA sont le contraste opposant le lieu d'articulation de la fricative alvéolaire /s/ versus la fricative post-alvéolaire /ʃ/, le contraste opposant les consonnes nasales versus orales, et, chez les hommes particulièrement, le contraste opposant les consonnes voisées versus non voisées en position initiale et finale (J. F. Kent et al., 1992; R. D. Kent et al., 1991; Kent Raymond D. et al., 1990; Riddell et al., 1995). Mesurer la variation de la complexité des mots, de par les ajustements moteurs articulatoires qu'ils requièrent, semble permettre de déceler les troubles de l'intelligibilité à des stades légers de la dysarthrie (Kuruvilla-Dugdale et al., 2018). Nous rapportons dans le tableau ci-dessous des détails complémentaires concernant certaines études mentionnées plus haut, ayant spécifiquement étudié le jugement perceptif de la précision articulatoire dans la SLA.

Auteurs	Nb de patients	Matériel linguistique	Design, nb de juges	Principaux résultats
(Kent Raymond D. et al., 1990)	25 hommes, qq patients non bulbaires donc non dysarthriques	19 contrastes phonétiques testés sur des mots monosyllabiques lus	Test d'intelligibilité (%) sur des paires minimales en choix multiple de quatre mots 10 juges	Contrastes les plus touchés contribuant à la perte de l'intelligibilité : le voisement, le contraste de nasalité, l'articulation de la langue, opposant occlusive et affriquée en anglais, le lieu d'articulation sur les fricatives linguales, l'aperture des voyelles et la production finale des consonnes
(R. D. Kent et al., 1991)	1 femme bulbaire	19 contrastes phonétiques testés sur des mots monosyllabiques lus	Étude longitudinale sur deux ans Test d'intelligibilité (%) sur des paires minimales en choix multiple de quatre mots 10 juges	Les traits les plus altérés durant toute la progression sur deux ans sont le contraste du lieu d'articulation /s/ vs /ʃ/, le mode fricatif vs affriqué, le mode nasal vs affriqué, le mode occlusif vs nasal, la consonne finale vs Ø, le /r/ vs /l/.
(J. F. Kent et al., 1992)	10 femmes pas toutes bulbaires	19 contrastes phonétiques testés sur des mots monosyllabiques lus	Test d'intelligibilité (%) sur des paires minimales en choix multiple de quatre mots 10 juges	Même observation que chez les hommes (Kent Raymond D. et al., 1990) : les contrastes particulièrement touchés sont le contraste de nasalité et le contraste de lieu d'articulation /s/ vs /ʃ/. En revanche, la perturbation du contraste de voisement des consonnes en initial est marquée chez les hommes, mais pas chez les femmes.
(Waito et al., 2021)	51 patients	Deux phrases lues composées principalement des consonnes linguales antérieures anglaises /t,d,s,z,n,l,r,ð/	Mesures cinématiques de la langue 5 juges évaluent la précision (précis/imprécis)	Validation d'une bonne concordance entre l'évaluation de la précision articulatoire des consonnes linguales en perceptif et en acoustique

(Kuruvilla-Dugdale et al., 2018)	8 patients (8 contrôles)	16 mots de complexité différente (8 mots de basse et 8 mots de haute complexité)	Précision articulatoire (% de précision articulatoire) jugée par 2 juges Test d'intelligibilité sous la forme d'une transcription orthographique de phrases.	L'intérêt d'évaluer des mots de complexité à deux niveaux semble pertinente pour déceler des troubles de l'intelligibilité chez les dysarthriques légers alors que les tests d'intelligibilité habituels n'en sont pas capables.
(Riddell et al., 1995)	29 patients dont 14 bulbaires	19 contrastes phonétiques testés sur des mots monosyllabiques lus	Test d'intelligibilité (%) sur des paires minimales en choix multiple de quatre mots 2 juges	Chez les sujets dysarthriques : perturbation fréquente du contraste de lieu d'articulation pour /s/ vs /ʃ/, du trait de voisement (dans des consonnes finales et initiales) surtout chez les hommes et du contraste oral/nasal. Des perturbations du trait de voisement sont cependant retrouvées chez les non dysarthriques.

Tableau 2 Revue de la littérature sur l'imprécision articulatoire perçue dans la SLA

Dans cette thèse, la précision articulatoire des voyelles, des consonnes simples et des clusters du français, est jugée d'un point de vue perceptif dans les trois maladies. Cette précision est explorée en fonction de la place des stimuli dans le mot (position initiale/position finale), de la structure syllabique dans lesquels se trouvent les consonnes et les clusters (CV/CCV/CCCV) et de la complexité du mot, définie par exemple par le nombre de syllabes, la structure syllabique ou encore les alternances de traits phonologiques.

Maintenant que nous avons questionné la littérature sur le jugement perceptif des imprécisions articulatoires dans ces maladies, étudions les données de la littérature explorant les études acoustiques et cinématiques reflétant l'intégrité des articulateurs.

1.2.2.2 L'articulation : les études acoustiques et cinématiques

i) Dans la dysarthrie flasque

Comme on l'a vu dans la section 1.1.2.1, les signes de l'atteinte périphérique au niveau de la sphère bulbaire dans la MK sont l'amyotrophie linguale souvent sévère (comme dans la SLA), une perte de force de la langue (Mano et al., 2014) et éventuelle dans la mâchoire. Les conséquences objectives de cette atteinte périphérique sur l'articulation n'ont, à notre connaissance, jamais été investiguées.

Plus globalement, les patients présentant des maladies touchant la voie finale commune, et par conséquent, potentiellement une dysarthrie flasque, ont une perte de la force objectivée dans la langue et les lèvres (Clark et al., 2022; Neel et al., 2015). Malheureusement, ces études n'ont fait que mesurer la force maximale de la langue sur des tâches non verbales.

Plus de détails sur ces études sont fournis dans le tableau ci-dessous.

Auteurs	Participants	Description perceptive de leur parole	Matériel linguistique	Design de l'étude	Résultats principaux
(Neel et al., 2015)	12 patients/12 contrôles Maladie : dystrophie musculaire oculopharyngée	Pas de dysarthrie évidente mais dysphagiques	Les mots « sip », « seep » et « see » Les mots « heed », « hod » et « who'd » Lecture de 3 phrases Pour deux patients : production de /dʌ/	Mesures spectrales dans le phonème /s/ Espace vocalique Intelligibilité Mesure de la force maximale de la langue contre le palais sur une tâche non verbale Mesure de la force linguale chez deux patients durant la production de /dʌ/	Aucune différence significative entre les contrôles et les patients sauf pour la force maximale de la langue qui est diminuée chez les patients. Pas de réduction de l'espace vocalique chez les patients Pour les deux patients ayant produit /dʌ/ : utilisation de 40% de la force maximale de leur langue (contre 20%-25% chez des contrôles d'une autre

(Clark et al., 2022)	13 patients avec dysarthrie flasque + 33 contrôles + 66 patients avec autres dysarthries. Maladies des 13 patients : 1 myasthénie, 6 SLA, 1 myopathie, 2 maladies congénitales neuromusculaires (maladies non précisées), 3 avec lésions tumorales (dont la localisation de la lésion n'est pas précisée)	Tous dysarthriques (dysarthrie diagnostiquée flasque par un expert d'après les critères perceptifs de Darley : débit normal ou ralenti-hypernasalité-voix soufflée-phrases courtes-imprécision de l'articulation)	Pas de tâche verbale	Force de la langue et des lèvres	étude). Force de la langue et des lèvres diminuée spécifiquement dans ce type de dysarthrie
----------------------	--------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------	-------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------	----------------------	----------------------------------	------------------------------------------------------------------------------------------------

Tableau 3 Revue de la littérature sur le lien entre la dysarthrie flasque et les mesures de force des articulateurs

ii) Dans la SLA

Dans la SLA, l'articulateur le premier touché est la langue (DePaul et al., 1988; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994). Par conséquent, de nombreuses études s'évertuent à trouver des liens entre les mouvements de la langue et la dysarthrie, surtout en termes de réduction de l'intelligibilité ou de sévérité de la dysarthrie.

Dans cette population, les études acoustiques et cinématiques sont foisonnantes. Elles mettent en exergue principalement une altération de l'amplitude des mouvements articulatoires, reflétée par une pente de F2 (2^{ème} formant) aplatie et un espace vocalique réduit (J. F. Kent et al., 1992; J. Lee et al., 2017; Weismer et al., 1992), une diminution de l'amplitude et de la vitesse des mouvements de la langue et des lèvres et une exagération de l'amplitude des mouvements de la mâchoire (DePaul Roxanne & Brooks Benjamin R., 1993; Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994; E. Lee et al., 2018; J. Lee et al., 2020; J. Lee & Bell, 2018; A. S. Mefferd et al., 2012; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; Rong et al., 2015, 2018; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2008, 2010, 2012, 2013). L'amplitude des mouvements de la langue est corrélée à la progression de la sévérité de la dysarthrie (J. Lee et al., 2018, 2020; J. Lee & Bell, 2018; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; Rong et al., 2018; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2010, 2012, 2013). Alors que Slis et al. (Slis et al., 2021) ont mis en évidence une instabilité des configurations du tractus vocal dans la SLA au cours de la production de la parole au travers de la variabilité de mesures acoustiques, d'autres auteurs ont montré que la variabilité des mouvements de la langue, des lèvres et de la mâchoire était au contraire réduite (Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Kuruvilla-Dugdale & Mefferd, 2017; A. S. Mefferd et al., 2014).

Le tableau ci-dessous apporte des détails complémentaires concernant certaines études citées plus haut.

Auteur	Population	Détails méthodologiques	Mesures réalisées	Principaux résultats
(DePaul Roxanne & Brooks Benjamin R., 1993)	10 patients	Sévérité dysarthrie sur conversation et intelligibilité sur 84 mots monosyllabiques	Force des lèvres, mâchoire et langue sans parole	La langue est l'articulateur le plus touché
(Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017)	7 patients dysarthriques et 14 contrôles	Parole habituelle versus sur-articulation	Mesures cinématiques langue, lèvres et mâchoire dans 10 répétitions de « I owe you a yoyo »	Mouvements exagérés de la mâchoire, amplitude diminuée langue et lèvres, allongement de la durée des mouvements en parole habituelle ; moins de variabilité des mouvements de la mâchoire (index spatio-temporel), de la langue et des lèvres chez les SLA en condition de parole

				habituelle
(Kuruvilla-Dugdale & Mefferd, 2017)	10 patients tous dysarthriques et 11 contrôles	Trois débits observés : habituel, plus rapide et plus lent	Index de variabilité spatio-temporelle des mouvements cinématiques de la langue, lèvres et mâchoire durant 12 répétitions de la phrase « say that I owe you a yoyo today »	En débit habituel, la variabilité des mouvements est moins grande chez les patients SLA en comparaison avec les contrôles. En revanche, cette variabilité augmente quand ils doivent changer leur débit (plus lent ou plus rapide), surtout pour les lèvres et la langue
(Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994)	14 patients et 14 contrôles 3 groupes chez les patients : spinaux, bulbaire, pseudobulbaire	Sévérité dysarthrie sur la lecture de 10 phrases	Force des lèvres, mâchoire et langue sans parole	Force réduite de la langue chez tous les patients SLA, mais surtout dans le groupe bulbaire
(J. Lee et al., 2018)	14 patients dysarthriques et 6 contrôles	Intelligibilité et débit de parole : index de la sévérité de dysarthrie	Données cinématiques temporelles et spatiales dans le mot « whip »	Durée, vitesse des articulateurs corrélées avec sévérité Mouvements linguax antéro-post corrélés avec sévérité Mouvements mâchoire amplifiés
(J. Lee & Bell, 2018)	22 patients dysarthriques et 22 contrôles	Intelligibilité et débit de parole : index de la sévérité de dysarthrie	Données cinématiques spatiales lèvres, langue et mâchoire durant lecture d'un texte	Amplitude de la langue diminue et amplitude lèvres et mâchoire augmente avec la sévérité de la dysarthrie
(A. S. Mefferd et al., 2012)	7 patients avec dysarthrie minime et 7 contrôles	Intelligibilité sur des phrases Débit de parole sur des phrases (nb de mots par minute pauses comprises) Débit articuloire (nb de mots par minutes sans pauses < 200 ms)	Mouvementsèvre inférieure et mâchoire sur syllabes « fuh » avec contrainte métronome (4 vitesses) Mesure du déplacement maximal et du pic de vitesse des articulateurs	Capacité de rapiditéèvre inférieure et mâchoire limitée même chez dysarthriques légers
(A. S. Mefferd et al., 2014)	8 patients et 11 contrôles	Débit habituel, débit plus lent et plus rapide	Mouvements cinématiques de laèvre inférieure et de la mâchoire dans la phrase « Buy Bobby a puppy » (5 x chaque débit)	Variabilité des mouvements plus petite chez les patients en condition de débit habituel mais tendance à avoir variabilité plus grande en débit rapide
(A. S. Mefferd & Dietrich, 2020)	10 patients dysarthriques et 14 contrôles	Conditions intensité forte, parole sur-articulée et ralentissement du débit	Mesures de déplacement de la langue et mâchoire dans diphtongue /ai/ de « kite », implication sur contraste acoustique des voyelles	Déplacement exagéré de la mâchoire dans les deux groupes et les 3 conditions ; déplacement exagéré langue en condition lente pour sla et dans les 3 conditions pour contrôles
(J. F. Kent et al., 1992)	10 femmes (dont 2 n'ont pas d'atteinte bulbaire)/ 19 contrôles	Intelligibilité sur des contrastes phonétiques	Mesure des pentes de F1 et F2 dans 8 mots (blend, hail, sew, sigh, sip, ship, shoot et wax)	Trajectoires de F1 et F2 plus longues et aplaties chez les femmes ; variabilité reflétant sévérité de la dysarthrie
(Weismer et al., 1992)	25 hommes dysarthriques/15 contrôles	Intelligibilité sur des contrastes phonétiques	Mesure des pentes de F1 et F2 dans 7 mots (sew, sigh, sip, ship, wax, coat and row)	Durée des transitions F1 et F2 plus longue et pente aplatie pour F1 et F2. Plus marqué chez les patients ayant une intelligibilité < 70%.
(J. Lee et al., 2017)	11 patients dysarthriques et 11 patients non dysarthriques	Voyelles	Espace vocalique et mesures cinématiques du dos et de l'apex de la langue sur les voyelles anglaises /i, u, ɒ, æ/ dans le mot /h/-V-/d/	Mesures acoustiques et cinématiques montrent différences entre les deux groupes (réduction chez les dysarthriques), surtout pour les voyelles hautes en anglais
(Shellikeri et al., 2016)	10 patients	Étude longitudinale Le débit articuloire en nombre de mots par minute est utilisé comme index de sévérité de la dysarthrie	Mesures cinématiques de la langue et de la mâchoire dans la phrase « buy Bobby a puppy »	Vitesse des mouvements de la langue diminue quand la sévérité de la dysarthrie augmente
(Yunusova et al., 2012)	31 patients tous bulbaires dont 18 sans trouble de l'intelligibilité et 13 avec une intelligibilité comprise entre 63% et 98%.	Intelligibilité et débit en nombre de mots/minutes comme index de sévérité	Mesures acoustiques de F2 et mesures cinématiques de vitesse et de déplacement de la langue	Pente de F2 bon marqueur de la progression de l'atteinte bulbaire, corrélée avec diminution des mouvements de la langue et à l'intelligibilité
(Slis et al., 2021)	33 patients bulbaires SLA/26 patients parkinsoniens et 70 contrôles		Mesure de la modulation cepstrale et de sa variabilité sur des séquences glide-voyelles /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/	La variabilité de la modulation cepstrale à l'intérieur des séquences est plus grande dans la population SLA suggérant une instabilité des mouvements du tractus vocal dans cette population

Tableau 4 Revue de la littérature sur les études acoustiques et cinématiques montrant le dysfonctionnement des articulateurs dans la SLA

iii) Dans la dysarthrie spastique

Les études acoustiques et articuloires explorant la dysarthrie spastique sont rares. A notre connaissance, elles sont même inexistantes dans la SLP. Hirose fut le premier à comparer la dysarthrie mixte de deux patients SLA avec la dysarthrie spastique de deux patients ayant un syndrome pseudobulbaire (Hirose et al., 1982). Il montre que la dynamique articuloire est similaire chez ces quatre patients, avec une réduction de l'amplitude des mouvements et une lenteur des articulateurs.

Tout récemment, une étude a montré une perte de force de la langue et des lèvres chez des patients cérébro-lésés ayant une dysarthrie spastique (Clark et al., 2022). Leur étude montre d'ailleurs que la perte de force des articulateurs est présente dans trois types de dysarthrie : flasque, mixte dans la SLA et spastique. Dans la dysarthrie spastique, comme dans la dysarthrie mixte de la SLA, la réduction des pentes de F2 est en lien avec la perte d'intelligibilité et la réduction de l'amplitude des articulateurs (Rong et al., 2012).

Enfin, une étude montre que des séquences CVC postérieures sont plus altérées que les séquences CVC antérieures chez 10 patients présentant une dysarthrie spastique (Ziegler & von Cramon, 1986).

Le tableau ci-dessous apporte des détails complémentaires concernant certaines études citées plus haut.

Auteur	Population	Détails méthodologiques	Mesures réalisées	Principaux résultats
(Clark et al., 2022)	8 patients + 33 contrôles + 71 patients avec autres dysarthries. Maladies des 8 patients : 1 sclérose en plaque, 6 SLA et 1 syndrome parkinsonien +	Tous dysarthriques (dysarthrie diagnostiquée spastique par un expert selon les critères perceptifs de Darley : débit lent-voix serrée-monotonie de la hauteur vocale et de l'intensité-imprécision articuloire-DDK_AMR lentes et régulières)	Force de la langue et des lèvres	On retrouve aussi dans ce type de dysarthrie une force de la langue et des lèvres diminuée
(Hirose et al., 1982)	2 patients présentant une dysarthrie spastique, 2 patients présentant une SLA, 1 contrôle ?	Comparaison des mouvements articuloires chez 2 patients avec dysarthrie spastique et 2 patients dysarthriques avec SLA	Dynamique de la mâchoire, langue et des lèvres durant répétition rapide de /pa/, /ta/ et /ka/	Dynamique articuloire similaire dans les deux profils : mouvements lents mais réguliers, amplitude réduite
(Rong et al., 2012)	3 patients cérébro-lésés/3 contrôles	Diagnostic de la dysarthrie spastique par un expert. Intelligibilité comme mesure de la sévérité de la dysarthrie	Mesures cinématiques et acoustiques durant la répétition des mots (3x) « tie, die, dike, size, sigh et zion ». Les consonnes alvéolaires /t/, /d/, /s/ et /z/ et diphtongue /al/ sont ciblées	Lien entre réduction des mouvements de la langue et altération de l'intelligibilité ; lien entre réduction des pentes de F2 + intelligibilité et la perturbation des mouvements de la langue et de la mâchoire
(Ziegler & von Cramon, 1986)	10 patients ayant une dysarthrie spastique	Origine vasculaire et traumatique	Phrase cadre avec des séquences /gəCVCə/ avec C = p,t,k et V = i,y,u,a. Mesures acoustiques : niveau de pression acoustique pour les consonnes et mesures des deux premiers formants pour les voyelles	Les consonnes et voyelles postérieures sont plus altérées que les consonnes et voyelles antérieures.

Tableau 5 Revue de la littérature sur les études acoustiques et cinématiques montrant le dysfonctionnement des articulateurs chez des patients présentant une dysarthrie spastique

Dans cette thèse nous explorons perceptivement les imprécisions segmentales dans chacune des maladies. Puis, nous étudions un paramètre acoustique écologique peu exploité dans le domaine des dysarthries et considéré comme un proxy de l'amplitude des mouvements du tractus vocal enregistré au cours d'une tâche de parole : la modulation cepstrale. Nous caractérisons cette modulation cepstrale, sa variabilité, ainsi que la durée des transitions entre des segments voyelles-glides dans les trois maladies.

Que nous dit maintenant la littérature sur le débit articuloire dans la SLA, ainsi que dans la dysarthrie flasque et la dysarthrie spastique ?

1.2.3. Le débit de parole et articuloire dans les trois types de dysarthrie

Dans la dysarthrie flasque, le débit de parole n'est pas perçu comme ralenti (Duffy, 2013). Quelques études ont été menées sur les performances de débit articuloire chez des patients présentant des pathologies touchant exclusivement la voie finale commune, et donc susceptibles de développer une dysarthrie flasque. Les performances du débit articuloire s'évaluent traditionnellement sur l'épreuve des diadococinésies. Les diadococinésies consistent en la répétition la plus rapide et précise possible, de syllabes identiques comme /papapa/, autrement nommées les DDK AMR (pour diadococinésie Alternate Motion Rates) ou différentes comme /pataka/, appelées aussi DDK SMR (pour diadococinésies Sequential Motion Rates). Nous reparlerons de l'intérêt de tester les diadococinésies plus en détails dans la sous-section 1.3.3.1. Des études ont montré un ralentissement des DDK AMR chez des patients dysarthriques présentant des maladies telles que myasthénie ou polyneuropathies diffuses (Dworkin & Aronson, 1986). Un ralentissement des DDK AMR est également retrouvé chez des patients jugés non dysarthriques d'un point de vue perceptif ayant une dystrophie musculaire oculopharyngée, suggérant que les DDK AMR pourraient être un bon marqueur des signes avant-coureurs de la dysarthrie (Neel et al., 2015). En revanche, cette même étude montre un débit articuloire normal dans la lecture et dans des DDK SMR.

Dans la maladie de Kennedy, une récente étude a montré que le débit articuloire mesuré sur les DDK était normal. En lecture, il est également normal chez la majorité des patients étudiés dans cette étude (Fougeron et al., 2022).

La perte de force étant une caractéristique de la dysarthrie flasque, se pose la question de la relation entre perte de force et vitesse des articulateurs dans la parole. La littérature reste mitigée sur cette question, tant chez des sujets sains, que chez des sujets dysarthriques tous types de dysarthrie confondus, chez qui la force des articulateurs a été objectivée (Dworkin & Aronson, 1986; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994; Neel et al., 2015; Neel & Palmer, 2012; Solomon et al., 2017). Par exemple, chez des sujets sains, la force maximale de la langue ne jouerait en fait qu'un rôle très ténu sur le débit évalué dans des DDK AMR (Neel & Palmer, 2012). Si la question concerne l'évaluation de l'altération de la parole, on peut se demander quel est l'intérêt de mesurer la force des articulateurs hors parole. Certains auteurs suggèrent qu'une relation pourrait quand même exister entre perte sévère de la force de la langue et perte de vitesse de la langue au cours de la parole (Solomon et al., 2017).

Un débit de parole ralenti et des DDK lentes sont unanimement reconnus comme les caractéristiques proéminentes de la dysarthrie spastique (Clark et al., 2014; Hirose et al., 1982; Ziegler & von Cramon, 1986). Cependant, la lenteur du débit et des DDK n'est pas une caractéristique spécifique à la dysarthrie spastique puisque l'on retrouve un ralentissement du débit dans d'autres types de dysarthrie (Dworkin & Aronson, 1986; Hirose et al., 1982; Neel et al., 2015; Solomon et al., 2017). Malheureusement, comme on peut le voir dans le tableau ci-dessous, les études ont souvent comparé

le débit entre un groupe de patients dysarthriques, tous types de dysarthries confondus, avec un groupe de contrôles (Nishio & Niimi, 2006; Solomon et al., 2017) sans vraiment comparer les types de dysarthrie entre eux. Le nombre limité de patients dans chaque catégorie de dysarthrie ne leur a sans doute pas permis de le faire.

Auteur	Populations étudiées	Étiologies	Tâches de parole investiguées	Résultats principaux de l'étude
(Dworkin & Aronson, 1986)	18 patients dysarthriques dont 2 avec D. flasque, 3 avec D. spastique et 3 SLA, /50 contrôles	Polyneuropathie diffuse et myasthénie pour la D. flasque Atteinte unilatérale et bilatérale central pour la D.spastique	DDK AMR /pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/	Les DDK sont ralenties dans le groupe des dysarthriques. Pour les D flasques les valeurs pour pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/ sont respectivement 5 syllabes par seconde, 4,5 et 3,8 pour un patient et 2,7, 4,5 et 4,9 pour l'autre. Dans la D spastique, les valeurs sont 3,1,3,1 et 2,8 pour un patient, 4,5, 2,4 et 2,8 pour un deuxième et 4,5, 2,8 et 2,9 pour le troisième patient. Pour la SLA, les valeurs sont : 5,3, 4,4, 3,8 pour l'un 6,6, 6, 6,2 pour le deuxième 4,2, 4,2, 4,2 pour le dernier. Les auteurs ne retrouvent pas de différence entre les groupes dysarthriques mais ils ont très peu de patients par groupe
(Neel et al., 2015)	12 patients sans dysarthrie perceptible/12 contrôles	Maladie dystrophie musculaire oculopharyngée	DDK AMR : /pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/ SMR : /pʌtəkʌ/ Débit articuloire sur la lecture de 6 phrases (sans les pauses > 200 ms)	Le nombre de syllabes par seconde est plus petit chez les patients lors de la production des DDK AMR, mais pas des DDK SMR Pas de différence du débit articuloire dans la lecture des phrases
(Fougeron et al., 2022)	10 patients dysarthriques	Maladie de Kennedy	DDK AMR, DDK SMR et lecture	Le débit articuloire est normal dans les DDK. Il est normal également en lecture pour 9 patients sur 10.
(Solomon et al., 2017)	55 patients dysarthriques (dysarthrie mixte ou indéterminée) /55 contrôles	Pathologies neuro-vasculaires, lésions cérébrales et maladies neurodégénératives	Force langue, joues, lèvres Tâches de parole : débit articuloire sur du spontané (sans les pauses > 250 ms) et des phrases lues, lecture, AMR /pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/	Débit articuloire en spontané : moy de 4.09 (SD = 1.16) AMR /pʌ/: 5.37 (SD = 1.68) AMR /tʌ/: 5.29 (SD = 1.80) AMR /kʌ/: 4.66 (SD = 1.69) Faible corrélation retrouvée entre le débit articuloire et AMR, et faiblesse de la partie antérieure de la langue. Le débit, tant dans les AMR que dans le spontané est 20% plus lent que chez les contrôles
(Clark et al., 2014)	25 patients ayant une dysarthrie spastique/0	Dysarthrie inaugurale sans diagnostic encore précis	Évaluation perceptive sur des DDK et de la parole spontanée afin d'identifier le type de la dysarthrie	Les 25 patients présentent un débit de parole perceptivement jugé lent Les 25 patients présentent des DDK lentes mais régulières
(Nishio & Niimi, 2006)	62 patients dysarthriques dont dysarthrie flasque (n = 6), dysarthrie spastique (n = 13), dysarthrie dans la SLA (n = 9).	Pathologies variées (vasculaires, traumatiques, dégénératives, inflammatoire)	Débit de parole et débit articuloire en nombre de mores par seconde (langue japonaise) dans une tâche de lecture. AMR /pa/, /ta/ et /ka/ en nombre de syllabes par seconde	Le débit qu'il soit en parole, articuloire ou dans les DDK est plus ralenti dans le groupe des dysarthriques. Il existe une forte corrélation entre le débit dans les AMR et le débit articuloire dans la lecture. Comparés aux contrôles, les locuteurs dysarthriques ont un débit particulièrement ralenti dans les AMR (plus que dans la lecture). Les auteurs suggèrent que les mesures de débit dans les AMR constituent un meilleur index de perturbation articuloire que les mesures de débit articuloire en lecture.
(Hirose et al., 1982)	4 patients dont dysarthrie spastique (n = 2) et dysarthrie mixte SLA (n = 2) / 1 contrôle	2 SLA et 2 atteintes pseudobulbaires	AMR /pa/, /ta/ et /ka/, /teN/ et paN/	DDK ralenties chez tous les patients
(Ziegler & von Cramon, 1986)	10 patients ayant une dysarthrie spastique	Origine vasculaire et traumatique	Évaluation perceptive	Débit de parole perçu comme lent chez 9/10 patients
(Portnoy & Aronson, 1982)	30 patients ayant une dysarthrie spastique, 30 patients ayant une dysarthrie ataxique/30 contrôles	Non spécifié	AMR /pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/ mesurées en nombre de syllabes par seconde	/pʌ/, /tʌ/ et /kʌ/ : On retrouve respectivement les nombres de syllabes par seconde suivants : 6,4, 6,1 et 5,7 chez les contrôles 4,6, 4,2, 3,5 dans la dysarthrie spastique 3,8, 3,9, 3,4 dans la dysarthrie ataxique Les DDK chez les spastiques sont lentes et plus variables que chez les contrôles ; les DDK sont plus variables chez les ataxiques que chez les spastiques

Tableau 6 Revue de la littérature sur les études ayant étudié le débit (articuloire et/ou de parole) dans la dysarthrie flasque et spastique

Concernant la SLA plus précisément, toutes les études acoustiques et cinématiques ont montré une altération des aspects temporels de la parole chez les patients SLA, au niveau de la durée des segments (Caruso & Burton, 1987; A. Mefferd, 2015; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; G. S. Turner et al., 1995; Weismer et al., 2000), dans le débit de parole et articuloire (Stipancic et al., 2021; G. S. Turner & Weismer, 1993; Yunusova et al., 2016) et dans des tests de performance tels que les diadococinésies

AMR (Eshghi et al., 2019 ; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994 ; A. S. Mefferd et al., 2012 ; Rong et al., 2015, 2018, 2019 ; Shellikeri et al., 2021).

Au cours de la parole, les études montrent des mouvements lents des articulateurs (Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; J. Lee et al., 2018; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2008, 2010, 2012).

Le débit de parole décline linéairement avec la progression de la maladie (Allison et al., 2019; J. Lee et al., 2018; Rong et al., 2015, 2016; Yunusova et al., 2010).

Auteur	Populations étudiées	Variables et tâches explorées	Résultats principaux
(Caruso & Burton, 1987)	8 patients SLA/8 contrôles	Mesures de durée de la tenue de l'occlusion, du VOT (voice onset time) et de la voyelle dans des mots monosyllabiques avec consonne initiale /p, t, k, b, d, g/.	Dans la SLA : durée plus longue des voyelles et de la tenue de l'occlusive mais pas pour le VOT. Corrélation entre la durée de la voyelle et la tenue de l'occlusion seulement pour les consonnes linguales. Attribution à une perte de force et vitesse particulièrement de la langue et du larynx
(Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017)	7 patients dysarthriques et 14 contrôles	Mesure de durée des mouvements (de la mise en route des mouvements à leur arrêt) sur la phrase « I owe you a yoyo » en parole habituelle versus en sur-articulation	Dans la SLA, durée plus longue de la totalité des mouvements dans les deux conditions
(A. S. Mefferd, 2015)	12 patients dysarthriques (6 patients SLA et 6 patients parkinsoniens) et 12 contrôles	Mesure de la durée de la diphtongue /ai/ dans 5 répétitions de la phrase « see a kite again » dans trois débits de parole (habituel, plus lent et plus rapide qu'habituel)	Pour la SLA : peu de modification de la durée de la diphtongue surtout en condition lente, diphtongue plus longue dans la SLA comparé aux autres locuteurs dans les 3 conditions de débit
(A. S. Mefferd et al., 2014)	8 patients et 11 contrôles	Effet du débit sur la variabilité des mouvements dans phrase « Buy Bobby a puppy » répétée en débit habituel, débit plus lent et plus rapide (5 x chaque débit)	Débit lent et rapide entraînent une variabilité des mouvements dans la SLA
(G. S. Turner & Weismer, 1993)	9 patients dysarthriques/9 contrôles	Effet du débit lent, habituelle et rapide évalué dans la lecture d'un passage de texte sur le débit de parole en nb de mots/minute, sur le débit articulaire en nb de syllabes par seconde	Le débit de parole et le débit articulaire sont plus lents dans les trois conditions chez les SLA, pas de différence entre les deux groupes concernant l'envergure de changement de débit parole/articulaire entre habituel et rapide, en revanche peu de différence entre habituel et lent chez les SLA alors que les contrôles ralentissent de moitié par rapport au débit habituel
(G. S. Turner et al., 1995)	9 patients dysarthriques/9 contrôles	Effet du débit lent, habituelle et rapide évalué dans la lecture d'un passage de texte sur la durée des voyelles	La durée des voyelles est plus longue chez les sujets dysarthriques dans toutes les conditions. L'envergure des changements de durée entre les différentes conditions est moindre dans la SLA
(Weismer et al., 2000)	10 dysarthriques/19 contrôles	Effet du débit habituel et rapide sur les durées segmentales et sur la durée totale de 3 phrases lues (6 x chaque débit)	Durée des phrases plus longue dans la SLA, possibilité d'accélérer pour les SLA
(Rong et al., 2018)	57 patients SLA et 22 contrôles	Aspect temporel et spatial des mouvements des lèvres dans l'AMR /ba/ dans une étude longitudinale	Tout comme le débit de parole, la diminution du débit articulaire dans les AMR est linéaire avec la progression de la maladie
(Yunusova et al., 2008)	15 patients dysarthriques dont 7 patients parkinsoniens et 8 patients SLA et 19 contrôles	Mesure de la vitesse des mouvements dans des voyelles sur la lecture de mots	Les mouvements sont plus lents pour parcourir les mêmes distances chez les SLA en comparaison avec les contrôles
(Yunusova et al., 2010)	3 patients SLA sur une étude longitudinale	Mesure de durée d'ouverture et fermeture des lèvres durant la lecture de mots Débit de parole sur des phrases	Déclin de débit de parole et ralentissement des mouvements avec la progression de la maladie
(J. Lee et al., 2018)	14 patients SLA dysarthriques	Mesure cinématique dans le mot « whip » inclus dans une phrase cadre Intelligibilité et débit de parole servent à stratifier les patients en groupes	Lenteur de la langue en lien avec réduction du débit de parole
(Yunusova et al., 2016)	85 patients SLA, 18 patients DFT et 33 contrôles	Lecture d'un texte	Débit de parole et débit articulaire diminué dans la SLA
(Allison et al., 2019)	131 patients stratifiés en 4 degrés de sévérité de la dysarthrie	Mesure du débit de parole dans les phrases de longueurs différentes	Le débit de parole diminue avec la longueur des phrases

Tableau 7 Revue de la littérature sur les aspects temporels de la parole dans la SLA

Dans cette thèse, nous explorons dans nos populations le débit articulaire dans différentes tâches : au cours d'épreuves de performance (AMR et SMR), dans la parole continue, en lecture et en spontané.

1.2.4. L'organisation du discours : l'étude des pauses et des continuums de parole entre ces pauses

1.2.4.1. Dans la dysarthrie flasque et la dysarthrie spastique

Peu d'études ont porté sur l'organisation du discours, des pauses et des continuums de parole, dans les dysarthries de type flasque et spastique. La caractéristique « phrases courtes » est répertoriée dans ces deux types de dysarthrie dans la classification de Darley (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975).

Dans la dysarthrie flasque, la qualité vocale est décrite comme voilée et soufflée. On peut donc supposer que cette déperdition d'air au niveau glottique peut avoir des conséquences sur l'organisation prosodique en termes de durée des continuums de parole entre les pauses, et sur la fréquence des reprises inspiratoires. La voix soufflée dans ce type de dysarthrie est en lien avec une hypofonctionnalité de la fermeture glottique objectivée à l'aide d'examen fibroscopiques et aérodynamiques (Duffy, 2019). En effet, des études portant sur les patients présentant une paralysie unilatérale et bilatérale des cordes vocales en lien avec des lésions neurologiques ont identifié des débits d'air expiratoire plus importants que la normale au cours de la parole en lien avec la déperdition d'air au niveau glottique (Hirano et al., 1968). Ces études ont montré que les patients présentant une hypo-adduction glottique inspirent des volumes d'air beaucoup plus importants par minute, en lien avec des reprises inspiratoires plus fréquentes.

Une étude a comparé la gestion des pauses et des continuums de parole dans la lecture et dans la conversation chez 12 patients dysarthriques traumatisés crâniens, dont 2 patients présentant une dysarthrie de type flasque, 8 patients présentant une dysarthrie mixte avec une composante spastique et 8 contrôles. Cette étude a globalement montré une durée moyenne plus courte et moins variable des continuums de parole, ainsi que des pauses respiratoires plus longues et plus fréquentes dans les deux tâches chez les patients dysarthriques (Y.-T. Wang et al., 2005).

1.2.4.2. Dans la SLA

Dans la SLA, les études qui ont étudié l'organisation des pauses et des continuums de parole inter-pauses dans des tâches de lecture, montrent un nombre plus important des pauses chez les patients SLA, et un pourcentage de temps passé en pause sur la totalité de la lecture plus importante dans la SLA comparé aux locuteurs contrôles (Allison et al., 2019; Barnett et al., 2020; Green, 2010; Green et al., 2013; Stipanovic et al., 2021; Yunusova et al., 2005, 2016). Ces études montrent également une durée cumulative plus longue des continuums de parole, une variabilité de la durée moyenne de ces continuums plus grande et un débit de parole mesuré en nombre de syllabes par seconde plus lent. Enfin, le nombre de mots par continuum de parole est moins important et moins variable chez les

locuteurs présentant une SLA, comparés à des groupes contrôles (Green, 2010; G. S. Turner & Weismer, 1993; Yunusova et al., 2005).

Des détails complémentaires concernant certaines études citées plus haut sont répertoriés dans le tableau figurant à la fin de cette section.

Cependant, concernant le pourcentage de temps passé en pause proportionnellement au temps total de la lecture, il existe une contradiction dans la littérature. Dans bon nombre d'études, ce pourcentage est significativement plus élevé dans la population SLA comparé à la population contrôle. Certaines études prônent d'ailleurs l'utilisation de cette mesure comme un marqueur pour détecter les patients SLA à un stade pré-symptomatique de la progression bulbaire (Allison et al., 2017; Barnett et al., 2020; Green et al., 2013; Rong et al., 2015; Stipancic et al., 2021). Au contraire, une étude montre que ce pourcentage de temps passé en pause sur la totalité de la durée de la lecture est similaire entre une population SLA bulbaire et une population contrôle (Yunusova et al., 2016).

A notre connaissance, l'étude de Yunusova (2016) est primordiale puisque c'est la seule à avoir distingué au sein de la population SLA, des groupes cliniques en fonction de la présence ou non d'un trouble respiratoire associé à l'atteinte bulbaire ou non. Quatre groupes sont donc comparés : un groupe de patients présentant une atteinte bulbaire sans atteinte respiratoire, un autre groupe avec atteinte bulbaire et trouble concomitant de la respiration, un groupe avec trouble de la respiration sans atteinte bulbaire et un groupe dit « spinal », c'est-à-dire sans atteinte bulbaire. Dans cette étude, le pourcentage de temps passé en pause proportionnellement au temps total de la lecture est effectivement plus élevé chez les patients présentant une atteinte respiratoire, avec ou sans atteinte bulbaire, en comparaison avec les contrôles. Ce groupe clinique présente également une diminution de la durée moyenne des continuums de parole inter-pauses. En revanche, dans le groupe clinique ne présentant qu'une atteinte bulbaire isolée, sans trouble objectif de la respiration, ces deux mesures, le pourcentage de temps passé en pause et la durée moyenne des continuums de parole, sont similaires à celles des contrôles. Il est d'ailleurs intéressant de noter que les variables distinguant les deux groupes cliniques, « patients bulbaires sans atteinte respiratoire » et « patients avec atteinte respiratoire mais sans atteinte bulbaire », sont uniquement le débit de parole et le débit articulatoire. Le débit de parole/articulatoire est significativement plus lent dans le groupe des patients bulbaires alors qu'il est normal dans le groupe des patients non bulbaires avec atteinte respiratoire.

Dans cette thèse, l'atteinte respiratoire cliniquement évidente constituait un critère d'exclusion pour entrer dans l'étude.

Auteur	Population	Mesures	Résultats principaux
(G. S. Turner & Weismer, 1993)	9 patients SLA et 9 contrôles	Fréquence et durée des pauses ainsi que temps de parole entre les pauses (pauses > 200 ms) en fonction de trois débits de parole imposés dans une tâche de lecture d'un texte (lent, habituel et rapide)	La durée et la fréquence des pauses diminuent avec l'augmentation du débit de parole dans les deux groupes. Les continuums de parole sont composés de moins de syllabes et de mots chez les patients SLA.
(Y.-T. Wang et al., 2005)	12 patients avec dysarthrie post-traumatisme crânien et 8 contrôles. Chez les locuteurs dysarthriques : 2 patients avec dysarthrie flasque, 8 patients avec	Durée des continuums de parole, débit calculé en nombre de syllabes et en nombre de mots, proportion des temps	En conversation : les pauses sont plus longues et plus variables chez les locuteurs dysarthriques ; en général, les sujets dysarthriques ont des durées des

	dysarthrie mixte dont une composante spastique et 2 patients avec dysarthrie mixte hypokinétique et ataxique. 8 patients ont des troubles cognitifs et certains ont des troubles respiratoires.	de parole et des temps de pause, durée des syllabes et des mots dans des échantillons de 3 minutes de conversation et sur la lecture d'une phrase récitée sur trois débits (lent, habituel et rapide)	continuum de parole plus courtes et moins variables que les contrôles particulièrement les patients qui ont des troubles respiratoires ; chez les patients dysarthriques les plus sévères, les débits de parole et articulatoire sont réduits ;
(Green, 2010)	10 patients SLA (5 patients avec atteinte bulbaire et 5 sans atteinte bulbaire) et 10 contrôles	Mesures de la durée des pauses et des temps de parole lors d'un texte lu.	Temps cumulatif plus long chez les SLA (tant pour les pauses que pour les temps de parole). Les patients font un nombre de pauses plus important. La durée moyenne des pauses et la durée moyenne de temps de parole entre ces pauses est plus variable chez les patients SLA.
(Green et al., 2013)	10 patients SLA sans trouble de parole, 10 patients SLA avec trouble de parole, 10 contrôles	Exploration préliminaire des différents étages de la parole à l'aide de données quantitatives	Le % de temps passé en pause par rapport au temps total de la lecture d'un texte est plus important dans la SLA en comparaison avec des contrôles.
(Yunusova et al., 2016)	101 patients dont 83 patients avec SLA, 9 patients avec démence fronto-temporale (DFT) sur un versant comportemental et 9 patients avec DFT sur un versant langagier (aphasie non fluente) et 32 contrôles. Les patients SLA sont regroupés en 4 groupes : 22 patients avec atteinte bulbaire, 25 patients avec atteinte respiratoire, 10 patients avec atteintes bulbaire + respiratoire, 28 sans atteinte bulbaire (spinal)	Temps de parole et durées et nombres des pauses dans un texte lu.	Comparés aux contrôles, seuls les patients SLA avec des troubles respiratoires (bulbaires et non bulbaires) ont des durées plus courtes de leurs continums de parole inter-pauses. Les patients SLA bulbaires sans atteinte de la respiration, ont donc des durées normales de leurs continums de parole inter-pauses. Tous les patients (sauf patients avec DFT comportementale) ont une variabilité plus importante de la durée de ces continums de parole inter-pauses comparée aux contrôles. En comparaison avec les contrôles, la durée cumulative des pauses et leurs nombres sont plus élevés chez les patients avec atteinte bulbaire (avec ou sans trouble respiratoire) et chez les patients avec DFT (versants comportemental et langagier). Le % de temps passé en pause par rapport au temps total de la lecture est normal chez les patients avec atteinte bulbaire sans trouble respiratoire. Par contre, il est plus élevé chez les patients avec atteinte bulbaire + respiratoire. La durée moyenne des pauses est identique dans tous les groupes. La variabilité de la durée des pauses est plus grande chez les patients avec atteinte bulbaire, qu'ils aient ou pas une atteinte respiratoire. Les débits de parole et articulatoire distinguent les groupes pathologiques entre eux avec des débits lents chez les patients avec atteinte bulbaire sans trouble respiratoire.
(Allison et al., 2019)	131 patients SLA regroupés en 4 degrés de sévérité de la dysarthrie : G1 = pas de trouble de parole évident (n = 72), G2 = débit ralenti mais intelligibilité intacte (n = 20), G3 = début de perturbation de l'intelligibilité (n = 28), et G4 = personnes ayant besoin d'un outil de communication (n = 11)	Durée totale de parole sans les pauses, durée totale des pauses (pauses > 250 ms) et durée des temps de phonation dans chaque phrase en fonction de la longueur des phrases et du groupe de sévérité	Effet de la longueur de la phrase sur la durée totale des pauses dans les G1&2 : la durée totale des pauses est plus longue dans le G2 comparé au G1
(Barnett et al., 2020)	775 échantillons de parole lue chez des patients SLA et 323 chez des contrôles	Méthode semi-automatique d'analyse des temps de pauses et de parole (Speech and Pause Analysis, SPA)	Détection des patients SLA à un stade pré-symptomatique de la progression bulbaire grâce au débit de parole plus lent et au nombre de pauses plus important
(Stipancic et al., 2021)	47 contrôles et 126 patients SLA regroupés en 3 sous-groupes cliniques (60 locuteurs bulbaires asymptomatiques, 38 locuteurs bulbaires symptomatiques avec intelligibilité intacte et 28 locuteurs bulbaires symptomatiques avec altération de l'intelligibilité).	Mesure du % des pauses dans la lecture d'un paragraphe	Pas de différence du % des pauses entre les deux groupes bulbaires symptomatiques mais différence de ces deux groupes avec les contrôles : un % de pauses plus élevé chez les locuteurs bulbaires symptomatiques que les contrôles.

Tableau 8 Revue de la littérature sur l'organisation du discours en termes des pauses et des continums de parole inter-pauses

Dans cette thèse, nous comparons entre nos populations plusieurs mesures relatives à la durée des pauses et des continums de parole entre les pauses mesurées dans la parole conversationnelle.

1.3. La caractérisation des profils dysarthriques : une histoire de dimensions et de tâches de parole

1.3.1. Définitions : la caractérisation d'un profil

Le terme « caractériser » signifie « définir avec précision, mettre en relief les caractères distinctifs, distinguer ; déterminer ; et reconnaître comme appartenant à une espèce ou à une classe ». Le terme de profil représente la « physionomie d'un individu, établie à partir de résultats de tests, de l'ensemble d'aptitudes, de qualités définissant cet individu » (*Dictionnaire Le Petit Robert*, en ligne). Caractériser un profil de parole, revient donc à mettre en relief les caractéristiques distinctives de la parole d'un locuteur appartenant à un groupe précis, à partir d'un ensemble de tests.

La dysarthrie est définie comme un trouble de la réalisation motrice de la parole, secondaire à des lésions du système nerveux central ou périphérique (Darley et al., 1975). Elle est donc le symptôme d'un dysfonctionnement neurologique. La dysarthrie peut être le symptôme inaugural d'une maladie neurodégénérative ou bien se développer de manière concomitante avec des dysfonctionnements touchant d'autres territoires que celui de la sphère oro-pharyngo-laryngée et respiratoire. Caractériser la dysarthrie a une valeur diagnostique puisqu'elle peut contribuer à affiner le diagnostic différentiel entre plusieurs maladies.

Comme le note Kent (R. D. Kent & Kent, 2000), élaborer des profils dysarthriques aide à décrire les similarités/différences de la parole entre plusieurs pathologies, de même que les variations entre des sous-groupes à l'intérieur d'un même type de dysarthrie. De plus, une description précise des profils dysarthriques contribue à identifier les altérations neuro-physio-pathologiques dans les sous-systèmes des mécanismes de la parole. La parole couvre des dimensions différentes tels que la voix, l'accord pneumo-phonatoire, la prosodie, l'articulation et la résonance, recrutant de manière concomitante trois différents étages du corps : la respiration (les muscles inspiratoires et expiratoires), la phonation (les cordes vocales) et l'articulation (lèvres, mâchoire, langue et voile du palais).

Enfin, explorer les profils dysarthriques soulève la question de la définition de ce que sous-entend la notion de « parole » et des tâches pour l'investiguer.

Nous allons aborder ces questions dans les sections qui suivent.

1.3.2. Le profil dysarthrique dans la SLA : un protocole de screening de tous les étages de la parole

Les troubles moteurs de la parole dans la SLA font l'objet, comme nous l'avons vu plus haut, d'un nombre important d'études.

Depuis une dizaine d'années, des équipes de cliniciens et chercheurs explorant les conséquences fonctionnelles de l'atteinte bulbaire, se sont regroupées afin d'établir un protocole d'évaluation de la parole spécifique à la SLA. La SLA peut toucher toutes les dimensions de la parole, de manière isolée ou concomitante. Ainsi ces équipes ont élaboré un protocole multi-instrumental pour explorer tous les étages/dimensions de la parole. Ce protocole est décrit par Yunusova (Yunusova et al., 2011) et nous rapportons son contenu dans le tableau ci-dessous. Des études utilisant ce protocole ont ensuite été publiées pour montrer son intérêt dans l'évaluation de l'atteinte bulbaire (Green et al., 2013) et dans le suivi longitudinal de la progression de l'atteinte bulbaire chez les patients présentant une SLA (Rong et al., 2015). Notons que pour cette dernière étude, la tâche des diadococinésies AMR /ba/, ne figurant pas dans le protocole initial, a été ajoutée.

ÉTAGE	MESURE	TÂCHE
Étage respiratoire	Mesures acoustiques et aérodynamiques à l'aide du système PAS (Phonatory Aerodynamic System). Un masque est sur le visage.	
	a- capacité vitale	Sans parole
	b- pression sous-glottique	Lors de la production de séries de 7 x /pa/ narines obturées
	c- la respiration durant la parole à l'aide du programme SPA (Speech Pause Analysis) qui détecte automatiquement les pauses, masque sur le visage (% du temps de pause est mesuré)	Durant la lecture d'un texte de 60 mots (Bamboo passage) développé spécifiquement pour réaliser de la détection automatique des pauses.
Étage phonatoire	Mesures acoustiques	
	Une série de mesures telles que le TMP et le programme MDVP (Multidimensional Voice Profile) réalise des mesures de f0, jitter, shimmer, HNR...) sur les 5 secondes se trouvant au milieu de la totalité du /a/ tenu	Sur un /a/ tenu le plus longtemps possible, narines obturées
Étage de la résonance	Mesure acoustique	
	Avec un nasomètre : deux micros détectent le signal acoustique au niveau de la bouche et du nez. L'intensité mesurée au niveau des deux signaux acoustiques (oral et nasal) est convertie en un score de nasalance (ratio de l'énergie nasal/énergie nasal+oral *100).	Dans la lecture des deux phrases (x 3) « Mama made some lemon jam » et « Buy Bobby a puppy ».
Étage articulaire	Mesures cinématiques en 3D et acoustiques	
	a) Mouvement des lèvres et de la mâchoire	Sur de la lecture des phrases : « Buy Bobby a puppy » ; say __ again (bat, tide, keep, tool)
	b) Mouvement de la langue	(/ta/ x 5 ; say doily again) avec un bite-block pour mesurer les mouvements de la langue indépendamment des mouvements de la mâchoire.

Tableau 9 Protocole d'évaluation de l'atteinte bulbaire dans la SLA mis au point par Yunusova (2011) et réalisant le profil dysarthrique des patients en fonction des altérations de ce que les auteurs de ce protocole appellent « les sous-systèmes » de la parole

Ce protocole global d'évaluation a pour objectif de caractériser le profil dysarthrique de locuteurs au travers de tous les étages de la parole au sein d'une même population. Comme le note Yunusova (Yunusova et al., 2011), l'objectif de ce protocole est aussi d'identifier les mesures les plus sensibles à

la détection de l'atteinte bulbaire, de détecter des variations dans les différents phénotypes de la SLA et de contribuer au diagnostic différentiel entre ces phénotypes.

1.3.3. La Parole : mais de quoi parle-t-on ?

Réaliser des profils dysarthriques soulève inévitablement la question de la notion de « parole », de « contrôle neurologique » et donc, des tâches de parole à proposer pour explorer le contrôle moteur de la parole. Ces tâches sont habituellement la répétition de mots, de non mots ou pseudomots, la lecture, la parole conversationnelle et les tâches de performance comme les diadococinésies. Il n'existe pas de consensus sur ce qu'est la parole (R. D. Kent, 2015). Par exemple, est-ce qu'une répétition la plus rapide possible de séquences de syllabes, composées d'une seule et unique syllabe comme dans /papapa/ (alternate motion rate en anglais ou « AMR »), ou composées de plusieurs syllabes comme dans /pataka/ (sequential motion rate ou « SMR » en anglais), est considérée comme une tâche de parole ? Pour certains auteurs, cette tâche est qualifiée en anglais de « quasispeech » ou « speechlike » alors que d'autres la qualifie de « nonspeech ». Ces notions sont donc mal définies dans les études (R. D. Kent, 2015) et chaque auteur a sa propre notion de ce qu'est la parole, créant des polémiques sur le contrôle moteur de la parole.

En effet, certains auteurs proposent un modèle de système moteur global dans lequel les processus moteurs de tous les gestes de la sphère orale (non verbaux, verbaux, véhiculant du sens ou non...) se chevauchent et s'inscrivent dans un continuum. C'est le modèle intégratif (Ballard et al., 2003). Au contraire, d'autres auteurs prônent un modèle dans lequel il existe une dichotomie entre ces processus moteurs en fonction des tâches : c'est le modèle du contrôle moteur spécifique en fonction de la tâche (Ziegler, 2002, 2003; Ziegler & Ackermann, 2013). En faveur de ce modèle, les études en imagerie cérébrale montrent des activations cérébrales spécifiques en fonction des tâches de parole produites. Ces études concluent que ces tâches de parole ne sont donc pas interchangeables dans l'interprétation des patrons d'activation neuronale (Munhall, 2001).

Parce que les deux notions de « parole » et « système moteur » ne sont pas bien définies, Maas (Maas, 2018) suggère que ce n'est pas parce qu'une étude montre qu'il existe, ou pas, des différences de mesures entre les tâches qu'il faut en conclure que ces tâches partagent un même système ou au contraire qu'elles sont contrôlées par des systèmes différents. Selon cet auteur, c'est en examinant les différences et les similarités entre toutes ces tâches, peu importe si on les considère parole ou non, que l'on nourrit la compréhension de toutes les facettes du contrôle moteur de la parole.

1.3.3.1. L'évaluation des diadococinésies est-elle informative dans la caractérisation des profils dysarthriques ?

Les tests des diadococinésies que l'on appelle communément les « DDK », sont couramment introduits dans les protocoles d'évaluation de la parole dysarthrique. Pour les raisons exposées dans la section précédente, elles sont controversées car certains auteurs les considèrent comme une tâche de « non parole » (Bunton, 2008; Ziegler, 2002) alors que d'autres suggèrent qu'elles partagent des caractéristiques communes avec la parole conversationnelle. Par exemple, le fait qu'elles aient un contenu phonétique et que leur débit syllabique soit proche de celui de la parole conversationnelle les place au rang de la « quasi parole » pour certains auteurs (Weismer, 2006). Kent (R. D. Kent et al., 1987) suggère qu'il revient finalement à chaque clinicien d'appréhender l'intérêt de les explorer, en fonction du rapport bénéfice attendu/temps à les faire passer.

D'un point de vue théorique, les adeptes d'un modèle défini par la spécificité du contrôle moteur en fonction de la tâche, les explorent souvent pour mettre en relief des différences de débit syllabique entre les tâches, entre les DDK et la lecture par exemple, pesant dans l'argumentation de l'existence d'un contrôle moteur spécifique à chaque tâche. Par exemple, les patients cérébelleux ont un débit syllabique beaucoup moins rapide dans les DDK (AMR et SMR) en comparaison avec une tâche de lecture (Ziegler et al., 2019) allant dans le sens d'une spécificité du contrôle moteur pour chacune de ces tâches. De même, Staiger (Staiger et al., 2017) montre des relations différentes entre les deux types de DDK (AMR et SMR) et une tâche de lecture chez des patients dysarthriques, réfutant l'idée que le contrôle moteur se comporte de la même manière dans toutes les tâches oro-motrices et prônant le modèle d'un contrôle moteur basé sur les tâches.

Alors, en quoi les DDK sont-elles informatives pour évaluer la parole pathologique ?

Tout d'abord, les DDK ont une valeur diagnostique. En effet, l'utilité des DDK dans le diagnostic différentiel a été démontrée pour déceler l'apraxie de la parole chez les enfants (G. Thoonen B. Maassen F. Gabreels R, 1999; Murray et al., 2015).

Ensuite, l'étude de la diversité des DDK a contribué à décrire trois profils dysarthriques différents en fonction de trois pathologies explorées : la SLA, la maladie de Parkinson et l'apraxie de la parole (Lancheros et al., 2022). Comme nous l'avons vu plus haut, il existe plusieurs types de DDK : les AMR testent un articulateur unique, par exemple les lèvres comme dans /bababa/, la pointe de la langue comme dans /dedede/ ou encore le dos de la langue, comme dans /gogogo/ ; et les SMR, composées de séquences de type /badego/ ou /pataka/, testent les capacités à passer rapidement d'un articulateur à un autre, avec précision. Dans beaucoup d'études, les DDK, sont regroupées et moyennées limitant les comparaisons par exemple entre la lecture et chacune des DDK individuelle. Pourtant, Lancheros (2022) a montré tout l'intérêt de mener des analyses séparées des diadococinésies en comparant, d'une part le débit articulatoire entre chacune des DDK AMR /bababa/, /dedede/ et /gogogo/ et le débit articulatoire dans la lecture, et d'autre part le débit articulatoire entre la DDK

SMR /badego/ et celui de la lecture (Lancheros et al., 2022). Cette étude montre trois profils dysarthriques différents : dans l'apraxie de la parole, le débit articulatoire dans les deux tâches de lecture et de DDK SMR, est plus lent que chez les contrôles, alors qu'il n'y a pas de différence de débit entre ces deux populations pour les DDK AMR. Dans la maladie de Parkinson, le débit articulatoire des patients est similaire à celui des contrôles dans les trois tâches, lecture, AMR et SMR. Dans la SLA, le débit est plus lent dans les trois tâches en comparaison avec les contrôles, sauf pour la DDK AMR /bababa/. Premièrement, cette étude montre qu'il est important de comparer les groupes pathologiques aux contrôles. Deuxièmement, chez les apraxiques, le fait que le débit syllabique soit altéré dans la lecture et la DDK SMR, mais pas dans les DDK AMR, justifie l'intérêt d'étudier les DDK séparément, et de ne pas toutes les moyenner. Enfin, les auteurs concluent que leurs résultats plaident en faveur d'un modèle de contrôle moteur s'intégrant dans un continuum, les DDK SMR semblant partager plus de propriétés avec la parole continue comme dans la lecture, que les DDK AMR.

Autre aspect important sur l'informativité des DDK dans la parole dysarthrique : dans son étude sur 7 patients dysarthriques présentant un traumatisme crânien, Wang (Y. Wang et al., 2004) montre une forte corrélation entre le débit syllabique dans les DDK AMR et une tâche de parole continue dans le discours spontané particulièrement chez les patients dysarthriques les plus sévères. Autrement dit, en comparant ces deux tâches, dont l'une a un contenu linguistique et nécessite un recrutement cognitif important (le spontané), et l'autre pas (les DDK), les résultats de cette étude suggèrent que le facteur limitant expliquant la similarité du débit dans ces deux tâches particulièrement chez les plus sévères, est l'aspect purement moteur, et non les aspects linguistiques et cognitifs. L'unique exploration de la parole continue dans le discours spontané n'aurait pas permis de faire de telles déductions.

1.3.3.2. L'intérêt d'étudier la tâche du spontané

Certes, les conditions d'étude de la parole en laboratoire s'éloignent des conditions de la parole dite naturelle. En effet, en fonction des questions de recherche de l'étude, il est souvent demandé aux locuteurs de parler avec des contraintes : parler avec un « bite block » entre les molaires, avec des capteurs collés sur la langue ou les lèvres, accélérer ou décélérer le débit, parler plus fort qu'à son intensité habituelle, adapter sa parole à un métronome, lire des mots qui n'ont pas de sens ou enchaîner le plus vite possible des séquences n'utilisant qu'un seul articulatoire.

Alors pourquoi ne pas explorer la parole dans son contexte le plus naturel, c'est-à-dire dans la parole dite spontanée ou conversationnelle ? L'obstacle principal de l'étude de la parole dans ce contexte est la variation du contenu linguistique d'un locuteur à l'autre, limitant le contrôle de l'expérimentation (Xu, 2010). De plus, le recrutement cognitif plus important qu'implique la parole spontanée versus la

lecture (Mitchell et al., 1996; Y.-T. Wang et al., 2010), ajoute un paramètre de variabilité supplémentaire, difficile à contrôler.

Pour toutes ces raisons, les études intégrant une tâche de parole spontanée ne sont donc pas très fréquentes. Ces études portent principalement sur l'exploration de la dimension prosodique et de l'organisation du discours avec des explorations concernant les variations de la fréquence fondamentale (f_0), les variations de l'intensité, les durées des groupes de souffle ou des continuums de parole, le nombre de mots par continuum de parole et les durées des pauses. La tâche de parole spontanée consiste la plupart du temps en un monologue du locuteur de 3 à 5 minutes, soit en réponse à des questions posées en amont par l'examineur, soit en la description d'une image.

Dans la SLA et la démence fronto-temporale (DFT), les études qui ont fait des corrélations entre les altérations prosodiques mesurées dans une tâche de conversation spontanée et des données d'imagerie cérébrale ont fait les constatations suivantes : les perturbations des variations de f_0 chez des patients bulbaires sont en lien avec un épaississement du cortex primaire moteur et des régions périsylviennes et les perturbations de la durée des pauses et des groupes de souffle chez des patients présentant une DFT sont en relation avec des atteintes au niveau des opércules frontaux bilatéraux et de l'insula antérieure gauche (Nevler et al., 2020).

Les études qui se sont penchées sur la parole spontanée nous montrent que comparés à des contrôles, les patients dysarthriques présentant une SLA ou des pathologies cérébelleuses, ont des paramètres prosodiques et une organisation du discours altérés dans la parole spontanée. On retrouve dans le discours spontané chez ces patients dysarthriques, une diminution des variations de la f_0 et de l'intensité, des groupes de souffle moins longs et un nombre plus réduit de mots par groupe de souffle (Bunton et al., 2000). Dans la maladie de Parkinson, la tâche de parole spontanée détecte mieux les problèmes de rythme dans la dysarthrie hypokinétique que la tâche de lecture (Lowit et al., 2018).

Enfin, certaines études s'appuient sur la tâche du spontané pour étudier la précision articulatoire ou comparer les mouvements des articulateurs entre différentes tâches. Par exemple, l'étude de Staiger (Staiger & Ziegler, 2008) a révélé que la structure et la fréquence syllabique dans la parole spontanée jouent un rôle important dans la précision articulatoire chez des patients présentant une apraxie de la parole. Enfin, Tasko (Tasko & McClean, 2004) a montré que l'amplitude des articulateurs est plus grande dans la production d'une phrase non porteuse de sens en comparaison avec les autres tâches, dont le spontané.

Dans cette thèse, les profils dysarthriques sont réalisés en comparant les populations présentant une dysarthrie entre elles et avec les contrôles, à l'aide de mesures recueillies dans différentes tâches de parole et couvrant différentes dimensions : la voix, la coordination pneumo-phonatoire, l'articulation d'un point de vue perceptif et acoustique, le débit articulatoire dans des tâches de performance (DDK AMR et SMR), de lecture et d'un monologue spontané.

1.4. A quoi sert cette thèse ?

Le manque de biomarqueurs validant l'implication de l'atteinte du motoneurone central versus l'atteinte du motoneurone périphérique dans la SLA, constitue un frein dans la pose d'un diagnostic et dans l'inclusion des patients dans des protocoles thérapeutiques (Bede & Pradat, 2019). La MK et la SLP peuvent être diagnostiquées à tort comme une SLA, du moins au début de la maladie. Une distinction correcte et précoce entre ces maladies est de la plus haute importance car l'espérance de vie est beaucoup plus longue dans la SLP (Pringle et al., 1992) et dans la MK (Atsuta et al., 2006) que dans la SLA (Logroscino et al., 2008). Il est crucial de trouver des outils objectifs et fiables pour aider au diagnostic différentiel neurologique, pour monitorer et prédire la progression de la maladie dans les maladies du motoneurone.

Nous pensons que l'étude de la parole peut contribuer à affiner ces objectifs. Étant donné que la dysarthrie est vraisemblablement spastique uniquement dans la SLP et flasque uniquement dans la MK, ces deux populations fournissent des modèles a priori purs de la perturbation du contrôle moteur de la parole dans ces pathologies. En effet, la distinction correcte entre la dysarthrie spastique, la dysarthrie flasque et la dysarthrie mixte (spastique et flasque) associée à la SLA, peut aider au diagnostic différentiel neurologique.

L'objectif principal de cette thèse est d'identifier des marqueurs acoustiques discriminant les trois populations présentant une dysarthrie de la population contrôle, et des marqueurs acoustiques spécifiques distinguant la parole des trois populations présentant une dysarthrie entre elles.

Le chapitre qui suit présente les populations étudiées dans cette thèse, le matériel linguistique utilisé et les descripteurs de parole étudiés. Les chapitres suivants correspondent chacun à l'étude d'une dimension de la parole : la voix et la coordination pneumo-phonatoire, l'articulation au travers de deux études perceptive et acoustique, les aspects temporels de la parole et l'organisation du discours. Les questions de recherche, objectifs et hypothèses pour chacune de ces dimensions sont présentés en début des chapitres. Sont présentés dans la suite de chaque chapitre les résultats et une synthèse des résultats. Une discussion générale permettra premièrement, de dresser les trois profils dysarthriques dans ces trois maladies du motoneurone. Cette identité dysarthrique n'a encore jamais été décrite dans la MK et dans la SLP. Ces données constitueront donc une base ouvrant des perspectives pour approfondir la connaissance du profil dysarthrique dans ces maladies. Deuxièmement, nos résultats ouvrent la discussion sur l'impact de chacune des atteintes motoneuronales, isolée et mixte, sur la parole, alimentant les données de la littérature sur la typologie des dysarthries flasque, spastique et mixte (spastique et flasque).

CHAPITRE 2. Méthode : des populations, du matériel linguistique et des descripteurs de parole

2.1. Les populations et leur enregistrement

2.1.1. La population présentant une dysarthrie

Dans cette thèse, nous explorons la parole dysarthrique de 71 patients diagnostiqués avec des maladies du motoneurone inclus dans le cadre de l'étude Speech-ALS (code projet NI17040J), IDRCB : 2017-A03151-52). Au total, 36 patients présentant une SLA, 17 patients ayant un diagnostic de SLP, et 18 patients un diagnostic de MK ont été inclus. La langue maternelle des patients est le français. Les patients sont originaires de différentes régions de France. Néanmoins, aucun patient ne présentait d'accent régional très marqué. La liste complète des patients et leur description clinique figurent en annexes.

Comme nous allons le décrire plus tard, les patients ont été enregistrés sur un certain nombre de tâches, en une seule session. Du fait de leur fatigabilité, deux ou trois patients n'ont pu être enregistrés sur l'ensemble du matériel linguistique, certaines tâches étant plus longues que d'autres. En fonction des tâches, entre 68 et 71 patients ont donc été enregistrés.

Tous les patients ont été diagnostiqués par des neurologues du "Centre expert SLA et autres maladies rares du motoneurone", à l'hôpital universitaire de la Pitié-Salpêtrière (Paris, France). Les patients atteints de SLA ont été diagnostiqués selon les critères d'El Escorial révisés lors de la conférence d'Airlie House de 1998 (Brooks et al., 2000). Les patients présentaient une SLA "probable" ou "définie". Les patients présentant une SLP ont été diagnostiqués sur la base des critères consensuels de diagnostic (Gordon et al., 2006; M. R. Turner et al., 2020) et présentaient une SLP "probable" ou "définie". Les critères consensuels de diagnostic de SLA et de SLP figurent en annexes. Les patients atteints de MK ont été diagnostiqués sur la base du test génétique, ciblant la recherche d'une expansion pathologique de répétition de triplets cytosine-adénine-guanine (> 38 répétitions CAG) dans le gène du récepteur aux androgènes.

Le protocole de l'étude, incluant le recrutement des participants, la gestion des données, les formulaires de consentement et les brochures d'information, a été approuvé par le comité d'éthique CPP Sud-Est III (CPP n°2018-003 B), ClinicalTrial.gov ID : NCT03560661. Avant l'inclusion dans l'étude, tous les participants ont signé un consentement éclairé.

Critères d'inclusion et d'exclusion dans l'étude

Pour être éligibles à l'inclusion dans cette étude, les patients devaient :

- Présenter des signes fonctionnels d'atteinte bulbaire : la présence de signes fonctionnels d'atteinte bulbaire a été évaluée par une orthophoniste expérimentée (auteure de cette thèse) à l'aide du sous-score bulbaire de l'ALS Functional Rating Scale-Revised (ALSFRRS-R) (Cedarbaum et al., 1999). Cette échelle figure en annexes. Le sous-score bulbaire reflète le handicap fonctionnel en lien avec l'atteinte de la sphère bulbaire, au travers de trois dimensions : la parole, la salivation et la déglutition. Ces trois dimensions sont cotées sur une échelle à 5 points, de 0 (= déficit sévère) à 4 (= fonction normale), ce qui donne un sous-score bulbaire maximum de 12 s'il n'y a aucun déficit fonctionnel au niveau du territoire bulbaire. Les patients étaient donc éligibles à l'inclusion dans cette étude à partir du moment où le sous-score bulbaire était égal ou inférieur à 11, indiquant une altération de la fonction oro-pharyngo-laryngée.
- Présenter perceptivement une dysarthrie légère à modérée : la sévérité de la dysarthrie a été évaluée à l'aide du score perceptif (SP) de la Batterie d'Évaluation Clinique de la Dysarthrie (BECD) (Auzou & Rolland-Monnoury, 2006). Le SP est un score composite couvrant l'évaluation perceptive de cinq dimensions de la parole : l'intelligibilité, le caractère naturel de la parole, la prosodie, la qualité de la voix et la précision articulatoire. Chaque dimension est évaluée sur une échelle à 5 points : 0 = normal, 1 = altération légère, 2 = altération modérée, 3 = altération sévère, et 4 = altération très sévère. La somme totale/20 indique la sévérité de la dysarthrie, selon l'attribution des groupes de sévérité proposés dans la BECD. Pour être éligibles à l'inclusion, les patients devaient présenter un SP compris entre 1 et 13/20 (1-6 = dysarthrie légère et 7-13 = dysarthrie modérée).

Procédure d'évaluation de la sévérité de la dysarthrie

- La sévérité de la dysarthrie a été évaluée par deux orthophonistes expérimentées, à l'écoute d'échantillons de parole conversationnelle de 3 à 5 minutes. L'une des orthophonistes (l'auteure de cette thèse) a évalué le SP, au cours de la session de l'enregistrement des patients. La seconde orthophoniste a effectué les cotations sur les enregistrements des mêmes échantillons de parole conversationnelle. Le diagnostic des patients était connu des deux orthophonistes avant de commencer leur cotation perceptive.

Des corrélations intra-classes (ICC) ont été utilisées pour calculer la fiabilité inter-juges du score SP (Koo & Li, 2016). Les estimations des ICC et leurs intervalles de confiance (IC) à 95 % ont été calculés dans R (R Core Team, 2020), sur la base de la concordance absolue, en utilisant le

modèle à deux facteurs à effets aléatoires et l'unité « évaluateur unique » (single rate en anglais). La fiabilité globale entre les deux évaluateurs est excellente, avec une valeur supérieure à 0,90 (ICC = 0,94, $p < 0,0001$, IC à 95 % [.91 < ICC < 0,96]). Pour la SLA et la SLP, la fiabilité est également excellente (ICC = .94, $p < .0001$, 95% CI [.87 < ICC < .97] et ICC = .97, $p < .0001$, 95% CI [.92 < ICC < .99], respectivement). Pour la MK, la fiabilité est bonne (ICC = 0,89, $p < 0,0001$, IC 95 % [.72 < ICC < 0,96]). Sur la base de ces niveaux élevés de fiabilité inter-juges, les scores SP des deux juges ont été moyennés.

- Les sujets étaient non éligibles à l'inclusion s'ils présentaient des signes évidents de déficience cognitive et/ou de dysfonctionnement diaphragmatique (essoufflement à l'effort et à la parole, essoufflement au repos) selon l'examen clinique de routine réalisé par le neurologue du centre expert SLA.

Le tableau 10 présente la population présentant une dysarthrie et ses données cliniques. Comme le montre le sous-score bulbaire de l'ALSFRS-R, la population est assez homogène en termes de signes fonctionnels d'atteinte bulbaire. Cependant, même si des cas de dysarthrie légère et modérée étaient présents dans tous les sous-groupes, les locuteurs du groupe MK présentent un degré de sévérité de la dysarthrie plus léger dans l'ensemble, ce qui se vérifie dans la pratique clinique.

Groupe pathologique	N (m/f)	Age M (ET) [étendue]	Durée moyenne d'évolution de la maladie (mois) et [étendue]	Score perceptif (BECD)		Sous-score bulbaire (ALSFRS-R)		Type de la dysarthrie
				M (ET) [étendue]	M (ET) [étendue]	M (ET) [étendue]	M (ET) [étendue]	
MK	18 (18/0)	63.56 (12.28) [43-85]	150.61 [48-408]	5.29 (2.75) [2-13]	9.33 (1.19) [7-11]	9.33 (1.19) [7-11]	9.33 (1.19) [7-11]	Flasque
SLA	36 (21/15)	63.53 (10.43) [36-86]	40.03 [5-298]	7.83 (3.22) [2.5-13.5]	9.03 (1.28) [6-11]	9.03 (1.28) [6-11]	9.03 (1.28) [6-11]	Mixte
SLP	17 (10/7)	67.18 (8.18) [55-88]	125.59 [36-360]	7.65 (3.56) [1.5-14]	8.94 (1.25) [6-11]	8.94 (1.25) [6-11]	8.94 (1.25) [6-11]	Spastique

Tableau 10 Description des données cliniques pour la population présentant une dysarthrie : sexe (N (m/f) : nombre d'hommes et de femmes) ; âge (moyenne (M), écart type (ET), et étendue) ; durée moyenne d'évolution depuis le début de la maladie en mois ; score perceptif de la BECD ; sous-score bulbaire de l'ALSFRS ; et sous-type de la dysarthrie. (Notes : m = masculin ; f = féminin ; BECD = Batterie d'Évaluation Clinique de la Dysarthrie ; ALSFRS = ALS Functional Rating Scale-Revised ; MK = Maladie de Kennedy ; SLA = Sclérose Latérale Amyotrophique ; SLP = Sclérose Latérale Primitive). Le type de la dysarthrie (flasque, mixte, ou spastique) de chaque patient a été déterminé par l'auteure de cette thèse, sur la base des caractéristiques de la parole correspondant à chaque sous-type de dysarthrie de la classification de Darley (Darley et al., 1969a)

2.1.2. La population contrôle

La population contrôle est constituée de locuteurs neurotypiques, originaires de Suisse, de Belgique et de France. La langue française est leur langue maternelle. Bien qu'originaire de pays francophones différents, les locuteurs ne présentaient pas, ou peu, d'accent régional. Nous avons sélectionné la majorité des contrôles dans la base de données *MonPaGe_HA* (*HA = Healthy Adults*) (Fougeron et al., 2018). Cette base de données a été utilisée pour la validation et la normalisation de l'outil informatisé *MonPaGe* (Laganaro et al., 2021) dont est extrait la plupart du matériel linguistique exploré dans cette thèse. Pour deux tâches, que nous détaillons plus loin, d'autres contrôles ont été sélectionnés dans les

bases de données constituées dans le cadre des projets MoSpeeDi (subside FNS CRSII5_173711/1) et Speech 'N Co (ID-RCB : 2019-A02553-54). Ainsi, trois groupes de contrôles, A, B et C, ont été constitués, en fonction des besoins d'appariement en âge et en sexe avec les patients et en fonction des tâches enregistrées disponibles. Le tableau 11 présente les trois groupes de contrôles et les tâches et dimensions de parole pour lesquelles ils ont été enregistrés. Ces tâches seront détaillées plus tard dans la section 2.2.

- Groupe A enregistré sur le matériel linguistique issu de la version MonPaGe 2.0.s : 109 contrôles de langue maternelle française ont été sélectionnés de manière à ce que la majorité des patients soit appariée en sexe et en âge avec un ou deux contrôles. Ces participants ont été recrutés dans trois pays francophones : Mons, Belgique (n = 24), Genève, Suisse (n = 28), et Paris, France (n = 57). Le recrutement des contrôles pour la participation au projet MonPaGe a été soutenu par le programme « Investissements d'Avenir » ANR-10-LABX-0083 (Labex EFL) pour les locuteurs français, le programme Sinergia du Fond National Suisse de la Recherche Scientifique (subside CRSII5_173711/1) pour les locuteurs suisses, et le Fond National de la Recherche Scientifique (Belgique) pour les locuteurs belges.
- Groupe B recruté pour l'étude acoustique de la dimension articulatoire étudiée dans le chapitre 4 de cette thèse : 70 contrôles francophones ont été recrutés en France (n = 40) et en Suisse (n = 30).
- Groupe C recruté pour l'étude de l'organisation du discours dans la parole spontanée, présentée dans le chapitre 6 : 50 locuteurs francophones ont été recrutés en France (n = 32) et en Suisse (n = 18).

Ces deux derniers groupes, B et C, ont été recrutés dans le cadre des projets MoSpeeDi (subside FNS CRSII5_173711/1) et Speech'N Co (ID-RCB : 2019-A02553-54). Leur recrutement dans ces projets a été approuvé par la Commission Cantonale d'Ethique de la Recherche - 2018-00212 (Suisse) pour les locuteurs suisses et par le CPP Sud-Ouest et Outre-Mer (ID_RCB : 2019-A02553-54 ; France) pour les locuteurs français.

Groupe contrôles	de	N (m/f)	Age M (ET) [étendue]	Dimensions et/ou tâches	N° du chapitre de la thèse traitant cet aspect
A		109 (73/36)	63.49 (12.28) [33-88]	Dimension voix et coordination pneumo-phonatoire ; Dimension temporelle dans les tâches de performance et la lecture.	Chapitre 3 Chapitre 5
B		70 (29/41)	58.10 (20.02) [23-90]	Dimension acoustique de l'articulation : les glides	Chapitre 4
C		50 (24/26)	67.48 (14.83) [33-94]	Dimension temporelle dans le spontané ; Dimension de l'organisation du discours	Chapitre 5 Chapitre 6

Tableau 11 Présentation des trois groupes de contrôle : N (m/f) = nombre de participants inclus dans l'étude, m = les hommes et f= les femmes ; Age : M = la moyenne, ET = l'écart type, l'étendue = âge minimal et maximal ; dimensions et tâches de parole enregistrées dans chaque groupe ; chapitre dans lequel est étudié la dimension ou la tâche de parole mentionnée

2.1.3. Les conditions d'enregistrement

Tous les locuteurs dysarthriques inclus dans cette thèse ont été enregistrés par le même examinateur, l'auteur de cette thèse, en une seule session. L'enregistrement a été réalisé dans un bureau calme de l'hôpital de la Pitié-Salpêtrière. Comme nous l'avons vu plus haut, les contrôles ont été sélectionnés dans des bases de données en lien avec des projets différents. De ce fait, les contrôles explorés dans cette thèse ont été enregistrés dans des sites différents et par des examinateurs différents. Ces examinateurs étaient pour la plupart des étudiants en orthophonie formés à la réalisation de ces enregistrements.

Un matériel d'enregistrement de haute qualité, se composant d'une carte externe Focusrite Scarlett (2i4) et d'un microphone-casque professionnel Shure SM35-XLR positionné approximativement à 3 cm de la bouche, a été utilisé pour les patients dysarthriques et la majorité des contrôles. Cependant, en fonction des sites, différents microphones externes ont pu être utilisés pour les contrôles.

Le matériel linguistique défile sur l'écran de l'ordinateur. Les locuteurs sont donc assis devant l'ordinateur et suivent les consignes affichées sur l'écran, guidés par les examinateurs.

Tous les locuteurs suivent le protocole d'enregistrement MonPaGe. Les informations relatives à ce protocole et les documents téléchargeables nécessaires à sa passation, sont présentés sur le site dédié à cet outil d'évaluation de la parole (<https://lpp.in2p3.fr/monpage/>).

2.2. Le matériel linguistique : les sept tâches de parole explorées et les consignes aux locuteurs

La grande majorité du matériel linguistique utilisé dans cette thèse est intégrée dans les différents modules de la version 2.0.s. de l'outil informatisé MonPaGe. Cet outil informatisé a été normalisé et validé afin d'obtenir un screening des troubles moteurs de la parole, basé sur une évaluation qualitative et quantitative de différents aspects de la parole (Fougeron et al., 2016, 2018; Laganaro et al., 2021; Pernon et al., 2020; Trouville et al., 2021).

Principes généraux du protocole MonPaGe

MonPaGe a été conçue sous la forme de deux applications : les applications « MonPaGe_Passation » et « MonPage_Cotation ». Les tâches de parole sont regroupées par module et sont présentées via l'application « MonPaGe_Passation ». Les consignes écrites pour chacune des tâches sont présentées sur l'écran de l'ordinateur, module par module. Elles peuvent être complétées ou non de modèles audios, en fonction des tâches. Les locuteurs, guidés par l'examineur, suivent les consignes qui

s'affichent au fur et à mesure sur l'écran. L'application permet l'enregistrement des productions et leur stockage dans l'ordinateur.

A l'aide de procédures semi-automatiques guidées sous Praat® (Boersma & Weenink, 2023), l'application « MonPaGe_Cotation » permet ensuite la segmentation de la fenêtre d'analyse contenant l'enregistrement de la tâche, l'annotation et l'extraction automatique des descripteurs de parole à exploiter.

Les cinq premières tâches de parole explorées dans cette thèse décrites ci-après, sont intégrées dans la version MonPaGe 2.0.s. Les deux dernières tâches sont intégrées dans une version de recherche du protocole MonPaGe-MoSpeeDi (projet MoSpeeDi, subside FNS CRSII5_173711/1).

2.2.1. La production d'un /a/ court (étude sur la voix dans le chapitre 3)

La consigne est de produire un /a/ durant au moins 2 secondes à hauteur et intensité vocales confortables pour le locuteur. Un modèle audio est présenté en même temps que la présentation de la consigne.

2.2.2. La production du temps maximum de phonation sur un /a/ tenu (TMP) (étude sur la voix dans le chapitre 3)

La consigne est de produire un /a/, le plus longtemps possible sur une seule expiration, après avoir pris une bonne inspiration, à hauteur et intensité vocales confortables. Un modèle audio est également présenté. La consigne est de produire deux /a/ tenu.

2.2.3. La lecture d'une phrase (étude sur la voix du chapitre 3 et sur les aspects temporels du chapitre 5)

La consigne pour le locuteur est de lire la phrase déclarative « Mélanie vend du lilas ».

2.2.4. La production de « diadococinésies » (DDK) (étude sur les aspects temporels, chapitre 5)

Le module « diadococinésies » de la version 2.0.s. de MonPaGe propose l'enregistrement de différents types de DDK, de complexité phonologique différente. Ces DDK comprennent des séquences composées de syllabes CV (Consonne, Voyelle) et CCV (Consonne, Consonne, Voyelle), habituellement utilisées pour tester la précision et la vitesse des mouvements alternatifs des articulateurs. Pour les nommer, nous utiliserons les acronymes AMR_CV et AMR_CCV faisant

référence au terme anglais « Alternate Motion Rate » et la SMR_CV pour reprendre le terme anglais « Sequential Motion Rates ».

La consigne au locuteur est de répéter les séquences articulatoires, de manière continue et sur une seule expiration durant au moins 4 secondes, le plus rapidement et le plus précisément possible. Un modèle sonore est également proposé lors de l'exposition de la consigne.

Les DDK suivantes ont ainsi été enregistrées :

- Les AMR_CV : elles sont constituées de trois séquences de syllabes CV dont les consonnes, associées à des voyelles homorganiques, varient en termes de lieu d'articulation : labiale, coronale et vélaire. Ces AMR_CV permettent d'estimer les mouvements alternatifs des différents articulateurs :
 - [bababa] évalue le complexe mâchoire/lèvres,
 - [dedede] teste la pointe de la langue,
 - [gogogo] teste le dos de la langue.
- Les AMR_CCV : elles sont constituées des séquences [klaklakla] et [tʁatʁatʁa]. Elles permettent de cibler les constriction et les mouvements antéro-postérieurs de la langue sur une séquence plus complexe que dans la syllabe CV, dans la mesure où la syllabe CCV comporte un cluster consonantique en attaque.
- Enfin, la DDK SMR_CV est une DDK séquentielle. Elle est composée des trois syllabes CV alternantes [badego].

2.2.5. La production de « pseudo-mots » (étude sur les mesures perceptives de l'articulation, chapitre 4)

Les pseudo-mots sont extraits du module du même nom de la version 2.0.s. de MonPaGe. Le but de ce module est d'évaluer perceptivement la précision articulatoire de la plupart des consonnes, des voyelles et des clusters consonantiques du français. Seules les productions des patients ont été traitées dans cette thèse.

La consigne pour les locuteurs est de lire les formes orthographiques de 50 pseudo-mots qui sont présentés un par un à l'écran. Pour éviter toutes erreurs de déchiffrage, un modèle audio est présenté en même temps que la présentation de la forme orthographique.

Ces pseudo-mots respectent la phonotactique du français. Le choix des pseudo-mots permet d'étudier la précision articulatoire de 151 stimuli en fonction de la manipulation de différents facteurs tels que la complexité phonétique et phonologique, la structure syllabique (CV, CCV, CCCV), la position de la syllabe dans le mot (position initiale, médiane ou finale) et la longueur des mots (mots tri-syllabiques et quadri-syllabiques). Les pseudo-mots sont présentés aux locuteurs dans un ordre de complexité croissante.

Description des 50 pseudo-mots :

- La précision segmentale de 18 consonnes simples /p, b, m, f, v, t, d, n, l, s, z, ʃ, ʒ, k, g, ʁ, j, w/ a été évaluée dans les pseudo-mots présentés dans le tableau 12. Dans ces pseudo-mots, chaque consonne apparaît en position initiale de mots, et est suivie de la même voyelle V1 = /a/. Un deuxième exemplaire de chacune de ces consonnes apparaît en position médiane du mot et la voyelle qui suit varie. Un troisième exemplaire apparaît en coda finale de mot uniquement pour les 5 consonnes /t, d, s, z, ʁ/. Au total, 41 stimuli consonantiques sont testés par locuteur.

Consonnes simples	Position initiale +V = /a/	Position médiane + V variées	Position en coda finale de mot
/p/	padan	faposse	
/t/	tabon	yatu	damette
/k/	kablan	blanka	
/b/	bayeu	tabon	
/d/	damette	padan	yaouid
/g/	ganain	magou	
/f/	faposse	rafau	
/s/	sajau	zassain	faposse
/ʃ/	chasplé	splécha	
/v/	vastra	strava	
/z/	zassain	nazor	jaruz
/ʒ/	jaruz	sajau	
/l/	laspé	spéla	
/m/	magou	damette	
/n/	nazor	ganain	
/ʁ/	rafau	jaruz	nazor
/j/	jatu	bayeu	
/w/	ouaneu	yaouid	

Tableau 12 Pseudo-mots dans lesquels la précision segmentale des consonnes simples en position initiale, médiane et finale, a été évaluée.

- La précision articuloire des 11 consonnes et glides /t, d, k, f, ʃ, s, z, m, n, w, j/ a également été explorée en fonction de la longueur et de la complexité des pseudo-mots (tableau 13). Au total, 27 cibles consonantiques sont jugées au travers de 8 pseudo-mots, dont 5 pseudo-mots tri-syllabiques et 3 pseudo-mots quadri-syllabiques. Ces pseudo-mots varient donc en termes de longueur et sont supposés varier également en termes de complexité. Leur complexité est définie par le nombre de syllabes les composant, leurs structures syllabiques, le nombre de consonnes et de voyelles à planifier et l'alternance des traits phonologiques requis pour les produire.

Mot	Nombre de phonèmes	Nombre de syllabes	Structure syllabique	Nombre de phonèmes à planifier	Alternance de traits phonologiques	Jugement perceptif
dadada	6 phonèmes	Tri-syllabique	CV.CV.CV	1 C et 1V	Aperture	Sur les 3 /d/
tatata	6 phonèmes	Tri-syllabique	CV.CV.CV	1 C et 1V	Aperture et voisement	Sur les 3 /t/
kitoukitou	8 phonèmes	Quadri-syllabique	CV.CV.CV.CV	2C et 2V	Voisement, lieu, arrondissement	Sur les 2 /k/ et /t/
ouiouiou	6 phonèmes	Tri-syllabique	GV.GV.GV	1G et 1V	Lieu et arrondissement	Sur les 3 glides
dayaza	6 phonèmes	Tri-syllabique	CV.GV.CV	2C, 1G, 1V	Aperture et lieu	Sur /d/, /j/ et /z/
takadacha	8 phonèmes	Quadri-syllabique	CV.CV.CV.CV	4C et 1V	Aperture, voisement, lieu, mode	Sur /t/, /k/, /d/ et /ʃ/
fichoussu	6 phonèmes	Tri-syllabique	CV.CV.CV	3C et 3V	Lieu et arrondissement	Sur /f/, /ʃ/ et /s/
ménabainban	8 phonèmes	Quadri-syllabique	CV.CV.CV.CV	4C et 4V	Nasalité, lieu, mode	Sur /m/, /n/ et les deux /b/

Tableau 13 Liste des 8 pseudo-mots utilisés pour explorer l'effet de la longueur et de la complexité sur la précision segmentale.

- La précision articulatoire des voyelles /i, y, e, ø, ε, a, ɔ, o, u, ɔ̃, ê, ã/ a été évaluée dans les pseudo-mots présentés dans le tableau 14. Deux exemplaires de chaque voyelle sont évalués en position V2, c'est-à-dire dans la deuxième syllabe du mot (sauf pour /u/ et /ε/ qui n'apparaissent qu'en un seul exemplaire). Au total, 22 stimuli sont testés par locuteur.

Phonème vocalique	Exemplaire #1	Exemplaire #2
/ø/	bayeu	ouaneu
/ē/	ganain	zassain
/ɔ̃/	nazor	faposse
/a/	spela	spila
/ū/	padan	kablan
/e/	laspe	chasple
/ε/	damette	
/i/	laspi	chaspli
/o/	rafau	sajau
/ɔ̃/	tabon	kablon
/u/	magou	
/ɲ/	yatu	jaruz

Tableau 14 Pseudo-mots dans lesquels la précision segmentale des voyelles a été évaluée.

- Enfin, la précision articulatoire des clusters CCV et CCCV a été explorée dans les pseudo-mots présentés dans le tableau 15. Quatre exemplaires de chacun des 4 clusters /sp/, /bl/, /stʁ/ et /spl/ ont été évalués : deux exemplaires sont localisés en onset de mot et deux exemplaires en position coda du mot. Au total 16 stimuli sont testés par patient.

	Cluster	Onset de mot	Coda de mot
CC	/sp/	spela, spila	laspe, laspi
	/bl/	blanka, blonka	kablan, kablon
CCV	/stʁ/	streva, strava	vastra, vastre
	/spl/	splicha, splecha	chaspli, chasple

Tableau 15 Pseudo-mots dans lesquels a été évaluée la précision articulatoire des clusters produits en onset et en coda de mot.

2.2.6. La production de séquences de glides (étude sur les mesures acoustiques de l'articulation et les mesures temporelles, chapitre 4 et 5)

Cette tâche est constituée de trois séquences différentes composées de trois répétitions d'une même syllabe :

Deux séquences composées d'une voyelle suivie d'une glide : /ajajaj/ et /ujujuj/.

Une séquence composée d'une glide suivie d'une voyelle : /wiwiwi/.

Ces séquences, porteuses de sens en français, ont été sélectionnées car elles induisent, par une répétition continue de trois syllabes identiques, des modifications successives et alternantes du conduit vocal, entraînant des résonances continues dont les mouvements acoustiques sont facilement traçables. Par exemple, le passage de la voyelle vers la glide dans la séquence /ajajaj/, entraîne des modifications de degré d'aperture du conduit vocal. Ces modifications sont provoquées par les mouvements de la mâchoire et/ou de la langue. Sur le plan acoustique, ces modifications survenant durant la transition entre les deux segments génèrent des renforcements de la résonance dans les basses fréquences (région

de F1). En revanche, les séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/ engendrent des mouvements antéro-postérieurs de la langue et une alternance de l'arrondissement/étirement des lèvres. Dans ces séquences, les mouvements acoustiques se situent dans la région des moyennes fréquences (région de F2), comme on peut l'observer par exemple dans la représentation spectrographique de la production de la séquence /ujujuj/ d'un locuteur présentant une SLA sur la figure 3.

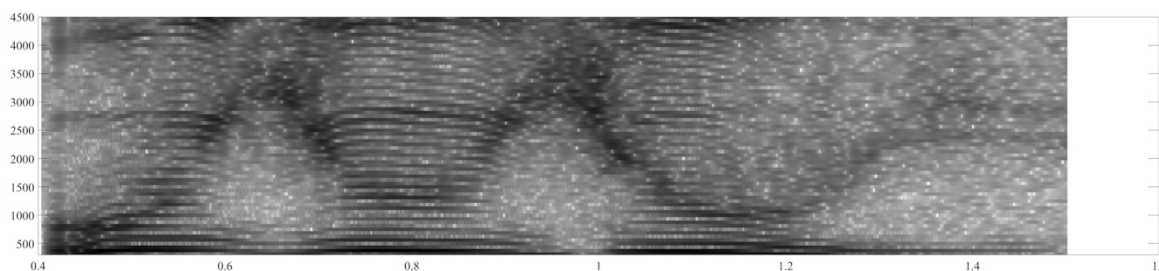


Figure 3 Représentation spectrographique de la séquence /ujujuj/ produite par un locuteur présentant une SLA. Sur ce spectrogramme, on observe clairement les mouvements de F2, reflétant les mouvements antéro-postérieurs de la langue, nécessaires à la production Représentation spectrographique de la séquence /ujujuj/ produite par un locuteur présentant une SLA. Sur ce spectrogramme, on observe clairement les mouvements de F2, reflétant les mouvements antéro-postérieurs de la langue, nécessaires à la production de la séquence /ujujuj/. Au démarrage de la séquence, F2 est bas, reflétant une position postérieure de la langue lors de la production de la voyelle /u/. Puis on observe une élévation de F2, lorsque la langue va s'antérioriser pour produire le son /j/, puis un abaissement de F2 pour revenir à la production de /u/, et ainsi de suite sur toute la durée de la séquence.

Les formes orthographiques « aïe, aïe, aïe », « ouille, ouille, ouille » et « oui, oui, oui » sont présentées sur l'écran de l'ordinateur. La consigne aux locuteurs est de lire ces séquences à haute voix de manière continue, c'est-à-dire sans faire de pause entre chaque syllabe, à un débit habituel et à une intensité confortable. Un modèle audio est présenté lors de l'exposition de la consigne écrite. Chacune des séquences est présentée quatre fois (n = 12 séquences par locuteur) et les séquences sont présentées dans le même ordre pour tous les locuteurs.

2.2.7. La parole spontanée (étude sur l'organisation du discours, chapitre 6, sur les mesures temporelles, chapitre 5)

L'échantillon de discours spontané a été recueilli sur la réponse la plus détaillée possible à deux questions ouvertes posées par l'examineur, avant de démarrer l'enregistrement :

- Question 1 : « Qu'avez-vous fait comme études et comme métier ? » ou « qu'avez-vous fait lors de vos dernières vacances/week-end/semaine ? »
- Question 2 : « Quelle est votre recette de l'omelette ? ».

2.3. Les descripteurs par dimension de la parole

Les sept tâches de parole explorées dans cette thèse couvrent l'étude de quatre dimensions de parole : la voix, la précision articulatoire, les aspects temporels de la parole, et l'organisation du discours, en termes de durée des pauses et des continuums de parole. Un récapitulatif des tâches, dimensions et descripteurs étudiés dans cette thèse, est présenté dans la sous-section 2.3.5.

2.3.1. Les descripteurs de la voix (étudiée dans le chapitre 3)

2.3.1.1. La qualité de la voix sur les deux premières secondes d'un /a/

Les variables de *jitter_aa*, *shimmer_aa*, *HNR_aa* et *SD_Pitch_aa* décrites ci-après sont extraites des deux premières secondes de la production d'un /a/ tenu. Nous avons choisi d'extraire ces variables car elles sont couramment utilisées dans la littérature pour détecter la dysphonie.

La procédure d'analyse semi-automatique guidée sous Praat, intégrée dans MonPaGe, permet la segmentation de la fenêtre d'analyse de cette tâche de la façon suivante : l'examineur ajuste manuellement les frontières de manière à ne conserver que le /a/ pour l'analyse, c'est-à-dire éliminer tous les sons éventuellement produits avant et après le /a/. Une fois l'intervalle délimité, le script intégré dans l'outil sélectionne 2 secondes à partir du début de l'intervalle.

- « ***Jitter_aa*** » : ce descripteur permet de mesurer l'instabilité de la fréquence à court terme, c'est-à-dire période par période. Parmi les différentes mesures de jitter proposées par Praat, nous avons choisi une mesure à 5 points dans l'intervalle, cette mesure étant fréquemment utilisée dans la littérature.
- « ***Shimmer_aa*** » : ce descripteur mesure l'instabilité à court terme de l'intensité. Nous avons choisi une mesure à 11 points dans l'intervalle.
- « ***HNR_aa*** » : Le *HNR_aa* mesure la présence de bruit dans la voix. Il s'agit du ratio harmonique sur bruit.
- « ***SD_Pitch_aa*** » : ce descripteur mesure la stabilité de la vibration des cordes vocales durant la production du /a/, en termes d'écart type de f_0 .

2.3.1.2. La hauteur de la voix sur une phrase lue

La hauteur moyenne de la voix durant la production de la parole continue, ainsi que la modulation de cette hauteur, ont été mesurées sur la production de la phrase « Mélanie vend du lilas ». Le protocole intégré dans MonPaGe permet à l'expérimentateur d'ajuster manuellement les frontières de début et de

fin de la phrase dans Praat®, pour ne conserver que la phrase lue. Cette phrase est composée de 7 syllabes qui sont toutes voisées. Il est donc aisé de repérer les indices de fin et de début de la phrase sur le signal acoustique et sur le spectrogramme : la frontière de début est ajustée en fonction du début de la vibration périodique du /m/ de « Mélanie » repérée sur le signal acoustique, ainsi que de l'apparition d'une barre de voisement et la présence de formants peu intenses identifiés sur le spectrogramme. La frontière finale est ajustée en fonction de la fin de l'enveloppe du signal périodique du /a/ et de la fin des formants supérieurs (de F2 à F4) repérées dans la dernière syllabe du mot « lilas ». En se basant sur le positionnement de ces deux frontières, le script intégré dans l'outil extrait automatiquement un descripteur relatif à la hauteur moyenne de la voix : « *Pitch Mélanie* ». La moyenne de f0 est calculée sur une série de f0 relevée sur toute la durée de la phrase. Nous avons ensuite mesuré la modulation de la f0 au cours de la production de cette phrase à l'aide de la variable « *SDPitch_Mélanie* ».

2.3.1.3. Le temps maximum de phonation sur un /a/ tenu

Le contrôle pneumo-phonatoire est habituellement exploré en routine clinique à l'aide de la mesure du temps maximum de phonation (*TMP*). Ce temps est dépendant, d'une part de l'efficacité de la vibration des cordes vocales, d'autre part des capacités respiratoires, et enfin de l'habileté à coordonner l'étage sous-glottique, c'est-à-dire respiratoire, et l'étage glottique. La procédure permet la segmentation de la fenêtre d'analyse de la façon suivante : l'examineur, en s'appuyant sur le début et la fin de l'onde acoustique et/ou du signal sur le spectrogramme, ajuste manuellement les frontières de début et de fin du /a/ tenu, en s'assurant qu'aucune pause n'a été produite. La mesure du TMP est calculée automatiquement par le script intégré. L'analyse consiste à mesurer en secondes la durée des deux /a/ tenus le plus longtemps possible, et à sélectionner le plus long des deux essais.

2.3.1.4. Traitement statistique des variables concernant la voix

Les valeurs normatives publiées récemment sur tous ces indicateurs vocaux montrent des différences significatives entre les sexes (Laganaro et al., 2021). Nous avons donc mené des analyses séparées entre les hommes et les femmes. Les valeurs des locuteurs de ces différentes variables ont été comparées entre les populations. Le modèle statistique pour chaque variable est présenté dans les résultats du chapitre 3. Pour toutes ces variables, la normalité des résidus a été testée à l'aide du test de Shapiro-Wilk et en vérifiant visuellement les QQplots. L'homogénéité des résidus a été vérifiée en visualisant la distribution des résidus en fonction des valeurs prédites par le modèle.

Pour les variables « *Pitch Mélanie* » et « *TMP* », l'hypothèse de normalité et/ou d'homogénéité était satisfaite. Nous avons donc comparé les valeurs des locuteurs à l'aide de l'ANOVA paramétrique à un

facteur du logiciel R. Lorsque la p-value était inférieure à 0.05, rejetant l'hypothèse de l'égalité des moyennes, des comparaisons des moyennes deux à deux, ont été réalisées. Les comparaisons multiples paramétriques ont alors été menées avec la fonction 'glht' de la bibliothèque multcomp (Hothorn et al., 2008) basées sur une procédure de Tukey.

Pour les variables « *Jitter_aa* », « *Shimmer_aa* », « *HNR_aa* », « *SD_Pitch_aa* » et « *SDPitch_Mélanie* », l'hypothèse de normalité et/ou d'homogénéité des résidus a été rejetée. Dans ce cas, c'est le test non-paramétrique de Kruskal-Wallis qui a été utilisé. Lorsque la p-value est inférieure à 0.05, rejetant l'hypothèse de l'égalité des moyennes, les comparaisons des moyennes deux à deux, ont été réalisées. Dans ce cas précis, des comparaisons multiples non paramétriques ont été menées avec la fonction 'nparcomp' de la bibliothèque nparcomp (Konietschke et al., 2015), également basées sur une procédure de Tukey.

2.3.2. Les descripteurs de la précision articulatoire (étudiée dans le chapitre 4)

La dimension articulatoire est explorée dans cette thèse au travers de mesures perceptives et acoustiques. Les mesures perceptives jugent de la précision articulatoire évaluée sur la production des 50 pseudo-mots. Les mesures acoustiques reflètent l'amplitude et la vitesse des changements de configurations du conduit vocal, au cours de la production des séquences de glides /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/.

2.3.2.1. Mesure perceptive de la précision articulatoire dans les pseudo-mots

i) Juge et procédure de cotation

L'application « MonPaGe_Cotation » propose dans son module intitulé « pseudo-mots » une grille de cotation permettant d'évaluer la précision articulatoire de 151 stimuli lors de l'écoute de 50 pseudo-mots. Cette évaluation se réalise a posteriori de l'enregistrement. L'outil permet à l'examineur d'écouter autant de fois qu'il le veut chaque pseudo-mot. La cotation de la précision articulatoire des patients de cette étude a été réalisée en aveugle de leur pathologie respective par un seul juge, l'auteur de cette thèse. Travaillant depuis 20 ans dans le centre SLA et autres maladies du motoneurone du groupe hospitalier Pitié-Salpêtrière à Paris, ce juge est expert de la dysarthrie chez les patients atteints de maladies du motoneurone. Pour chaque pseudo-mot écouté, une grille de cotation affiche les stimuli-cibles à évaluer (consonnes simples, voyelles et clusters). La tâche de l'examineur est d'évaluer la précision articulatoire des sons-cibles, en cliquant sur des cases-réponses qui correspondent à son jugement.

Choix de réponses forcées

Différentes réponses s'offrent à l'examineur :

- « Problème de son » signifiant que l'enregistrement est de mauvaise qualité ;
- « Correct » signifiant que le son-cible est correctement produit, sans distorsion perceptible ;
- « Incorrect » signifiant que l'examineur perçoit une distorsion du son-cible ou que le son cible n'est pas celui qui est perçu. La cotation « incorrect » est attribuée par exemple lorsque l'examineur perçoit, soit une distorsion d'un son qui est encore reconnaissable, soit quand le son cible n'est pas celui qui est perçu. Par exemple, la réponse « incorrect » a pu être cochée dans les cas suivants : lorsque la consonne /k/ a été perçue comme spirantisée changeant donc le mode de cette consonne ; quand une hypoarticulation est identifiée ; lorsque la consonne /s/ a été plutôt perçue /ʃ/ entraînant donc un changement de lieu d'articulation ; lorsque la consonne /b/ a été perçue /m/ à cause d'une rhinolalie modifiant alors le trait de nasalité ; ou encore lorsque la consonne /d/ a été perçue /t/ à cause d'un problème de voisement.
- « Produit avec effort » précisant que l'examineur juge que le son est réalisé avec un effort audible ;
- « Avec inversion » mentionnant que le son-cible n'est pas produit dans la position correcte au sein de la syllabe et/ou dans le pseudo-mot ;
- « Avec insertion » précisant que l'examineur perçoit une addition de son, comme par exemple des vocoïdes, des semi-voyelles ou semi-consonnes, des voyelles ou des consonnes, à l'intérieur d'une syllabe ou entre les syllabes.

L'examineur peut cocher plusieurs réponses à la fois, mais l'une des cases « correct » ou « incorrect » est obligatoirement cochée, sauf quand la case « problème de son » a été cochée. Dans ce cas, aucune des cases correct/incorrect n'est cochée. C'est la répartition de cette réponse correct/incorrect dans chaque population qui est analysée dans notre étude.

ii) Fiabilité de la réponse du juge

Afin de vérifier la fiabilité des réponses du juge, une deuxième cotation a été réalisée par le même juge, 6 mois après la première cotation. 30 stimuli initialement jugés comme « correct » et 30 stimuli initialement jugés comme « incorrect » lors de la première cotation ont été aléatoirement sélectionnés à l'aide d'un script de R. Ces 60 stimuli ont été cotés à nouveau par le même examineur. La fiabilité entre les deux écoutes a été testée à l'aide du coefficient de corrélation intra-classe (ICC). L'estimation de l'ICC et l'intervalle de confiance (IC) à 95% ont été calculés dans R, sur la base de la concordance absolue, en utilisant le modèle à deux facteurs à effets aléatoires et l'unité « évaluateur unique ». La fiabilité entre les deux écoutes est bonne puisque l'ICC est compris entre .75 et .90 (ICC = .77, $p < .0001$, 95% IC [.64 < ICC < .86] (Koo & Li, 2016). 11,7 % des stimuli (= 7 stimuli/60) ont été

identifiés différemment entre la première écoute et la deuxième. En effet sur 60 stimuli, 6 stimuli jugés « correct » lors de la première écoute ont été jugés « incorrect » lors de la deuxième écoute et un stimuli jugé « incorrect » la première fois a été évalué comme « correct » lors de la deuxième écoute.

iii) Analyse des cotations correctes/incorrectes : vers un score de précision articulatoire

Dans la version MonPaGe-2.0, la précision articulatoire se calcule à l'aide d'un score global (de 0 à 151) correspondant au nombre total d'erreurs décelées sur les 151 stimuli évalués au travers des 50 pseudo-mots. Un score de déviance est alors automatiquement calculé, en fonction de la distance qui sépare le score global obtenu, d'une valeur de référence validée sur des contrôles (Laganaro et al., 2021). Ce score de précision articulatoire est donc uniquement quantitatif. Néanmoins, le corpus des pseudo-mots a été conçu pour explorer qualitativement la nature des erreurs. Si les études publiées récemment ont utilisé le score de déviance de ce module « pseudo-mots » pour différencier les troubles moteurs de la parole au travers de différents groupes pathologiques (Fougeron et al., 2022), aucune étude n'a encore exploré les imprécisions articulatoires sous un angle qualitatif, ce que nous proposons de faire ici. En effet, dans cette thèse, nous avons choisi d'étudier l'imprécision articulatoire, en termes de taux d'erreur calculé sur les réponses correcte/incorrecte, en fonction de différents regroupements opérés sur les consonnes simples, les voyelles et les clusters.

Les taux d'erreur ont été mesurés sur les consonnes, les voyelles et les clusters, en fonction des regroupements suivants :

- Pour les consonnes : en fonction de la totalité des consonnes, de chaque consonne, des lieux d'articulation, des modes d'articulation, du trait d'antériorité/postériorité des consonnes linguales, du trait de voisement, du trait de nasalité, de la position de la consonne dans le mot et en fonction de la longueur et de la complexité des mots.
- Pour les voyelles : en fonction de la totalité des voyelles, de chaque voyelle, du trait d'aperture, du trait d'antériorité/postériorité, du trait d'arrondissement, du trait de nasalité.
- Pour les clusters : en fonction de la totalité des clusters, de chaque cluster, de la position du cluster dans le mot et la structure syllabique du cluster.

Ainsi, pour tous ces regroupements, les taux d'erreur, représentatifs du pourcentage d'imprécision articulatoire, ont été calculés dans chacune des trois populations présentant une dysarthrie selon la formule suivante : $p = n/N*100$, n étant le nombre de stimuli jugés « incorrect » dans chaque regroupement et N étant le nombre total des stimuli évalués dans ce regroupement. Par exemple, pour le regroupement « totalité des consonnes », sur 736 consonnes (N) évaluées dans la population MK, 69 (n) ont été jugées incorrectes ; sur 1472 consonnes (N) évaluées dans la population SLA, 188 (n) ont été jugées incorrectes ; dans la population SLP, sur 649 consonnes (N) évaluées, 75 (n) ont été jugées incorrectes. Ainsi, les taux d'erreur calculés sur la totalité des consonnes sont donc $69/736*100 = 9.4\%$ pour la population MK, $188/1472*100 = 12.8\%$ pour la population SLA et $75/649*100 =$

11.6% dans la population SLP. Autre exemple, celui du regroupement « position de la consonne dans le mot » : dans la population SLA, sur 500 consonnes (N) évaluées en position onset à l'initial du mot, 55 (n) sont jugées incorrectes, contre 64/504 en position médiane de mot et 39/180 en position coda de mot. Les taux d'erreur des consonnes dans cette population sont donc de 11 % en position initiale de mot, contre 12.7 % en position médiane et 21.7 % en position finale de mot.

Au total, 70 patients sur 71 ont été enregistrés sur cette tâche des pseudo-mots, relativement longue. Du fait de sa fatigabilité, un patient présentant une SLP a formulé le désir de stopper l'enregistrement au bout de la production de quelques pseudo-mots. Ainsi, 18 locuteurs ont été enregistrés dans la population MK, 36 dans la population SLA et 15 dans la population SLP. Du fait de problèmes ponctuels d'enregistrement, le nombre de consonnes, voyelles et clusters, évalués par locuteur, n'est pas toujours identique. Ces données figurent en annexes.

iv) *Quels sont les descripteurs perceptifs de la précision articulatoire étudiés dans cette thèse ?*

A l'issue de cette exploration, et en nous basant sur les hypothèses soulevées dans la littérature, présentées dans la section 1.2.2. de l'état de l'art, les descripteurs perceptifs étudiés dans cette thèse sont les suivants :

- Descripteur « **STR_SYLL** » : afin d'étudier si la complexité de la structure syllabique joue sur la précision articulatoire, le taux d'erreur a été calculé dans les stimuli composés de consonnes simples (CV), de clusters CCV et de clusters CCCV, pour chaque population. Le nombre de stimuli évalués dans chaque structure syllabique et pour chaque population figure dans le tableau 20.

	CV	CCV	CCCV
MK	736	144	144
SLA	1472	286	288
SLP	649	128	128

Tableau 16 Nombre de stimuli (N) évalués par population et par structure syllabique. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

- Descripteur « **POS_STIM** » : Afin d'observer si la position d'un stimuli dans un pseudo-mot joue sur sa précision articulatoire, le taux d'erreur des consonnes simples (CV) et des clusters (CCV + CCCV confondus) a été calculé dans chacune des populations, en position initiale de mot et en position coda finale de mot. Le tableau 21 présente le nombre de stimuli évalués par population en fonction de la position des consonnes simples et des clusters dans le mot.

	Consonnes en onset initiale de mot	Consonnes en coda finale de mot	Cluster en onset initiale de mot	Cluster en coda finale de mot
MK	250	90	144	144
SLA	286	180	286	288
SLP	222	78	128	128

Tableau 17 Nombre de stimuli (N) évalués par population et en fonction de la position des consonnes simples et des clusters dans le mot (onset et coda de mot). MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

- Descripteur « **LIEU** » : afin d'explorer si le lieu d'articulation des consonnes linguales joue un rôle sur leur précision, les consonnes ont été regroupées en fonction de leur lieu antérieur versus

postérieur. Pour chaque population, le taux d'erreur a été calculé sur le regroupement des consonnes antérieures /t,d,n,l,s,z/ et le regroupement des consonnes postérieures /k,g/. Le tableau 22 présente le nombre de stimuli évalués par population en fonction des deux types de lieu d'articulation.

	Consonnes antérieures /t, d, n, l, s, z/	Consonnes postérieures /k, g/
MK	287	72
SLA	575	144
SLP	252	64

Tableau 18 Nombre de stimuli (N) écoutés par population pour les consonnes antérieures /t,d,n,l,s,z /et postérieures /k,g/. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

- Descripteur «**CONS**» : certains types de consonnes étant empiriquement particulièrement altérés dans les dysarthries, nous avons souhaité les explorer de manière isolée. Ainsi, le taux d'erreur des consonnes /s,z/, /l/ et /ʁ/ a été exploré. Le tableau 23 présente le nombre de stimuli évalués par population pour les consonnes /s,z/, /l/ et le /ʁ/.

	/s, z/	/l/	/ʁ/
MK	108	36	54
SLA	216	72	108
SLP	93	32	47

Tableau 19 Nombre de stimuli (N) écoutés par population pour les consonnes /s,z/, /l/ et /ʁ/. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

- Descripteur «**LONG**» : Afin d'étudier si la complexité de certains mots, en termes de longueur et d'alternances des mouvements articulatoires, joue sur la précision articulatoire, le taux d'erreur a été calculé dans les quatre pseudo-mots suivants :
 - Les pseudo-mots « dadada » et « tatata » sont des mots tri-syllabiques, dont la complexité articulatoire réside principalement dans les alternances d'ouverture/fermeture de la mâchoire.
 - Les pseudo-mots « kitoukitou » et « ménabainban » sont quadri-syllabiques et font intervenir plus d'alternances de mouvements articulatoires que les mots précédents. Le mot « kitoukitou » consiste en l'alternance de mouvements antéro-postérieurs de la langue et d'étirement-arrondissement des lèvres. Quant au mot « manabainban », il met en jeu des alternances de mouvements du voile du palais. Le tableau 24 présente le nombre de stimuli évalués par population et par pseudo-mot.

	Nb de consonnes dans « kitoukitou » et « ménabainban »	Nb de consonnes dans « dadada » et « tatata »
MK	72	54
SLA	144	108
SLP	64	48

Tableau 20 Nombre de stimuli (N) écoutés par population et par pseudo-mot. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

- v) *Quel test statistique pour les variables de la précision articulatoire dans l'évaluation perceptive ?*

Afin d'explorer si les effectifs des taux d'erreur sont semblables, pour chaque croisement des variables qualitatives (« MK-correct », « SLA-incorrecT » ...), dans chaque population pathologique, nous avons réalisé le test du khi-2.

2.3.2.2. Mesures acoustiques extraites des glides

La tâche des séquences de glides /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/, a été utilisée pour réaliser les mesures acoustiques de la précision articulatoire. L'examineur ajuste manuellement les frontières de la fenêtre d'analyse pour ne sélectionner que les séquences, puis les annote par leur intitulé /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/. Trois patients présentant une SLA n'ont pu être enregistrés sur cette tâche. Au total, 68 patients et 70 contrôles ont été enregistrés sur cette tâche.

Cette étude, ainsi que la méthodologie utilisée dans cette étude, ont fait l'objet de la parution de deux articles par notre équipe du Laboratoire de Phonétique et de Phonologie (Lévêque et al., 2022; Slis et al., 2021). Les publications figurent en annexes de cette thèse.

i) La modulation cepstrale : le reflet des changements de configuration du conduit vocal

La précision articulatoire est observée ici à l'aide d'une mesure acoustique, développée en collaboration avec L. Lancia et A. Slis dans le cadre du projet MoSpeeDi (projet MoSpeeDi, subside FNS CRSII5_173711/1), basée sur les travaux de Louis Goldstein (Goldstein, 2019). Il s'agit de la « modulation cepstrale ». Le contour de la modulation cepstrale est supposé refléter les changements de configurations du conduit vocal, pour passer d'un segment de parole à un autre, dans notre tâche, de la glide vers la voyelle ou de la voyelle vers la glide, et ainsi de suite sur toute la séquence.

La mesure de la modulation cepstrale est réalisée à partir de l'extraction des coefficients cepstraux de fréquence Mel ou « Mel Frequency Cepstral Coefficients » (MFCCs) en anglais. Tous les fichiers sont segmentés et annotés, puis ont été ré-échantillonnés à 16 kHz à l'aide d'un script de MATLAB développé au LPP.

La figure 4 extraite de Slis et al. (Slis et al., 2021) illustre l'extraction des MFCCs. Le signal de parole est découpé en fenêtres de 25 ms, se chevauchant entre elles toutes les 2 ms. La première ligne de la figure 4 montre deux fenêtres consécutives de 25 ms.

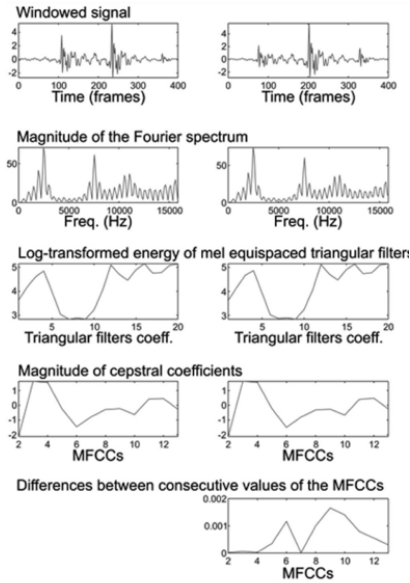


Figure 4 Illustration de l'extraction des MFCCs, étape par étape : sur la première ligne on observe deux fenêtres consécutives de 25 ms. Sur la seconde ligne on observe l'application de la Transformée de Fourier. Sur la troisième ligne, on observe la pondération du spectre d'amplitude selon l'échelle de Mel. On peut observer sur la quatrième ligne la conversion du spectre à l'aide de la transformée en cosinus discrète. Enfin, la dernière ligne montre la différence d'énergie cepstrale entre deux fenêtres.

Puis, l'application de la transformée de Fourier pour chacune des fenêtres permet l'extraction du spectre d'amplitude du signal (ligne 2 de la figure 4). Ce spectre d'amplitude est ensuite pondéré par un banc de 20 filtres triangulaires espacés selon l'échelle de Mel (troisième ligne de la figure 4). Enfin, le spectre logarithmique de Mel obtenu est alors converti à l'aide de la transformée en cosinus discrète (TCD), aboutissant à un spectre du spectre : c'est ce que l'on appelle le Cepstre. Les coefficients qui résultent de cette TCD sont les coefficients cepstraux de fréquence Mel (MFCCs) (quatrième ligne de la figure 4). Le nombre de données caractérisant le signal est réduit avec, pour les besoins de notre étude, une extraction de 13 coefficients cepstraux par fenêtre. Enfin, la différence d'énergie cepstrale entre les fenêtres est calculée (cinquième ligne de la figure 4). Ces différences ont ensuite été mises au carré puis sommées et la représentation graphique de toutes ces valeurs consécutives détermine un *contour de la modulation cepstrale dans le temps* comme on peut l'observer dans la figure 5.

ii) Extraction des données pour le calcul du contour de la modulation cepstrale

Les valeurs maximales et minimales du contour de la modulation cepstrale ont été identifiées automatiquement à l'aide d'un algorithme dans MATLAB. Nous avons ensuite vérifié ces valeurs manuellement. Par exemple, le premier pic du contour reflète la modulation cepstrale correspondant au passage du silence à l'initiation de la production de la première séquence. Nous n'avons pas tenu compte de ce pic dans nos mesures. La figure 5 ci-dessous extraite de Slis et al. (Slis et al., 2021) montre les pics observés sur le contour de la modulation cepstrale. Il s'agit ici d'une séquence /ajajaj/

produite par un contrôle. Ces pics correspondent au passage du segment /a/ vers le segment /j/ puis du passage de /j/ vers /a/ et ainsi de suite. C'est durant ces passages qu'il y a plus de mouvement dans le conduit vocal. Le spectrogramme correspondant figure au-dessous du contour de la modulation cepstrale. On observe que les pics du contour concordent avec les transitions de formants visibles sur le spectrogramme. Nous n'avons tenu compte que des pics surmontés d'un rond noir (pics que nous avons sélectionnés lors de la vérification manuelle). Les flèches encadrant chaque pic indiquent le début de la voyelle et la fin de la glide, lorsque le mouvement du conduit vocal est minimal. Les contours cepstraux complets ont été délimités à partir de la partie stable du premier segment (le premier minimum) jusqu'à la partie stable du dernier segment (le dernier minimum).

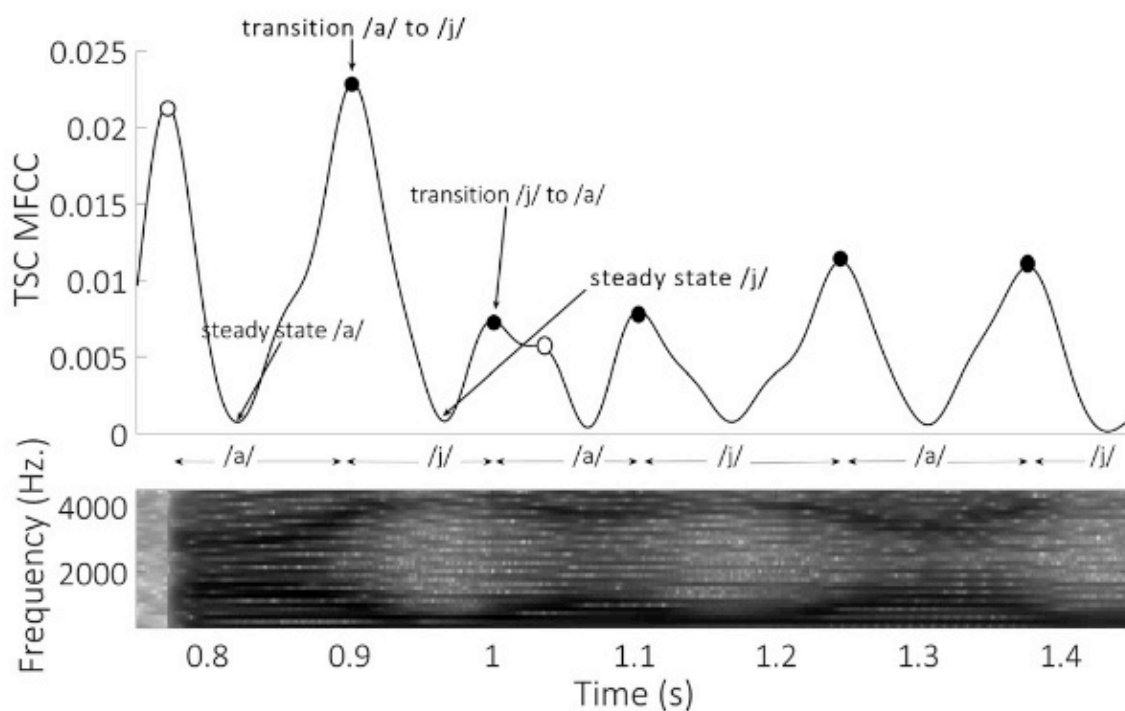


Figure 5 Contour cepstral lors de la production de /ajajaj/ chez un locuteur contrôle, d'après Slis et al. (2021). TCS est l'acronyme anglais pour TCD (transformée en cosinus discrète). MFCC : Mel Frequency Cepstral Coefficients. Dans la partie supérieure, l'axe vertical représente le degré de changement d'énergie cepstrale entre les fenêtres. La partie inférieure représente le spectrogramme correspondant.

La figure 6 ci-dessous extraite de Lévêque (Lévêque et al., 2022) illustre ces modulations cepstrales durant la production des quatre répétitions de la séquence /ujujuj/, chez un locuteur de chaque groupe étudié dans cette thèse. On observe d'ores et déjà des pics plus hauts chez les contrôles en comparaison avec les locuteurs dysarthriques.

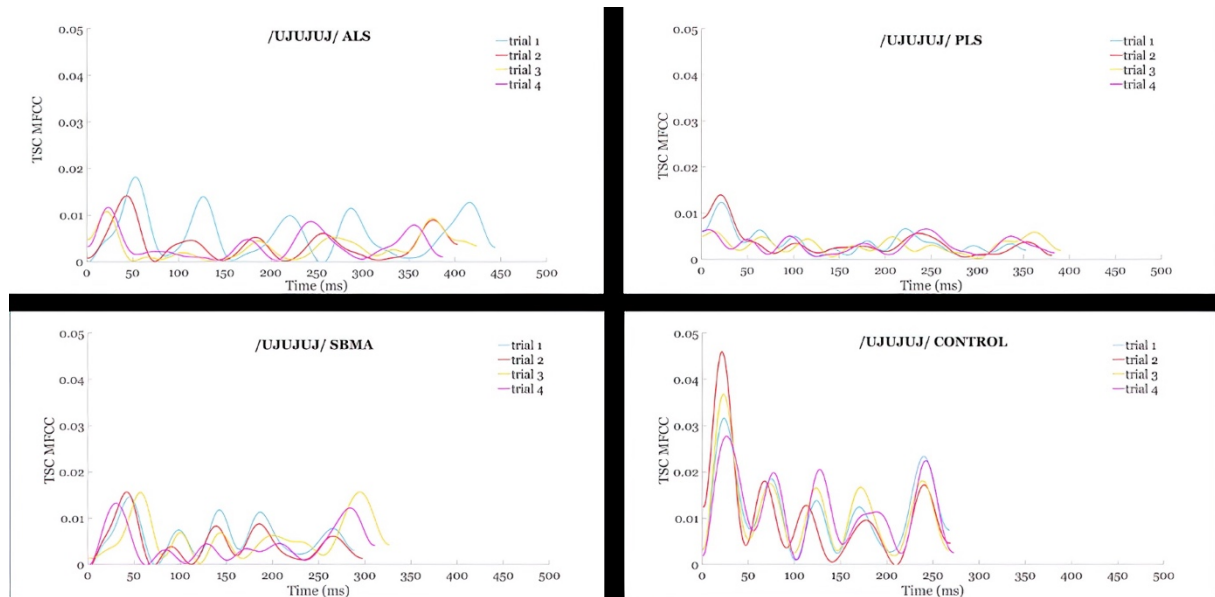


Figure 6 Les contours cepstraux durant la production de la séquence /ujujuj/ répétée quatre fois, par un locuteur de chaque population, d'après Lévêque et al. (2022). ALS, PLS et SBMA sont les acronymes anglais correspondant respectivement aux acronymes français SLA, SLP et MK.

iii) Les descripteurs dérivés des contours cepstraux

Ces descripteurs sont issus de mesures globales extraites des contours cepstraux complets, compris entre le premier minimum et le dernier minimum.

La modulation cepstrale moyenne (MOD_CEPST) : elle est calculée à partir de la totalité des valeurs du contour. Cette moyenne reflète les possibilités de contrastes acoustiques entre les segments successifs. On s'attend à ce que cette moyenne soit basse s'il existe peu de contrastes acoustiques entre les segments successifs suggérant alors une hypoarticulation, en lien avec des mouvements peu amples du conduit vocal.

La variabilité de la modulation cepstrale (VAR_CEPST) : il s'agit du coefficient de variation calculé en divisant la déviation standard des valeurs du contour cepstral complet par la moyenne du contour cepstral. Ce coefficient de variation détermine le degré de variabilité de la modulation cepstrale au sein d'une même séquence. Autrement dit, il reflète la stabilité des contrastes acoustiques durant la répétition des syllabes successives au sein d'une même séquence. On s'attend à ce que cette valeur soit basse, si les contrastes acoustiques au sein d'une même séquence sont réguliers, suggérant alors une stabilité dans l'articulation des segments successifs. En revanche on s'attend à une valeur haute de ce coefficient, si les contrastes acoustiques au sein d'une même séquence sont plus erratiques, suggérant une instabilité dans l'articulation des segments successifs.

iv) *Quel test statistique concernant les variables acoustiques de la précision articulatoire ?*

Nous avons construit des modèles mixtes en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux) et SEQUENCE (3 niveaux) comme facteurs fixes en interaction. Les formules statistiques de ces modèles sont détaillées dans la section résultat. Le locuteur a été intégré comme facteur aléatoire. Pour chaque analyse, les valeurs en dessous du 1^{er} percentile et au-dessus du 99^{ème} percentile ont été écartées. La normalité des résidus a été testée à l'aide du test de Shapiro-Wilk et en vérifiant visuellement les QQplots. L'homogénéité des résidus a été vérifiée en visualisant la distribution des résidus en fonction des valeurs prédites par le modèle. Ces modèles linéaires à effets mixtes ont été construits à l'aide des bibliothèques lme4 (Bates et al., 2015) et lmerTest (Kuznetsova et al., 2017) dans la version 4.0.2 de R, pour chacune des variables acoustiques (modulation cepstrale, variabilité de la modulation). Les valeurs de p ont été obtenues par approximation de type Kenward-Roger. Le seuil de référence a été fixé à $p < .05$. L'effet de chaque facteur fixe et de leur interaction a été testé par comparaison de modèles avec la fonction 'anova'. Parce que le nombre d'observations n'est pas identique pour chaque combinaison des modalités, le calcul de la somme des carrés de type III a été sélectionné. Les analyses des contrastes a posteriori ont été effectuées avec la fonction 'emmeans' de la bibliothèque emmeans (Lenth, 2020). Ces comparaisons post hoc sont réalisées à l'aide du test de Tukey.

2.3.3. Les descripteurs des aspects temporels de la parole (étudiés dans le chapitre 5)

Les aspects temporels de la parole ont été explorés dans différentes tâches : les glides, les DDK et dans le spontané.

2.3.3.1. L'intervalle de durée pour passer d'un segment à un autre dans les glides

Une mesure de durée a également été extraite dans la production des glides. Il s'agit de la mesure de l'intervalle de durée entre chaque minimum du contour et le minimum suivant millisecondes (ms). Ces minima encadrent les passages entre les segments et donc ces intervalles de durée sont supposés refléter les durées des transitions segmentales. Nous avons donc nommé ce descripteur : ***DUR_TRANS***.

2.3.3.2. Le débit articulatoire dans les épreuves de performance des DDK

L'extraction des données a été réalisée grâce à la procédure semi-automatique intégrée dans MonPaGe. L'expérimentateur ajuste manuellement la frontière au début de la production de la DDK. La procédure permet ensuite de définir automatiquement une fenêtre d'analyse de 4 secondes à partir de cette frontière de début. Cet intervalle automatique se positionne parfois au milieu d'une syllabe.

Un ajustement manuel de la frontière finale est donc parfois nécessaire afin d'intégrer la fin de la voyelle se trouvant à droite de la frontière positionnée automatiquement par le script.

L'examineur annote ensuite le nombre de syllabes produites dans l'intervalle sélectionné, en se basant sur l'identification du nombre de voyelles. La présence d'une voyelle est identifiée grâce aux pics d'intensité vocalique sur le signal acoustique et/ou à la présence de formants sur le spectrogramme. La procédure de MonPaGe permet ensuite le calcul automatique du débit articuloire en nombre de syllabes par seconde, en divisant le nombre de syllabes annotées, par la durée totale de l'intervalle sélectionné.

La mesure du débit articuloire dans les épreuves de performance des DDK est couramment utilisée en routine clinique. Comme nous l'avons déjà abordé dans les sous-sections 1.2.3. et 1.3.3 de l'état de l'art, cette mesure permet d'apprécier la capacité à alterner des mouvements articuloires avec une contrainte de précision et de vitesse. Comme nous l'avons décrit dans la section 2.2.4., plusieurs types de DDK ont été explorés dans cette thèse : des AMR et des SMR. L'intérêt d'explorer le débit articuloire dans ces différents types de DDK, est que leur encodage syllabique est différent. Alors que les DDK AMR n'impliquent l'encodage que d'une seule et unique syllabe, composée d'une seule consonne en attaque pour les AMR CV (par exemple [papapa...]) et d'un groupe consonantique en attaque pour les AMR_CCV (par exemple dans [klaklakla...]), les DDK SMR impliquent l'encodage de trois syllabes différentes, dans notre tâche [ba], [de] et [go] dans [badegobadego...].

Ainsi, les variables de débit articuloire explorées dans les DDK sont les suivantes :

- **AMR_CV_ba**
- **AMR_CV_de**
- **AMR_CV_go**
- **AMR_CV : correspondant à la moyenne de toutes les AMR_CV_ba, AMR_CV_de et AMR_CV_go confondues**
- **AMR_CCV_tɾa**
- **AMR_CCV_kla**
- **SMR_CV**

2.3.3.3. Le débit articuloire dans la lecture

Le débit articuloire a également été mesuré dans la phrase lue « Mélanie vend du lilas », déjà exploitée pour évaluer la hauteur de la voix décrite dans la section 2.3.1.2. Nous avons intitulé ce descripteur « **DEB_LECT** ». La procédure intégrée dans MonPaGe permet le calcul automatique du débit articuloire dans la phrase lue en nombre de syllabes par seconde. Ce débit est calculé en divisant le nombre attendu de syllabes produites, c'est-à-dire 7, par la durée totale de la phrase calculée par le script.

2.3.3.4. Le débit articulatoire et le nombre moyen de mots par continuum de parole dans la parole spontanée

Nous avons mesuré le débit articulatoire dans le spontané intitulé dans cette thèse « **DEB_SPONT** ». Ce débit articulatoire a été calculé sur les temps de parole, que nous avons appelé des « UIP » pour Unités Inter Pauses, et dont la segmentation est décrite en détail dans la section suivante sur l'organisation du discours. Le débit articulatoire en nombre de syllabes par seconde est calculé en divisant le nombre de syllabes dans l'UIP par la durée totale de l'UIP. Nous avons également mesuré dans ces UIP, le nombre de mots par UIP (*NB_MOTS*) calculée dans les 6 premières UIP et la variabilité du nombre de mots par UIP (*VAR_NB_MOTS*) à l'aide du coefficient de variation du nombre de mots par UIP selon la formule : $\text{écart type/moyenne} \times 100$.

2.3.3.5. Le traitement statistique concernant les descripteurs de l'aspect temporel de la parole

Concernant l'intervalle de durée pour passer d'un segment au suivant dans la tâche des glides, le traitement statistique s'est fait exactement de la même manière que pour les variables extraites de la modulation cepstrale. Nous renvoyons donc le lecteur à la section précédente (2.3.2.2.).

Concernant les DDK, afin d'étudier l'effet du lieu d'articulation dans les AMR_CV, des constriction dans les AMR_CCV, et du type d'encodage syllabique de la DDK sur le débit articulatoire, en fonction des populations, nous avons construit trois modèles mixtes en incluant dans le premier modèle les facteurs POPULATION (4 niveaux) et AMR_CV (3 niveaux) comme facteurs fixes en interaction, dans le deuxième modèle les facteurs POPULATION (4 niveaux) et AMR_CCV (2 niveaux) comme facteurs fixes en interaction et dans le troisième modèle les facteurs POPULATION (4 niveaux) et ENCODAGE (2 niveaux) comme facteurs fixes en interaction. Les formules statistiques de ces modèles sont détaillées une par une dans les sections résultats concernant chaque étude. Dans chacun de ces modèles, le locuteur a été intégré comme facteur aléatoire. Ces modèles linéaires à effets mixtes ont été construits à l'aide des bibliothèques lme4 (Bates et al., 2015) et lmerTest (Kuznetsova et al., 2017) dans la version 4.0.2 de R. Les valeurs de p ont été obtenues par approximation de type Kenward-Roger. Le seuil de référence a été fixé à $p < .05$. L'effet de chaque facteur fixe et de leur interaction a été testé par comparaison de modèles avec la fonction 'anova'. Les analyses des contrastes a posteriori ont été effectuées avec la fonction 'emmeans' de la bibliothèque emmeans (Lenth, 2020). Ces comparaisons post hoc sont réalisées à l'aide du test de Tukey.

Concernant chacune des variables *DEB_LECT*, *DEB_SPONT*, *NB_MOTS* et *VAR_NB_MOTS*, l'ANOVA à un facteur a été utilisée pour comparer les populations. Les formules statistiques pour chaque variable sont décrites dans les résultats.

Enfin, la force des liens entre le débit articulatoire des différentes tâches (*AMR_CV*, *SMR_CV*, *DEB_LECT* et *DEB_SPONT*) et la significativité de la relation linéaire entre ces variables comparées deux à deux ont été testées avec des corrélations de Pearson à l'aide de la fonction 'ggpairs' de la bibliothèque « GGally » dans R.

2.3.4. Les descripteurs de l'organisation du discours dans la parole spontanée (étudiée dans le chapitre 6)

Pour rappel, le recueil de la parole spontanée s'est fait sur la réponse à des questions ouvertes, posées par l'examineur. Le flux de parole d'un locuteur est en partie compris par l'interlocuteur, grâce à des indices acoustiques qui balisent les frontières permettant d'organiser le discours de ce locuteur (Frazier et al., 2006). Le discours s'organise donc autour de frontières prosodiques, ou phrastiques, réalisées par une variété de corrélats acoustiques en langue française. Ces frontières prosodiques dépendent entre autres des paramètres temporels concernant les pauses et les prises de parole. Les patients dysarthriques sont souvent soumis à des limitations physiologiques, qui vont perturber l'organisation de leur discours. Par exemple, les groupes de souffle, souvent définis comme le temps de parole compris entre deux pauses, dépendent du flux d'air expiratoire en provenance des poumons. Si ce flux d'air expiratoire est court, en raison d'une atteinte des muscles de la respiration, ou bien perturbé par un serrage laryngé freinant son passage, la durée des groupes de souffle sera plus courte. Autre exemple, la localisation des pauses inspiratoires peut également être inattendue chez un patient dont le débit de parole est très ralenti, et qui a besoin de reprendre sa respiration, n'importe où dans la phrase. Ces pauses, imposées par les perturbations physiologiques dans les dysarthries, perturbent l'organisation des frontières prosodiques du discours.

Les continuums de parole, étant entre autres déterminés par la localisation des pauses, elles-mêmes dépendantes de contraintes lexicales, syntaxiques, physiologiques et cognitives, ont été proposées comme des marqueurs fonctionnels de l'analyse prosodique dans la parole dysarthrique (Y.-T. Wang et al., 2005). L'intérêt d'étudier ces unités de parole comprises entre les pauses, ou unités inter-pauses, est qu'elles fournissent des informations détaillées sur de multiples aspects de la parole, comme par exemple la durée des continuums, leur contour intonatif, le débit articulatoire à l'intérieur de ces unités en termes de nombre de syllabes par seconde, le contenu des unités en termes de nombre par unité, le nombre et la localisation des pauses, ou encore le pourcentage de temps passé en pauses par rapport au temps utilisé pour produire ces continuums de parole. Dans cette thèse, nous étudions l'organisation de discours sous l'angle temporel des pauses et des continuums de parole, afin de voir comment les locuteurs organisent leur flux de parole.

2.3.4.1. Prétraitement des enregistrements

Avant tout, un prétraitement des enregistrements a donc été effectué, afin de localiser les intervalles de parole et de pause. Comme illustré dans la figure 7, les enregistrements ont d'abord été segmentés dans Praat® par une étudiante de M2 en orthophonie, en intervalles de parole et de pause (#). Cette segmentation a été réalisée selon les conventions suivantes :

i) *Les intervalles de parole*

Nous avons nommé les intervalles de parole, des « UIP », pour Unités Inter Pauses. Ont été considérées comme des UIP, tous les continuums de parole, ne contenant aucune pause supérieure à 200 ms, et présentant un contenu linguistique compris entre 3 et 20 mots. Nous avons consciemment écarté de nos analyses toutes les UIP ne contenant qu'un ou deux mots de type « euh », « mais », « ben oui », afin de baser nos analyses, comme celle du débit articulaire dans les UIP, sur un contenu linguistique suffisamment élaboré. Une fois les UIP identifiées, leur transcription orthographique a été réalisée, comme on peut le voir sur la figure 7. Les élisions de phonèmes ou de syllabes ont été codées. Les séquences contenant de la parole inintelligible, le chevauchement d'interventions entre les interlocuteurs, les rires ou autres bruits extérieurs ont été codés et écartés des analyses.

ii) *Les intervalles de pause*

Tous les intervalles sans parole supérieurs à 200 ms ont été considérés comme des pauses, symbolisées dans nos annotations par le caractère « # ». Le seuil de 200 ms a été sélectionné puisque c'est un seuil couramment utilisé dans la littérature pour définir une pause.

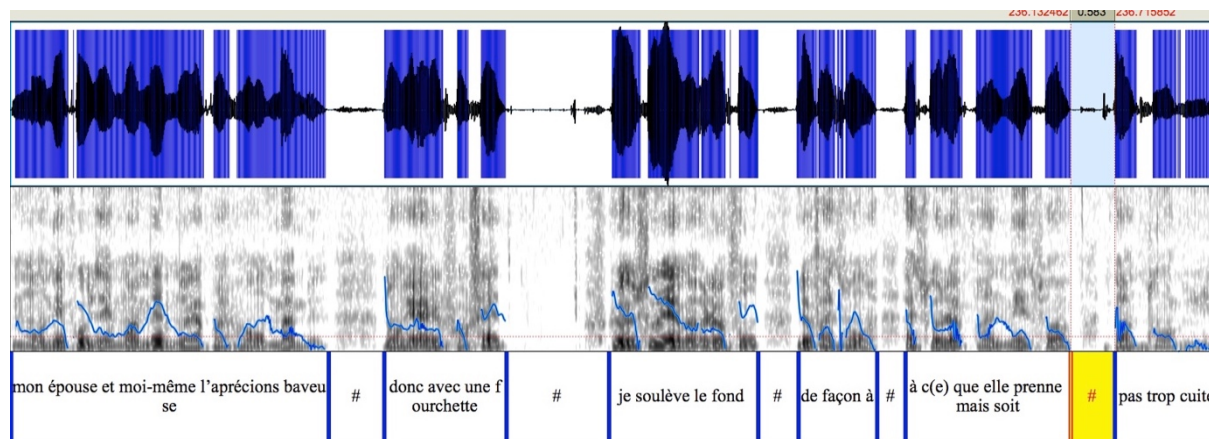


Figure 7 Spectrogramme illustrant la segmentation réalisée dans la parole spontanée d'un patient ayant une SLA. Les séquences de plus trois mots représentent les Unités Inter Pause (UIP). Dans cette fenêtre de spectrogramme, sont également annotées les pauses (#)

2.3.4.2. La sélection des descripteurs de l'organisation du discours

Dans cette thèse, 5 descripteurs de parole reflétant en partie l'organisation du discours, ont été explorés au travers des intervalles de parole et de pause. Un script de Praat® a extrait automatiquement la durée totale de la conversation, la durée de chacune des pauses et la durée de chacune des UIP segmentées.

Afin de calculer le nombre de mots et de syllabes par UIP, explorés dans les aspects temporels décrits dans la section précédente, un script de R développé au Laboratoire de Phonétique et de Phonologie (LPP) a permis de réaliser un appariement des formes orthographiques transcrites avec la base Lexique 3.80 (New et al., 2004) pour obtenir une phonétisation canonique. Cette phonétisation automatique a été complétée d'une phonétisation manuelle pour les formes absentes de la base ou prononcées par les locuteurs de manière non canonique. Un script détecte automatiquement dans chaque UIP le nombre de symboles de la transcription orthographique correspondant à des voyelles. En français, une voyelle correspondant à une syllabe et inversement, le nombre de syllabes par UIP, étudié dans la section précédente sur le débit articulatoire, a ainsi été calculé. Les élisions de voyelles, codées auparavant, ont ensuite été soustraites du décompte initial.

Les 5 descripteurs suivants, se rapportant à l'organisation du discours, ont ainsi été explorés :

- La *durée moyenne des pauses (DUR_PAUSES)* : la durée moyenne des intervalles de pause.
- La *variabilité de la durée des pauses (VAR_DUR_PAUSES)* a été calculée à l'aide du coefficient de variation de la durée des pauses selon la formule : $\text{écart type/moyenne} \times 100$.
- Le pourcentage du temps passé en pauses sur la durée totale de la prise de parole reflétant la *durée cumulative des pauses (PAUSES_CUM)*, calculé d'après la formule suivante : $\text{durée totale des pauses/durée totale de la prise de parole} \times 100$.
- La *durée moyenne des UIP (DUR_UIP)* : afin d'examiner cette variable sur le même nombre d'UIP par individu, la durée moyenne des UIP n'a été calculée que sur les 6 premières UIP contenant entre 3 et 20 mots, un patient n'ayant produit que 6 UIP contenant entre 3 et 20 mots.
- La *variabilité des durées des UIP (VAR_DUR_UIP)* calculée sur ces 6 premières UIP, à l'aide du coefficient de variation de la durée des UIP selon la formule : $\text{écart type/moyenne} \times 100$.

2.3.4.3. Le traitement statistique pour les variables de l'organisation du discours

Cette tâche, étant la dernière du protocole MonPaGe, deux patients (un patient ayant une SLA et un patient ayant une SLP), fatigués par la session d'enregistrement, ont souhaité s'arrêter là. Au total, 69

patients, dont 35 ayant une SLA, 16 ayant une SLP et 18 ayant une MK, et 50 contrôles ont été enregistrés. Afin de voir si les variables étudiées dépendent de la population, les valeurs de ces variables ont été comparées entre les populations à l'aide de l'Anova à un facteur du logiciel R. La normalité des résidus a été testée en vérifiant visuellement les QQplots et à l'aide du test de Shapiro-Wilk. L'homogénéité des résidus a été vérifiée en visualisant la distribution des résidus en fonction des valeurs prédites par le modèle. Lorsque l'hypothèse de normalité et/ou d'homogénéité des résidus était rejetée, le test non-paramétrique de Kruskal-Wallis a été utilisé. Lorsque la p-value est inférieure à 0.05, rejetant l'hypothèse de l'égalité des moyennes, des comparaisons multiples, c'est-à-dire toutes les comparaisons des moyennes deux à deux, ont été réalisées. Dans ce cas, les comparaisons multiples paramétriques avec la fonction 'glht' de la bibliothèque multcomp (Hothorn et al., 2008) ou non paramétriques avec la fonction 'nparcomp' de la bibliothèque nparcomp (Konietschke et al., 2015), toutes deux basées sur une procédure de Tukey ont été menées.

2.3.5. Récapitulatif des dimensions, des tâches et des descripteurs de parole étudiés

Dimension	Descripteurs de parole : <i>Acronymes</i>	Tâches	Description des mesures
VOIX	Jitter : <i>Jitter_aa</i> Shimmer : <i>Shimmer_aa</i> HNR : <i>HNR_aa</i> <i>SD Pitch_aa</i> <i>Pitch Mélanie</i> <i>SD Pitch_Mel</i>	/a/ court /a/ court /a/ court /a/ court Lecture	Instabilité de la fréquence Instabilité de l'intensité Composante de bruit dans la voix Instabilité de la f0 sur un /a/ Hauteur moyenne de la voix sur de la parole Instabilité de la f0 sur de la parole
COORDINATION PNEUMOPHONATOIRE	Temps maximum de phonation : <i>TMP</i>	/a/ long	Coordination pneumo-phonatoire
PRECISION ARTICULATOIRE	Taux d'erreurs segmentales perçues en fonction de la structure syllabique : <i>STR_SYLL</i> de la position du stimuli : <i>POS_STIM</i> du lieu d'articulation : <i>LIEU</i> de certaines consonnes : <i>CONS</i> de la complexité supposée : <i>LONG</i>	Pseudo-mots	Détection perceptive des distorsions segmentales
	Analyses acoustiques : Modulation cepstrale moyenne : <i>MOD_CEPST</i> Variabilité de la modulation cepstrale : <i>VAR_CEPST</i>	/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/	Possibilités de contrastes acoustiques entre les segments successifs Stabilité des contrastes acoustiques durant la répétition des syllabes successives au sein d'une même séquence
ASPECTS TEMPORELS	Glides : Durée des transitions : <i>DUR_TRANS</i> Diadococinésies : <i>AMR_CV_ba</i> <i>AMR_CV_de</i> <i>AMR_CV_go</i> <i>AMR_CV</i> <i>AMR_CCV_tsa</i> <i>AMR_CCV_kra</i> <i>SMR_CV</i>	/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/ /ba.../ /de.../ /go.../ Moyenne des 3 lieux /tra.../ /kra.../	Reflète les durées des transitions segmentales Capacité à alterner des mouvements articulatoires avec une contrainte de précision et de vitesse (en nombre moyen de syllabes par seconde)

	Parole continue : Débit articulatoire en lecture : DEB_LECT Débit articulatoire en spontané : DEB_SPONT Nombre de mots/UIP : NB_MOTS Variabilité du nombre de mots : VAR_NB_MOTS	/badego.../ Lecture Spontané	Nombre moyen de syllabes produites à la seconde Nombre moyen de mots dans les UIP
ORGANISATION DU DISCOURS	Durée des UIP : DUR_UIP Variabilité durée UIP : VAR_DUR_UIP Durée des pauses : DUR_PAUSES Variabilité durée des pauses : VAR_DUR_PAUSES Le pourcentage du temps passé en pauses sur la durée totale de la prise de parole : PAUSES_CUM	Spontané	Organisation du discours en termes de durée des pauses et les UIP (ou continuum de parole)

Tableau 21 Récapitulatif des dimensions, des descripteurs et des tâches étudiés dans cette thèse, ainsi qu'une brève description des mesures.

CHAPITRE 3. Résultats sur les caractéristiques acoustiques de la voix : une grande variabilité des profils

3.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses

Comme on l'a vu dans l'état de l'art de cette thèse, très peu d'études se sont penchées sur la description de la dimension vocale dans les populations MK et SLP. Dans la SLP, la voix est juste perceptivement décrite comme « serrée » (Clark et al., 2014).

Dans la MK, la dimension vocale semble n'être touchée que chez certains patients et le TMP est normal (Fougeron et al., 2022). Une étude a montré que les valeurs de jitter, shimmer et HNR sont plus élevées chez les patients qui ne présentent pas de spasmes laryngés versus ceux qui en présentent un (Tanaka et al., 2014).

Dans la SLA, une élévation des valeurs de jitter et shimmer, ainsi qu'une diminution des valeurs de HNR, sont des marqueurs de la présence d'une dysphonie (J. F. Kent et al., 1992; Silbergleit et al., 1997; Strand et al., 1994). Cependant, les profils vocaux semblent très hétérogènes dans cette population (Duffy, 2019). Cette hétérogénéité se retrouve notamment chez les femmes, certaines présentant une élévation de la fréquence fondamentale, d'autres un abaissement de la f_0 (J. F. Kent et al., 1992; Strand et al., 1994).

Concernant la coordination pneumo-phonatoire, les données de la littérature sont contradictoires : le TMP peut être similaire entre les contrôles et les patients SLA (J. F. Kent et al., 1992), mais il peut aussi être plus court dans la SLA (R. D. Kent et al., 1991; L. O. Ramig et al., 1990).

Quels sont les marqueurs de la dimension vocale qui distinguent les populations présentant une dysarthrie de la population contrôle, et les populations présentant une dysarthrie entre elles ?

Ce chapitre a pour objectif de décrire la dimension vocale dans chacune de nos populations présentant une dysarthrie, et potentiellement d'identifier des marqueurs acoustiques discriminants, c'est à dire distinguant les populations présentant une dysarthrie de la population contrôle, et des marqueurs spécifiques, c'est-à-dire distinguant les populations présentant une dysarthrie entre elles.

Nous allons donc traiter cette question au travers de trois dimensions de la parole relatives au fonctionnement du plan glottique : la qualité vocale, la hauteur vocale et la coordination pneumo-phonatoire.

Premièrement la qualité vocale sera explorée au travers de 5 indicateurs : le jitter (« *Jitter_aa* »), le shimmer (« *Shimmer_aa* »), le ratio harmonique sur bruit (« *HNR_aa* ») et deux mesures de déviation standard de la f_0 , sur un /a/ (« *SDPitch_aa* ») et sur une phrase lue (« *SDPitch_Mélanie* »).

Ensuite, la hauteur vocale sera explorée dans une phrase à l'aide de la variable « *Pitch Mélanie* ».

Enfin, la coordination pneumo-phonique sera étudiée grâce au temps maximum de phonation (« *TMP* »).

Concernant les variables définissant la qualité vocale, nous nous attendons à retrouver une variabilité des profils vocaux au moins chez les populations MK et SLA. Concernant la hauteur de la voix, nous supposons que nos résultats refléteront la variabilité rapportée dans la littérature chez les femmes dans la population SLA. Nous n'avons pas d'hypothèse quant aux autres groupes pathologiques concernant la hauteur vocale. De la même manière, nous nous attendons à une variabilité concernant la coordination pneumo-phonatoire dans la SLA, alors que le TMP devrait être normal dans la MK. Concernant la population SLP, nous n'avons pas de prédiction concernant la dimension vocale.

3.2. Résultats sur les caractéristiques vocales

3.2.1. Jitter_aa

L'instabilité de la fréquence a été comparée entre les différents groupes, pour chaque sexe, avec le test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`Jitter_aa ~ population, data = data_voix`).

La figure 5 illustre la comparaison des moyennes du **Jitter_aa** entre les populations, pour chaque sexe. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence significative, ni entre les femmes des différentes populations ($p = 0.9$), ni entre les hommes des différentes populations ($p = 0.1$).

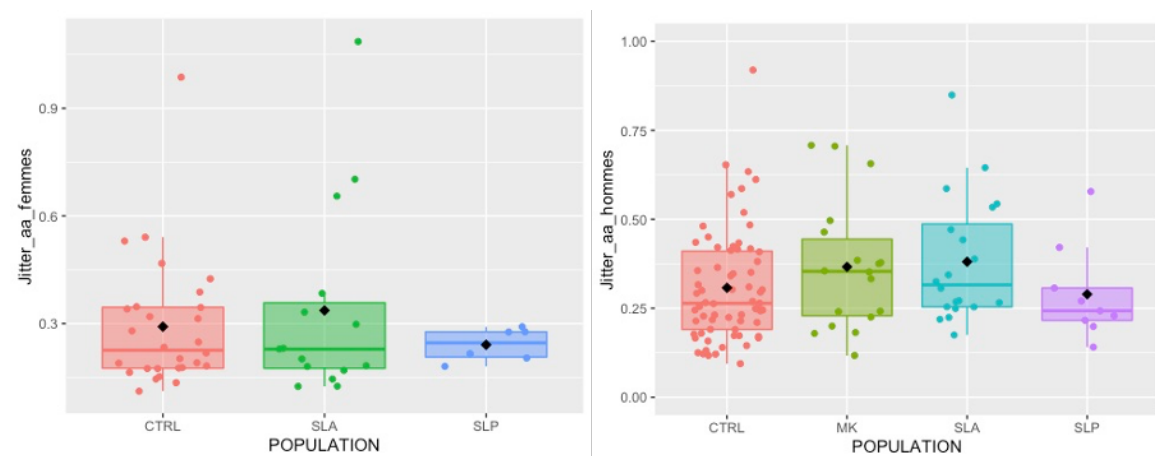


Figure 5 Comparaison du Jitter_aa entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne

La variable du *Jitter_aa*, reflétant l'instabilité de la fréquence, ne dépend pas de la population, dans notre étude.

3.2.2. Shimmer_aa

Afin d'explorer l'instabilité de l'intensité, nous avons comparé les valeurs du *Shimmer_aa* entre nos populations, pour chaque sexe, avec le test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`Shimmer_aa ~ population, data = data_voix`). Cette comparaison entre les populations est illustrée dans la figure 6. Les résultats de nos analyses montrent que pour les femmes, il n'y a pas de différence significative entre les moyennes du *Shimmer_aa* entre les différentes populations ($p = 0.1$), suggérant une instabilité commune de l'intensité chez les femmes de toutes les populations.

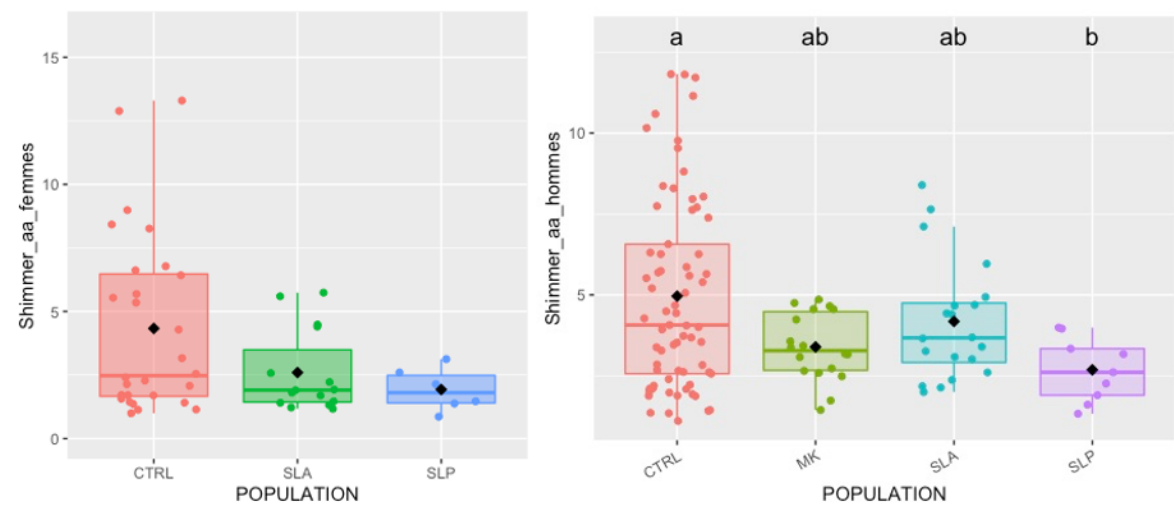


Figure 6 Comparaison du *Shimmer_aa* entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne. Pour les hommes, les lettres sur le graph représentent la significativité des différences entre les populations. Les populations qui partagent une même lettre ont un *Shimmer_aa* qui n'est significativement pas différent. Au contraire, si deux populations ne partagent pas une même lettre, alors leur *Shimmer_aa* est significativement différent.

Shimmer_aa hommes			
	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P
CTRL-K	0.375 (0.298)	-2.004	0.2
CTRL-SLA	0.457 (0.319)	-0.662	0.9
CTRL-SLP	0.259 (0.340)	-2.987	0.01*
K-SLA	0.600 (0.452)	1.032	0.7
K-SLP	0.309 (0.522)	-1.562	0.4
SLA-SLP	0.250 (0.474)	-2.140	0.1

Tableau 22 Comparaison multiple du *Shimmer_aa* entre les paires de populations pour les hommes (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

En revanche, comme on l'observe dans le tableau 22, il existe chez les hommes un effet de la population ($p = 0.04$) avec des valeurs de *Shimmer_aa* plus basses dans la population SLP comparé

aux contrôles ($p = 0.01$), suggérant une instabilité de l'intensité plus petite chez les hommes de la population SLP. Il n'y a en revanche pas de différence entre les hommes des autres populations.

3.2.3. HNR_aa

Nous avons utilisé la variable **HNR_aa** afin d'explorer la présence de bruit dans la voix. Cette variable a été comparée entre nos populations pour chaque sexe, à l'aide du test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`HNR_aa ~ population, data = data_voix`).

La figure 7 illustre cette comparaison entre les populations.

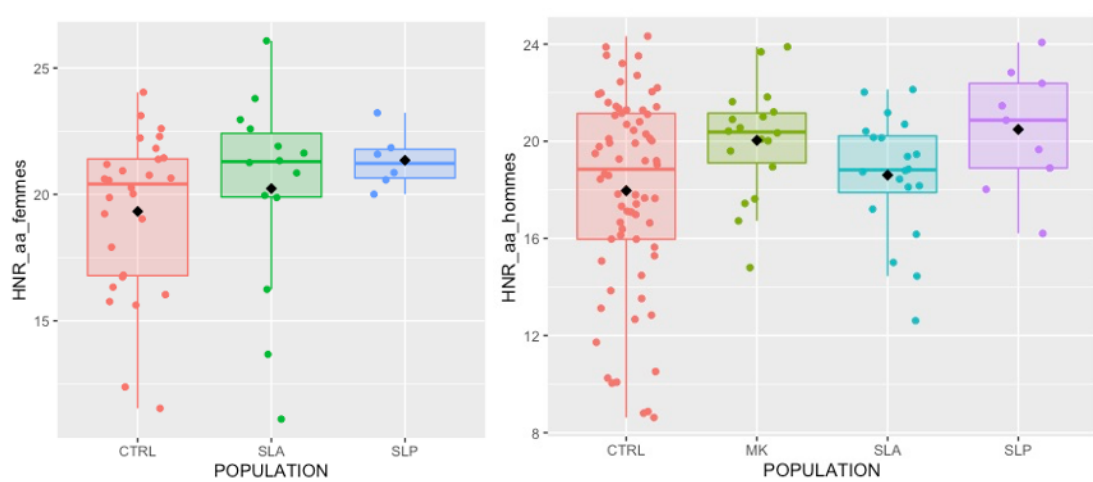


Figure 7 Comparaison du **HNR_aa** entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne.

Il n'existe pas d'effet de la population sur le **HNR_aa**, ni pour les femmes ($p = 0.3$), ni pour les hommes ($p = 0.08$). Autrement dit, la présence de bruit dans la voix ne dépend pas de la population dans notre étude.

3.2.4. SDPitch_aa

La stabilité de la vibration des cordes vocales durant la production du /a/, en termes d'écart type de f_0 , a été explorée au travers de la variable **SDPitch_aa**. Nous avons comparé cette variable entre nos populations pour chaque sexe avec le test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`SDPitch_aa ~ population, data = data_voix`). La comparaison de la variable **SDPitch_aa** entre les populations est illustrée dans la figure 8. Aucune différence significative n'apparaît, ni entre les femmes des différentes populations ($p = 0.3$), ni entre les hommes des différentes populations ($p = 0.3$).

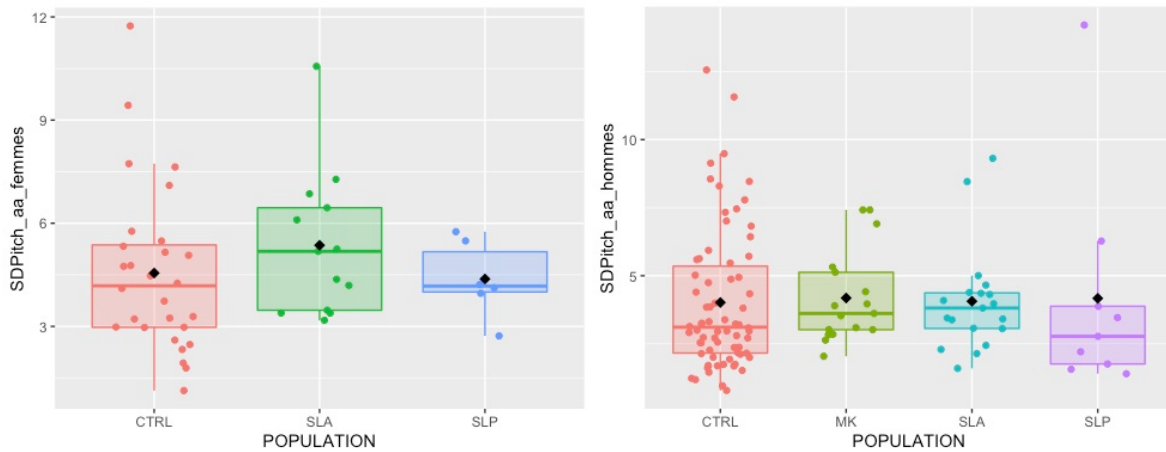


Figure 8 Comparaison du SDPitch_aa entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne.

Ce résultat suggère que la stabilité de la vibration des cordes vocales sur un /a/ ne dépend pas, dans notre étude, de la population.

3.2.5. Pitch Mélanie

La hauteur moyenne de la voix a été explorée à l'aide de la variable **Pitch Mélanie**. La moyenne de f_0 est calculée sur une série de f_0 relevée sur toute la durée de la phrase. Pour chaque sexe, nous avons comparé cette variable entre les populations grâce au test statistique paramétrique aov (Pitch Mélanie ~ population, data = data_voix). La comparaison est représentée dans la figure 9. Nos analyses ne montrent pas de différence significative de cette variable entre les populations ni chez les femmes ($p = 0.2$) ni chez les hommes ($p = 0.21$).

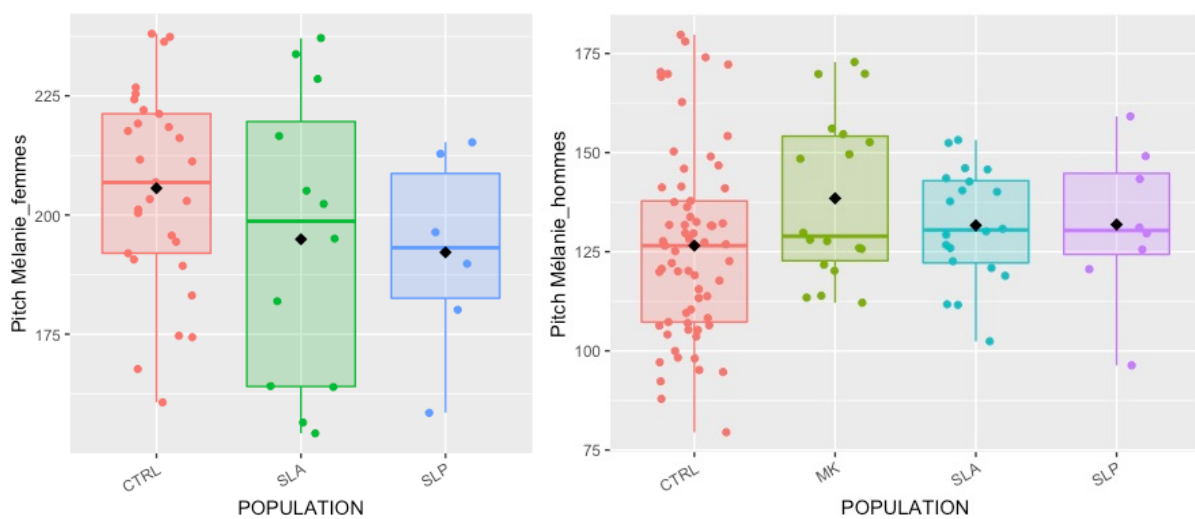


Figure 9 Comparaison du Pitch Mélanie (en Hertz) entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne.

La hauteur de la voix ne dépend donc pas de la population. Il est intéressant de noter la grande variabilité des données chez les femmes présentant une SLA, avec un groupe de 4 femmes dont la fréquence fondamentale de la voix est inférieure à 165 Hz, et un groupe de 4 femmes dont la fréquence fondamentale est supérieure à 212 Hz. Chez les hommes de la population MK, on note également une distribution bimodale des données : 10 hommes ont une fréquence fondamentale qui se situe aux alentours de 125 Hz. Les 8 autres hommes ont une fréquence fondamentale supérieure ou égale à 150 Hz.

3.2.6. SDPitch_Mélanie

Nous avons ensuite mesuré la modulation de cette hauteur de la voix à l'aide de la variable **SDPitch_Mélanie**. Pour chaque sexe, cette variable a été comparée avec le test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`SDPitch_Mélanie ~ population, data = data_voix`). La figure 10 présente les comparaisons de moyenne du **SDPitch_Mélanie** entre les populations.

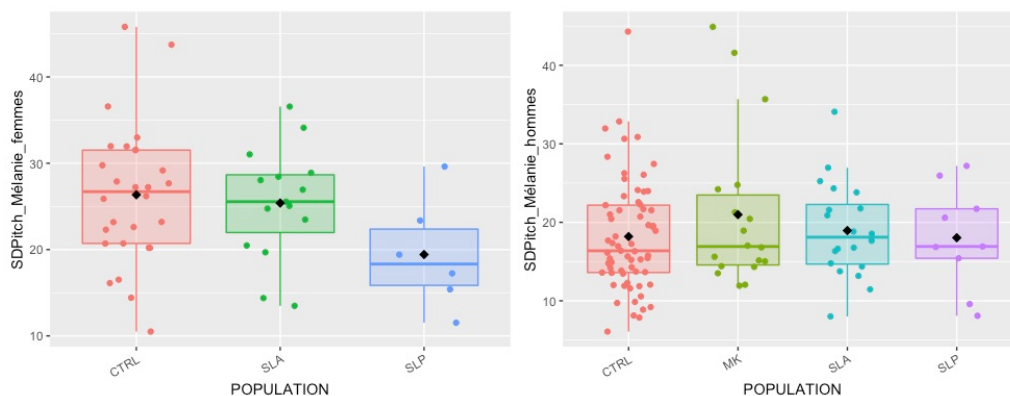


Figure 10 Comparaison du **SDPitch_Mélanie** entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne.

Il n'y a pas de différence significative du **SDPitch_Mélanie** entre les populations ni chez les femmes ($p = 0.1$) ni chez les hommes ($p = 0.8$). Autrement dit, la modulation de la hauteur de la voix ne dépend pas de la population.

3.2.7. TMP

Nous avons enfin exploré la coordination pneumo-phonique à l'aide du **TMP**. Nous avons comparé cette variable entre les populations pour chaque sexe. Chez les femmes, le test statistique paramétrique `aov` (`TMP ~ population, data = data_voix`) a été utilisé pour comparer les populations. Chez les hommes, la distribution des données n'étant pas normale, nous avons utilisé le test statistique non

paramétrique `kruskal.test (TMP ~ population, data = data_voix`. La comparaison des moyennes du *TMP* est représentée dans la figure 11.

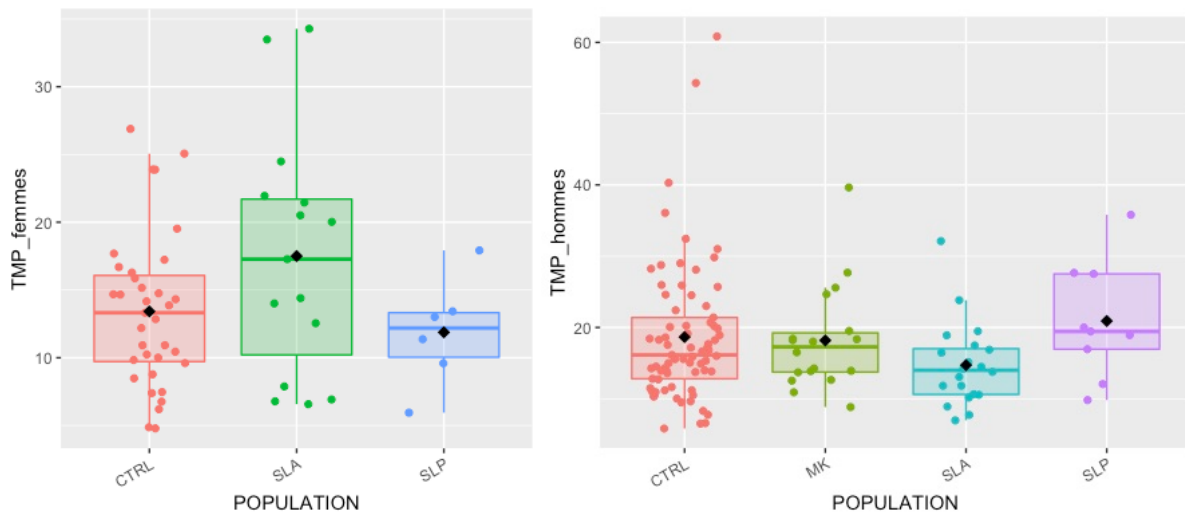


Figure 11 Comparaison du TMP (en secondes) entre les populations pour les femmes (à gauche) et les hommes (à droite). Rappelons que la MK ne touche que les hommes. Le losange central représente la moyenne.

Les résultats de nos analyses ne montrent pas de différence significative du TMP entre les populations ni chez les femmes ($p = 0.09$), ni chez les hommes ($p = 0.12$). La coordination pneumo-phonique ne dépend donc pas de la population dans notre population.

3.3. Que retenir des aspects liés à la voix dans cette étude ?

Nos résultats révèlent un seul marqueur qui discrimine les hommes de la population contrôlée de ceux de la population SLP : les valeurs de la variable *shimmer_aa* reflétant l'instabilité de l'intensité, sont plus basses chez les hommes ayant une SLP comparés aux hommes de la population des contrôles.

Concernant les variables de la qualité vocale, nous observons une grande variabilité des données, tant dans les populations pathologiques, surtout dans la SLA et la MK, que dans la population contrôlée.

Concernant la hauteur de la voix, nous constatons deux groupes chez les femmes ayant une SLA : un groupe ayant une f_0 entre 200 et 230 Hz et un groupe plus restreint ayant une f_0 aux alentours de 160 Hz. Chez les hommes, on observe deux groupes distincts dans la population MK avec un groupe d'hommes ayant une f_0 plutôt élevée, entre 150 et 175 Hz, et un autre groupe d'hommes ayant une f_0 plus basse, entre 110 et 130 Hz.

Enfin, concernant la coordination pneumo-phonatoire, il n'y a pas de différence entre nos populations. On peut cependant noter une grande variabilité des données, tant chez les sujets contrôlés que chez les sujets dysarthriques.

Ces résultats seront discutés dans la discussion de cette thèse, en chapitre 7.

CHAPITRE 4. Résultats sur l'articulation : la SLA, une population aux aspects segmentaux plus vulnérables

4.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses

La dimension articuloire dans la MK a été très peu explorée. Deux études publiées rapportent une altération de cette dimension de la parole perçue dans la MK (Fougeron et al., 2022) et notamment une perturbation au niveau du port vélopharyngé dans cette pathologie (Tanaka et al., 2019). Une perte de force de la langue, mesurée sur des tâches non verbales, est particulièrement rapportée dans cette pathologie (Mano et al., 2014).

A notre connaissance, aucune étude n'a été publiée sur la précision articuloire dans la SLP. Néanmoins, les études réalisées sur la dysarthrie spastique, supposée être le type de dysarthrie dans la SLP, ont spécifiquement montré des distorsions des consonnes et voyelles postérieures (Ziegler & von Cramon, 1986). Par ailleurs, des études ont montré que les mouvements articuloires durant la parole dans la dysarthrie spastique dont les étiologies sont diverses, sont similaires à ceux de la dysarthrie mixte dans la SLA (Clark et al., 2022; Hirose et al., 1982; Rong et al., 2012).

Dans la SLA en revanche, de nombreuses études, tant perceptives, acoustiques que cinématiques, ont clairement pointé l'importance de l'altération de la mobilité linguale sur la dimension articuloire (DePaul et al., 1988; J. F. Kent et al., 1992; R. D. Kent et al., 1991; Kent Raymond D. et al., 1990; Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994; J. Lee et al., 2017, 2020; J. Lee & Bell, 2018; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; Riddel et al., 1995; Rong et al., 2015; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2008, 2010).

On peut se demander si la précision de l'articulation est touchée de la même manière dans ces trois pathologies : quel est l'effet du lieu d'articulation, de la position d'un stimulus dans le mot, de la complexité de la structure syllabique de ce stimulus ou encore de la longueur du mot, sur l'imprécision articuloire perçue. Comment se caractérisent les changements de configurations du conduit vocal pour passer d'un phonème à un autre ?

L'objectif de ce chapitre est donc de caractériser dans nos populations, la précision de l'articulation tant au niveau perceptif qu'acoustique, au travers de deux études :

- (1) La première étude porte sur l'exploration des imprécisions segmentales de stimulus (voyelles, consonnes simples et groupes de consonnes) évaluées perceptivement dans des pseudo-mots, en fonction de cinq paramètres : la structure syllabique (*STR_SYLL*), la position du stimulus dans le mot (*POS_STIM*), le lieu d'articulation (*LIEU*), certaines consonnes linguales en particulier (*CONS*) et la longueur des pseudo-mots dans lesquels se trouvent les stimuli (*LONG*).

Dans la SLA et la MK, on suppose que les phonèmes linguaux seront particulièrement altérés, du fait de l'atteinte de la mobilité linguale dans ces deux pathologies. En lien avec la fatigabilité connue dans la SLA, on s'attend dans cette population à une altération plus importante des stimuli, quand ils sont situés dans des pseudo-mots longs, en position coda finale de mot ou dans des structures syllabiques complexes tels que dans les clusters CCV ou CCCV. Dans la SLP, on s'attend à percevoir surtout une distorsion des consonnes linguales postérieures.

(2) La seconde étude porte sur une mesure acoustique supposée refléter les possibilités de modulation des configurations du tractus vocal des locuteurs, pour passer d'un segment à un autre, dans des séquences impliquant des mouvements antéro-postérieurs de la langue et d'ouverture-fermeture de la mâchoire. Cette étude a fait l'objet d'une publication qui figure en annexes (Lévêque et al., 2022). Deux descripteurs seront étudiés : la modulation cepstrale (*MOD_CEPST*), reflétant les mouvements du tractus vocal durant la production de ces séquences et la variabilité de cette modulation cepstrale (*VAR_CEPST*) à l'intérieur des séquences, reflétant la stabilité de la précision articulatoire.

On prédit que les mesures faites sur les modulations cepstrales vont capturer des perturbations de l'articulation dans les groupes pathologiques. On s'attend notamment à trouver une perte d'amplitude des modulations cepstrales, reflétant une difficulté pour les locuteurs à atteindre les cibles acoustiques successives, et une variabilité de l'amplitude de la modulation cepstrale, montrant une instabilité de l'articulation.

La présentation des résultats s'organise en deux grandes parties. Premièrement nous exposerons les résultats de l'étude perceptive sur la précision des stimuli dans les pseudo-mots. Dans un second temps, nous présenterons les résultats de l'étude acoustique sur la modulation cepstrale et la variabilité de cette modulation, étudiées dans les séquences de glides.

4.2. Imprécisions segmentales jugées perceptivement dans les pseudo-mots

Dans notre étude, aucun locuteur n'a fait d'inversion ni d'insertion de phonème, les dysarthries flasque, spastique et mixte (flasque et spastique), se manifestant principalement par des distorsions du son cible. Globalement, dans nos trois populations pathologiques, il y a plus de stimuli perçus avec une réalisation correcte qu'incorrecte. Toutefois, une analyse des erreurs en fonction de différents aspects liés à leur distribution montre quelques tendances en fonction des populations.

4.2.1. En fonction de la structure syllabique (*STR_SYLL*)

Dans chacune des structures syllabiques CV pour les consonnes singletons et, CCV et CCCV pour les clusters, la proportion des réponses correct/incorrect est équivalente dans les trois populations avec

$\chi^2(0.005,2)$, $p = 0.9$ pour la structure CV, $\chi^2(0.002,2)$, $p = 0.9$ pour la structure CCV et $\chi^2(0.13,2)$, $p = 0.9$ pour la structure CCCV.

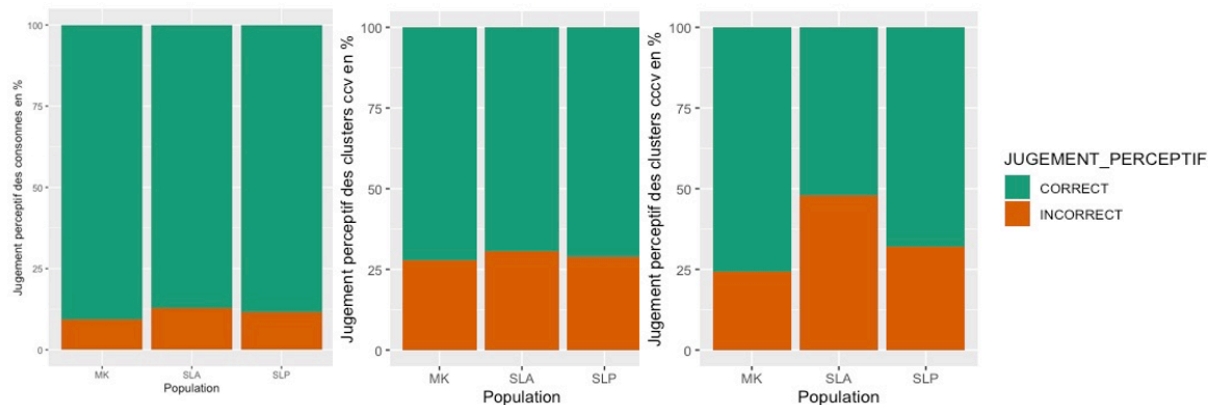


Figure 12 Jugement perceptif des stimuli (correct/incorrect) dans chaque structure syllabique (CV à gauche, CCV au centre et CCCV à droite) et dans chaque population

On observe sur la figure 12 que pour toutes les populations, le taux d'erreur est plus important dans les structures complexes comportant des clusters consonantiques (CCV et CCCV) par rapport à la structure simple ne comportant qu'une seule consonne (CV). Dans la population SLA, le taux d'erreur est particulièrement plus élevé dans la structure syllabique CCCV, que l'on considère la plus complexe. En effet, presque la moitié des stimuli sont jugés imprécis dans cette structure syllabique. Pour les deux autres populations, il n'y a pas de différence entre les structures complexes CCV et CCCV. De ce fait, bien que l'effet population ne ressorte pas des analyses statistiques montrées ci-dessus, c'est la complexité des CCCV qui fait le mieux ressortir la différence entre les trois populations.

4.2.2. En fonction de la position du stimulus (POS_STIM)

Que ce soit pour les consonnes simples ou pour les clusters, la proportion des erreurs est la même entre les trois populations, quelle que soit la position étudiée (l'onset initiale de mot versus la coda finale de mot) aussi bien pour les consonnes singletons ($\chi^2(0.02,2)$, $p = 0.9$ en onset initial de mot ; $\chi^2(0.02,2)$, $p = 0.9$ en coda finale de mot), que pour les clusters (CCV et CCCV confondus) : $\chi^2(0.02,2)$, $p = 0.9$ en onset initial du mot et $\chi^2(0.07,2)$, $p = 0.9$ en coda finale du mot.

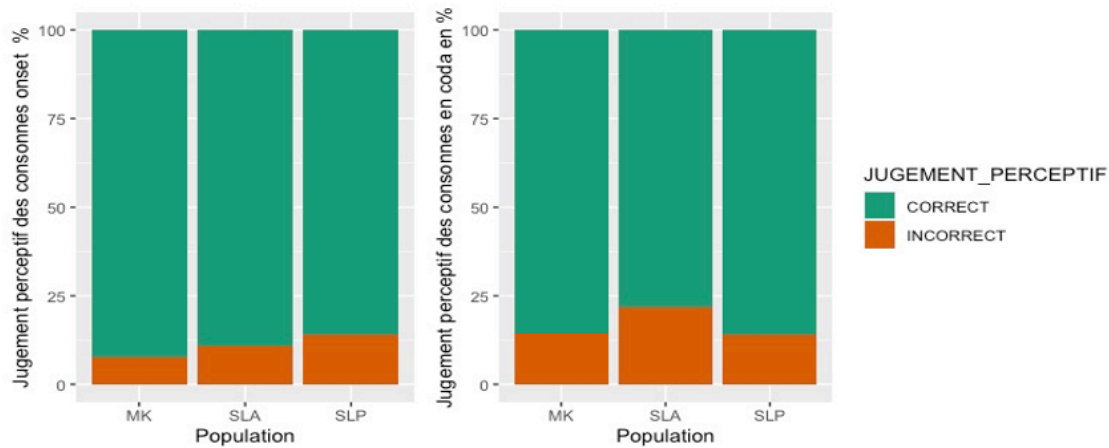


Figure 13 Jugement perceptif des consonnes singletons (correct/incorrect) en fonction de leur position dans le mot (à l'onset initial du mot à gauche et en coda finale du mot à droite) dans chaque population

On observe sur la figure 13 que pour les populations SLA et MK, les erreurs sont plus fréquentes quand les consonnes sont en position coda finale de mot versus en position onset à l'initial d'un mot, avec plus du double d'erreur en coda, de 11% à 22% pour la population SLA et de 7% à 14% dans la MK. Pour la population SLP, le taux d'erreur est de 14%, que la consonne soit située en onset à l'initial du mot ou en coda finale de mot. Encore une fois, même si nous avons vu plus haut que la différence entre les populations n'est pas significative, la population SLA tend à se distinguer des deux autres populations par des erreurs plus importantes dans la position que nous considérons la plus faible : la position coda finale.

On a vu plus haut que les erreurs étaient plus nombreuses dans la population SLA pour les structures complexes CCV et CCCV. On observe dans la figure 14 qu'à nouveau, bien qu'il n'y ait pas de différence statistique entre les populations, les erreurs sont plus importantes dans les clusters tous confondus, quelle que soit leur position dans le mot : en onset initial et en coda finale du mot, mais avec plus d'erreurs dans cette dernière position (43%).

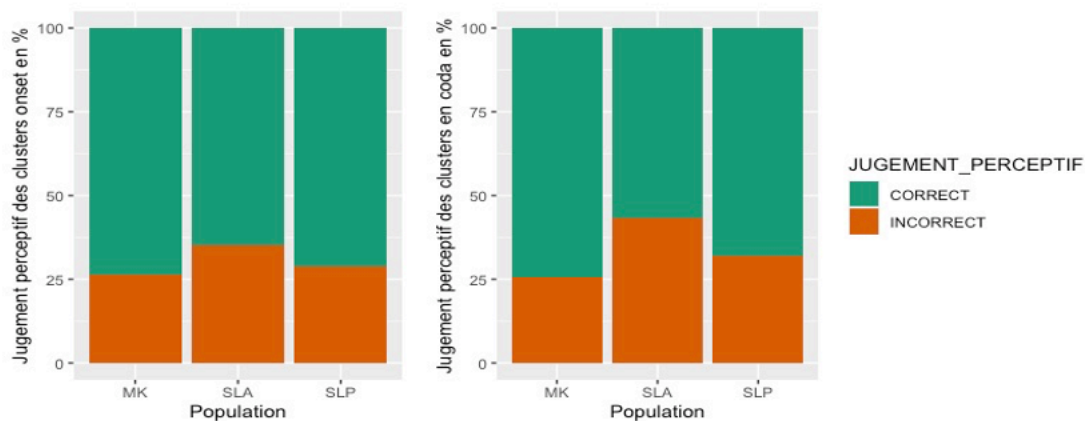


Figure 14 Jugement perceptif des clusters tous confondus CCV et CCCV (correct/incorrect) en fonction de leur position dans le mot (à l'onset initial du mot à gauche et en coda finale de mot à droite) dans chaque population

4.2.3. En fonction du lieu d'articulation des consonnes linguales (LIEU)

Dans cette section, on cherche à explorer la vulnérabilité de l'articulation dans les différentes populations, selon que les consonnes linguales sont produites avec l'apex ou le dos de la langue. On observe donc le nombre d'erreurs en fonction de ces deux grands types de lieu d'articulation des consonnes linguales, lieu antérieur versus lieu postérieur.

La proportion des réponses correct/incorrect est équivalente dans les trois populations pour les deux grands types de lieu d'articulation considérés (antérieur /t,d,n,l,s,z/ $\chi^2(0.02,2)$, $p = 0.9$ et postérieur /k,g/, $\chi^2(0.01,2)$, $p = 0.9$).

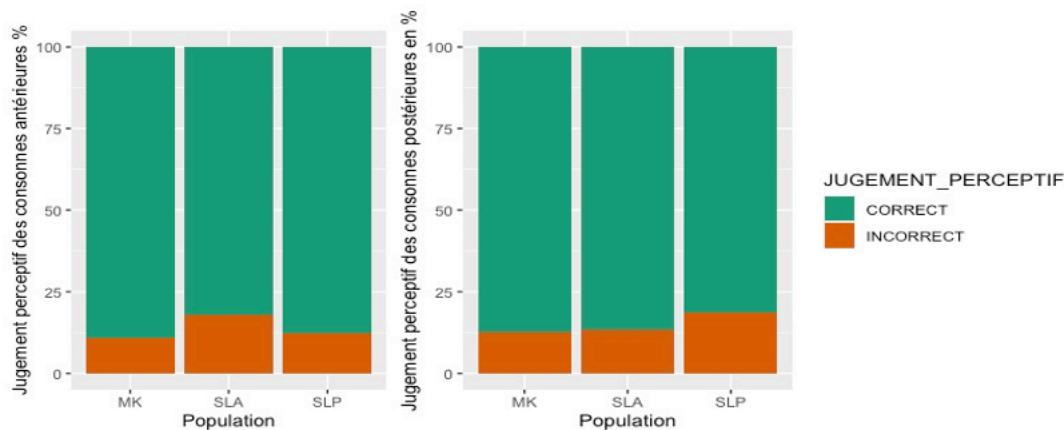


Figure 15 Jugement perceptif des consonnes antérieures à gauche et postérieures à droite (correct/incorrect) dans chaque population

Comme on le voit sur la figure 15, la population SLA présente **légèrement** plus d'erreurs sur les consonnes antérieures (18%) que sur les consonnes postérieures (13%), alors que la population SLP présente une tendance inverse (12% sur les antérieures, 19% sur les postérieures). Dans la population MK, ces taux d'erreur sont relativement similaires entre les consonnes antérieures (11%) et postérieures (13%).

4.2.4. En fonction de certaines consonnes linguales (CONS)

Puisque les consonnes linguales sont particulièrement vulnérables dans les populations SLA et SLP, allons explorer de plus près si la prépondérance des erreurs sur les consonnes antérieures dans la SLA ne serait pas due à des erreurs particulièrement plus nombreuses sur les fricatives antérieures /s-z/ et la latérale antérieure /l/, peut-être plus complexes à articuler pour ces patients du fait de l'amyotrophie

des bords de leur langue et la perte de force pour monter l'apex. Regardons ensuite si les erreurs concernant la consonne postérieure /ʁ/ sont plus nombreuses dans la population des locuteurs présentant une SLP, qui pourraient être contraint par leur spasticité afin d'obtenir une amplitude suffisamment grande, nécessaire à la production de cette consonne.

Aucun des trois types de consonnes étudiés ne permet de faire ressortir significativement une différence entre les populations (/s-z/ : χ^2 (0.0,2), $p = 0.9$; /l/ : χ^2 (0.1,2), $p = 0.9$; et /ʁ/ : χ^2 (0.09,2), $p = 0.9$), même si la population SLA présente plus de /l/ erronés que les deux autres groupes et la présente peu d'erreurs sur le /ʁ/ comme on le voit sur la figure 16.

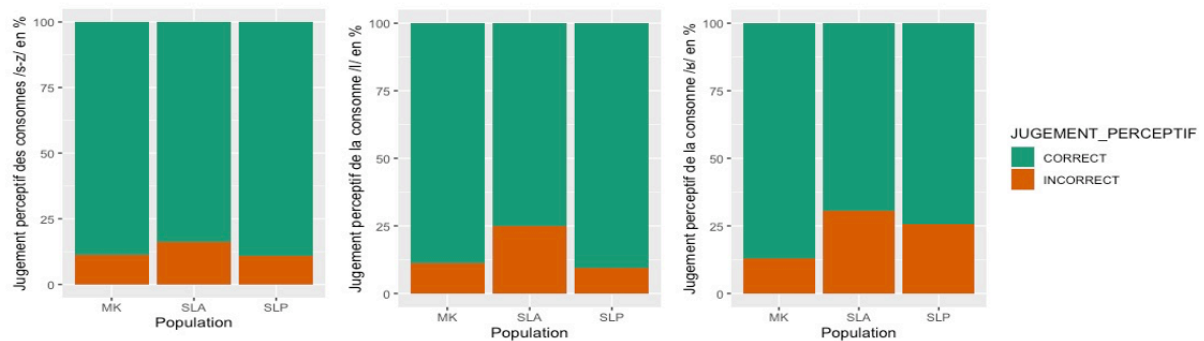


Figure 16 Jugement perceptif des consonnes /s-z/ à gauche, /l/ au milieu et /ʁ/ à droite (correct/incorrect) dans chaque population

Pour autant, la distribution des erreurs par type de consonnes pour les trois populations, illustrée dans la figure 16, montre des tendances intéressantes. Alors que la population MK présente le même taux d'erreurs sur les trois types de consonnes /s-z/, /l/ et /ʁ/, le /ʁ/ semble plus vulnérable dans les populations SLA et SLP, et le /l/ dans la population SLA.

4.2.5. En fonction de la longueur et la complexité du pseudo-mot (LONG)

Dans cette section, nous allons observer 4 mots polysyllabiques supposés être de complexité et de longueur différentes.

Nous allons tout d'abord étudier le mot « kitoukitou ». La complexité de ce pseudo-mot quadrisyllabique réside dans l'alternance de mouvements antéro-postérieurs de la langue nécessaire dans la production successive de ces 2 syllabes /ki/ et /tu/. Dans ce mot, la consonne postérieure /k/ est suivie de la voyelle antérieure /i/, alors que la consonne antérieure /t/ est suivie de la voyelle postérieure /u/. Ce pseudo-mot est donc sans doute complexe à articuler, notamment pour les locuteurs présentant une SLA, pathologie dans laquelle la perturbation de ces mouvements linguaux antéro-postérieurs est connue.

Les résultats nous montrent qu'il n'y a pas de différence entre les populations sur ce mot (χ^2 (0.07,2), $p = 0.9$) bien que les locuteurs présentant une SLA présentent plus d'erreurs dans ce mot (23%) que

les locuteurs présentant une SLP (13%) et les locuteurs ayant une MK (10%), comme on peut l'observer dans la figure 17.

Une autre alternance de mouvements possiblement difficile à réaliser chez les dysarthriques, en lien avec des troubles de mobilité du voile du palais, est l'alternance d'abaissement et d'élévation du voile du palais. L'abaissement du voile du palais est requis dans la production de consonnes et voyelles nasales, alors que son élévation est indispensable dans la production de consonnes et voyelles orales. Pour étudier précisément cette alternance de mouvements vélaire, explorons la précision articuloire dans le pseudo-mot quadrisyllabique « ménabainban ». L'encodage syllabique de ce mot repose sur 4 syllabes différentes, dans lesquelles chaque consonne orale est suivie d'une voyelle nasale, et chaque consonne nasale est suivie d'une voyelle orale. Les résultats montrent qu'il n'y a pas de différence entre les populations sur ce mot ($\chi^2(0.03,2)$, $p = 0.9$). Mais à nouveau, comme on l'observe sur la figure 17, les erreurs sont plus nombreuses dans ce mot chez les locuteurs présentant une SLA (21%), en comparaison avec les locuteurs ayant une SLP et une MK (respectivement 16% et 11%).

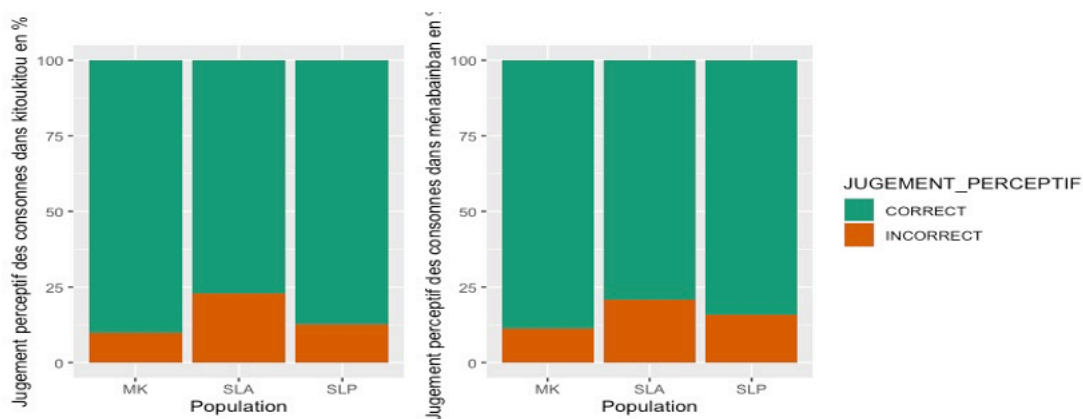


Figure 17 Jugement perceptif des consonnes dans les pseudo-mots « kitoukitou » à gauche et « ménabainban » à droite (correct/incorrect) dans chaque population

Enfin, nous avons souhaité observer la précision articuloire dans les deux pseudo-mots « tatata » et « dadada », supposés moins complexes à articuler que les deux mots précédents. En effet, ces deux mots ne reposent que sur l'encodage syllabique que d'une seule syllabe à répéter et ils sont moins longs puisqu'ils sont trisyllabiques. En termes d'alternance des mouvements articuloires, ces deux pseudo-mots ne requièrent que l'alternance de l'ouverture/fermeture de la mâchoire. Le mot « tatata » requiert également des alternances d'ouverture et de fermeture de la glotte puisque la consonne /t/ est sourde. Les résultats montrent qu'il n'y a pas de différence entre les populations pour ces deux mots (« dadada » $\chi^2(0.1,2)$, $p = 0.9$ et « tatata » : $\chi^2(0.08,2)$, $p = 0.9$). Néanmoins, comme on l'observe sur la figure 18, nos résultats montrent une tendance surprenante. Alors que nous supposions que la

précision articulatoire serait relativement conservée dans ces mots jugés peu complexes par rapport aux autres mots, on observe que les erreurs sont plus nombreuses chez les locuteurs présentant une SLP (35%), en comparaison avec les locuteurs ayant une SLA et une MK (respectivement 19% et 13%) pour le mot « dadada » et 17% pour le mot « tatata » dans la SLP, en comparaison avec la population SLA (7%) et la population MK (6%).

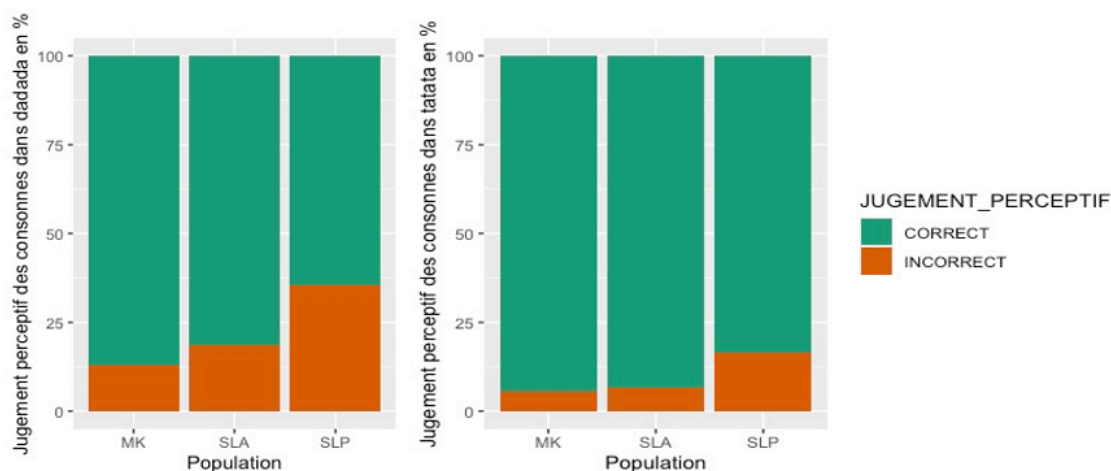


Figure 18 Jugement perceptif des consonnes dans les mots « dadada » à gauche et « tatata » à droite (correct/incorrect) dans chaque population

On peut donc se demander si pour cette population, la complexité ne réside pas en fait dans la réalisation et/ou la programmation de l'encodage d'une même syllabe, trois fois de suite.

4.3. Les mesures cepstrales dans les séquences /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/

Comme les tendances l'ont montré dans l'analyse perceptive présentée dans la section précédente, la précision articulatoire peut être affectée de manière différente dans les populations, en fonction des mouvements requis pour enchaîner les sons (mouvements antéro-postérieurs de la langue, alternance de l'abaissement et de l'élévation du voile), de la position des sons dans un mot (onset initial vs coda finale), ou encore selon la composition des syllabes, répétitives ou séquentielles, dans un mot. Dans cette section, nous étudions précisément des séquences de glides, composées de trois répétitions d'une même syllabe, dont les structures syllabiques varient dans chacune des séquences (onset-noyau dans /wiwiwi/ vs noyau-coda dans /ujujuj/ et /ajajaj/), et requérant des mouvements articulatoires différents. Nous présentons dans cette section un résumé des résultats d'une étude que nous avons publiée, et qui figure en annexes de cette thèse (Lévêque et al., 2022). Nous cherchons à savoir ici, si les caractéristiques de la séquence distinguent les populations entre elles, en termes (1) de mouvements articulatoires, et (2) de position du noyau dans la structure syllabique. Sont donc explorés ici les effets

de la population à 4 niveaux (SLA, SLP, MK et contrôles) et son interaction avec le type de séquence de glides (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/), sur différentes mesures reflétant la précision articulatoire, décrites dans les sous-sections suivantes.

4.3.1. La modulation cepstrale (MOD_CEPST)

Afin de rechercher une hypoarticulation éventuelle par manque de contraste entre les segments successifs (glide + voyelle ou voyelle + glide), en lien avec une amplitude réduite des changements de configuration du tractus vocal pour passer d'un segment au suivant, nous avons exploré les variations de la modulation cepstrale en fonction des glides étudiées (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/) et en fonction des populations.

Nous avons donc construit un modèle mixte en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et GLIDE (3 niveaux : /aj/, /uj/, /wi/) comme facteurs fixes en interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (MOD_CEPST~population*glide +(1|Speaker)).

Les analyses montrent une interaction entre les facteurs POPULATION et GLIDE ($\chi^2 = 267.06$, $p < .001$ ***). La distinction entre les 4 populations concernant cette mesure varie donc en fonction de la séquence produite. Les résultats, présentés dans le tableau 23, montrent une hypoarticulation, qui apparaît dans la figure 19, par une réduction des modulations cepstrales dans les trois populations présentant une dysarthrie, par rapport aux contrôles, particulièrement dans les séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/. La séquence /ajajaj/ quant à elle, ne met en évidence l'hypoarticulation, que dans la population SLA en comparaison avec les contrôles. Les séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/, caractérisées par des mouvements antéro-postérieurs de la langue permettent donc de mettre en évidence une hypoarticulation dans toutes les populations présentant une dysarthrie par rapport aux contrôles. La séquence ne faisant intervenir que des mouvements d'ouverture/fermeture de la mâchoire, ne met en évidence l'hypoarticulation que dans la SLA.

Par ailleurs, la réduction des modulations cepstrales distingue les trois populations présentant une dysarthrie entre elles, avec des modulations cepstrales moins amples chez les locuteurs présentant une SLA et une SLP par rapport aux locuteurs présentant une MK, révélatrices d'une hypoarticulation plus sévère dans la SLA et la SLP que dans la MK, dans toutes les séquences. Il est donc intéressant d'observer que l'hypoarticulation est moins marquée quels que soient les articulateurs concernés, dans l'unique population présentant une dysarthrie ne présentant pas de spasticité au niveau des articulateurs.

Par contre, l'hypoarticulation est similaire dans les deux populations SLA et SLP pour toutes les séquences, suggérant que la spasticité des articulateurs, commune dans ces deux populations, explique peut-être cet émoussement similaire important des contrastes acoustiques entre les segments, quels que soient les articulateurs impliqués.

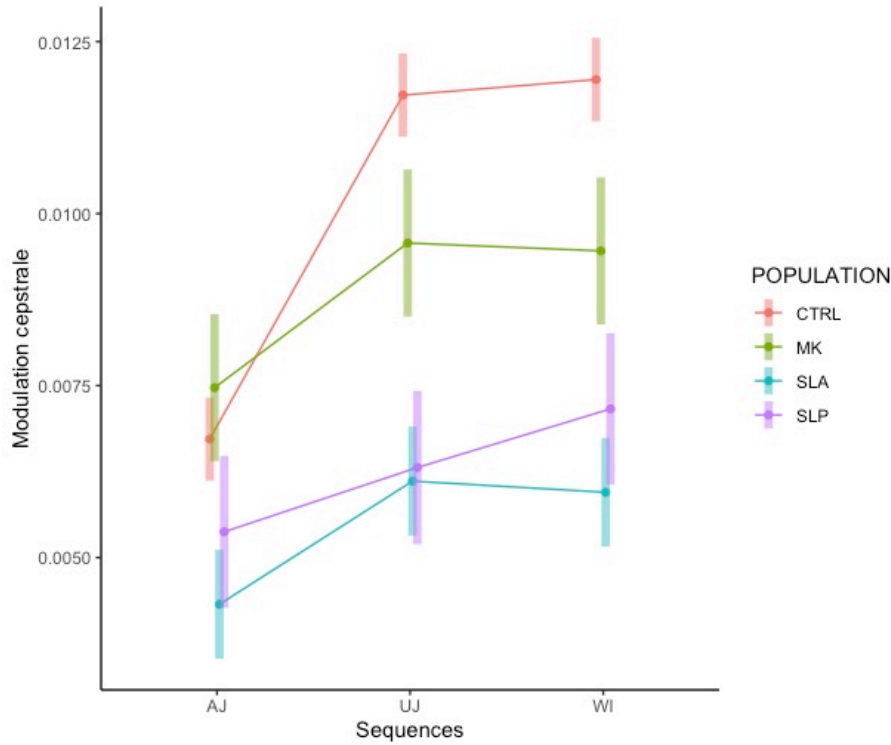


Figure 19 Comparaison de la modulation cepstrale moyenne entre les séquences (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/) pour chaque population. Les barres de dispersion autour des moyennes représentent les intervalles de confiance.

	MODULATION CEPSTRALE MOYENNE								
	AJ			UJ			WI		
	ESTIMATION (ES)	t RATIO	p	ESTIMATION (ES)	t RATIO	p	ESTIMATION (ES)	t RATIO	p
SLA-CTRL	-0.002 (0.0005)	-4.76	<.0001	-0.005 (0.0005)	-11.10	<.0001	-0.005 (0.0005)	-11.89	<.0001
SLA-SLP	-0.001 (0.0006)	-1.53	.42	-0.001 (0.0006)	-0.28	.99	-0.001 (0.0006)	-1.76	.29
SLA-MK	-0.003 (0.0006)	-4.67	<.0001	-0.003 (0.0006)	-5.13	<.0001	-0.003 (0.0006)	-5.21	<.0001
CTRL-SLP	0.001 (0.0006)	2.11	.15	0.005 (0.0006)	8.43	<.0001	0.004 (0.0006)	7.52	<.0001
CTRL-MK	-0.0007 (0.0006)	-1.20	.62	0.002 (0.0006)	3.45	<.01	0.002 (0.0006)	3.99	<.001
SLP-MK	-0.002 (0.0007)	-2.69	.03	-0.003 (0.0007)	-4.17	<.001	-0.002 (0.0007)	-2.95	.01

Tableau 23 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population par séquence sur la modulation cepstrale (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

4.3.2. La variabilité de la modulation cepstrale (VAR_CEPST)

Autre composante importante caractérisant la précision articulatoire : la stabilité de l'articulation au fil de la production de la séquence. Afin d'explorer cette stabilité de l'articulation, nous avons exploré la variabilité de la modulation cepstrale en fonction des glides étudiées (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/) et en fonction des populations.

Nous avons construit ici un modèle mixte en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et GLIDE (3 niveaux : /aj/, /uj/, /wi/) comme facteurs fixes en interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (VAR_CEPST~population*glide +(1|locuteur)).

Les analyses de cette mesure reflétant l'instabilité de l'articulation, montrent une interaction entre les facteurs POPULATION et GLIDE ($\chi^2 = 28.94$, $p < .001$ ***). La distinction entre les 4 populations concernant cette mesure d'instabilité de l'articulation varie donc en fonction de la séquence produite. Les résultats présentés dans le tableau 24 montrent des valeurs significativement plus hautes de la variabilité de la modulation cepstrale dans la population SLA comme on peut le voir dans la figure 20. Cette variabilité importante de la modulation cepstrale reflète une nette instabilité de l'articulation dans cette population.

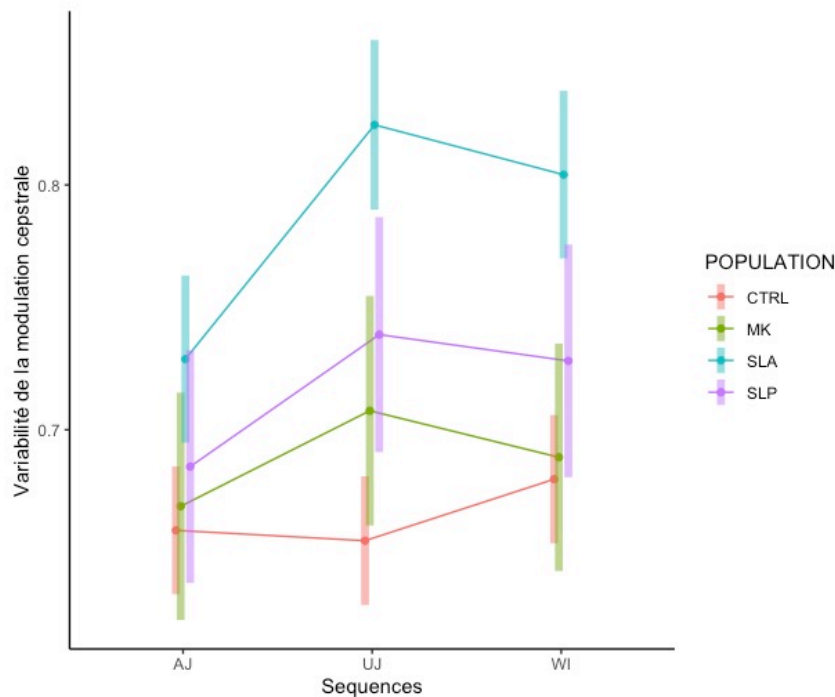


Figure 20 Comparaison de la variabilité de la modulation cepstrale entre les séquences (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/) pour chaque population. Les barres de dispersion autour des moyennes représentent les intervalles de confiance.

	VARIABILITE DE LA MODULATION CEPSTRALE								
	AJ			UJ			WI		
	ESTIMATI ON (SE)	t RATIO	p	ESTIMATI ON (SE)	t RATIO	p	ESTIMATI ON (SE)	t RATIO	p
SLA-CTRL	0.06 (0.02)	3.21	< .001	0.16 (0.02)	7.69	< .0001	0.12 (0.02)	5.68	< .0001
SLA-SLP	0.04 (0.02)	1.48	.45	0.08 (0.03)	2.85	.02	0.07 (0.02)	2.55	.05
SLA-MK	0.06 (0.02)	2.05	.17	0.11 (0.02)	3.94	< .001	0.11 (0.02)	3.94	< .001
CTRL-SLP	-0.02 (0.02)	-0.94	.78	-0.08 (0.02)	-3.03	.01	-0.04 (0.02)	-1.75	.29
CTRL-MK	-0.01 (0.02)	-0.36	.98	-0.05 (0.02)	-1.94	.21	-0.01 (0.02)	-0.33	.98
SLP-MK	0.01 (0.03)	0.48	.96	0.03 (0.03)	0.91	.79	0.03 (0.03)	1.16	.64

Tableau 24 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population par séquence sur la variabilité de la modulation cepstrale (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

Les résultats, présentés dans le tableau 24 montrent que :

- La séquence /ajajaj/ permet de mettre en évidence une instabilité notable uniquement dans la population SLA, par rapport aux contrôles.
- La séquence /ujujuj/ met en évidence une instabilité de l'articulation dans la population SLA, par rapport aux contrôles, mais également par rapport aux deux autres groupes dysarthriques, avec une instabilité particulièrement marquée dans la population SLA. Cette séquence met également en évidence une instabilité de l'articulation dans la population SLP, par rapport aux contrôles.
- La séquence /wiwiwi/ montre l'instabilité marquée de l'articulation dans la population SLA, en comparaison avec les contrôles, mais également avec la population MK, et de manière marginale, avec la population SLP.

4.4. Que retenir des aspects liés à l'articulation dans cette étude ?

4.4.1. Résumé des résultats sur l'imprécision articulatoire jugée perceptivement

Les résultats ne révèlent aucune différence significative entre nos populations. On observe néanmoins les tendances suivantes :

4.4.1.1. Effet de la complexité dans la SLA

On observe que dans la population SLA, le nombre de stimuli (consonnes simples et clusters) perçus comme imprécis a tendance à augmenter avec la complexité : dans cette population, plus que dans les autres populations présentant une dysarthrie étudiées dans cette thèse, la tendance montre que le taux d'erreurs est plus élevé lorsque les stimuli apparaissent dans la structure syllabique CCCV, en position de coda finale des pseudo-mots, et dans les pseudo-mots quadri-syllabiques nécessitant des alternances de mouvements antéro-postérieurs de la langue et d'ouverture-fermeture du voile du palais.

4.4.1.2. Ce qui distingue la population SLA des autres populations

Dans la SLA, les taux d'erreur concernant les segments /l/, /ʁ/, /s-z/ ont tendance à être plus élevés que dans la MK et la SLP.

Les consonnes antérieures tendent à être légèrement plus touchées que les postérieures dans la population SLA, alors que cette tendance est inversée dans la population SLP.

4.4.1.3. L'encodage syllabique de syllabes successives différentes vs de la même syllabe dans un mot : une piste qui distingue les populations SLA et SLP ?

La population SLP se distingue des autres populations, par son taux d'erreurs particulièrement élevé dans les deux pseudo-mots tri-syllabiques dans lesquels une même syllabe se répète « dadada » et « tatata » versus dans les mots « kitoukitou » et « ménabainban », composés de syllabes successives différentes, et sans doute plus proches de la parole continue. Ce résultat soulève la question de la part de la programmation du geste articulatoire dans la dysarthrie en lien avec la SLP, c'est-à-dire la dysarthrie spastique.

Ces résultats seront discutés dans le chapitre 7 de cette thèse.

4.4.2. Résumé des résultats de l'analyse acoustique de la dimension articulatoire

4.4.2.1. Les marqueurs discriminants

La diminution de la modulation cepstrale est un marqueur discriminant, témoignant de la présence d'une dysarthrie. En effet, comparées à la population des contrôles, on observe une diminution de la modulation cepstrale dans toutes les populations présentant une dysarthrie, particulièrement sur les séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/. Ces résultats suggèrent une diminution des contrastes acoustiques entre les segments dans ces trois populations et donc, une hypoarticulation sur ces séquences faisant intervenir des mouvements antéro-postérieurs de la langue.

La variabilité de la modulation cepstrale est également un marqueur discriminant dans la SLA pour toutes les séquences et dans la SLP pour la séquence /uj/ : la variabilité est plus importante chez les populations présentant une dysarthrie, suggérant une instabilité de l'articulation pour passer d'un segment à un autre.

4.4.2.2. Les marqueurs spécifiques

La variabilité de la modulation cepstrale est un marqueur spécifique puisqu'elle distingue les populations présentant une dysarthrie entre elles. Dans la population SLA, nos résultats montrent une variabilité de cette modulation plus importante que dans la SLP et la MK particulièrement au cours de la séquence /ujujuj/ et, de manière marginale dans la séquence /wiwiwi/. Cette variabilité de la modulation cepstrale traduit une instabilité, spécifique à la SLA, dans l'articulation des segments successifs. Ce résultat a un intérêt majeur dans la mesure où il différencie la population SLA de la population SLP. Ce marqueur pourrait donc contribuer au diagnostic différentiel entre les populations SLA et SLP.

Ces résultats seront discutés dans la partie discussion de cette thèse en chapitre 7.

CHAPITRE 5. Résultats sur les aspects temporels : un débit lent et une flexibilité limitée dans le contrôle du débit articulatoire, dans les populations SLA et SLP

5.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses

Comme nous l'avons mentionné dans l'état de l'art de cette thèse, le débit articulatoire mesuré dans les DDK est normal dans la MK. Une étude a montré qu'en lecture, le débit articulatoire est également normal chez la grande majorité des patients de cette population (Fougeron et al., 2022). On peut donc s'attendre à ce que le débit articulatoire soit relativement normal chez nos patients présentant une dysarthrie flasque associée à la MK.

Quelle qu'en soit l'étiologie, un débit de parole ralenti et des DDK lentes sont unanimement reconnus comme faisant partie des caractéristiques proéminentes de la dysarthrie spastique (Clark et al., 2014; Hirose et al., 1982; Ziegler & von Cramon, 1986). On peut donc s'attendre à ce que le débit articulatoire dans notre population présentant une dysarthrie spastique associée à la SLP, soit lent dans toutes les tâches de parole.

Enfin, dans la dysarthrie mixte associée à la SLA, les études convergent pour dire que la lenteur caractérise cette population avec des segments de parole allongés (Caruso & Burton, 1987; A. Mefferd, 2015; G. S. Turner et al., 1995), un débit de parole et articulatoire lent, tant en lecture (Stipancic et al., 2021; G. S. Turner & Weismer, 1993; Yunusova et al., 2016), que dans des tests de performance tels que les diadococinésies AMR (Eshghi et al., 2019 ; Fougeron et al., 2022; Lancheros et al., 2022; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994; A. S. Mefferd et al., 2012; Rong et al., 2015, 2018, 2019; Shellikeri et al., 2021), un nombre de mots par continuum de parole réduit (Green, 2010; Yunusova et al., 2005).

Que le débit articulatoire soit lent ou normal dans les différentes populations étudiées dans cette thèse, on peut maintenant se questionner sur les effets des contraintes articulatoires sur le débit articulatoire dans les tâches de performance, en fonction des populations. Par exemple, des contraintes telles que le lieu d'articulation, les constrictions différentes dans des groupes consonantiques, ou encore le type d'encodage syllabique des DDK, AMR versus SMR, ont-elles des effets différents sur le débit en fonction des populations ?

On peut également se questionner sur le lien qui existe entre le débit articulatoire dans les tâches de performance, considérées comme des tâches de « non parole » ou de « quasi parole », et dans la parole continue comme dans la lecture ou le discours spontané.

L'objectif de ce chapitre est donc d'explorer les aspects temporels de la parole, au travers de différents descripteurs : nous allons tout d'abord comparer entre les populations, l'intervalle de durée pour

passer d'un segment à un autre, dans les glides. On prédit que ces mesures faites sur les modulations cepstrales vont capturer un allongement des durées dans les populations SLA et SLP, reflétant un ralentissement pour passer d'un segment à un autre.

Ensuite, nous explorerons, au travers de l'étude du débit articuloire dans des tâches de performance (DDK AMR et SMR), les effets de plusieurs contraintes articuloires en fonction des populations. Nous allons tout d'abord examiner les effets du lieu d'articulation sur le débit articuloire : labial dans [bababa...], coronal dans [dedede...] et vélaire dans [gogogo...] (*AMR_CV_ba*, *AMR_CV_de*, *AMR_CV_go*). L'atteinte linguale est souvent prédominante chez les locuteurs dysarthriques présentant une SLA (DePaul et al., 1988) et une MK (J.-H. Lee et al., 2005; Mariotti et al., 2000; Vandenberghe et al., 2009). On peut donc s'attendre à ce que les DDK linguales, tant coronale que vélaire, soient plus lentes que les DDK labiales, dans la MK et la SLA. En revanche, dans la SLP, caractérisée par une dysarthrie spastique exclusive entraînant une altération globale des patterns de mouvements articuloires (Duffy, 2019), on peut s'attendre à ce que toutes les DDK soient uniformément lentes. Ensuite, nous étudierons l'effet sur le débit articuloire de deux clusters consonantiques, composés chacun de deux consonnes ayant des lieux et modes de constriction différents : un premier groupe consonantique implique un mouvement antéro-postérieur avec C1 = mode occlusif et C2 = mode fricatif dans [tʁatʁatʁa...] (*AMR_CCV_tra*) et un deuxième groupe consonantique implique un mouvement postéro-antérieur avec C1 = mode occlusif et C2 = mode latéral dans [klaklakla...] (*AMR_CCV_kla*). Dans la SLA, on sait que les mouvements antéro-postérieurs de la langue sont particulièrement altérés (J. Lee & Bell, 2018). On suppose donc que ces deux clusters consonantiques seront particulièrement touchés par la lenteur dans cette population. Puis, nous explorerons les effets de la complexité des DDK sur le débit articuloire, complexité définie en termes d'encodage de syllabes similaires ou différentes : nous allons comparer ici les DDK AMR_CV (/ba/, /de/ et /go/) toutes moyennées (*AMR_CV*) avec les DDK SMR_CV ([badego...]) (*SMR_CV*). L'intérêt d'explorer le débit articuloire dans ces types de DDK, est leur encodage différent. Les DDK AMR_CV n'impliquent l'encodage syllabique que d'une seule et unique syllabe, composée d'une seule consonne en attaque pour les AMR CV (par exemple [papapa...]), alors que les DDK SMR_CV impliquent l'encodage de trois syllabes différentes. Ces deux types de DDK diffèrent de la parole en ce sens qu'elles constituent des épreuves de performance maximale. Cependant, les DDK SMR_CV sont considérées comme étant plus proches de la parole continue puisqu'elles consistent en l'alternance de syllabes différentes, au contraire des AMR constituées de la même syllabe (Ziegler et al., 2019). L'encodage syllabique dans les DDK SMR_CV est sans doute plus familier, facilitant alors leur production. On suppose donc que le débit sera plus rapide dans les DDK SMR_CV que dans les DDK AMR_CV moyennée, dans toutes les populations.

Puis, nous comparerons le débit articuloire entre nos populations dans deux tâches de parole continue : la lecture (*DEB_LECT*) et le discours spontané (*DEB_SPONT*). Comme mentionné au début de ce chapitre, nous supposons que le débit articuloire dans ces tâches sera lent pour nos deux

populations SLA et SLP et normal pour notre population MK. Nous comparerons également le nombre de mots moyen et la variabilité du nombre de mots produits par UIP (*NB_MOTS* et *VAR_NB_MOTS*). Le nombre de mots par UIP devrait être diminué dans la population SLA et SLP, en comparaison avec la population contrôle.

Enfin, on peut supposer l'existence d'un lien entre les débits articulatoires mesurés sur des épreuves de performance maximale et dans la parole continue. Comme nous l'avons mentionné dans l'état de l'art de cette thèse, une étude a montré de fortes corrélations entre le débit articulatoire mesuré dans les DDK et la parole spontanée, chez des patients présentant différents types de dysarthrie, dont le type flasque et spastique (Y. Wang et al., 2004). On suppose donc que l'on retrouvera cette forte corrélation dans toutes nos populations.

5.2. Résultats concernant le débit articulatoire dans différentes tâches de parole

5.2.1. La durée des transitions (*DUR_TRANS*)

Nous avons construit un modèle mixte en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et GLIDE (3 niveaux : /aj/, /uj/, /wi/) comme facteurs fixes en interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (*DUR_TRANS*~population*glide +(1|Speaker))).

Les analyses de cette mesure, reflétant les durées des transitions pour passer d'un segment à l'autre, montrent une interaction entre les facteurs POPULATION et GLIDE ($\chi^2 = 34.16$, $p < .001$ ***). Les résultats présentés dans le tableau 25 révèlent des durées de transitions significativement plus longues dans la SLA et la SLP pour toutes les glides, en comparaison avec la MK et les contrôles, comme on peut l'observer dans la figure 21. On note également que ces durées sont similaires dans la MK et les contrôles, ainsi que dans la SLA et la SLP. Les différences de durées entre les 3 glides varient en fonction de la population. Alors que dans la population SLA, la durée des transitions dans la séquence /ajajaj/ est plus longue que dans les séquences /wiwiwi/ et /ujujuj/ (tableau 26), suggérant peut-être une lenteur plus marquée en lien avec l'ouverture de la mâchoire, la séquence /wiwiwi/ est plus longue que la séquence /ajajaj/ dans la population SLP, suggérant peut-être une lenteur due à la concomitance des mouvements antéro-postérieurs de la langue avec l'alternance des mouvements d'étirement/arrondissement des lèvres.

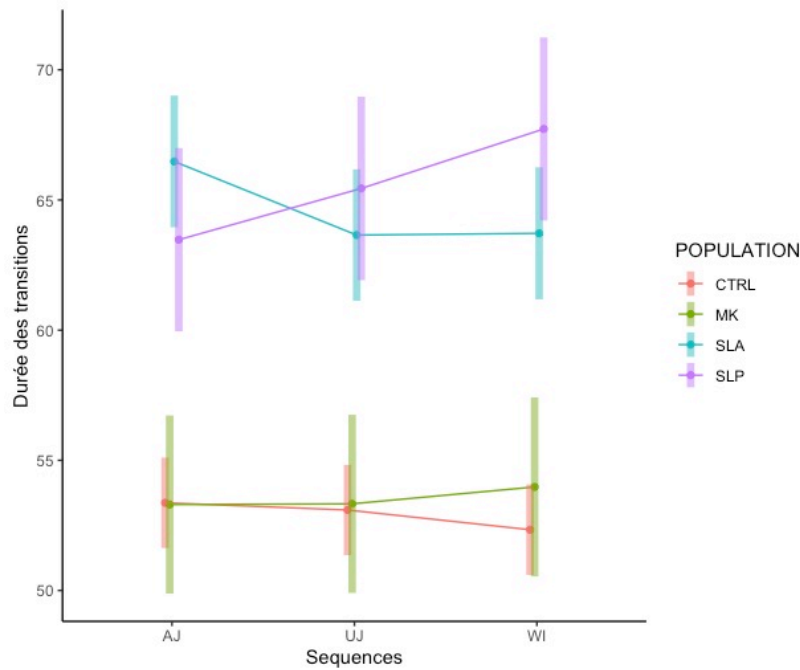


Figure 21 Comparaison des durées moyennes des transitions en fonction des séquences (/ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/) pour chaque population. Les barres de dispersion autour des moyennes représentent les intervalles de confiance.

DUREE DES TRANSITIONS									
	AJ			UJ			WI		
	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P
SLA-CTRL	13.11 (1.59)	8.26	<.0001	10.56 (1.58)	6.67	<.0001	11.38 (1.59)	7.16	<.0001
SLA-SLP	3 (2.24)	1.34	.53	-1.79 (2.24)	-0.80	.85	-4.00 (2.24)	-1.78	.28
SLA-MK	13.17 (2.20)	5.99	<.0001	10.32 (2.20)	4.69	<.0001	9.74 (2.21)	4.41	<.001
CTRL-SLP	-10.10 (2.03)	-4.98	<.0001	-12.35 (2.03)	-6.08	<.0001	-15.39 (2.03)	-7.59	<.0001
CTRL-MK	0.06 (1.98)	0.03	1.00	-0.23 (1.98)	-0.10	.99	-1.64 (1.99)	-0.82	.84
SLP-MK	10.17 (2.54)	4	<.001	12.11 (2.54)	4.77	<.0001	13.75 (2.54)	5.41	<.0001

Tableau 25 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population par séquence sur la durée des transitions (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

		ESTIMATION	SE	z.RATIO	P
SLA	AJ-UJ	2.8267	0.779	3.627	<.001
	AJ-WI	2.759	0.787	3.504	<.01
	UJ-WI	-0.067	0.784	-0.086	.99
CTRL	AJ-UJ	0.2761	0.536	0.515	.86
	AJ-WI	1.0331	0.540	1.913	.13
	UJ-WI	0.7570	0.537	1.410	.34
SLP	AJ-UJ	-1.9699	1.085	-1.816	.16
	AJ-WI	-4.2537	1.078	-3.946	<.001
	UJ-WI	-2.2838	1.081	-2.113	.09
MK	AJ-UJ	-0.0266	1.053	-0.025	.99
	AJ-WI	-0.6747	1.068	-0.632	.80
	UJ-WI	-0.6481	1.068	-0.607	.82

Tableau 26 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur séquence par population sur la durée des transitions (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

5.2.2. Le débit articulaire dans des tâches de performance

5.2.1.1. L'effet des *AMR_CV_ba*, *AMR_CV_de* et *AMR_CV_go* sur le débit articulaire

Afin d'étudier les performances de vitesse de parole en fonction des différents articulateurs, le débit articulaire a été exploré en fonction des lieux d'articulation, labial, coronal et vélaire, dans les trois DDK AMR [bababa...], [dedede...] et [gogogo...].

Nous avons donc construit ici un modèle mixte en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et LIEU D'ARTICULATION (3 niveaux : /ba/, /de/, /go/) comme facteurs fixes en interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (débit articulaire~POPULATION*LIEU D'ARTICULATION+(1|Speaker))).

Les analyses montrent une interaction entre les facteurs POPULATION et LIEU D'ARTICULATION ($\chi^2 = 15,903$, $p = 0.01$ *). Comme illustré sur la figure 22, la distinction entre les 4 populations varie donc en fonction du lieu d'articulation. L'analyse des contrastes entre les populations, exposée dans le tableau 27, nous révèle que le débit articulaire des populations SLA et SLP est significativement plus lent que le débit articulaire des populations MK et contrôles, pour tous les lieux d'articulation. Par ailleurs, le débit articulaire est similaire entre les populations MK et contrôle et entre les populations SLA et SLP. L'analyse des contrastes entre les différents lieux d'articulation, représentée dans le tableau 28, révèle que *l'AMR_go* est la plus lente de toutes les AMR_CV, dans toutes les populations, suggérant une limitation de la vitesse de la masse postérieure linguale chez tous les locuteurs, dysarthriques et non dysarthriques. En revanche, alors que le débit articulaire des *AMR_CV_ba* et *AMR_CV_de*, est similaire dans les populations MK et SLP, il est plus rapide dans la DDK *AMR_CV_ba*, comparé à la DDK *AMR_CV_de* dans la population SLA, suggérant dans cette population, que la pointe de la langue sollicitée dans /dedede/ est plus lente que les lèvres recrutées dans /bababa/.

Ces résultats seront discutés dans la discussion finale.

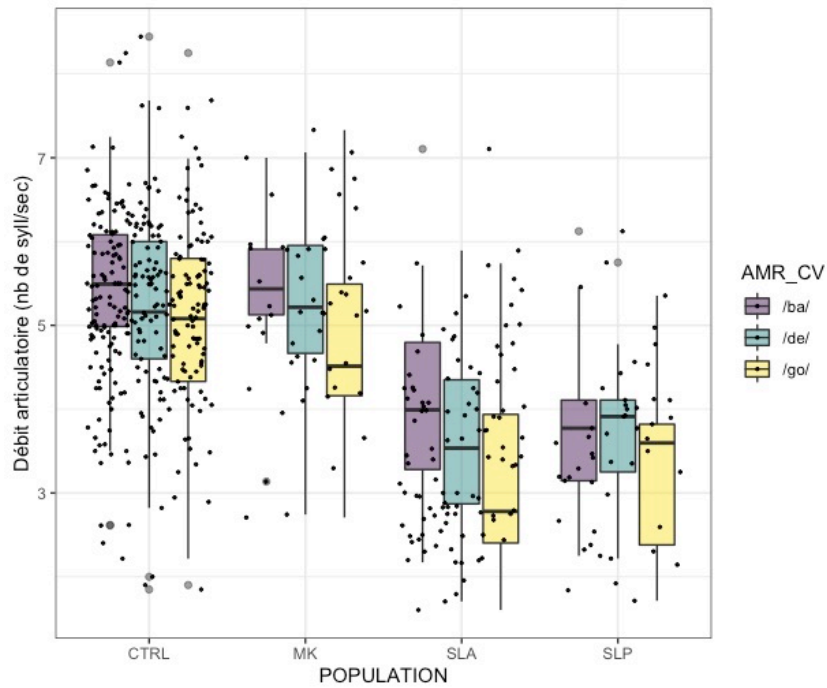


Figure 22 Débit articulaire (en nombre de syllabes par seconde) pour chaque population (CTRL, MK, SLA et SLP) et pour chaque AMR_CV (/ba/, /de/ et /go/)

	Nombre de syllabes par seconde								
	/ba/			/de/			/go/		
	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P
CTRL – MK	-0.0214 (0.263)	-0.081	.9	-0.0455 (0.263)	-0.173	.9	0.2309 (0.263)	0.879	.8
CTRL – SLA	1.4736 (0.199)	7.420	<.0001	1.5874 (0.199)	7.993	<.0001	1.8408 (0.199)	9.269	<.0001
CTRL – SLP	1.7368 (0.269)	6.450	<.0001	1.5033 (0.269)	5.583	<.0001	1.7381 (0.269)	6.455	<.0001
MK – SLA	1.4950 (0.298)	5.018	<.0001	1.6328 (0.298)	5.481	0.0001	1.6099 (0.298)	5.404	0.0001
MK – SLP	1.7582 (0.349)	5.038	<.0001	1.5488 (0.349)	4.438	0.0001	1.5072 (0.349)	4.319	0.0001
SLA – SLP	0.2632 (0.304)	0.867	.8	-0.0841 (0.304)	-0.277	.9	-0.1027 (0.304)	-0.338	.9

Tableau 27 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population par AMR_CV sur le débit articulaire (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

		ESTIMATE	ES	t.RATIO	P
CTRL	/ba-de/	0.2533	0.0579	4.377	<.0001
	/ba-go/	0.4884	0.0579	8.440	<.0001
	/de-go/	0.2351	0.0579	4.063	0.0002
MK	/ba-de/	0.2292	0.1417	1.617	.2
	/ba-go/	0.7407	0.1417	5.226	<.0001
	/de-go/	0.5115	0.1417	3.609	0.0010
SLA	/ba-de/	0.3670	0.1002	3.662	0.0008
	/ba-go/	0.8556	0.1002	8.537	<.0001
	/de-go/	0.4886	0.1002	4.875	<.0001
SLP	/ba-de/	0.0198	0.1458	0.135	.9
	/ba-go/	0.4897	0.1458	3.358	0.0025
	/de-go/	0.4699	0.1458	3.222	0.0040

Tableau 28 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur AMR_CV par population sur le débit articulaire (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

5.2.1.2. L'effet du type des *AMR_CCV_kla* et *AMR_CCV_tba* sur le débit articulaire dans les diadococinésies

Afin d'étudier les performances de la vitesse du débit articulaire en fonction de clusters consonantiques, impliquant des constrictions différentes, nous avons exploré le débit articulaire dans les DDK *AMR_CCV_tra* et *AMR_CCV_kla*. Nous avons construit pour cette analyse de l'effet de la constriction, un modèle mixte en incluant les facteurs POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et TYPE AMR_CCV (2 niveaux : /kla/ et /tba/) comme facteurs fixes en interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (débit articulaire~ POPULATION * TYPE AMR_CCV +(1|Speaker))). Les analyses montrent une interaction entre les facteurs POPULATION et TYPE AMR_CCV ($\chi^2 = 15,72$, $p = 0.001^{**}$). La distinction entre le débit articulaire des 2 clusters varie en fonction des populations. L'analyse des contrastes entre les différentes populations, représentée dans le tableau 29 et illustrée sur la figure 23, révèle un débit articulaire plus lent chez les locuteurs ayant une SLA et une SLP, par rapport aux locuteurs présentant une MK et les contrôles dans les deux type d'AMR_CCV.

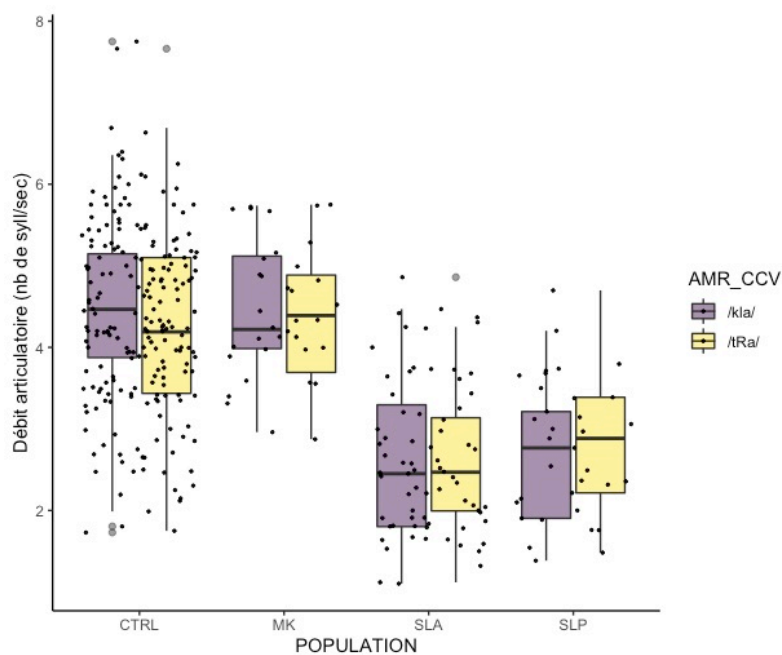


Figure 23 Débit articulaire (en nombre de syllabes par seconde) pour chaque POPULATION (CTRL, MK, SLA et SLP) et pour chaque AMR_CCV (/klaklakla/ et /tbatvatva /).

Les résultats de l'analyse des contrastes entre les deux AMR_CCV, exposés dans le tableau 30, indiquent que le débit articulaire dans l'*AMR_CCV_kla* est significativement plus rapide que dans l'*AMR_CCV_tba*, uniquement dans la population contrôle. Ce résultat sera discuté dans la partie discussion de cette thèse.

	Nombre de syllabes par seconde					
	/kla/			/tʁa/		
	ESTIMATE(ES)	t.RATIO	P	ESTIMATE(ES)	t.RATIO	P
CTRL – MK	-0.0575 (0.263)	-0.219	.9	-0.1458 (0.263)	-0.555	.9
CTRL – SLA	1.8667 (0.199)	9.392	<.0001	1.5838 (0.199)	7.967	<.0001
CTRL – SLP	1.7361 (0.269)	6.446	<.0001	1.4303 (0.269)	5.310	<.0001
MK – SLA	1.9242 (0.298)	6.462	<.0001	1.7296 (0.298)	5.808	<.0001
MK – SLP	1.7936 (0.349)	5.141	<.0001	1.5760 (0.349)	4.518	0.0001
SLA – SLP	-0.1306 (0.304)	-0.430	.9	-0.1535 (0.304)	-0.506	.9

Tableau 29 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population par AMR_CCV sur le débit articulaire (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

		ESTIMATE	ES	t.RATIO	P
CTRL	/kla/-/tʁa/	0.1853	0.0428	4.330	<.0001
MK	/kla/-/tʁa/	0.0971	0.1039	0.935	0.3513
SLA	/kla/-/tʁa/	-0.0976	0.0734	-1.329	0.1854
SLP	/kla/-/tʁa/	-0.1206	0.1069	-1.128	0.2608

Tableau 30 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur AMR_CCV par population sur le débit articulaire (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

5.2.1.3. L'effet de l'encodage des syllabes sur le débit articulaire dans les diadococinésies : une comparaison entre les AMR_CV et les SMR_CV

Afin d'observer s'il existe un effet de l'encodage syllabique, dans la répétition de plusieurs syllabes successives (DDK SMR_CV /badego/ (*SMR_CV*)) versus la répétition d'une même syllabe (DDK AMR_CV /ba/, /de/ et /go/ toutes moyennées (*AMR_CV*)), sur les performances de débit articulaire, nous avons construit un premier modèle mixte en incluant la POPULATION (4 niveaux : SLA, SLP, MK et contrôles) et l'ENCODAGE (2 niveaux : AMR_CV et SMR_CV) comme facteurs fixes avec interaction et le locuteur en facteur aléatoire (lmer (débit articulaire~POPULATION*ENCODAGE+(1|Speaker)). L'interaction entre ces deux facteurs n'est pas significative ($\chi^2 = 5,80$, $p = 0.12$). L'effet de la population sur le débit ne dépend donc pas du type d'encodage syllabique et inversement. Nous avons donc construit un second modèle sans interaction (lmer (débit articulaire~ POPULATION+ENCODAGE+(1|Speaker)). Nos analyses révèlent un effet des deux facteurs, POPULATION ($\chi^2 = 86,48$, $p < 0.01$ ***) et ENCODAGE ($\chi^2 = 60,76$, $p = p < 0.01$ ***).

Comme on l'observe dans la figure 24, le débit articulaire dans les AMR_CV moyennées est plus lent que le débit articulaire dans les SMR_CV ($p < .0001$) dans toutes les populations, dysarthriques comme non dysarthriques. La vitesse du débit articulaire semble donc facilitée par l'enchaînement de syllabes séquentielles, sans doute plus proche du débit articulaire de la parole naturelle, que dans l'enchaînement rapide d'une seule même syllabe. Néanmoins, l'inspection visuelle de la figure 24 nous montre que dans la population SLP, le débit articulaire moyen est très similaire entre les AMR_CV et les SMR_CV.

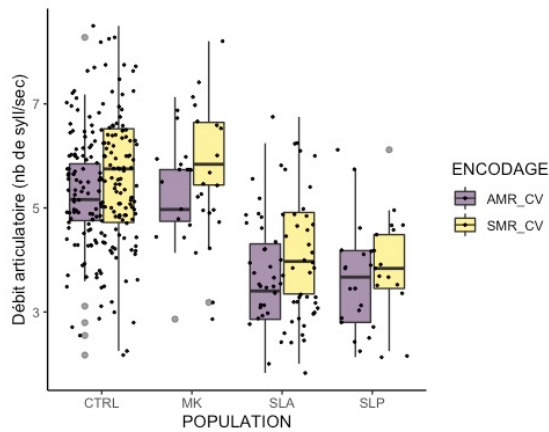


Figure 24 Débit articuloire (en nombre de syllabes par seconde) pour chaque POPULATION (CTRL, MK, SLA et SLP) et pour chaque ENCODAGE (AMR_CV et SMR_CV).

Les contrastes du facteur population présentés dans le tableau 31, indiquent que le débit articuloire est significativement plus rapide dans les populations MK et contrôles, par rapport aux population SLA et SLP. Par ailleurs, le débit articuloire est similaire entre la population MK et les contrôles et entre les populations SLA et SLP pour les deux DDK.

	AMR_CV et SMR_CV		
	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P
CTRL – MK	-0.128 (0.268)	-0.478	.9
CTRL – SLA	1.492 (0.202)	7.375	<.0001
CTRL – SLP	1.697 (0.274)	6.189	<.0001
MK – SLA	1.620 (0.303)	5.339	<.0001
MK – SLP	1.825 (0.355)	5.136	<.0001
SLA – SLP	0.205 (0.309)	0.665	.9

Tableau 31 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population sur le débit articuloire (estimation, erreur standard, valeurs de *t* et *p*).

Ces résultats, suggérant un ralentissement du débit articuloire dans des tâches de performance dans les populations SLA et SLP, et un débit normal dans la population MK, seront discutés dans la partie discussion.

5.2.3. Le débit articuloire et le nombre de mots dans la parole continue

Dans la section précédente, nous avons présenté les résultats de nos analyses de débit articuloire réalisées sur des tâches de performance de vitesse maximale. Nous présentons dans cette section les résultats concernant la comparaison entre nos populations, du débit articuloire en contexte de parole continue dans une tâche de lecture, puis dans le discours spontané.

5.2.3.1. Le débit articulaire dans la lecture (*DEB_LECT*)

Nous avons comparé le débit articulaire en lecture entre nos populations à l'aide d'un modèle statistique paramétrique (aov (*DEB_LECT* ~ population, data = data_débit)).

Comme observé dans la figure 25, les moyennes du débit articulaire mesuré dans la phrase de lecture sont différentes entre les populations ($p < .0001$). Le résultat de l'analyse des comparaisons multiples entre les populations présentées dans le tableau 32 nous montre un débit articulaire similaire dans les populations SLA et SLP, qui est plus lent que dans les populations MK et contrôle. On observe donc que comme dans les tâches de performance étudiées dans les sections précédentes, le débit articulaire dans un contexte de parole continue, sans performance, est ralenti dans les deux populations présentant une dysarthrie SLA et SLP, et est normal dans la MK.

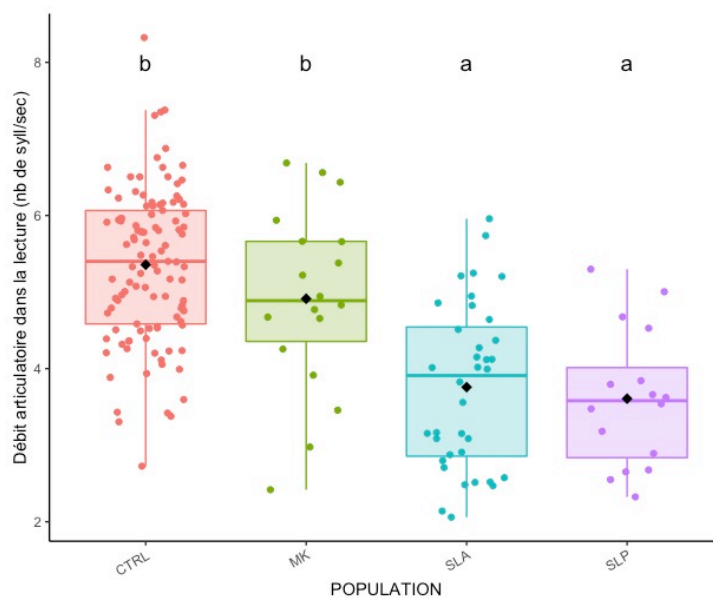


Figure 25 Comparaison du débit articulaire (en nombre de syllabes par seconde) mesuré dans la lecture entre les populations. Les moyennes qui partagent une même lettre ne sont pas significativement différentes. Au contraire, si deux moyennes ne partagent pas une même lettre, alors elles sont significativement différentes.

	Nombre de syllabes par seconde dans la lecture d'une phrase		
	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P
MK – CTRL	-0.4440 (0.2606)	-1.704	.3
SLA – CTRL	-1.5992 (0.1969)	-8.123	<.001***
SLP – CTRL	-1.7496 (0.2742)	-6.381	<.001***
SLA – MK	-1.1552 (0.2957)	-3.907	<.001***
SLP – K	-1.3057 (0.3519)	-3.710	0.001**
SLP – SLA	-0.1505 (0.3077)	-0.489	.9

Tableau 32 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population sur le débit articulaire mesuré dans la lecture de la phrase (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

5.2.3.2 Le débit articulaire dans le spontané (*DEB_SPONT*)

Nous avons ensuite comparé le débit articulaire dans la parole continue également mais dans le contexte spontané entre nos populations, à l'aide d'un modèle statistique paramétrique (aov (*DEB_SPONT* ~ population, data = data_débit)).

Comme observé dans la figure 26, les moyennes du débit articulaire mesuré dans le spontané sont différentes entre les populations ($p < .0001$). Le résultat de l'analyse des comparaisons multiples entre les populations présentées dans le tableau 33 nous montre, comme en lecture, un débit articulaire similaire dans les populations SLA et SLP, qui est plus lent que dans les populations MK et contrôle. On observe donc dans les tâches, en performance comme dans deux tâches de parole continue, que le débit articulaire est ralenti dans les deux populations présentant une dysarthrie SLA et SLP, et est normal dans la MK.

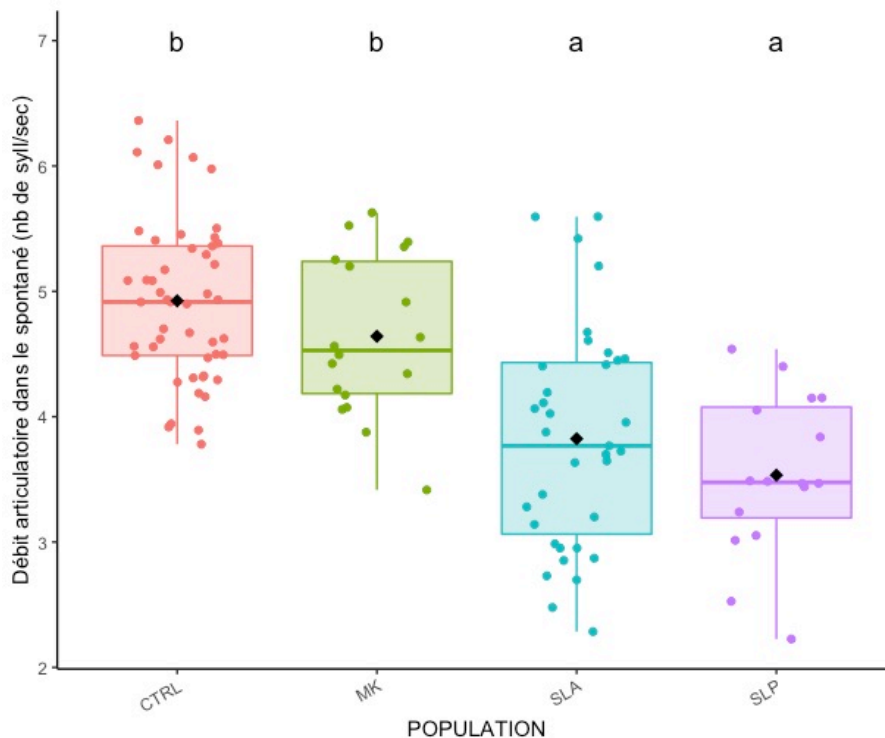


Figure 26 Comparaison du débit articulaire (en nombre de syllabes par seconde) mesuré en spontané entre les populations. Il n'y a pas de différence significative entre les populations qui partagent une même lettre. En revanche, les populations ne partageant pas la même lettre ont un débit articulaire qui est significativement différent.

	Nombre de syllabes par seconde en spontané		
	ESTIMATION (ES)	t RATIO	P
MK – CTRL	-0.2419 (0.2045)	-1.183	.6
SLA – CTRL	-1.0591 (0.1640)	-6.458	<.001***
SLP – CTRL	-1.3496 (0.2137)	-6.314	<.001***
SLA – MK	-0.8172 (0.2158)	-3.786	0.001**
SLP – MK	-1.1077 (0.2557)	-4.332	<.001***
SLP – SLA	-0.2905 (0.2246)	-1.293	.5

Tableau 33 Résultats de l'analyse des contrastes du facteur population sur le débit articulatoire mesuré dans le spontané (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

5.2.3.3. Le nombre moyen de mots par UIP (NB_MOTS)

Nous avons ensuite exploré le contenu des UIP, en termes de nombre de mots les constituant. Pour cela, nous avons comparé le nombre moyen de mots produits par UIP à l'aide du test statistique non paramétrique `kruskal.test` (`NB_MOTS ~ population, data = data_UIP`). Le nombre moyen de mots produits par UIP est représenté dans la figure 27. Les résultats de notre analyse montrent qu'il y a une différence de la variable **NB_MOTS** entre les populations ($p = 0.001$).

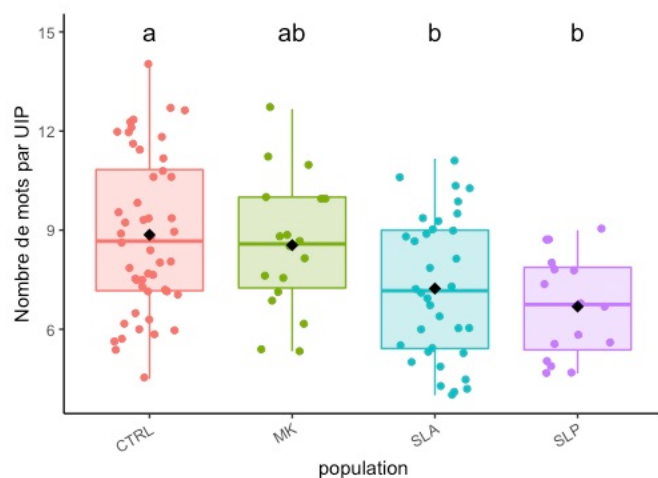


Figure 27 Comparaison du nombre de mots produits par UIP, entre les populations. Les populations ne partageant pas la même lettre ont un nombre de mots produits par UIP qui est significativement différent. Le losange central correspond à la moyenne.

Les comparaisons multiples exposées dans le tableau 34 montrent une différence significative entre la population contrôle et les deux populations SLA et SLP (respectivement $p < 0.01$ et $p = 0.004$).

	Nombre de mots par UIP		
	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P
CTRL -MK	0.462 (0.37)	-0.497	.9
CTRL- SLA	0.308 (0.29)	-2.985	<0.01**
CTRL- SLP	0.234 (0.32)	-3.366	.004***
MK- SLA	0.342 (0.38)	-1.907	.2
MK- SLP	0.241 (0.41)	-2.546	.05
SLA- SLP	0.425 (0.39)	-0.916	.8

Tableau 34 Comparaison du nombre de mots par UIP entre les populations (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

Les locuteurs de la population contrôle produisent en moyenne plus de mots par UIP que les locuteurs des populations SLA et SLP. Il n'y a en revanche pas de différence entre les populations présentant une dysarthrie entre elles. On note néanmoins que la différence est marginale entre les populations MK et SLP ($p = .05$) avec une tendance des locuteurs de la population MK à produire plus de mots par UIP que les locuteurs de la population SLP. Par ailleurs, le nombre de mots produit par UIP est similaire dans les populations MK et contrôle.

5.2.3.4. La variabilité du nombre de mots par UIP (VAR_NB_MOTS)

Enfin, nous avons comparé la variabilité du nombre de mots produits par UIP entre nos populations, grâce au test statistique paramétrique aov (VAR_NB_MOTS~ population, data = data_UIP). Les moyennes représentant la variabilité du nombre de mots produits par UIP sont illustrées pour chaque population dans la figure 28. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence de la variable VAR_NB_MOTS entre les populations ($p = 0.9$).

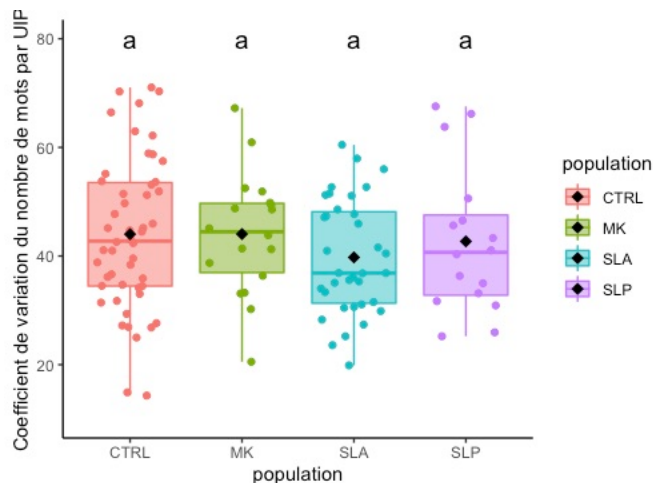


Figure 28 Comparaison de la variabilité du nombre de mots produits par UIP, entre les populations. Les populations partageant la même lettre ont une variabilité de la durée des UIP similaire. Le losange central correspond à la moyenne.

La variabilité du nombre de mots dans les UIP contenant entre 3 et 20 mots, ne dépend donc pas de la population dans notre étude. Elle ne permet donc pas de détecter la présence de la dysarthrie dans nos populations, ni de distinguer les populations présentant une dysarthrie entre elles.

5.2.4. La flexibilité du contrôle du débit est-elle la même dans toutes les populations ?

Regardons à présent s'il existe des liens entre le débit articulatoire des différentes tâches de parole exploitée dans cette thèse, performances et parole continue. Autrement dit, explorons s'il existe une flexibilité du contrôle du débit entre les tâches de performance de vitesse, supposées être plus rapides, et les tâches de parole continue. Le tableau 35 résume les moyennes de débit articulatoire calculées dans chaque population et pour chaque tâche. Concernant notre population contrôle, les résultats correspondent bien aux résultats d'une étude publiée, réalisée sur une population de 404 locuteurs (Laganaro et al., 2021).

Comme nos analyses l'ont montré dans les sous-sections précédentes, le débit articulatoire dans les populations SLP et SLA est plus lent que chez les contrôles et les MK dans toutes les tâches. Le débit

articulatoire est similaire entre les populations MK et contrôle dans toutes les tâches, de même qu'entre les SLA et les SLP.

	SLA (n = 36)	MK (n = 18)	SLP (n = 17)	CTRL (109 sauf pour la tâche de SPONT où n = 49)
AMR CV	3.61* ± 0.98	5.18 ± 0.98	3.58* ± 0.97	5.22 ± 0.97
SMR CV	4.25* ± 1.14	5.91 ± 1.19	3.83* ± 0.95	5.60 ± 1.34
LECT	3.76* ± 1.07	4.91 ± 1.20	3.61* ± 0.9	5.36 ± 1
SPONT	3.82* ± 0.88	4.64 ± 0.64	3.53* ± 0.64	4.92 ± 0.64

Tableau 35 Moyenne ± déviation standard du débit articulatoire en nombre de syllabes par seconde, mesuré dans quatre tâches différentes. * : $p < 0.001$: comparaison avec la population contrôle. Attention : pour rappel la population contrôle n'est pas la même dans la tâche du spontané et les autres tâches (DDK et lecture).

Nous avons représenté les relations entre les différentes tâches à l'aide d'un corrélogramme illustré dans la figure 30, uniquement pour les groupes pathologiques. Les groupes contrôles n'étant pas constitués des mêmes locuteurs dans le spontané et dans les autres tâches, nous n'avons pu les intégrer dans notre corrélogramme. Nous présentons néanmoins les corrélations entre les trois tâches **AMR_CV**, **SMR_CV** et **DEB_LECT** pour le groupe des contrôles dans la figure 29.

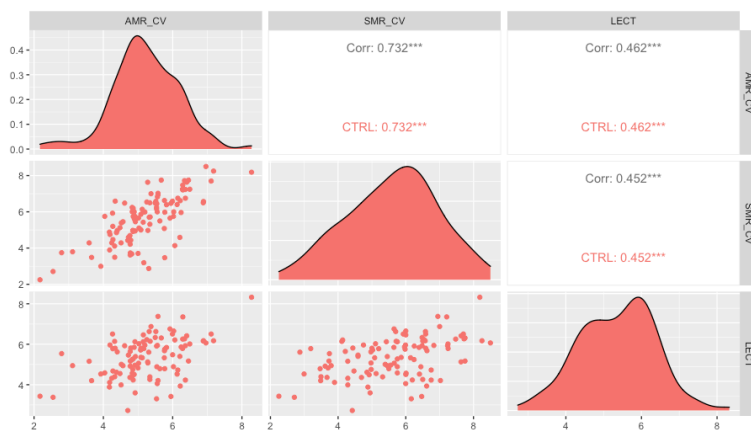


Figure 29 Nuage de points et coefficient de corrélation de Pearson entre les tâches **AMR_CV**, **SMR_CV** et lecture chez les contrôles.

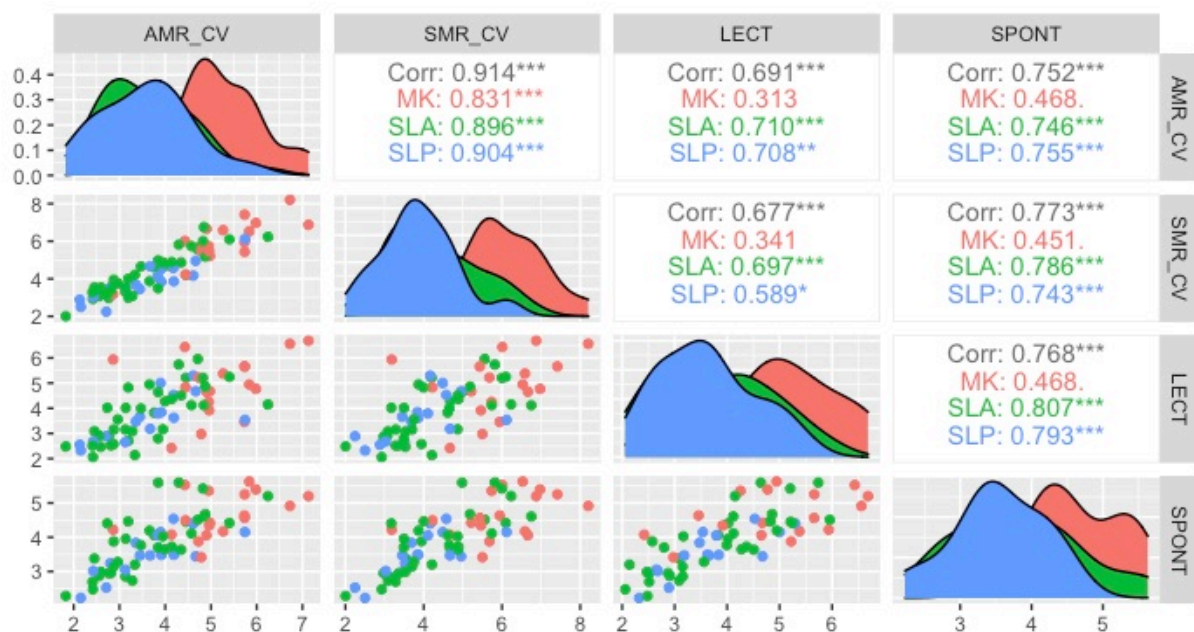


Figure 30 Corrélogramme représentant les coefficients de corrélation de Pearson entre les tâches *AMR_CV*, *SMR_CV*, *DEB_LECT*, et *DEB_SPONT* ainsi que leur significativité du test d'égalité à zéro, dans les populations présentant une dysarthrie (*MK*, *SLA* et *SLP*). Sont aussi représentés sur cette figure les nuages de points et la distribution de la variable débit articulatoire dans chaque tâche et dans chaque population. Pour les nuages de points, l'abscisse correspond à la tâche mentionnée dans le titre des colonnes et l'ordonnée correspond à la tâche rapportée dans les lignes. Par exemple dans le graph montrant le nuage de points présenté dans la première colonne et la deuxième ligne, l'abscisse représente le nombre de syllabes dans la tâche *AMR_CV* et l'ordonnée, le nombre de syllabes dans la tâche *SMR_CV*. On observe que la majorité des points sont localisés dans la partie supérieure du graph, reflétant un débit articulatoire plus rapide dans la tâche *SMR_CV* comparé à la tâche *AMR_CV* pour la majorité des locuteurs. Le coefficient de corrélation entre ces deux tâches, global et détaillé pour chaque groupe, figure dans la première ligne, deuxième colonne.

Les résultats montrent que le débit articulatoire dans les *AMR_CV* est fortement corrélé au débit dans les *SMR_CV* pour toutes les populations. Le nuage de points représentant le débit dans les *AMR_CV* versus les *SMR_CV*, montre que le débit est plus rapide dans les *SMR_CV* pour la majorité des locuteurs. Dans la population *SLP* (points bleus), on observe que les débits entre les deux tâches tendent à être plus similaires que chez les autres populations.

Dans les populations *SLA* et *SLP*, on note des coefficients de corrélation tous significatifs et plutôt forts entre les débits des différentes tâches (entre 0.6 et 0.9), reflétant le fait que le débit est relativement similaire dans ces différentes tâches. Dans ces deux populations, le débit articulatoire est très légèrement plus rapide dans la lecture que dans les *AMR_CV* et plus rapide dans la tâche des *SMR_CV* comparé aux tâches de lecture et de spontané. Par contre le débit articulatoire est un peu plus rapide dans le spontané comparé à la tâche *AMR_CV* chez les *SLA*, alors que c'est le contraire pour la *SLP*.

On suppose que ces deux populations sont soumises à une contrainte physiologique entraînant un débit articulatoire lent, quelle que soit la tâche, performance de vitesse ou parole continue en lecture et en spontané.

En revanche, on observe un profil différent dans la population *MK* : seule la corrélation entre les deux tâches de performance, *AMR_CV* et *SMR_CV*, est significative et forte. Au contraire des autres populations, les coefficients de corrélation entre les autres tâches (*DEB_LECT* et *AMR_CV*, *DEB_LECT* et *SMR_CV*, *DEB_SPONT* et *AMR_CV*, *DEB_SPONT* et *SMR_CV* et enfin *DEB_SPONT* et *LECT*) ne sont pas significatifs. On observe en effet que les points rouges, représentant les locuteurs de la population *MK* sur les nuages de points, sont très dispersés. Autrement dit, au contraire des autres populations pathologiques, les capacités de vitesse articulatoire dans les performances maximales ne sont pas en lien avec le débit articulatoire mesuré dans les tâches de parole continue. De même, le débit articulatoire dans les deux tâches de parole continue, ne sont pas en lien entre elles. Ces résultats indiquent une indépendance des tâches entre elles, en termes de débit articulatoire dans cette population, ce qui la différencie aussi des contrôles. En effet chez ces derniers, même si elle est faible, il existe une corrélation significative, entre le débit articulatoire dans les tâches de performances maximales et le débit articulatoire mesuré dans la lecture.

5.3. Que retenir des aspects liés au débit articuloire ?

5.3.1. Les marqueurs discriminants

Les aspects temporels de la parole sont altérés dans les deux populations SLA et SLP comparés à la population contrôle : dans ces deux populations, nos résultats montrent des intervalles de durée plus longs pour passer d'un segment à un autre, un débit articuloire ralenti, tant dans les tâches de performances que dans la parole continue, une forte corrélation entre ces débits suggérant peu de flexibilité dans le contrôle du débit articuloire, et enfin un nombre de mots réduit dans les continuums de parole.

Par ailleurs, la variable *AMR_CCV* constitue un marqueur discriminant de la présence d'une dysarthrie. En effet, le débit articuloire est significativement plus rapide dans /klaklakla/ comparé à /kʁatʁatʁa/ uniquement dans la population contrôle. On suppose que la constriction /kl/ constitue une difficulté pour les patients dysarthriques.

5.3.2. Les marqueurs spécifiques

Les intervalles de durée pour passer d'un segment à un autre et le débit articuloire dans toutes les tâches sont des descripteurs qui différencient clairement les populations présentant une dysarthrie SLA-SLP de la population MK : il existe un ralentissement dans les populations SLA et SLP, par rapport à la population MK. De manière marginale, les locuteurs ayant une MK ont tendance à produire plus de mots par UIP que les locuteurs de la population SLP.

La population SLP se distingue de la population SLA dans la mesure où le débit articuloire dans la population SLP tend à être uniforme au travers :

- des lieux d'articulation : $AMR_{CV_{ba}} = AMR_{CV_{de}}$ pour la SLP et $AMR_{CV_{ba}} > AMR_{CV_{de}}$ dans la SLA.
- de l'encodage syllabique : à l'inspection visuelle, dans la SLP, le débit articuloire entre les deux tâches de performance AMR_{CV} et SMR_{CV} est proche, alors que dans la SLA, on note que le débit articuloire dans les SMR_{CV} est plus rapide que dans les AMR_{CV} .

Tous ces résultats seront discutés en chapitre 7 de cette thèse.

CHAPITRE 6. Résultats sur l'organisation du discours dans la parole spontanée : une proportion du temps passé en pause plus importante dans les populations SLA et MK

L'organisation du discours est ici considérée en termes de l'organisation du flux de parole, en fonction de la durée des pauses et des continuums de parole.

6.1. Question de recherche, objectifs et hypothèses

Dans une tâche de lecture, la littérature nous a appris que les locuteurs présentant une dysarthrie mixte associée à la SLA, font plus de pauses que les contrôles, ont des durées cumulatives des pauses sur la totalité de la lecture plus importantes et ont une variabilité de la durée des pauses et des continuums de parole plus importante que les locuteurs contrôles (Allison et al., 2019; Barnett et al., 2020; Green, 2010; Green et al., 2013; Stipancic et al., 2021; G. S. Turner & Weismer, 1993; Yunusova et al., 2005). Cependant, une étude (Yunusova et al., 2016) ayant distingué les profils cliniques de patients présentant une SLA avec atteinte bulbaire, sans et avec atteinte respiratoire en lien avec un dysfonctionnement diaphragmatique, et des patients avec atteinte respiratoire sans atteinte bulbaire, précise que chez les patients ayant une atteinte respiratoire, avec ou sans atteinte bulbaire, la durée moyenne des pauses est plus longue que celle des contrôles, la durée moyenne des continuums de parole est plus courte et le pourcentage de temps passé en pause sur le temps total de lecture est plus important dans la SLA que chez les contrôles. Par contre, dans une population de patients similaires à la population de notre étude, c'est-à-dire chez des patients dysarthriques présentant une atteinte bulbaire, sans atteinte respiratoire associée, les durées des pauses et des continuums de parole sont normales, la variabilité de la durée des continuums de parole est plus élevée et la variabilité de la durée des pauses est similaire à celle des contrôles. Enfin, chez ces patients présentant uniquement une atteinte bulbaire, le pourcentage de temps passé en pause sur le temps total de lecture est le même que chez les contrôles.

L'organisation du discours n'a jamais été explorée dans les pathologies SLP et MK spécifiquement. Ces aspects ont été en revanche investigués dans le discours spontané dans une étude, chez des patients avec traumatisme crânien, ayant pour conséquence une dysarthrie mixte associée à une composante spastique, et une dysarthrie flasque pure. Cette étude a montré une durée moyenne des pauses plus longue et plus variable, ainsi qu'une durée moyenne des continuums plus courte et moins variable, particulièrement chez les patients présentant des troubles respiratoires, quel que soit le type de la dysarthrie (Y.-T. Wang et al., 2005).

En résumé, quelle que soit l'étiologie de la dysarthrie et son type, la littérature rapporte une durée moyenne des pauses plus longue et une durée moyenne des continuums de parole plus courte chez les

patients présentant des troubles respiratoires, comparés à des contrôles. Dans notre étude, les locuteurs ne présentent a priori pas d'atteinte respiratoire, nous nous attendons donc à retrouver une durée moyenne des pauses et des continuums de parole, identique à celle des contrôles.

Notre problématique est la suivante : quels sont les effets des populations étudiées dans cette thèse sur l'organisation du discours, et notamment sur les temps de parole et les temps de pause, dans une tâche de parole spontanée ?

L'objectif de ce chapitre est d'identifier des marqueurs discriminants (marqueurs de la présence d'une dysarthrie) et spécifiques (distinguant les profils dysarthriques entre eux) de l'organisation du discours dans une tâche de discours spontané.

Premièrement, nous comparerons entre nos populations, la durée moyenne des unités de parole, c'est-à-dire des continuums de parole entre les pauses (appelées UIP), ainsi que la variabilité de la durée de ces unités de parole (*DUR_UIP* et *VAR_DUR_UIP*). Pour avoir des données comparables entre les locuteurs, rappelons que nous ne considérerons que les 6 premières UIP composées de 3 à 20 mots.

Puis, nous examinerons les variables en lien avec la production des pauses dans le discours spontané, à savoir : la durée moyenne et la variabilité de la durée des pauses (*DUR_PAUSES* et *VAR_DUR_PAUSES*), ainsi que le rapport de la durée totale des pauses sur la durée totale de la prise de parole (*PAUSES_CUM*).

6.2. Résultats concernant l'organisation du discours

6.2.1. Les mesures effectuées sur les continuums de parole entre les pauses (UIP)

6.2.1.1. La durée des UIP (*DUR_UIP*)

Afin d'explorer si la durée des continuums de parole distingue la parole dysarthrique de la parole non dysarthrique, et discrimine les profils dysarthriques entre eux, nous avons comparé la durée des UIP entre les populations. La comparaison de la durée moyenne des UIP a été calculée grâce au test statistique non paramétrique `kruskal.test(DUR_UIP ~ population, data = data_UIP)`. Les durées moyennes des UIP pour chacune des populations sont représentées dans la figure 31. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence de la variable *DUR_UIP* entre les populations ($p = 0.8$).

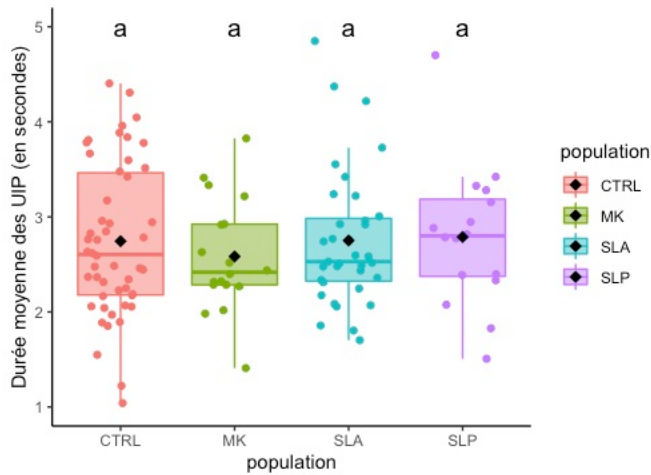


Figure 31 Comparaison de la durée des UIP, entre les populations. Les populations partageant la même lettre ont une durée des UIP similaire. Le losange central correspond à la moyenne.

Autrement dit, la durée moyenne des continuums de parole entre les pauses est similaire dans toutes les populations, dysarthriques et non dysarthrique.

6.2.1.2. La variabilité de la durée des UIP ou continuum de parole (VAR_DUR_UIP)

Afin de voir si la variabilité de la durée des UIP pourrait constituer un marqueur de la présence d'une dysarthrie, ou discriminer les groupes dysarthriques entre eux, nous avons comparé cette variabilité entre nos populations grâce au test statistique paramétrique aov ($\text{VAR_DUR_UIP} \sim \text{population}$, $\text{data} = \text{data_UIP}$). Les moyennes de la variabilité de la durée des UIP pour chacune des populations sont représentées dans la figure 32. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence de la variable **VAR_DUR_UIP** entre les populations ($p = 0.9$).

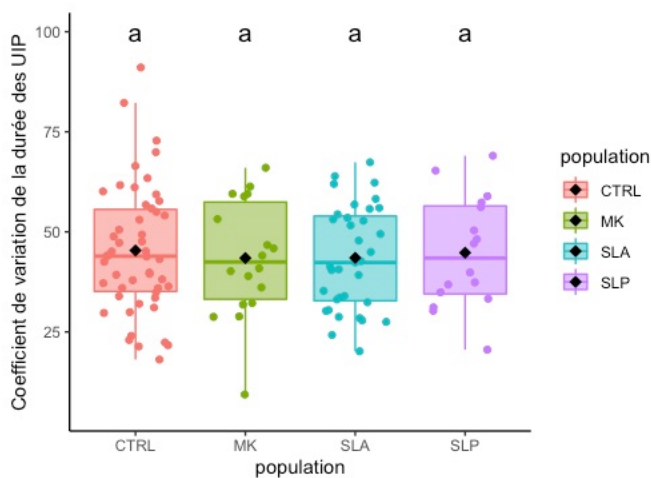


Figure 32 Comparaison de la variabilité de la durée des UIP, entre les populations. Les populations partageant la même lettre ont une variabilité de la durée des UIP similaire. Le losange central correspond à la moyenne.

La variabilité de la durée des UIP, contenant entre 3 et 20 mots, ne dépend donc pas de la population dans notre étude. Elle ne permet pas de détecter la présence de la dysarthrie dans nos populations, ni de distinguer les populations présentant une dysarthrie entre elles.

6.2.2. Les mesures effectuées sur les pauses

6.2.2.1. La durée des pauses (DUR_PAUSES)

Afin de voir si la durée moyenne des pauses pourrait constituer un marqueur de la présence d'une dysarthrie, ou discriminer les groupes dysarthriques entre eux, nous avons comparé cette durée entre nos populations grâce au test statistique non paramétrique `kruskal.test (DUR_PAUSES ~ population, data = data_PAUSES)`. Les durées moyennes des pauses sont représentées dans la figure 33. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence de la variable **DUR_PAUSES** entre les populations ($p = .06$).

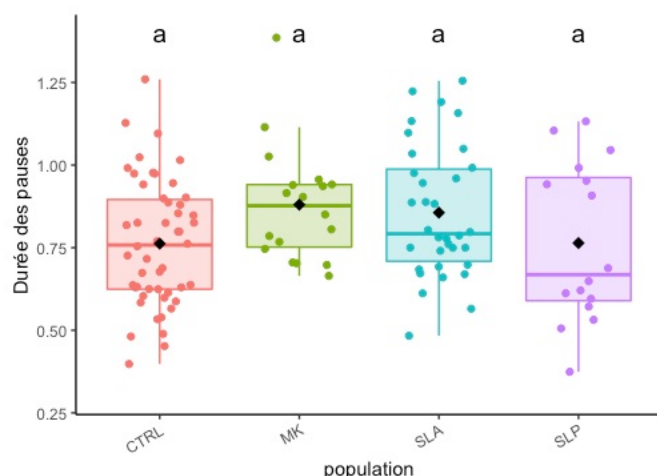


Figure 33 Comparaison de la durée des pauses, entre les populations. Les populations partageant la même lettre ont une durée des UIP similaire. Le losange central correspond à la moyenne.

Autrement dit, la durée moyenne des pauses est similaire dans toutes les populations, dysarthriques et non dysarthriques.

6.2.2.2. La variabilité de la durée des pauses (VAR_DUR_PAUSES)

Puis nous avons comparé entre nos populations la variabilité de la durée des pauses grâce au test statistique non paramétrique `kruskal.test (VAR_DUR_PAUSES ~ population, data = data_PAUSES)`. Les moyennes de la variabilité de la durée des pauses pour chacune des populations sont représentées

dans la figure 34. Les résultats de notre analyse montrent qu'il n'y a pas de différence de la variable **VAR_DUR_PAUSES** entre les populations ($p = 0.1$).

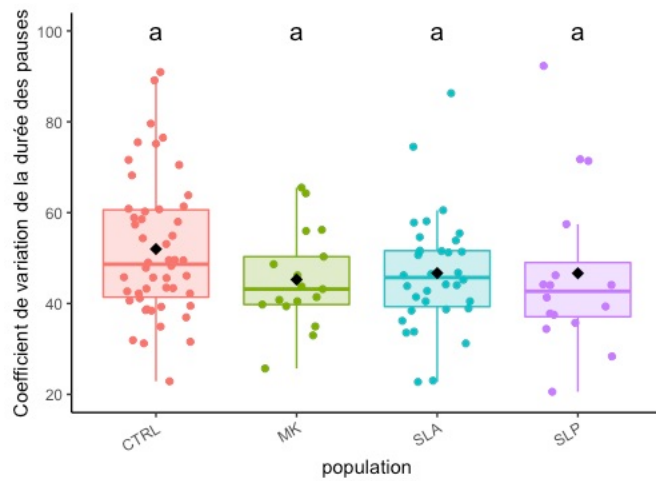


Figure 34 Comparaison de la variabilité de la durée des pauses, entre les populations. Les populations partageant la même lettre ont une variabilité de la durée des pauses similaire. Le losange central correspond à la moyenne.

La variabilité de la durée des pauses, ne dépend donc pas de la population dans notre étude. Elle ne permet pas de détecter la présence de la dysarthrie dans nos populations, ni de distinguer les populations présentant une dysarthrie entre elles.

6.2.2.3. Le temps passé en pauses sur la durée totale de la prise de parole (**PAUSES_CUM**)

Enfin, nous avons comparé le temps cumulatif passé en pause sur la durée totale de la prise de parole, entre nos populations grâce au test statistique non paramétrique `kruskal.test` (**PAUSES_CUM** ~ population, data = data_PAUSES). Les moyennes de ce temps cumulatif passé en pause sur la durée totale de la prise de parole, sont représentées dans la figure 35. Les résultats de notre analyse montrent qu'il existe une différence de la variable **PAUSES_CUM**, entre les populations ($p = .01$).

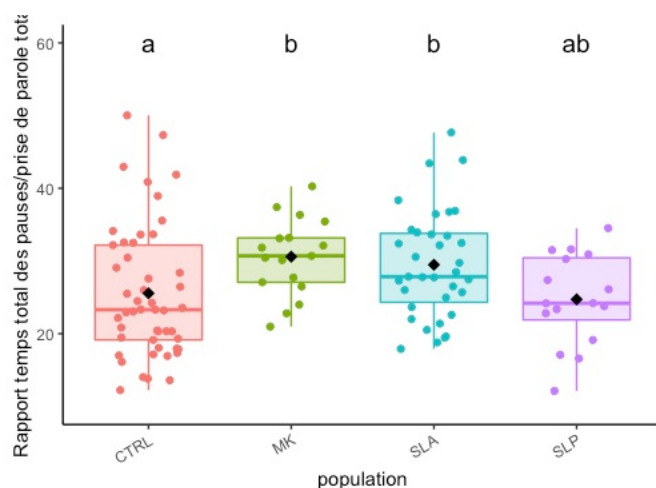


Figure 35 Comparaison du temps cumulatif passé en pause sur la durée totale de parole, entre les populations. Les populations ne partageant pas la même lettre ont un rapport de ce temps passé en pauses qui est significativement différent. Le losange central correspond à la moyenne.

Les comparaisons multiples exposées dans le tableau 36 montrent une différence significative entre la population contrôle et les populations SLA et MK (respectivement $p = .04$ et $p = .01$).

	Rapport temps de pauses/temps de la prise de parole		
	ESTIMATE (ES)	t RATIO	P
CTRL -MK	0.718 (0.30)	3.073	.01*
CTRL- SLA	0.668 (0.29)	2.649	.04*
CTRL- SLP	0.520 (0.38)	0.251	.9
MK- SLA	0.442 (0.40)	-0.704	.9
MK- SLP	0.246 (0.42)	-2.429	.07
SLA- SLP	0.325 (0.39)	-2.008	.1

Tableau 36 Comparaison du rapport du temps de pauses sur le temps total de la prise de parole, entre les populations (estimation, erreur standard, valeurs de t et p).

Le temps cumulatif passé en pause sur la totalité de la prise de parole permet de détecter la présence de la dysarthrie dans les populations SLA et MK, avec un temps cumulatif des pauses plus important dans ces deux populations présentant une dysarthrie. Cette variable ne permet en revanche pas de distinguer les populations présentant une dysarthrie entre elles.

6.3. Que retenir des aspects liés à l'organisation du discours ?

6.3.1. Les marqueurs discriminants et spécifiques de l'organisation du discours

Sur la totalité du temps de prise de parole, le pourcentage de temps passé en pause distingue les locuteurs ayant une SLA et une MK, des locuteurs contrôles : ce pourcentage de temps est plus important chez les patients ayant une SLA et une MK (respectivement 29.5% et 30.6%) que chez les contrôles (25.2%). Ces résultats suggèrent que les locuteurs dysarthriques de ces deux populations font plus de pauses que les contrôles.

6.3.2. Les marqueurs similaires de l'organisation du discours

Les variables concernant la durée moyenne et la variabilité de la durée des UIP et des pauses, ainsi que la variabilité du nombre de mots par UIP, sont similaires dans toutes les populations. Ces variables ne dépendent donc pas de la population.

Ces résultats seront discutés dans le chapitre suivant de cette thèse.

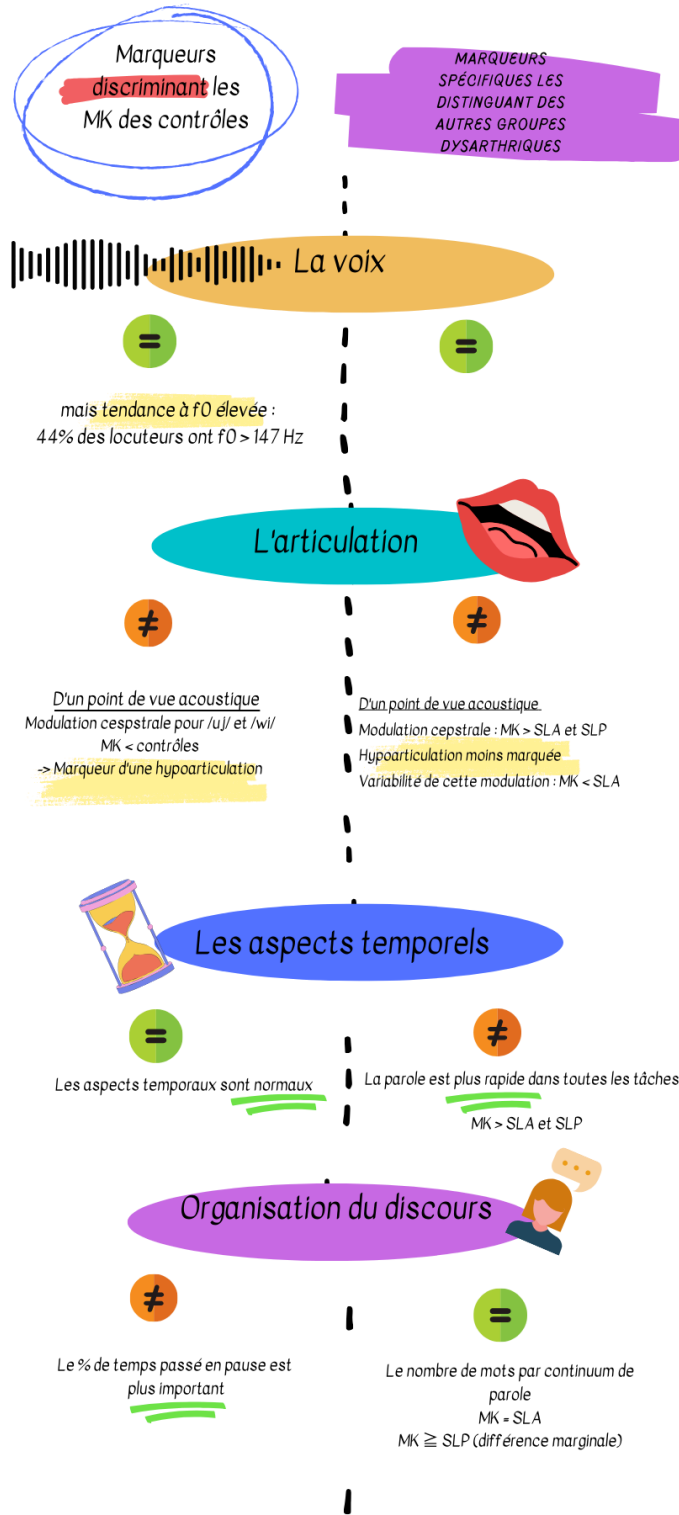
CHAPITRE 7. Discussion : Caractérisation des profils dysarthriques dans les maladies du motoneurone

Pour rappel, l'objectif de cette thèse est d'identifier des marqueurs acoustiques discriminants, c'est à dire distinguant la parole de ces trois populations présentant une dysarthrie de celle d'une population contrôle et des marqueurs acoustiques spécifiques, c'est-à-dire distinguant la parole des trois populations présentant une dysarthrie entre elles. Nous allons dans un premier temps présenter les marqueurs discriminants et spécifiques par pathologie, sous la forme de cartes infographiques.

7.1. Un récapitulatif des marqueurs acoustiques discriminants et spécifiques : cartes infographiques par population

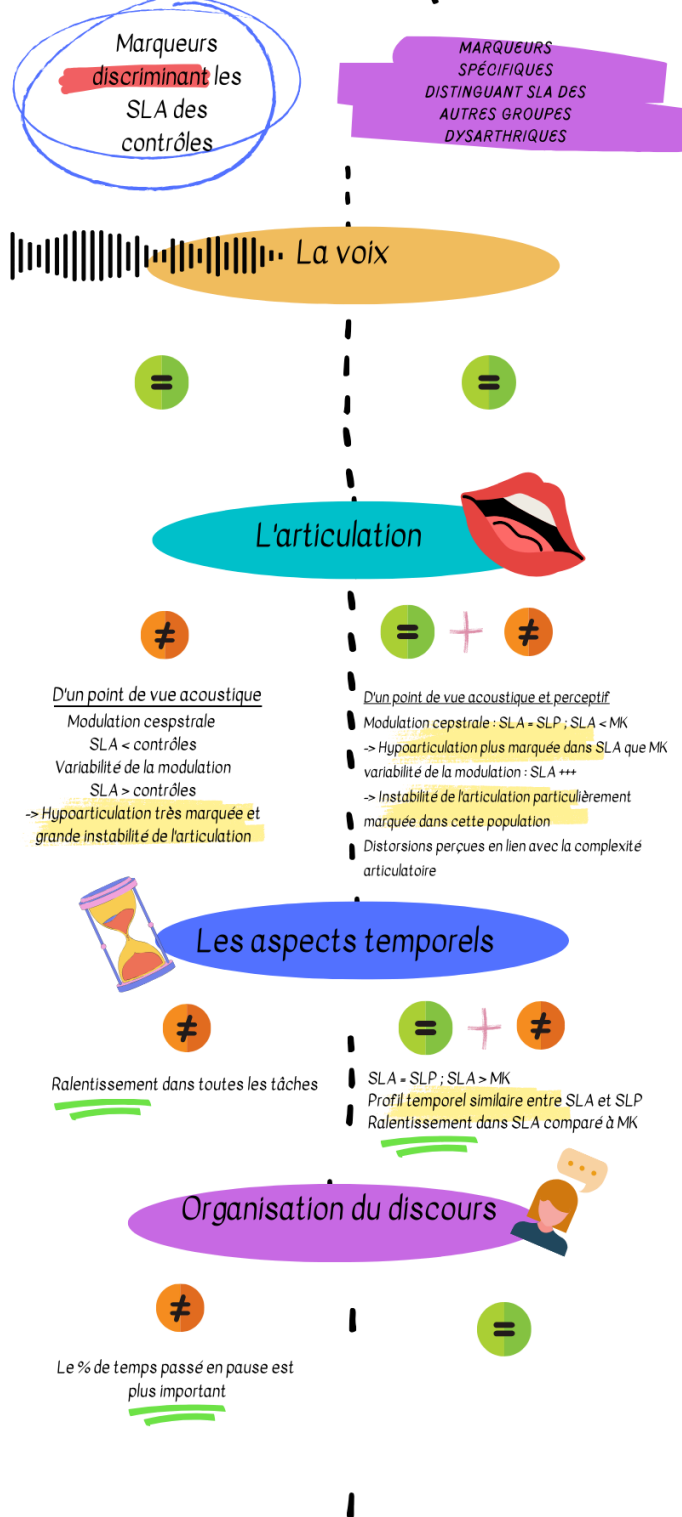
7.1.1. Le profil dysarthrique dans la maladie de Kennedy (MK)

LE PROFIL DYSARTHRIQUE DANS LA MALADIE DE KENNEDY



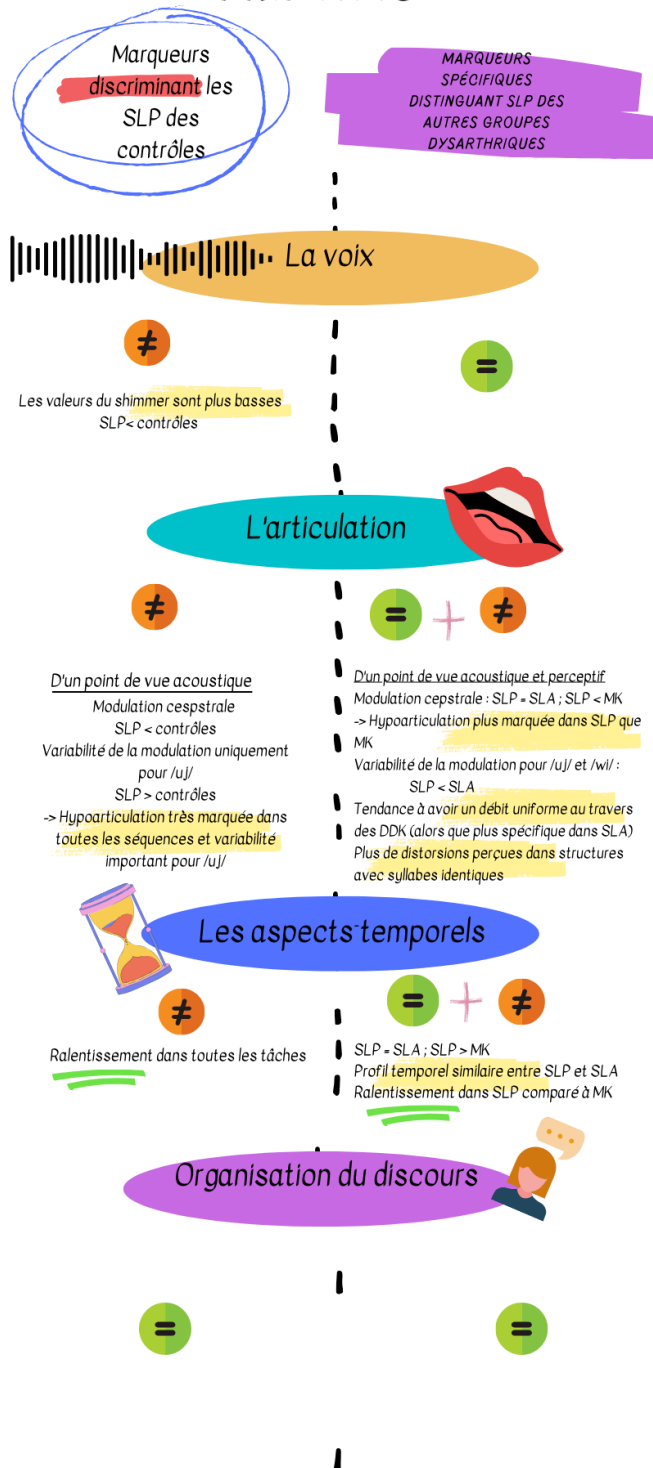
7.1.2. Le profil dysarthrique dans la sclérose latérale amyotrophique (SLA)

LE PROFIL DYSARTHRIQUE DANS LA SCLÉROSE LATÉRALE AMYOTROPHIQUE



7.1.3. Le profil dysarthrique dans la sclérose latérale primitive (SLP)

LE PROFIL DYSARTHRIQUE DANS LA SCLÉROSE LATÉRALE PRIMITIVE



7.2 L'articulation : révélatrice de la présence d'une dysarthrie et des spécificités distinguant les profils dysarthriques

7.2.1. L'hypoarticulation touche-t-elle tous les locuteurs dysarthriques ?

Comme nous l'avons vu, notre étude capturant les changements acoustiques durant la production des glides /ajajaj/, /ujujuj/ et /wiwiwi/, montre une diminution de la modulation cepstrale dans toutes les populations présentant une dysarthrie. Cette diminution reflète un émoussement des contrastes acoustiques pour passer d'un segment à l'autre, que nous avons interprété comme de l'hypoarticulation. Cette hypoarticulation touche toutes nos populations présentant une dysarthrie, confirmant les prédictions que nous avions. Ce marqueur détecte donc la présence d'une dysarthrie chez les locuteurs présentant l'une de ces maladies neurologiques, quel que soit le mécanisme neuro-physiopathologique sous-jacent.

Notre étude démontre donc que les locuteurs de la population MK ont des troubles de l'articulation. En effet, comparée à la population contrôle, les locuteurs présentant une dysarthrie flasque présentent une baisse d'amplitude de la modulation cepstrale, reflétant bien une hypoarticulation dans cette population. Les patients de la population MK sont la plupart du temps perçus comme étant plus dysphoniques que dysarthriques (Pradat et al. 2020). Il est intéressant de noter que dans cette population, ces signes d'hypoarticulation n'ont été retrouvés que dans les productions des séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/. Ces séquences impliquent spécifiquement des mouvements antéro-postérieurs de la langue, ainsi que des mouvements d'arrondissement-étirement des lèvres. La littérature a montré que l'amyotrophie et la faiblesse musculaire de la langue décrites dans cette maladie entraînent une dysphagie (Banno et al., 2017; Mano et al., 2014). Nous suggérons donc que cette atteinte périphérique de la langue explique également la difficulté pour alterner les mouvements linguaux antéro-postérieurs, nécessaires dans /ujujuj/ et /wiwiwi/.

Par contre, les locuteurs de notre étude présentent des modulations acoustiques similaires à ceux des contrôles, durant la séquence /ajajaj/. Cette séquence implique des mouvements alternatifs d'ouverture et de fermeture de la mâchoire, on suppose donc que les mouvements de la mâchoire ne sont pas, ou peu, touchés dans cette maladie. Néanmoins, dans cette séquence, on note quand même chez ces locuteurs, une amplitude de la modulation cepstrale qui a tendance à être plus grande que celle des contrôles. Cette tendance pourrait suggérer un dépassement de l'ouverture normale de la mâchoire, potentiellement en lien avec une perte de force pour contrôler les mouvements de la mâchoire. Cette interprétation reste cependant à confirmer. L'exploration du comportement de la mâchoire chez ces locuteurs pourra constituer à l'avenir un axe intéressant de recherche, d'autant que la littérature rapporte que tous les territoires de la sphère bulbaire sont touchés dans cette maladie (Finsterer & Grisold, 2015) et que quelques cas de mâchoire tombante ont été rapportés (Larsen & Smith, 2005;

Sumner & Fischbeck, 2002), suggérant une atteinte sévère du nerf trijumeau (nerf V) innervant les muscles impliqués dans l'aperture de la mâchoire.

Comparée aux autres populations présentant une dysarthrie, l'hypoarticulation dans la dysarthrie flasque de la MK est bien moins marquée. Nos résultats sont concordants avec l'étude de Neel (Neel et al., 2015), qui a montré une relation faible entre la perte de force linguale et les distorsions de l'articulation, chez des locuteurs présentant une dysarthrie flasque, en lien avec la dystrophie musculaire oculopharyngée. On peut donc conclure que la faiblesse musculaire, entraînée par l'atteinte périphérique isolée, a des effets moins dévastateurs sur la dimension articulatoire, que n'a la spasticité engendrée par l'atteinte centrale, commune dans la SLA et la SLP.

Dans la SLA, nos résultats vont dans le sens des études cinétiques qui ont mis en évidence une réduction de l'amplitude des mouvements de la langue, particulièrement sur l'axe antéro-postérieur (Kuruville et al., 2012; J. Lee et al., 2018, 2018). Par ailleurs, les mouvements de la mâchoire sont traditionnellement décrits comme exagérés dans la SLA, en lien avec de probables stratégies de compensation de la perte de la mobilité de la langue (J. Lee & Bell, 2018; Yunusova et al., 2008). Au contraire, notre étude montre également une hypoarticulation dans la séquence /ajajaj/ impliquant des mouvements d'aperture de la mâchoire, mais aussi des mouvements de la langue. Nos résultats ne reflètent donc pas cette compensation mandibulaire. Deux arguments pourraient expliquer ce phénomène :

- premièrement, cette hypoarticulation dans /ajajaj/ pourrait être en lien avec la spasticité mandibulaire couramment présente chez les patients présentant une SLA, et induisant un trismus contraignant l'ouverture de la mâchoire, et donc limitant les mouvements d'ouverture/fermeture dans la production des séquences /ajajaj/.
- Deuxièmement, la sévérité de l'atteinte bulbaire pourrait fournir une autre explication. On sait qu'à un stade avancé de l'atteinte bulbaire, la mâchoire finit souvent par être béante, mettant en évidence une faiblesse prédominante des muscles impliqués dans la fermeture de la mâchoire (les muscles temporaux et masséters). Bien que nos patients ne soient pas à ce stade de la progression de l'atteinte bulbaire, il se peut que la perte de force musculaire nécessaire à la fermeture de la mâchoire, s'installe insidieusement. Notre résultat suggère peut-être une limitation des mouvements de la mâchoire dans la production de cette séquence /ajajaj/. Du fait de la mixité de l'atteinte périphérique et centrale dans la SLA, les mouvements de cet articulateur sont inexorablement altérés au cours de l'évolution de l'atteinte bulbaire et pseudobulbaire. Nous suggérons que la modulation cepstrale dans la séquence /ajajaj/ est une mesure efficace pour détecter une éventuelle perturbation des mouvements de la mâchoire dans la SLA.

Les locuteurs présentant une SLP, comparés aux contrôles, présentent aussi une diminution de la modulation cepstrale, particulièrement dans les séquences /ujujuj/ et /wiwiwi/ faisant donc intervenir des mouvements antéro-postérieurs de la langue. Ces résultats confortent les études récentes de Clark

et de ses collaborateurs, montrant une langue déficitaire, également chez des patients présentant une dysarthrie spastique (Clark et al., 2022). Enfin, notre étude va dans le sens de celle de Rong (Rong et al., 2012) ayant objectivé une réduction de l'amplitude des mouvements dans la dysarthrie spastique. Rong et ses collaborateurs suggèrent que cette hypoarticulation dans la dysarthrie spastique, pourrait être en lien avec la spasticité d'une part, mais également avec une altération de la commande des mouvements volontaires d'autre part.

Enfin, nos résultats vont dans le sens de ceux rapportés dans la littérature, à savoir que les mouvements articulatoires, entre des locuteurs présentant une dysarthrie mixte dans la SLA et des locuteurs présentant une dysarthrie spastique, sont similaires (Hirose et al., 1982). Notre interprétation est que la spasticité, et/ou les troubles de la commande des gestes volontaires, en lien avec l'atteinte centrale commune dans ces deux maladies, pourraient expliquer les résultats similaires observés dans la dysarthrie mixte (flasque et spastique) et dans la dysarthrie spastique.

Pour conclure, l'hypoarticulation constitue donc un marqueur à la fois discriminant et spécifique dans les profils dysarthriques : l'hypoarticulation touche toutes les populations présentant une dysarthrie. Cependant, on observe qu'elle est plus importante dans les dysarthries impliquant une composante spastique et potentiellement un trouble de la commande des gestes articulatoires, que dans la dysarthrie flasque, en lien avec une perte de force des articulateurs.

7.2.2. L'instabilité de l'articulation touche-t-elle tous les locuteurs dysarthriques ?

Concernant l'hypoarticulation, on a vu plus haut que les locuteurs ayant une dysarthrie spastique et une dysarthrie mixte sont similaires et se distinguent des locuteurs non dysarthriques et des locuteurs présentant une dysarthrie flasque. Mais il n'en va pas de même pour la stabilité de l'articulation, définie dans cette thèse par la stabilité des contrastes acoustiques entre les syllabes successives au sein d'une même séquence trisyllabique.

Dans la MK, on observe que la stabilité de l'articulation est similaire à celle des contrôles. L'amyotrophie de la langue ne semble donc pas avoir d'impact sur la stabilité de l'articulation.

Les locuteurs ayant une dysarthrie mixte en lien avec la SLA, présentent quant à eux une instabilité de l'articulation bien plus importante que toutes les autres populations, dysarthriques et non dysarthriques, particulièrement dans la séquence /ujuj/. Ce résultat a un intérêt majeur dans la mesure où ce marqueur différencie la dysarthrie mixte de la population SLA, de la dysarthrie spastique en lien avec la SLP. Comme on l'a déjà mentionné auparavant, le diagnostic différentiel entre les pathologies SLA et SLP, est difficile à établir en début d'évolution de la maladie. Ce marqueur pourrait donc contribuer au diagnostic différentiel entre les populations SLA et SLP.

Cette instabilité de l'articulation s'explique sans doute par la combinaison de plusieurs facteurs, spécifiques à la SLA : la fatigabilité connue chez ces patients (Beukelman et al., 2011) ; la combinaison de l'atteinte centrale, entraînant de possibles troubles de la commande du geste articuloire et une spasticité des mouvements, et de l'atteinte périphérique, entraînant une faiblesse des mouvements ; et enfin, la rapidité d'évolution de la maladie. En effet, à la différence de la SLP et de la MK, qui évoluent toutes deux sur des décennies, l'atteinte bulbaire dans la SLA peut progresser très vite, en une ou deux années, voire en quelques mois. Cette rapidité d'évolution ne laisse pas la possibilité aux locuteurs de cette population de mettre en place de solides stratégies de compensation.

Pour conclure, l'instabilité de l'articulation est spécifique aux locuteurs présentant une SLA.

7.2.3. Une imprécision des consonnes linguales perçue dans toutes les populations présentant une dysarthrie

Nos deux études, acoustique et perceptive, nous montrent que toutes nos populations présentant une dysarthrie présentent des perturbations du niveau segmental, et particulièrement des segments linguaux.

Dans la dysarthrie flasque de la population MK, notre étude perceptive montre que l'imprécision articuloire touche aussi bien les consonnes linguales antérieures que postérieures. Cette observation est concordante avec les difficultés de mobilisation antéro-postérieure de la langue mise en évidence dans notre étude acoustique sur la modulation cepstrale. Dans la population MK, comme dans la population SLA, les locuteurs présentent une amyotrophie linguale très marquée, concernant tout le corps de la langue, expliquant possiblement l'altération de ces consonnes linguales, antérieures comme postérieures tant au niveau du lieu que du mode d'articulation des consonnes linguales. Du fait de la perte de la force et de la précision de l'apex particulièrement, les consonnes linguales antérieures occlusives sont susceptibles de se substituer par des consonnes fricatives, entraînant alors une erreur sur le mode d'articulation.

Dans notre pratique clinique, nous notons effectivement souvent une spirantisation des consonnes /t/ et /d/, par /s/ et /z/. L'imprécision de l'apex lingual entraîne des erreurs possibles sur le lieu d'articulation, spécifiquement sur le /s/ et /z/ qui sont potentiellement perçus respectivement /ʃ/ et /ʒ/. Enfin, toujours en lien avec l'amyotrophie linguale, les erreurs portent aussi sur la consonne latérale /l/ et la fricative postérieure /ʁ/, perçues toutes les deux comme sous-articulées. Nous suggérons que l'imprécision de ces consonnes linguales ne sont pas uniquement en lien avec une perturbation de la mobilité de la langue. Les impacts de la rhinolalie ouverte, par défaut de fermeture du port vélopharyngé, sont dramatiques pour l'articulation, imputant parfois à tort une perturbation de la langue. La rhinolalie est préminente dans la MK (Tanaka et al., 2019) et ses conséquences sur la précision articuloire n'ont à notre connaissance pas été étudiées. Dans notre pratique clinique, nous

savons que l'obturation nasale, rétablissant la pression intra-orale, améliore parfois grandement la précision des consonnes orales. Nous pensons que cette rhinolalie peut entraîner non seulement des erreurs sur le contraste oral/nasal des consonnes linguales, avec par exemple les consonnes orales /l/ et /d/ qui pourront être perçues /n/, mais aussi des troubles du contraste de voisement. Étant donné qu'en français, les consonnes nasales sont voisées, la rhinolalie peut entraîner une sonorisation des consonnes sourdes. Un axe de recherche pourrait être d'explorer les effets de l'obturation nasale sur la précision articulatoire des consonnes linguales, afin d'approfondir les raisons sous-jacentes expliquant leur imprécision.

Dans la dysarthrie mixte de la SLA, l'altération des consonnes linguales /s-z/, /l/ et /ʁ/ peut s'expliquer par des facteurs spécifiques à la SLA. Bien que tous les territoires soient touchés dans cette pathologie, l'atteinte de la langue, innervée par l'hypoglosse (nerf XII), est prédominante dans cette maladie (DePaul et al., 1988; Langmore Susan E. & Lehman Mark E., 1994), expliquant la prépondérance des erreurs détectées sur les consonnes linguales, plus que les consonnes labiales. De la même manière, notre étude sur les DDK met en évidence une atteinte prépondérante de la mobilité de la pointe de la langue dans la SLA. En effet, comme l'étude de Lancheros (Lancheros et al., 2022), notre étude montre que la DDK /dedede/ est plus lente que /bababa/ sollicitant les deux lèvres, suggérant que la langue est plus touchée que les lèvres. Dans les autres populations présentant une dysarthrie, il n'y a pas de différence significative de débit entre ces deux DDK.

Dans cette population SLA, des études perceptives ont montré que les consonnes fricatives /s/ et /z/, dont le lieu d'articulation est alvéolaire, sont souvent perçues comme leurs homologues post-alvéolaires /ʃ/ et /ʒ/. L'altération de ce contraste de lieu d'articulation des fricatives, alvéolaire versus post-alvéolaire, a souvent été décrit comme l'un des contrastes les plus altérés dans la SLA (J. F. Kent et al., 1992; R. D. Kent et al., 1991; Kent Raymond D. et al., 1990; Riddell et al., 1995). Les consonnes fricatives /s/ et /z/ demandent une grande précision de la position et de la forme de l'apex lingual. Il est fort probable que l'amyotrophie des bords antérieurs de la langue en modifie sa forme, et perturbe cette précision du lieu d'articulation très antérieur dans les consonnes /s/ et /z/. Une stratégie de facilitation pour ces locuteurs est sans doute de maintenir l'apex en position plus postérieure, substituant donc les fricatives /s/ et /z/ par leurs homologues /ʃ/ et /ʒ/, dont le lieu d'articulation est post-alvéolaire.

De la même manière, notre étude perceptive montre une imprécision majeure de la consonne apicale /l/, spécifiquement dans la SLA. Comme pour les consonnes /s/ et /z/, le lieu de cette consonne est très antérieur et demande en plus une montée de l'apex. Cette montée de l'apex est difficile à obtenir du fait de la faiblesse de la pointe de la langue, combinée à une potentielle spasticité.

Notre étude montre également une prépondérance des erreurs sur la consonne /ʁ/. Ici, c'est la partie postérieure de la langue qui est sollicitée. Comme on l'a vu plus haut, la littérature a déjà largement rapporté cette perturbation des mouvements antéro-postérieures de la langue dans cette pathologie (J. Lee et al., 2018; J. Lee & Bell, 2018). Il n'est donc pas étonnant que la consonne /ʁ/ soit elle aussi très

altérée. Même si notre analyse montre que cette consonne est plus altérée dans la SLA que dans les autres pathologies, on constate qu'elle est également souvent perçue comme imprécise dans les autres populations présentant une dysarthrie. On suppose que cette consonne est particulièrement altérée dans les populations présentant une dysarthrie, du fait de l'importante masse linguale postérieure à mobiliser, contrainte, soit par de la faiblesse, soit par de la spasticité, soit par les deux aspects combinés.

Le lieu d'articulation de ces consonnes explique donc les imprécisions perçues. Mais on peut aussi questionner l'effet du mode articuloire de ces consonnes sur le nombre important des imprécisions perçues.

Les consonnes /s-z/ et /ʃ/ sont des fricatives : un bruit de friction doit être généré au niveau du lieu d'articulation, impliquant un rétrécissement important du conduit vocal, tout en veillant à ne pas fermer complètement le conduit vocal. Cette configuration nécessite sans doute d'obtenir une constriction idéale à la production de la turbulence du passage de l'air, recrutant peut-être une dextérité plus fine, que dans la production des consonnes occlusives, pour lesquelles l'occlusion du conduit vocal doit être totale.

Enfin, comme dans la MK, il ne faut pas négliger la part probable de la rhinolalie ouverte, très fréquente, dans la SLA. Du fait de la déperdition d'air nasale limitant l'augmentation de la pression intra-orale nécessaire à la production des consonnes orales, ces consonnes semblent sous articulées et sont souvent masquées par le bruit surajouté de la fuite d'air nasal, contribuant à leur imprécision.

Un autre argument, renforçant le fait que les mouvements antéro-postérieurs de la langue dans la population SLA sont très altérés, est le nombre d'erreurs particulièrement élevées dans cette population, dans le pseudo-mot « kitoukitou ». Ce mot a été introduit dans le protocole MonPaGe, justement parce qu'il teste les capacités des mouvements antéro-postérieurs de la langue. Il est composé d'unités syllabiques dans lesquelles les combinaisons CV sont hétéroorganiques, c'est-à-dire que le lieu de la consonne est opposé au lieu de la voyelle, complexifiant alors l'articulation. Dans ce mot, l'association de la consonne postérieure /k/ avec la voyelle antérieure /i/ dans la première syllabe, puis de la consonne antérieure /t/ avec la voyelle postérieure /u/ dans la deuxième syllabe, nécessite des mouvements antéro-postérieurs de la langue que nous savons déjà bien altérés dans la SLA. Dans ce mot, la coarticulation anticipatoire, naturelle dans la parole non pathologique, est particulièrement sollicitée. En effet, dans la première syllabe, l'anticipation de la voyelle antérieure /i/ va entraîner une antériorisation de la consonne postérieure /k/ et un étirement des lèvres qui sera déjà installé avant même la production du /k/. Dans la syllabe suivante, l'anticipation de la production de la voyelle postérieure /u/, va postérioriser la production de la consonne antérieure /t/ et les lèvres cette fois-ci, vont s'arrondir, avant même la production du /t/. Le nombre important des erreurs dans ce mot dans la population SLA, questionne sur les capacités de coarticulation anticipatoire de ces locuteurs en particulier. On en déduit que la mixité des composantes flasque et spastique de leur dysarthrie explique les erreurs, plus importantes que chez les locuteurs présentant une dysarthrie pure, spastique

ou flasque. Ce résultat, qui pourrait contribuer au diagnostic différentiel dans ces maladies, justifie le développement d'un module spécifique dans MonPaGe, explorant l'étude déjà amorcée sur la coarticulation, tant anticipatoire que persévératrice, dans les dysarthries (D'Alessandro et al., 2019).

Dans la SLP, notre étude montre une petite prépondérance de l'imprécision des consonnes linguales occlusives postérieures, allant dans le sens de l'étude de Ziegler (Ziegler & von Cramon, 1986) montrant une altération plus importante de la consonne occlusive /k/, en comparaison avec les consonnes occlusives /p/ et /t/ dans la dysarthrie spastique. Une interprétation serait que l'altération de la partie postérieure de la langue serait liée à la spasticité. On peut supposer alors que la prépondérance des erreurs sur les consonnes antérieures dans la SLA, serait plutôt en lien avec l'atteinte périphérique entraînant une amyotrophie de la langue, qu'avec la spasticité.

7.2.4. Les troubles de la résonance nasale dans les maladies du motoneurone

Le pseudo-mot « ménabainban » a été intégré dans MonPaGe afin d'explorer l'intégrité des mouvements du voile du palais. Ce mot reflète la possibilité de réaliser le contraste de nasalité, distinguant les consonnes et voyelles orales de leurs homologues nasales, grâce à l'élévation ou l'abaissement du velum.

Des erreurs ont été détectées dans toutes les populations présentant une dysarthrie, mais c'est à nouveau dans la population SLA que les erreurs sont les plus nombreuses. La perturbation de ce contraste oral/nasal a déjà été largement rapportée dans la littérature, comme étant l'une des plus prédominantes dans cette population (J.F. Kent et al., 1992 ; R. D. Kent et al., 1991 ; Kent Raymond D. et al., 1990 ; Riddell et al., 1995). Néanmoins, on retrouve un grand nombre d'erreurs aussi dans la population SLP, et un peu moins dans la population MK. La perturbation de ce contraste oral/nasal peut donc être en lien avec une atteinte périphérique, entraînant une perte de force empêchant l'élévation du voile. L'atteinte centrale quant à elle, entraînant de la spasticité, peut contraindre non seulement l'élévation du voile, mais aussi son abaissement, sans doute parce que la contraction vélaire ne se relâche pas. Les troubles de la résonance nasale sont donc de deux ordres dans les populations SLA et SLP : la rhinolalie ouverte lorsque le voile ne peut s'élever aboutissant par exemple à une substitution du /b/ par son homologue nasale /m/ ; et la rhinolalie fermée qui reflète le phénomène inverse, c'est-à-dire une perturbation dans le relâchement musculaire qui devrait entraîner l'abaissement du voile, qui va transformer le /m/ en /b/. Notre expérience nous montre que si la spasticité du voile peut entraîner les deux types de rhinolalie, dans la SLA et la SLP, la rhinolalie fermée n'est pas possible dans la dysarthrie flasque pure. Dans la dysarthrie spastique, la rhinolalie, qu'elle soit fermée ou ouverte, pourrait être en lien avec un trouble de coordination temporelle du fait de la spasticité et de la lenteur qu'elle engendre : le voile ne s'élève et/ou ne se s'abaisse pas dans les temps, alors que les autres articulateurs sont peut-être un peu plus rapides, caractérisant justement des troubles de patterns des mouvements, décrits dans ce type de dysarthrie (Duffy, 2013). Dans la

dysarthrie flasque, la rhinolalie ouverte est en lien avec une perte de force du velum pour s'élever, créant alors une déperdition d'air nasale. Il n'y aura donc jamais de rhinolalie fermée chez ces locuteurs. Autrement dit, on suggère que dès lors que des substitutions de phonèmes en faveur d'une rhinolalie fermée sont perçues, on peut suspecter une spasticité ou des troubles de la coordination du voile. Les troubles de la coordination des mouvements sont également courants dans la dysarthrie ataxique en lien avec une atteinte du cervelet. Notre expérience clinique nous montre que l'on peut percevoir une rhinolalie fermée dans la population ataxique.

Il se peut que le nombre important des erreurs dans la SLA sur ce pseudo-mot « ménabainban », soit aussi en lien avec les phénomènes de coarticulation, non seulement anticipatoire mais aussi persévératrice. On a vu que la coarticulation anticipatoire correspondait à un phénomène d'anticipation des gestes de la parole : ces gestes commencent avant la production du segment. La coarticulation persévératrice quant à elle, correspond au phénomène de l'influence de gestes articulatoires sur les segments/syllabes qui suivent. Par exemple, dans le mot « ménabainban », la coarticulation persévératrice pourrait entraîner une nasalisation des voyelles orales /e/ et /a/, se transformant ainsi en /ẽ/ et /ã/, par contamination de la consonne nasale /m/ dans les syllabes /me/ et /na/. Dans les syllabes, /bẽ/ et /bã/, la coarticulation anticipatoire pourrait entraîner quant à elle, une nasalisation de la consonne orale /b/, par anticipation de l'ouverture du port vélopharyngé nécessaire sur les voyelles nasales qui suivent. Ce pseudo-mot n'est donc sans doute pas facilitateur chez les locuteurs présentant des troubles de la résonance nasale.

Pour conclure, des troubles de la résonance nasale sont présents dans nos trois populations, mais sont particulièrement notables dans la population SLA. L'impact des troubles de la résonance nasale sur la précision segmentale reste très peu exploré, sans doute parce que le voile est un articulateur peu accessible. Des explorations aérodynamiques pourraient nous éclairer sur ces troubles. Les distorsions segmentales, et notamment l'exploration de la nature des substitutions de segments concernant le trait de nasalité, peuvent nous éclairer sur les comportements du voile en fonction des mécanismes neuro-physiopathologiques sous-jacents. Nous pensons donc que les phénomènes de rhinolalie ouverte/fermée fournissent des pistes intéressantes à approfondir qui pourraient contribuer à améliorer le diagnostic différentiel des types de dysarthrie dans les maladies du motoneurone.

7.2.5. Des stratégies de coarticulation anticipatoire altérées uniquement chez les dysarthriques ?

Dans le sens d'une perturbation des mouvements antéro-postérieurs de la langue, discriminant les locuteurs dysarthriques des locuteurs contrôles, nos résultats montrent que le débit dans la DDK /klaklakla/ est plus rapide que dans la DDK /tʁatʁatʁa/, uniquement chez les contrôles. Par contre, dans toutes les populations présentant une dysarthrie, le débit articulatoire est similaire dans ces deux DDK. Autrement dit, les locuteurs dysarthriques de toutes nos populations, ont besoin d'autant de

temps pour pouvoir produire la DDK /klaklakla/ que la DDK /tʁatʁatʁa/ avec précision, alors que les contrôles semblent mettre en place des stratégies pour produire /klaklakla/ plus rapidement.

Bien que ces deux DDK AMR soient composées toutes les deux de clusters de consonnes impliquant justement des mouvements antéro-postérieurs de la langue, nous suggérons que la constriction /kl/ est plus complexe à produire que la constriction /tʁ/ du fait de la présence de la consonne /l/. La production du /l/ est complexe du fait de son lieu et de la configuration de la langue, nécessitant une montée de l'apex au niveau des alvéoles, mais aussi du fait de son mode, puisque c'est la seule consonne du français nécessitant un passage de l'air latéral, tout en maintenant l'occlusion apico-alvéolaire. Il est possible que pour compenser cette complexité, les locuteurs dysarthriques prennent plus de temps afin de maintenir une bonne précision, comme la consigne le demande. Nous suggérons que la contrainte de la vitesse met en évidence la perte des stratégies de coarticulation anticipatoire pour maintenir une précision du cluster. Dans ce cluster /kl/, une indépendance de la mobilité antérieure et postérieure de la langue est possible, mais nécessite sans doute une certaine gymnastique de la langue, difficile à réaliser par les dysarthriques, mais possible chez des sujets contrôles. Hardcastle (Hardcastle, 1985) a montré qu'en débit rapide, des locuteurs sans trouble neurologique, sont capables de mettre en place des stratégies de coarticulation anticipatoire efficace dans la production de ce même cluster : la partie antérieure de la langue, non impliquée dans la production du /k/, peut anticiper la production du /l/ dès le début de l'occlusion du /k/.

Nous pensons que les locuteurs dysarthriques de nos populations, du fait de la spasticité et/ou de la faiblesse de leur langue, ne sont pas en mesure de mobiliser, en même temps, la partie antérieure de la langue pour anticiper le /l/ et la partie postérieure de la langue pour initier la production du /k/. Cette configuration nécessitant donc deux occlusions linguales simultanées et opposées dans le tractus vocal, est une configuration trop complexe à réaliser rapidement chez les locuteurs dysarthriques qui présentent comme on l'a vu dans la section précédente, une hypoarticulation antéro-postérieure de la langue.

La séquence /tʁ/ quant à elle, est composée de deux consonnes nécessitant premièrement une occlusion antérieure pour le /t/, puis une constriction postérieure, sans occlusion, pour le /ʁ/, puisqu'il s'agit d'une fricative. Il se peut que l'anticipation du geste uvulaire pour aller vite soit difficile à réaliser, du fait de son mode fricatif. D'ailleurs dans ce cluster, il est intéressant de noter que les assimilations se font plutôt au niveau du trait de voisement d'avant vers l'arrière, avec un dévoisement du /ʁ/, par assimilation du trait non voisé du /t/. De manière intéressante, la littérature nous montre que les chevauchements entre les mouvements articulatoires dans les clusters nécessitant des mouvements postéro-antérieurs, comme dans notre exemple /klaklakla/, sont plus importants que dans les clusters dont les mouvements sont antéro-postérieurs comme dans notre exemple /tʁatʁatʁa/ (Pouplier et al., 2022). On propose donc d'expliquer que la DDK /klaklakla/ est plus rapide que /tʁatʁatʁa/ chez les contrôles, car la coarticulation dans /klaklakla/ favorise la fluidité des mouvements (Guenther, 1995), facilitant donc la vitesse d'élocution. En accord avec cet argument, notre étude montre que le débit

articulatoire est plus rapide dans les DDK SMR /badego.../, que dans les DDK AMR comme dans /bababa.../ dans toutes les populations. Cette différence de vitesse s'explique par l'anticipation articulatoire de chaque syllabe durant la syllabe précédente, possible dans /badego/, mais impossible dans les séquences composées d'une même syllabe comme dans /bababa/.

Pour conclure, la comparaison entre les deux DDK /klaklakla/ et /kʌtʌkʌtʌ/ est un marqueur pertinent pour mettre en évidence la présence d'une dysarthrie dans les différentes maladies du motoneurone, indépendamment de l'atteinte neurologique sous-jacente : les patients dysarthriques ne semblent pas pouvoir mettre en place de stratégie de coarticulation anticipatoire dans la production rapide de la DDK /klaklakla/, alors que les contrôles le peuvent.

7.2.6. Les troubles de l'organisation et de la planification de la parole : une piste pour discriminer la SLA de la SLP ?

Notre étude perceptive sur les pseudomots montre que, dans toutes les populations, le nombre de stimuli jugés imprécis est plus élevé dans les mots dont la structure syllabique est CCCV, que dans les mots dont la structure syllabique est CV. Néanmoins, alors que le nombre d'erreurs triple entre les deux structures syllabiques pour les populations MK et SLP, il quadruple pour la population SLA. La précision de l'articulation se dégrade donc particulièrement dans cette population, avec la complexité articulatoire, rendant l'articulation des locuteurs de la population SLA très vulnérable. Les clusters consonantiques étudiés ici (/sp/ et /bl/ pour la structure syllabique CCV, et /stʌ/ et /spl/ pour la structure CCCV), sont composés en partie des consonnes linguales /s/, /l/ et /ʌ/, déjà jugées comme étant particulièrement altérées dans la SLA. A nouveau, on explique cette fragilité particulière de l'articulation dans cette population, par la combinaison de l'atteinte mixte des motoneurones.

Considérons à présent la position des stimuli dans le mot : pour la structure syllabique CV, on observe que le nombre d'erreurs double entre la position onset de mot et la position coda de mot dans les populations MK et SLA mais reste stable dans la SLP. Pour les clusters consonantiques, structures CCV et CCCV réunies, on observe également une augmentation des erreurs sur ces stimuli quand ils sont en position coda, particulièrement dans la population SLA. Nous proposons donc d'expliquer cette imprécision des stimuli en position coda de mot, par une impossibilité pour maintenir une bonne force des articulateurs et une bonne coordination des différents sphincters de la parole, jusqu'au bout de la production du mot. Ces imprécisions pourraient être en lien avec l'atteinte périphérique, puisque ces imprécisions prédominent dans la SLA et la MK, dont le point commun est l'atteinte périphérique. La fragilité de l'articulation dans la SLA, observée dans les clusters et dans les stimuli en position coda de mot, a déjà été décrite dans la littérature (J. F. Kent et al., 1992; Kent Raymond D. et al., 1990). Ces deux contextes permettent de mettre en évidence que c'est la complexité articulatoire, l'association de consonnes dans un cas, le maintien d'une précision efficace jusqu'au bout de la

production dans l'autre cas, qui fragilise l'exécution des gestes articulatoires, dans la SLA, et dans une moindre mesure dans la MK.

En revanche, dans la dysarthrie spastique de la population SLP, on observe une spécificité dans les distorsions articulatoires perçues, probablement en lien avec une perturbation de la planification et/ou de la programmation des gestes articulatoires. Dans cette population en effet, les pseudo-mots dans lesquels les erreurs sont les plus nombreuses sont /tatata/ et /dadada/. A priori, dans ces deux mots, la complexité articulatoire semble plutôt faible, puisque ces deux mots n'impliquent qu'un seul lieu d'articulation, apico-alvéolaire, des alternances d'ouverture et fermeture de la mâchoire, pas d'alternance du trait de nasalité puisque tous les phonèmes sont oraux, et des alternances du trait de voisement uniquement dans le pseudo-mot /tatata/ durant lequel les consonnes /t/ sont supposées être non voisées alors que la voyelle /a/ est voisée. En revanche, la complexité de ces mots réside dans l'enchaînement de syllabes similaires, configuration relativement inhabituelle dans la parole continue. Par ailleurs, dans les DDK AMR /bababa.../ et /dedede.../, composées également d'une syllabe similaire, on observe dans cette population SLP, au contraire de la population SLA, que le débit est uniformément lent, quel que soit le lieu d'articulation, renforçant l'idée que les difficultés dans cette population, semblent plus en lien avec la configuration inhabituelle de l'enchaînement de syllabes similaires, plutôt qu'en lien avec le lieu d'articulation.

Le nom donné au type de la dysarthrie spastique ne fait référence qu'à la spasticité des muscles articulatoires, phonatoires et respiratoires, ayant un impact global sur l'exécution des gestes de la parole. Mais cette spasticité masque sans doute une perturbation de la planification et/ou de la programmation des gestes articulatoires, qui pourraient théoriquement être présentes dans ce type de dysarthrie (Van Der Merwe, 2021). En effet, la dysarthrie spastique est en lien avec une atteinte des motoneurones centraux, situés dans le cortex moteur ou aire 4 de Brodmann (M1 et S1 sur la figure 36). Les modèles de parole DIVA (Directions Into Velocities of Articulators) et GODIVA (Gradient Order DIVA) (Bohland et al., 2010; Guenther, 1995; Guenther et al., 2006; Kearney & Guenther, 2019; Miller & Guenther, 2021; Tourville & Guenther, 2011) associent la dysarthrie spastique à l'atteinte du cortex moteur ventral. Le cortex moteur impliquerait des projections motrices des différentes parties du corps et contrôlerait l'exécution des mouvements volontaires. Dans la parole, le cortex moteur impliquerait des représentations motrices dites de « bas niveau » détaillant l'exécution des mouvements des articulateurs dans leur vitesse ou leur position. Néanmoins, selon ces modèles de production de la parole, il semblerait y avoir un continuum entre les cortex moteur et prémoteur. Le cortex prémoteur et l'aire motrice supplémentaire, situés au niveau du cortex frontal, constituent l'aire 6 de Brodmann (SMA, pre-SMA, PMd et PMv dans la figure 36), et se situent en avant du cortex moteur. L'aire 6 de Brodmann jouerait un rôle dans la planification de tâches complexes et de mouvements coordonnés.

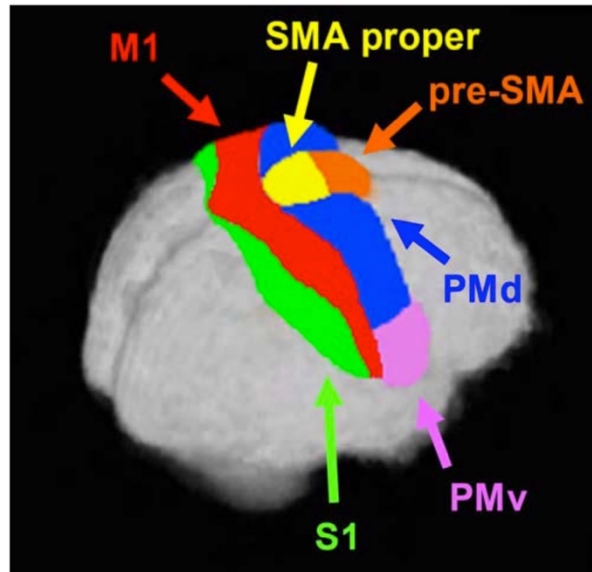


Figure 36 Localisation et frontières des cortex moteur et prémoteur en imagerie fonctionnelle (Mayka et al., 2006). Le cortex sensori-moteur comprend le cortex moteur primaire (M1 ou aire de Brodmann 4) et le cortex somatosensoriel (S1 ou aires de Brodmann 1, 2 et 3). Le cortex prémoteur est composé des aires pré-motrice supplémentaire (pre-SMA) et motrice supplémentaire (SMA). Note : PMv = subdivision du cortex prémoteur le long du plan ventral ; PMd = subdivision du cortex prémoteur le long du plan dorsal

Dans la parole, le cortex prémoteur impliquerait des représentations motrices de la parole dites de « haut niveau », contenant des cibles motrices détaillant les commandes motrices spatio-temporelles bien apprises et hautement coordonnées pour la production de syllabes de la langue maternelle et autres séquences de phonèmes et syllabes couramment rencontrées. L'aire motrice supplémentaire, quant à elle, serait impliquée dans l'initiation du programme moteur correct et dans un bon timing. Enfin, l'aire préfrontale, située en avant du cortex prémoteur, jouerait également un rôle dans la planification et l'anticipation des mouvements.

Tant dans la SLA que dans la SLP, la littérature en imagerie cérébrale montre que l'atteinte fonctionnelle corticale déborde le cortex moteur, pour toucher également les régions voisines, dont le cortex prémoteur, les aires motrices supplémentaires et le cortex préfrontal.

Les difficultés rencontrées dans l'enchaînement des séquences de syllabes identiques, enchaînement moteur exceptionnel, éloigné des conditions de la parole continue habituelle, pourraient refléter les troubles de programmation et de planification des sons, particulièrement dans la dysarthrie spastique en lien avec la SLP.

Nous proposons donc deux interprétations dans la spécificité des erreurs rencontrées particulièrement dans la dysarthrie spastique de la SLP :

- premièrement, les gestes articulatoires sont probablement perturbés par la spasticité. On suggère que cette perturbation est d'autant plus marquée dans des enchaînements de syllabes

identiques ne favorisant pas la coarticulation anticipatoire, nécessaire pour une fluidité des mouvements.

- Deuxièmement, il est fort probable que ces perturbations soient également en lien avec un trouble de la programmation et de la planification des sons de la parole. La population SLP est le phénotype idéal pour approfondir notre connaissance du rôle des différentes aires cérébrales, préfrontale, prémotrice et motrice, sur la programmation et la planification des sons de la parole. La fonction de parole pourrait être intégrée dans les études en imagerie.

Les limites de notre étude résident dans le nombre réduit de nos cohortes de patients, et dans le fait que l'évaluation perceptive de la précision articulatoire n'a été faite que par un seul juge. Nos interprétations sont donc à approfondir sur des cohortes plus nombreuses de patients, jugées par un plus grand nombre de juges.

7.3. La perturbation des aspects temporels, un marqueur diagnostique de l'atteinte centrale

Dans le chapitre précédent, on a vu que la dimension articulatoire est touchée dans tous les types de dysarthrie, flasque, spastique et mixte. L'articulation est donc affectée autant par la perte de la force musculaire et l'amyotrophie linguale en lien avec l'atteinte périphérique, que par la spasticité musculaire et/ou un trouble de la programmation/planification des sons de la parole, en lien avec l'atteinte centrale. Ce chapitre traite maintenant des conséquences de toutes ces atteintes neurologiques sur la dimension temporelle de la parole.

7.3.1. Quels sont les effets de l'atteinte périphérique sur les aspects temporels de la parole ?

Nos résultats ne vont pas dans le sens d'une relation entre perte de force de la langue et ralentissement des articulateurs dans la dysarthrie flasque comme cela a pu être évoqué dans la littérature (Duffy, 2013; Solomon et al., 2017). Nous n'observons pas ce lien, du moins chez nos locuteurs ayant une MK. Nos locuteurs ayant une dysarthrie flasque présentent les mêmes patterns que les locuteurs contrôles, dans toutes les mesures temporelles explorées dans cette thèse : la durée des transitions pour passer d'un segment à un autre dans les séquences de glides (section 5.2.1.), le débit articulatoire mesuré dans une phrase de lecture et dans les continuums de parole en spontané, ainsi que le nombre de mots dans les continuums de parole (section 5.2.3.), et enfin, l'accélération du débit dans des tests de performance de non parole dans les DDK (section 5.2.2.). On sait pourtant que l'amyotrophie linguale est très marquée chez ces patients (Mano et al., 2014, 2015) et on supposait que cela

affecterait au moins la vitesse des DDK impliquant la langue /dedede/ et /gogogo/, plus que la DDK impliquant les lèvres /bababa/, mais il n'en est rien.

Si le lien entre perte de force des articulateurs et altération de la précision articuloire est indéniable comme on l'a vu dans le chapitre précédent, le rapport entre la force musculaire et la vitesse d'un mouvement est moins évident. Comme évoqué dans l'état de l'art de cette thèse, la littérature a montré chez des sujets sains, un lien minime entre la force maximale de la langue et le débit articuloire évalué dans des DDK AMR (Neel & Palmer, 2012). Si ce lien existe vraiment, il se pourrait, que du fait de la progression très lente de la MK, les locuteurs installent progressivement des stratégies de compensation, masquant la relation, qui serait peut-être plus évidente si la perte de force s'installait de façon rapide, comme ça peut l'être pour la population SLA par exemple. Enfin, la ré-innervation compensatrice au niveau des muscles de la langue, importante dans cette maladie et responsable d'un « remaniement musculaire » de la langue (observable de par son aspect « bosselé » en routine clinique), pourrait permettre la préservation d'une force suffisante pour assurer une vitesse normale.

Dans la SLA en revanche, nos résultats montrent un ralentissement des gestes de la parole. Dans cette population, l'amyotrophie, et sans doute la perte de force linguale associée, est également très marquée. Mais, à la différence de la population MK, l'installation de l'atteinte bulbaire est généralement très rapide et les locuteurs de la population SLA n'ont pas le temps d'installer des stratégies de compensation. Le ralentissement pourrait donc être lié à l'atteinte périphérique dans cette maladie. Toutefois, l'atteinte centrale se mêlant à l'atteinte périphérique dans la SLA, il est difficile d'attribuer le trouble temporel à l'une ou l'autre des atteintes.

7.3.2. Une perturbation globale des aspects temporels dans les populations SLA et SLP

Nos résultats sont en accord avec la littérature sur la SLA et autres pathologies impliquant une atteinte des motoneurones centraux, sur le fait que les aspects temporels de la parole sont altérés dans ces maladies : les locuteurs dysarthriques, présentant une dysarthrie mixte et une dysarthrie spastique, ont une perturbation de toutes les mesures temporelles explorées dans cette thèse.

Comparés aux locuteurs contrôles et aux locuteurs ayant une dysarthrie flasque, on observe un allongement de la durée pour passer d'un segment à un autre dans l'étude des séquences voyelle-glide, un ralentissement du débit articuloire, tant dans les tâches de parole continue (lecture et spontané), que dans les tâches de performance. Dans ces populations, la flexibilité pour adapter le débit en fonction de la tâche est limitée, suggérant que ces locuteurs ont tendance à parler à leur débit maximal dans toutes les tâches. Par ailleurs, dans le sens d'un ralentissement global de la parole, les locuteurs dans ces deux populations, ont un nombre plus réduit de mots par continuum de parole dans le spontané. Ces observations ont déjà été mises en évidence dans des tâches de lecture chez des locuteurs bulbaires présentant une SLA (Barnett et al., 2020; Green et al., 2013; Stipanovic et al., 2021;

Yunusova et al., 2016). Il est intéressant de noter que nos résultats en spontané sont similaires aux données de la littérature observées dans des tâches de lecture. On peut donc dire que bien que le contenu linguistique ne soit pas contrôlable dans la tâche du spontané, cette tâche rend compte du ralentissement de la parole chez les locuteurs présentant une composante spastique dans leur type de dysarthrie.

Comme évoqué dans l'état de l'art de cette thèse, toutes les études montrent un ralentissement des gestes de la parole dans la dysarthrie mixte de la SLA et dans la dysarthrie spastique. Il se pourrait donc qu'il existe un lien entre l'atteinte centrale, commune à ces deux types de dysarthrie, et le ralentissement des gestes de la parole. Comme nous l'avons mentionné dans la section précédente, dès lors qu'une atteinte centrale est impliquée, de manière isolée ou de manière concomitante à l'atteinte d'un autre système neurologique, comme dans la SLA, il est fort probable que deux mécanismes s'opposent à la réalisation du mouvement, jouant sur les aspects temporels de la parole.

- Premièrement, les mouvements luttent contre la spasticité, et la plainte fréquente des patients est d'avoir la sensation de bouger contre une résistance.
- Une autre répercussion de l'atteinte centrale, sans doute masquée par la spasticité, comme cela a été évoqué dans la section précédente, est l'atteinte au niveau des cortex préfrontal et prémoteur, objectivée dans les deux populations SLA et SLP (McKenna et al., 2021). En lien probable avec ces atteintes et les troubles de la planification/programmation des gestes qui en découlent, les patients nous rapportent souvent qu'il est difficile pour eux de parler en faisant une autre tâche en même temps. Ces atteintes peuvent tout à fait contribuer à ralentir l'exécution de la parole et à perturber notamment les phénomènes de coarticulation anticipatoire.

En effet, il a été suggéré que le phénomène de coarticulation anticipatoire favorise la fluidité de la parole (Guenther, 1995), et donc la vitesse des gestes articulatoires. Il se pourrait que la perturbation conjointe, en lien avec la spasticité et les troubles de la programmation/planification des gestes de la parole, agisse de manière délétère sur le phénomène de coarticulation, expliquant le débit ralenti dans les deux populations SLA et SLP. La coarticulation, anticipatoire notamment, permet de débiter une syllabe, ou un segment de parole, avant la fin de la production de la syllabe précédente. Dans nos populations SLA et SLP, on suppose que la spasticité et/ou le trouble de la programmation/planification ne permet pas de commencer un mouvement avant la fin de l'exécution du mouvement précédent. Il est d'ailleurs intéressant de noter que particulièrement chez les patients présentant une dysarthrie spastique, la parole peut parfois être décrite comme « saccadée, scandée » comme dans la dysarthrie ataxique (Duffy, 2019). Il est probable que cette impression perceptive soit en lien avec la perturbation de la coarticulation anticipatoire. Si la coarticulation anticipatoire n'est pas possible, chaque syllabe devient indépendante de celles qui l'entourent, contribuant à cette impression de scansion de la parole.

Dans ces deux populations, notre étude montre une forte corrélation entre les différents débits mesurés dans toutes les tâches. On suppose donc que les possibilités de variation de la vitesse des gestes articulatoires sont limitées dans ces populations.

La comparaison des deux types de DDK, SMR et AMR, est un bon indicateur des possibilités de coarticulation anticipatoire chez un locuteur. Par exemple, l'étude de Lancheros (Lancheros et al., 2023) montre bien, à l'aide de mesures acoustiques, que dans les DDK SMR, les mouvements articulatoires pour produire une syllabe, débutent lors de la réalisation de la syllabe précédente. Les auteurs s'accordent pour dire que le débit articulatoire dans la parole continue ou dans des DDK SMR, composées de syllabes différentes comme dans /badegobadego.../, est plus rapide que le débit articulatoire dans les DDK AMR, composées d'une seule syllabe, comme /babababa.../ ou /dedede.../ ou /gogogo.../ (Lancheros et al., 2023; Nishio & Niimi, 2006; Ziegler et al., 2019). Les auteurs expliquent cette différence par le rôle de la coarticulation anticipatoire, favorisée dans les SMR plus que dans les AMR. Effectivement, dans notre étude, on observe que le débit est plus rapide dans les SMR que dans les AMR, dans toutes nos populations.

Néanmoins, l'inspection visuelle de nos données (section 5.2.1.3. figure 24) nous montre que cette différence entre le débit des SMR et des AMR a tendance à être plus petite dans la population SLP que dans les autres populations. On suggère que cette tendance reflète l'altération particulièrement marquée des possibilités de coarticulation anticipatoire, plus évidente dans la population dont l'atteinte centrale est isolée. On suppose que dans cette population, chez qui la spasticité est particulièrement prédominante, la perturbation de la coarticulation anticipatoire est d'autant plus marquée, expliquant la tendance dans cette population à avoir des différences moins marquées dans le débit entre les différentes tâches.

Enfin, dans le domaine des dysarthries en général, il a été suggéré que le débit lent pourrait aussi être en lien avec les stratégies compensatoires mises en place par les locuteurs, pour optimiser la précision articulatoire et l'intelligibilité (Hammen et al., 1994). Des études ont montré que le ralentissement du débit de parole et articulatoire, laisse du temps, non seulement pour articuler les sons de la parole (Tjaden et al., 2014; G. S. Turner et al., 1995; Yorkston et al., 1990) mais aussi pour coordonner les étages de la respiration, de la phonation et de l'articulation entre eux (McHenry, 2003). Dans la SLA spécifiquement, on sait que tous ces étages de production de la parole peuvent potentiellement être atteints. Il semble donc logique que les locuteurs utilisent cette stratégie du ralentissement volontaire, non seulement pour optimiser la précision articulatoire et l'intelligibilité, mais aussi pour optimiser la coordination de ces différents étages de la parole entre eux.

Pour conclure, il nous apparaît primordial d'intégrer dans les protocoles d'évaluation de la parole, des mesures de différences de débit articulatoire entre les différentes AMR testant les articulateurs lèvres, apex et dos de la langue, ainsi qu'entre les SMR et les AMR, mais aussi des mesures de différence de débit entre la parole continue (lecture par exemple) et les tâches de performance. De petites

différences de débit entre ces différentes tâches pourraient être un index du degré de la composante centrale dans la dysarthrie.

7.4. La dimension vocale : des pistes à approfondir

Le chapitre précédent nous a appris que la dimension temporelle de la parole est touchée uniquement chez les locuteurs présentant une atteinte centrale, qu'elle soit isolée (dysarthrie spastique dans la SLP) ou associée à une atteinte périphérique (dysarthrie mixte de la SLA). Le présent chapitre traite de la dimension vocale. De manière globale, les descripteurs de la voix, notamment de la qualité vocale et de la hauteur de la voix, dans notre étude, n'ont pas identifié de marqueurs diagnostiques francs, dépistant spécifiquement l'atteinte périphérique et/ou centrale au niveau du plan glottique. Nous proposons d'expliquer cette non spécificité des profils vocaux, par la grande variabilité qui existe au sein de chaque population.

7.4.1. Comment expliquer la grande variabilité des descripteurs de la qualité vocale ?

Conformément à nos hypothèses pour les populations SLA et MK, on retrouve dans les descripteurs capturant la qualité vocale, une grande diversité des profils dans les groupes pathologiques, mais aussi chez les contrôles.

Pour la population SLA, les hypothèses soulevées par différents auteurs de la littérature concernant cette hétérogénéité des profils vocaux, pointent du doigt la mixité des deux atteintes neurologiques, avec des profils qui seraient en lien avec une prédominance spastique ou flasque au niveau du plan glottique (Duffy, 2019; Strand et al., 1994). D'autres auteurs expliquent cette variabilité dans la SLA, par une probable fatigue, aboutissant à une instabilité des productions vocales en fonction du moment, d'une session d'enregistrement à l'autre par exemple, ou de la production d'un /a/ à l'autre (R. D. Kent et al., 1991; Silbergleit et al., 1997). Mais nos résultats nous amènent à remettre en question en partie ces hypothèses, dans la mesure où nos résultats montrent également une variabilité des données dans les autres pathologies, modèles purs de l'atteinte centrale versus périphérique, mais aussi dans la population des contrôles. L'hypothèse de Titze (Titze, 1991), rapportant que la composante neurologique est difficilement décelable au travers des mesures acoustiques de la voix, nous semble séduisante. En effet, Titze (Titze, 1991) a montré que les perturbations de la fréquence et de l'amplitude de la vibration laryngée, respectivement le jitter et le shimmer, dépendent d'un nombre important de facteurs rendant complexe l'identification spécifique de l'implication neurologique parmi tous ces facteurs. Ces facteurs sont entre autres la présence de mucosités sur les cordes vocales, le couplage acoustique et biomécanique entre la source (le plan glottique) et les résonateurs (l'étage sus-glottique), la turbulence du passage de l'air au travers de la glotte, l'asymétrie des mouvements entre les deux cordes vocales et même... l'impact des battements du cœur. Nous pensons que tous les

locuteurs, dysarthriques et non dysarthriques, sont soumis à ces fluctuations naturelles, expliquant probablement la variabilité importante des descripteurs de la qualité vocale, retrouvée dans toutes les populations.

Du fait de cette hétérogénéité des descripteurs de la qualité vocale au sein d'une même population, Kent (Kent et al., 1992) suggère, que, pour la population SLA, les conclusions tirées à partir de l'étude de groupes ne peuvent s'appliquer à tous les locuteurs. C'est donc vrai pour la population SLA, mais aussi pour les autres populations. Strand (Strand et al., 1994) préconise d'étudier chaque cas, et de faire le lien entre les données acoustiques et les descriptions perceptives individuellement, pour tenter de comprendre les mécanismes neuro-physio-pathologiques sous-jacents aux perturbations de la qualité vocale dans ces maladies du motoneurone.

7.4.2. Un shimmer bas : le marqueur diagnostique d'une adduction trop importante des cordes vocales ?

Néanmoins, un marqueur a permis de distinguer la population SLP de la population contrôle : le shimmer. Ce descripteur reflète l'instabilité de l'intensité dans la voix, autrement dit, il se rapporte aux perturbations de l'amplitude de la vibration laryngée ou de la f_0 . Dans cette population chez qui les mouvements sont contraints par de la spasticité, le shimmer est significativement plus bas que dans la population contrôle. Nous n'avons pas émis d'hypothèse concernant cette population, jamais étudiée auparavant. Cette baisse des variations de l'amplitude de la vibration laryngée pourrait donc s'expliquer par la spasticité, localisée au niveau du plan glottique. La spasticité se rapporte à la résistance musculaire et cette spasticité laryngée se traduit cliniquement par un « serrage vocal » ou un « serrage laryngé ». Parfois, l'impression perceptive d'un freinage de la phonation en lien avec une résistance glottique est telle, que l'on utilise en clinique le terme de voix « étranglée ». Ce terme a été notamment utilisé par Darley et son équipe (Darley et al., 1969a), justement pour décrire la qualité vocale dans la dysarthrie spastique.

Des auteurs ont soulevé l'hypothèse d'un lien probable entre tension vocale et valeurs basses du shimmer (Brockmann et al., 2009 ; Brockmann-Bauser, 2011 ; Laukkanen et al., 2008). Pour ces auteurs, une plus grande tension des cordes vocales assurerait plus de stabilité de la vibration laryngée. Par exemple, chez des locuteurs non dysarthriques, Brockmann a montré qu'en phonation à faible intensité, le shimmer est plus élevé. Il émet l'hypothèse que dans ce contexte, la tension des cordes vocales est faible. Ainsi, la vibration des muqueuses des cordes vocales serait plus erratique, induisant donc des valeurs de shimmer plus élevées. Dans une autre étude, Brockmann met en évidence un shimmer moins élevé le soir comparé au matin dans une population d'enseignants. Il suggère que la tension des cordes vocales augmente au cours de la journée, du fait de l'utilisation intensive de la voix, expliquant des valeurs plus basses du shimmer le soir que le matin, chez un même locuteur.

Dans la MK, bien que les mécanismes neuro-physiopathologiques sous-jacents soient encore inconnus, des spasmes laryngés ont souvent été rapportés (Finsterer & Soraru, 2016; Pradat et al., 2020; Sperfeld et al., 2005). De manière intéressante, Tanaka (Tanaka et al., 2014) a montré que les patients de cette population concernée par des spasmes laryngés, ont des valeurs de shimmer significativement plus basses, que les patients ne se plaignant pas de spasmes laryngés. Ces spasmes laryngés refléteraient un problème d'abduction des cordes vocales et donc de leur adduction importante qui pourrait expliquer ces valeurs basses du shimmer (Tomiyasu et al., 1996; Warnecke et al., 2009).

Pour conclure, les mécanismes neuro-physiopathologiques sous-jacents de la dysarthrie spastique dans la SLP et de la dysarthrie flasque dans la MK, sont très différents. Néanmoins, la spasticité, comme la perte de force d'ouverture des cordes vocales, entraînent probablement des perturbations de l'équilibre adduction/abduction des cordes vocales, que le shimmer semble pouvoir détecter. Ce descripteur, facile à recueillir en routine clinique, pourrait constituer un marqueur diagnostique de ces perturbations laryngées dans d'autres pathologies neurologiques, pour déceler par exemple les stridors dans l'atrophie multisystématisée ou encore la présence de mouvements anormaux dans les dystonies laryngées en adduction.

7.4.3. La variabilité de la hauteur de la voix dans la population MK : la piste endocrinienne à creuser ?

A notre connaissance, la hauteur de la voix dans la population MK n'a jamais été explorée. Nous n'avons pas émis d'hypothèse concernant ce descripteur dans cette population, bien que nous ayons remarqué dans notre pratique clinique une féminisation de la voix chez certains locuteurs. De manière intéressante, l'inspection visuelle de nos données montre une distribution bimodale des valeurs de la f_0 dans la population MK : 55,5 % des hommes (10 hommes/18) ont une f_0 plutôt basse (< 129 Hz) et 44,4 % des hommes (8 hommes/18) ont une f_0 plutôt élevée (> 147 Hz). Nous suggérons que cette différence de la fréquence fondamentale pourrait s'expliquer par les dérèglements hormonaux chez certains locuteurs, caractéristiques dans cette maladie (Pradat et al., 2020). Rappelons que la MK est causée par la répétition anormalement élevée d'une séquence CAG (cytosine-adénine-guanine) dans le gène appelé AR, localisé sur le chromosome X. Le gène AR porte les informations pour produire le récepteur aux androgènes (hormones masculines). Des troubles de l'action des hormones masculines, les hormones androgènes, sont fréquents dans cette population. L'atteinte hormonale est plus ou moins marquée selon les patients. Cliniquement, on peut l'observer notamment par une augmentation du volume de la glande mammaire (gynécomastie) chez certains patients. Si une f_0 aigue n'a jamais

spécifiquement été rapportée dans la MK, elle a en revanche été rapportée dans le syndrome d'insensibilité aux androgènes et une forme légère du syndrome d'insensibilité des récepteurs à la stimulation androgénique peut exister dans la MK (Galani et al., 2008). Perceptivement, nous avons observé cette féminisation de la voix chez certains patients de notre population MK. Malheureusement, les données manquantes concernant les bilans biologiques dosant les taux hormonaux dans le sang à la période des enregistrements de la voix de nos patients, ont constitué un frein dans notre investigation de la relation pouvant exister entre hauteur vocale et syndrome d'insensibilité aux androgènes. Ce descripteur, très simple à recueillir en routine clinique, pourrait compléter le screening des évaluations réalisées dans cette population rare. Il pourrait permettre d'expliquer cette féminisation de la voix chez certains patients de la population MK. Ce descripteur pourrait donc être un marqueur diagnostique, non pas de l'atteinte périphérique isolée, mais d'une perturbation endocrinienne, spécifiquement dans cette pathologie.

7.5 L'organisation du discours : l'élévation de la proportion de temps passé en pause, comme marqueur diagnostique d'une composante flasque dans la dysarthrie

Nous avons vu dans le chapitre précédent que la dimension vocale, en termes de qualité vocale et de hauteur de la voix, ne constituait pas un marqueur diagnostique pour distinguer les types de dysarthrie les uns des autres. Nous discutons à présent de la valeur diagnostique des descripteurs explorant l'organisation du discours. Dans cette thèse, nous avons nommé « organisation du discours », la manière dont le locuteur organise son flux de parole, au travers des durées des continuums de parole et des pauses.

Concernant la durée et la variabilité des continuums de parole et des pauses, nos résultats montrent que ces descripteurs contribuant à l'organisation du discours, ne mettent pas en évidence de différence entre nos populations. Autrement dit, la spasticité et/ou la faiblesse musculaire n'ont pas de conséquence sur ces descripteurs. Pourtant, dans la SLA, comme on l'a vu dans l'état de l'art, la littérature est partagée sur ces aspects. En fait, l'étude de Yunusova et ses collaborateurs (Yunusova et al., 2016) nous montre que c'est surtout l'atteinte respiratoire qui détermine la durée des continuums de parole et des pauses. Les mêmes observations ont d'ailleurs été faites chez des patients dysarthriques présentant d'autres types de dysarthrie, et ayant conjointement une atteinte respiratoire (Y.-T. Wang et al., 2005). Ces études montrent que les durées des continuums de parole et des pauses sont similaires entre des locuteurs dysarthriques et des contrôles, uniquement chez les locuteurs

dysarthriques ne présentant pas d'atteinte respiratoire. Dans la SLA spécifiquement, dès lors qu'une atteinte respiratoire est présente, avec ou sans atteinte bulbaire, la durée des continuums de parole est plus courte, et la durée des pauses plus longue. Nous suggérons donc que la durée et la variabilité des continuums de parole et des pauses, n'ont pas de valeur diagnostique pour différencier les types de dysarthrie. En revanche, ces descripteurs semblent être des marqueurs de la perturbation des capacités respiratoires des locuteurs. Ces descripteurs pourraient être intégrées systématiquement dans l'évaluation clinique de routine, à la recherche de marqueurs d'une atteinte respiratoire. Dans la SLA spécifiquement, les profils phénotypiques varient, avec la possibilité d'une concomitance ou non, des atteintes diaphragmatique et bulbaire. Les conséquences fonctionnelles sur la parole de ces deux atteintes sont différentes. L'atteinte diaphragmatique perturbe l'utilisation du souffle dans la parole. Dans notre pratique clinique, nous observons que les patients qui présentent une atteinte du diaphragme ont des reprises inspiratoires qui ont l'air plus fréquentes, des groupes de souffle qui semblent plus courts, une voix voilée par manque de pression sous-glottique, des fins de phrases inaudibles en lien avec une dégradation de l'intensité vocale...L'atteinte bulbaire quant à elle, perturbe la motricité des articulateurs, avec comme nous l'avons vu plus haut, des distorsions de l'articulation. Ces deux atteintes, indépendamment l'une de l'autre, entraînent irrémédiablement une perturbation de la fonction de la parole. Il se pourrait que les études explorant ces descripteurs dans la SLA ne distinguent pas forcément les patients ayant une atteinte bulbaire et respiratoire, expliquant les divergences de résultats entre les études. L'exploration de l'organisation du discours dans la SLA nécessite de constituer des groupes cliniques dans le design des études, comme dans l'étude de Yunusova (Yunusova et al., 2016). Dans cette thèse, l'atteinte respiratoire évaluée cliniquement, était un critère d'exclusion pour entrer dans l'étude. Il est donc logique que ces descripteurs ne se révèlent pas être des marqueurs diagnostiques distinguant les différentes maladies. En accord avec ces résultats, notre étude ne retrouve pas de différence non plus entre nos populations sur la mesure du TMP, descripteur par excellence de la coordination pneumo-phonatoire sur un /a/. Des études ont montré que dans la SLA, le TMP pouvait être similaire à celui des contrôles (J. F. Kent et al., 1992) mais pouvait aussi être inférieur à celui des contrôles (R. D. Kent et al., 1991; L. O. Ramig et al., 1990). Il est fort probable que ces divergences soient en lien avec la composante respiratoire. Nous suggérons donc, que dans les études de la parole dans la population SLA, il est primordial d'évaluer la capacité respiratoire. Cette capacité ne reflète pas l'atteinte bulbaire. Cependant, certaines études ont montré que le TMP a tendance à diminuer avec l'évolution de l'atteinte bulbaire dans la SLA. (J. F. Kent et al., 1992 ; R. D. Kent et al., 1991 ; L. A. Ramig et al., 1988). Nous proposons deux explications à cela :

- premièrement, la sévérité de la dysarthrie augmente avec l'évolution de l'atteinte bulbaire. A un stade sévère à très sévère de la dysarthrie, les différents sphincters de la parole, glottique et vélopharyngé, sont moins fonctionnels. Comme nous l'avons déjà mentionné à plusieurs reprises, la rhinolalie est très fréquente dans la SLA. Une déperdition d'air, probable au niveau

de ces deux sphincters, limite les capacités de coordination pneumo-phonatoire expliquant peut-être une diminution du TMP. Dans notre étude, les degrés de sévérité de la dysarthrie sévère et très sévère, faisaient partie des critères d'exclusion, expliquant peut-être aussi la préservation de bonnes capacités pneumo-phonatoires.

- Deuxièmement, l'apparition d'une atteinte diaphragmatique est inéluctable avec la progression de la maladie dans la SLA. Il se peut donc que le TMP diminue, avec la progression de l'atteinte bulbaire, reflétant l'installation d'une atteinte diaphragmatique, irrémédiable dans la progression de la maladie. Dans notre étude, les patients ont été recrutés en fonction du degré de sévérité de la dysarthrie, léger et modéré, assurant une certaine homogénéité dans nos populations, expliquant sans doute en partie le fait que ce descripteur soit similaire entre les populations.

Pour conclure, nous suggérons que la durée et la variabilité des continuums de parole et des pauses constituent surtout des indicateurs de la fonction respiratoire dans la parole, outre les mécanismes neuro-physio-pathologiques sous-jacents aux différents types de dysarthrie. Il nous semble important dans la SLA, de bien distinguer atteinte diaphragmatique et atteinte bulbaire.

Néanmoins, un descripteur permet de distinguer deux populations présentant une dysarthrie de la population des contrôles sur cette dimension de l'organisation du discours : il s'agit de la proportion du temps passé en pause sur la totalité du spontané. Cette proportion est plus importante dans les populations SLA et MK par rapport aux contrôles. Dans la SLA, la littérature (Green, 2010; Yunusova et al., 2016) a déjà montré que cette proportion est plus importante dans une tâche de lecture. Il est donc intéressant de retrouver les mêmes résultats dans une tâche de spontané. Les auteurs de ces études suggèrent que cette proportion importante du temps passé en pause s'explique par un nombre plus important des pauses chez ces locuteurs. Comme on l'a vu plus haut, la durée moyenne des pauses est similaire dans toutes les populations. Cette proportion plus élevée du temps passé en pause n'est donc pas en relation avec des pauses plus longues, mais parce que ces locuteurs font des pauses plus fréquemment, comme en lecture. La faiblesse musculaire, commune à ces deux populations, pourrait expliquer ces pauses plus fréquentes. Comme on l'a abordé plus haut, la faiblesse musculaire altère probablement la fermeture des deux sphincters, glottique et vélopharyngé. On suppose que la déperdition d'air engendrée par la mauvaise fermeture de ces différents sphincters, perturbe l'efficacité de la gestion du souffle dans la parole. Même en l'absence d'une atteinte de la respiration, ces patients ont sans doute besoin de reprendre de l'air plus souvent, expliquant alors ces pauses plus fréquentes. On suggère donc que ce descripteur est un marqueur possible de l'atteinte périphérique dans la parole dysarthrique de locuteurs présentant des maladies du motoneurone.

Pour compléter ces explorations de l'organisation du discours dans les dysarthries, d'autres descripteurs en lien avec les traits prosodiques spécifiques de la prosodie française, pourraient être explorés. En effet, le français est une langue à accent de groupe qui se définit entre autres par l'accent final démarcatif que porte la dernière syllabe d'un groupe de mots. Cet accent final se traduit par un

allongement et une variation du contour mélodique, montante ou descendante, de la dernière syllabe. Ces syllabes dites « accentuées » indiquent les frontières des unités prosodiques et contribuent à la structuration du discours. L'étude de la prosodie ouvre sans doute des pistes, pour mettre en évidence des marqueurs diagnostiques supplémentaires de l'atteinte périphérique versus centrale, expliquant les différents types de dysarthrie dans ces trois maladies du motoneurone.

7.6 Résumé des apports de la thèse

A notre connaissance, notre étude est la première à explorer le profil dysarthrique dans la maladie de Kennedy (MK) sur plusieurs dimensions de la parole. On observe que dans la population MK, le marqueur principal de la dysarthrie mis en évidence se reflète au travers de la dimension articuloire et de l'organisation du discours : nos résultats montrent une hypoarticulation chez les locuteurs de la population MK et un pourcentage de temps passé en pause dans la parole spontanée, plus important, par rapport aux contrôles. Les caractéristiques vocales ne sont pas différentes de celles des contrôles dans notre étude. Néanmoins, une partie de nos locuteurs présentent une f_0 aigue.

Le profil dysarthrique de la population MK se distingue clairement des autres profils dysarthriques : bien que présente, l'hypoarticulation est moins marquée par rapport aux populations SLA et SLP. Les aspects temporels de la parole sont préservés, là où les populations SLA et SLP sont ralenties dans toutes les tâches de parole. Curieusement, nos résultats montrent que le nombre de mots produits par continuum de parole dans le spontané n'est pas différent de celui de la population SLA, et qu'il est supérieur à celui de la population SLP, mais seulement de manière marginale. Cette mesure du nombre de mots par continuum reflète probablement des troubles cognitifs très discrets dans cette population, comme la littérature l'a mentionné (Di Rosa et al., 2015; Kasper et al., 2014).

C'est sans doute parce que les altérations de la parole sont moindres, que la sévérité globale de la dysarthrie est perçue comme légère dans cette population. De la même manière, les conséquences de la perte de force de la langue sur la parole sont minimales dans cette population, comme cela a déjà été montré dans une population de locuteurs présentant une dysarthrie flasque, en lien avec la dystrophie musculaire oculopharyngée (Neel et al., 2015). On constate d'ailleurs dans notre pratique clinique, qu'au contraire des deux autres populations, l'intelligibilité est peu, voire pas altérée dans cette population. On peut supposer que l'atteinte périphérique isolée a de moindres conséquences sur la parole que l'atteinte centrale, commune aux populations SLA et SLP.

La dysarthrie dans cette population MK n'a été guère explorée. Il n'est donc pas possible de confronter nos résultats à la littérature. Notre étude ouvre entre autres des perspectives quant au lien qui peut exister entre l'amyotrophie et la perte de la force linguale, prédominantes dans cette population, et la vitesse des mouvements articuloires dans la parole, visiblement préservée. De

futures études, comprenant un panel plus large d'explorations, notamment à l'aide de mesures aérodynamiques et cinétiques, sont nécessaires pour approfondir les pistes de recherche.

La dysarthrie dans la SLA a quant à elle déjà été bien explorée. Nos résultats confirment les données de la littérature et montrent que ces locuteurs présentent une hypoarticulation marquée, particulièrement sur les mouvements antéro-postérieurs de la langue, un ralentissement des gestes de la parole et un pourcentage du temps passé en pause, plus important que les contrôles.

Par ailleurs, nos résultats montrent que le profil dysarthrique dans la population SLA est relativement similaire au profil dysarthrique observé dans la population SLP. Nous supposons que c'est la composante spastique de la dysarthrie, en lien avec l'atteinte centrale commune à ces deux pathologies, qui explique les similitudes entre ces deux types de dysarthrie, mixte dans la SLA et spastique dans la SLP. En d'autres termes, nous supposons que dans la dysarthrie mixte de la SLA, la composante spastique prédomine.

Néanmoins, on note quelques spécificités, propres à la dysarthrie de la population SLA, qui pourraient contribuer au diagnostic différentiel entre ces deux populations : l'articulation dans cette population est particulièrement instable, et elle est plus vulnérable avec la complexité articuloire, que dans les autres populations. Autre spécificité, on note particulièrement au travers des DDK, que tous les articulateurs ne sont pas touchés uniformément de la même manière, confirmant les données de la littérature montrant que la langue est particulièrement altérée dans cette population.

Enfin, comme on vient de le voir, la dysarthrie spastique de la SLP, est globalement similaire à la dysarthrie mixte de la SLA. On conclut que la spasticité des gestes articuloires est à l'origine de l'hypoarticulation marquée et de la lenteur des gestes articuloires dans ces deux populations. Cependant, quelques spécificités dans ce profil ouvrent des pistes intéressantes pour poursuivre les explorations dans cette population SLP : l'articulation est plus stable, possiblement en lien avec des stratégies de compensation mises en place au fil de la progression de la maladie, lentement évolutive, à la différence de la SLA. Par ailleurs, plusieurs pistes nous font suspecter un rôle probable du trouble de la commande du geste articuloire dans cette population. Premièrement, la tendance vers l'uniformité dans les altérations du débit articuloire, indépendamment des articulateurs et du type des DDK (AMR versus SMR), oriente vers un modèle dans lequel prédomine un trouble des patrons des mouvements dans leur ensemble, plutôt que des troubles sélectifs. Deuxièmement, la prépondérance des imprécisions articuloires sur certains pseudo-mots s'éloignant du contexte de la parole naturelle, évoque la difficulté de l'apprentissage de nouveaux schémas moteurs, propre aux troubles de la commande de nouveaux gestes articuloires.

CONCLUSION GENERALE : Et alors ?

Cette thèse a permis d'identifier des marqueurs de parole pertinents, dépistant la présence des dysarthries, et discriminant les profils dysarthriques dans les trois principales maladies du motoneurone de l'adulte, la SLA, la SLP et la MK.

Le profil de la dysarthrie spastique dans la SLP, en lien avec une atteinte isolée des motoneurones centraux, se définit par un ralentissement uniforme du débit articulatoire, une altération importante de l'articulation, des valeurs basses du shimmer, et un pourcentage normal de temps passé en pause dans le spontané. Le profil de la dysarthrie flasque dans la MK, en lien avec une atteinte isolée des motoneurones périphériques, se définit, quant à lui, par une hypoarticulation moins marquée que dans les autres profils dysarthriques, des aspects temporels normaux, et un pourcentage de temps passé en pause élevé dans le spontané. Le profil de la dysarthrie mixte, spastique et flasque, dans la SLA, est très similaire à celui de la dysarthrie spastique, suggérant que les effets de l'atteinte centrale sur la parole sont prévalents dans la SLA. Néanmoins, certaines tendances et marqueurs discriminent les profils dysarthriques spastique de la SLP et mixte de la SLA. La stabilité articulatoire est particulièrement perturbée dans la SLA. Par ailleurs, alors que la précision articulatoire est fragilisée par la complexité articulatoire dans la SLA, elle semble plus sensible à la notion de structure syllabique dans la SLP, soulevant l'hypothèse d'un trouble plus marqué de la programmation/planification des gestes de la parole dans cette population.

Premièrement, ces marqueurs diagnostiques de parole pourraient contribuer au diagnostic précoce de SLA, permettant notamment l'inclusion des patients dans des essais thérapeutiques de neuroprotection. Le dépistage précoce de ces marqueurs serait particulièrement utile dans des formes de la maladie à début bulbaire pur, dans lesquelles il est difficile de faire la preuve de l'atteinte à la fois centrale et périphérique, avec des techniques électrophysiologiques souvent en défaut. Deuxièmement, ces marqueurs pourraient contribuer à éviter l'annonce d'un diagnostic de SLA à tort, chez des patients présentant en fait une SLP ou une MK, et contournant ainsi un diagnostic avec mise en jeu à court terme du pronostic vital, un traitement par riluzole, et éventuellement l'inclusion à tort dans un essai thérapeutique dédié aux patients présentant une SLA. Enfin, un protocole d'évaluation de la dysarthrie dédié à la recherche systématique des marqueurs diagnostiques identifiés dans cette thèse, pourrait être adapté en routine clinique. Ce protocole de routine pourrait non seulement contribuer au monitoring de la progression de la dysarthrie dans la SLA (Rong et al., 2019; Stegmann et al., 2023), mais également contribuer au diagnostic précoce de SLA, aux diagnostics différentiels, à l'orientation d'une prise en charge orthophonique spécifique, et enfin à monitorer l'atteinte bulbaire et pseudobulbaire au cours des essais thérapeutiques. D'un point de vue plus théorique, l'identification de ces marqueurs de parole soulève des questionnements quant à la part de la perturbation de l'organisation et de la planification des gestes articulatoires, conjointe à la spasticité, dans la dysarthrie spastique.

BIBLIOGRAPHIE

- Allison, K. M., Yunusova, Y., Campbell, T. F., Wang, J., Berry, J. D., & Green, J. R. (2017). The diagnostic utility of patient-report and speech-language pathologists' ratings for detecting the early onset of bulbar symptoms due to ALS. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 18(5-6), 358-366. <https://doi.org/10.1080/21678421.2017.1303515>
- Allison, K. M., Yunusova, Y., & Green, J. R. (2019). Shorter Sentence Length Maximizes Intelligibility and Speech Motor Performance in Persons With Dysarthria Due to Amyotrophic Lateral Sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 28(1), 96-107. https://doi.org/10.1044/2018_AJSLP-18-0049
- Atsuta, N., Watanabe, H., Ito, M., Banno, H., Suzuki, K., Katsuno, M., Tanaka, F., Tamakoshi, A., & Sobue, G. (2006). Natural history of spinal and bulbar muscular atrophy (SBMA): A study of 223 Japanese patients. *Brain: A Journal of Neurology*, 129(Pt 6), 1446-1455. <https://doi.org/10.1093/brain/awl096>
- Auzou, P., Ozsancak, C., Jan, M., Léonardon, S., Ménard, J. F., Gaillard, M. J., Eustache, F., & Hannequin, D. (1998). [Clinical assessment of dysarthria: Presentation and validation of a method]. *Revue Neurologique*, 154(6-7), 523-530.
- Auzou, P., & Rolland-Monnoury, V. (2006). BECD: Batterie d'évaluation clinique de la dysarthrie.
- Ballard, K. J., Robin, D. A., & Folkins, J. W. (2003). An integrative model of speech motor control: A response to Ziegler. *Aphasiology*, 17(1), 37-48. <https://doi.org/10.1080/729254889>
- Banno, H., Katsuno, M., Suzuki, K., Tanaka, S., Suga, N., Hashizume, A., Mano, T., Araki, A., Watanabe, H., Fujimoto, Y., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2017). Swallowing markers in spinal and bulbar muscular atrophy. *Annals of Clinical and Translational Neurology*, 4(8), 534-543. <https://doi.org/10.1002/acn3.425>
- Barnett, C., Green, J. R., Marzouqah, R., Stipancic, K. L., Berry, J. D., Korngut, L., Genge, A., Shoesmith, C., Briemberg, H., Abrahao, A., Kalra, S., Zinman, L., & Yunusova, Y. (2020). Reliability and validity of speech & pause measures during passage reading in ALS. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 21(1-2), 42-50. <https://doi.org/10.1080/21678421.2019.1697888>
- Bates, D., Mächler, M., Bolker, B., & Walker, S. (2015). Fitting Linear Mixed-Effects Models Using lme4. *Journal of Statistical Software*, 67, 1-48. <https://doi.org/10.18637/jss.v067.i01>
- Becker, A., Hardmeier, M., Steck, A. J., & Czaplinski, A. (2007). Primary lateral sclerosis presenting with isolated progressive pseudobulbar syndrome. *European Journal of Neurology*, 14(8), e3-e3. <https://doi.org/10.1111/j.1468-1331.2007.01699.x>

- Bede, P., & Finegan, E. (2018). Revisiting the pathoanatomy of pseudobulbar affect : Mechanisms beyond corticobulbar dysfunction. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 19(1-2), 4-6. <https://doi.org/10.1080/21678421.2017.1392578>
- Bede, P., & Pradat, P.-F. (2019). Editorial : Biomarkers and Clinical Indicators in Motor Neuron Disease. *Frontiers in Neurology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.01318>
- Beukelman, D., Fager, S., & Nordness, A. (2011). Communication Support for People with ALS. *Neurology Research International*, 2011, 714693. <https://doi.org/10.1155/2011/714693>
- Boersma, Paul & Weenink, David (2023). Praat: doing phonetics by computer [Computer program]. Version 6.3.14, retrieved 4 August 2023 from <http://www.praat.org/>
- Bohland, J. W., Bullock, D., & Guenther, F. H. (2010). Neural representations and mechanisms for the performance of simple speech sequences. *Journal of Cognitive Neuroscience*, 22(7), 1504-1529. <https://doi.org/10.1162/jocn.2009.21306>
- Brooks, B. R. (1994). El Escorial World Federation of Neurology criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. Subcommittee on Motor Neuron Diseases/Amyotrophic Lateral Sclerosis of the World Federation of Neurology Research Group on Neuromuscular Diseases and the El Escorial « Clinical limits of amyotrophic lateral sclerosis » workshop contributors. *Journal of the Neurological Sciences*, 124 Suppl, 96-107. [https://doi.org/10.1016/0022-510x\(94\)90191-0](https://doi.org/10.1016/0022-510x(94)90191-0)
- Brooks, B. R., Crumacker, D., Fellus, J., Kantor, D., & Kaye, R. E. (2013). PRISM: A Novel Research Tool to Assess the Prevalence of Pseudobulbar Affect Symptoms across Neurological Conditions. *PLoS ONE*, 8(8), e72232. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0072232>
- Brooks, B. R., Miller, R. G., Swash, M., Munsat, T. L., & World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases. (2000). El Escorial revisited : Revised criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Other Motor Neuron Disorders: Official Publication of the World Federation of Neurology, Research Group on Motor Neuron Diseases*, 1(5), 293-299.
- Bunton, K. (2008). Speech versus Nonspeech : Different Tasks, Different Neural Organization. *Seminars in Speech and Language*, 29(04), 267-275. <https://doi.org/10.1055/s-0028-1103390>
- Bunton, K., Kent, R. D., Kent, J. F., & Rosenbek, J. C. (2000). Perceptuo-acoustic assessment of prosodic impairment in dysarthria. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 14(1), 13-24. <https://doi.org/10.1080/026992000298922>
- Caruso, A. J., & Burton, E. K. (1987). Temporal Acoustic Measures of Dysarthria Associated with Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 30(1), 80-87. <https://doi.org/10.1044/jshr.3001.80>
- Cedarbaum, J. M., Stambler, N., Malta, E., Fuller, C., Hilt, D., Thurmond, B., & Nakanishi, A. (1999). The ALSFRS-R : A revised ALS functional rating scale that incorporates assessments of

- respiratory function. BDNF ALS Study Group (Phase III). *Journal of the Neurological Sciences*, 169(1-2), 13-21.
- Chahin, N., Klein, C., Mandrekar, J., & Sorenson, E. (2008). Natural history of spinal-bulbar muscular atrophy. *Neurology*, 70(21), 1967-1971. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000312510.49768.eb>
- Charcot, J.-M., & Joffroy, A. (1869). Deux cas d'atrophie musculaire progressive : Avec lésions de la substance grise et des faisceaux antéro-latéraux de la moelle épinière. V. Masson.
- Chio, A., Logroscino, G., Hardiman, O., Swingler, R., Mitchell, D., Beghi, E., & Traynor, B. G. (2009). Prognostic factors in ALS : A critical review. *Amyotrophic lateral sclerosis : official publication of the World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases*, 10(5-6), 310-323. <https://doi.org/10.3109/17482960802566824>
- Clark, H. M., Duffy, J. R., Strand, E. A., Hanley, H., & Solomon, N. P. (2022). Orofacial Muscle Strength across the Dysarthrias. *Brain Sciences*, 12(3), 365. <https://doi.org/10.3390/brainsci12030365>
- Clark, H. M., Duffy, J. R., Whitwell, J. L., Ahlskog, J. E., Sorenson, E. J., & Josephs, K. A. (2014). Clinical and imaging characterization of progressive spastic dysarthria. *European Journal of Neurology*, 21(3), 368-376. <https://doi.org/10.1111/ene.12271>
- Couratier, P., Corcia, P., Lautrette, G., Nicol, M., Preux, P.-M., & Marin, B. (2016). [Epidemiology of amyotrophic lateral sclerosis]. *La Revue Du Praticien*, 66(5), 556-558.
- Daria, D., Pernon, M., Fougeron, C., & Laganaro, M. (2019, mai 14). Coarticulation anticipatoire dans différents Troubles Moteurs de la Parole. *Hyper Article en Ligne - Sciences de l'Homme et de la Société*.
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1969a). Clusters of deviant speech dimensions in the dysarthrias. *Journal of speech and hearing research*, 12(3), 462-496.
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1969b). Differential Diagnostic Patterns of Dysarthria. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 12(2), 246-269. <https://doi.org/10.1044/jshr.1202.246>
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1975). *Motor Speech Disorders*. Saunders.
- DePaul, R., Abbs, J. H., Caligiuri, M., Gracco, V. L., & Brooks, B. R. (1988). Hypoglossal, trigeminal, and facial motoneuron involvement in amyotrophic lateral sclerosis. *Neurology*, 38(2), 281-283. <https://doi.org/10.1212/wnl.38.2.281>
- DePaul Roxanne & Brooks Benjamin R. (1993). Multiple Orofacial Indices in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 36(6), 1158-1167. <https://doi.org/10.1044/jshr.3606.1158>
- Di Rosa, E., Sorarù, G., Kleinbub, J. R., Calvo, V., Vallesi, A., Querin, G., Marcato, S., Grasso, I., & Palmieri, A. (2015). Theory of mind, empathy and neuropsychological functioning in X-linked Spinal and Bulbar Muscular Atrophy : A controlled study of 20 patients. *Journal of Neurology*, 262(2), 394-401. <https://doi.org/10.1007/s00415-014-7567-5>

- Dictionnaire Le Petit Robert. (en ligne). App Store. Consulté 4 octobre 2022, à l'adresse <https://apps.apple.com/fr/app/dictionnaire-le-petit-robert/id458626631>
- Duffy, J. R. (2013). *Motor Speech Disorders - E-Book : Substrates, Differential Diagnosis, and Management*. Elsevier Health Sciences.
- Duffy, J. R. (2019). *Motor speech disorders e-book: Substrates, differential diagnosis, and management*. Elsevier Health Sciences.
- Dworkin, J. P., & Aronson, A. E. (1986). Tongue strength and alternate motion rates in normal and dysarthric subjects. *Journal of Communication Disorders*, 19(2), 115-132. [https://doi.org/10.1016/0021-9924\(86\)90015-8](https://doi.org/10.1016/0021-9924(86)90015-8)
- Eshghi, M., Stipancic, K. L., Mefferd, A., Rong, P., Berry, J. D., Yunusova, Y., & Green, J. R. (2019). Assessing Oromotor Capacity in ALS: The Effect of a Fixed-Target Task on Lip Biomechanics. *Frontiers in Neurology*, 10, 1288. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.01288>
- Finegan, E., Chipika, R. H., Li Hi Shing, S., Hardiman, O., & Bede, P. (2019). Pathological Crying and Laughing in Motor Neuron Disease : Pathobiology, Screening, Intervention. *Frontiers in Neurology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.00260>
- Finegan, E., Chipika, R. H., Shing, S. L. H., Hardiman, O., & Bede, P. (2019). Primary lateral sclerosis : A distinct entity or part of the ALS spectrum? *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 20(3-4), 133-145. <https://doi.org/10.1080/21678421.2018.1550518>
- Finsterer, J., & Grisold, W. (2015). Disorders of the lower cranial nerves. *Journal of Neurosciences in Rural Practice*, 6(03), 377-391. <https://doi.org/10.4103/0976-3147.158768>
- Finsterer, J., & Soraru, G. (2016). Onset Manifestations of Spinal and Bulbar Muscular Atrophy (Kennedy's Disease). *Journal of Molecular Neuroscience: MN*, 58(3), 321-329. <https://doi.org/10.1007/s12031-015-0663-x>
- Fougeron, C., Delvaux, V., Ménard, L., & Laganaro, M. (2018, mai). The MonPaGe_HA Database for the Documentation of Spoken French Throughout Adulthood. *Proceedings of the Eleventh International Conference on Language Resources and Evaluation (LREC 2018)*. LREC 2018, Miyazaki, Japan. <https://aclanthology.org/L18-1679>
- Fougeron, C., Delvaux, V., Pernon, M., Lévêque, N., Borel, S., Pellet, P., Bagou, O., Trouville, R., Ménard, L., Catalano, S., Lopez, U., Kocjancic Antolik, T., & Laganaro, M. (2016). MonPaGe : Un protocole informatisé d'évaluation de la parole pathologique en langue française. *Actes des 16e Rencontres Internationales d'Orthophonie*, Paris, France. <https://hal.archives-ouvertes.fr/hal-02393932>
- Fougeron, C., Kodrasi, I., & Laganaro, M. (2022). Differentiation of Motor Speech Disorders through the Seven Deviance Scores from MonPaGe-2.0.s. *Brain Sciences*, 12(11), 1471. <https://doi.org/10.3390/brainsci12111471>

- Fournier, C. N., Murphy, A., Loci, L., Mitsumoto, H., Lomen-Hoerth, C., Kisanuki, Y., Simmons, Z., Maragakis, N. J., McVey, A. L., Al-Lahham, T., Heiman-Patterson, T. D., Andrews, J., McDonnell, E., Cudkowicz, M., & Atassi, N. (2016). Primary Lateral Sclerosis and Early Upper Motor Neuron Disease : Characteristics of a Cross-Sectional Population. *Journal of Clinical Neuromuscular Disease*, 17(3), 99-105. <https://doi.org/10.1097/CND.000000000000102>
- Frazier, L., Carlson, K., & Clifton Jr., C. (2006). Prosodic phrasing is central to language comprehension. *Trends in Cognitive Sciences*, 10, 244-249. <https://doi.org/10.1016/j.tics.2006.04.002>
- G. Thoonen B. Maassen F. Gabreels R. (1999). Validity of maximum performance tasks to diagnose motor speech disorders in children. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 13(1), 1-23. <https://doi.org/10.1080/026992099299211>
- Galani, A., Kitsiou-Tzeli, S., Sofokleous, C., Kanavakis, E., & Kalpini-Mavrou, A. (2008). Androgen insensitivity syndrome : Clinical features and molecular defects. *HORMONES*, 7(3), 217-229. <https://doi.org/10.14310/horm.2002.1201>
- Goldstein, L. (2019). The Role of Temporal Modulation in Sensorimotor Interaction. *Frontiers in Psychology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.02608>
- Gordon, P. H., Cheng, B., Katz, I. B., Pinto, M., Hays, A. P., Mitsumoto, H., & Rowland, L. P. (2006). The natural history of primary lateral sclerosis. *Neurology*, 66(5), 647-653. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000200962.94777.71>
- Green, J. R. (2010). Algorithmic Estimation of Pauses in Extended Speech Samples of Dysarthric and Typical Speech. 9.
- Green, J. R., Yunusova, Y., Kuruvilla, M. S., Wang, J., Pattee, G. L., Synhorst, L., Zinman, L., & Berry, J. D. (2013). Bulbar and speech motor assessment in ALS : Challenges and future directions. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 14(7-8), 494-500. <https://doi.org/10.3109/21678421.2013.817585>
- Guenther, F. H. (1995). Speech sound acquisition, coarticulation, and rate effects in a neural network model of speech production. *Psychological Review*, 102(3), 594-621. <https://doi.org/10.1037/0033-295x.102.3.594>
- Guenther, F. H., Ghosh, S. S., & Tourville, J. A. (2006). Neural modeling and imaging of the cortical interactions underlying syllable production. *Brain and Language*, 96(3), 280-301. <https://doi.org/10.1016/j.bandl.2005.06.001>
- Hammarberg, B., Fritzell, B., & Schiratzki, H. (1984). Teflon injection in 16 patients with paralytic dysphonia : Perceptual and acoustic evaluations. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 49(1), 72-82. <https://doi.org/10.1044/jshd.4901.72>

- Hammen, V. L., Yorkston, K. M., & Minifie, F. D. (1994). Effects of temporal alterations on speech intelligibility in parkinsonian dysarthria. *Journal of Speech and Hearing Research*, 37(2), 244-253. <https://doi.org/10.1044/jshr.3702.244>
- Hardcastle, W. J. (1985). Some phonetic and syntactic constraints on lingual coarticulation during /kl/ sequences. *Speech Communication*, 4(1-3), 247-263. [https://doi.org/10.1016/0167-6393\(85\)90051-2](https://doi.org/10.1016/0167-6393(85)90051-2)
- Hirano, M., Koike, Y., & Von Leden, H. (1968). Maximum phonation time and air usage during phonation. Clinical study. *Folia Phoniatica*, 20(4), 185-201. <https://doi.org/10.1159/000263198>
- Hirose, H., Kiritani, S., & Sawashima, M. (1982). Patterns of Dysarthric Movement in Patients with Amyotrophic Lateral Sclerosis and Pseudobulbar Palsy. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 34(2), 106-112. <https://doi.org/10.1159/000265636>
- Hothorn, T., Bretz, F., & Westfall, P. (2008). Simultaneous inference in general parametric models. *Biometrical Journal. Biometrische Zeitschrift*, 50(3), 346-363. <https://doi.org/10.1002/bimj.200810425>
- Ince, P. G., Lowe, J., & Shaw, P. J. (1998). Amyotrophic lateral sclerosis: Current issues in classification, pathogenesis and molecular pathology. *Neuropathology and Applied Neurobiology*, 24(2), 104-117. <https://doi.org/10.1046/j.1365-2990.1998.00108.x>
- Kasper, E., Wegrzyn, M., Marx, I., Korp, C., Kress, W., Benecke, R., Teipel, S. J., & Prudlo, J. (2014). Minor cognitive disturbances in X-linked spinal and bulbar muscular atrophy, Kennedy's disease. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 15(1-2), 15-20. <https://doi.org/10.3109/21678421.2013.837927>
- Kearney, E., & Guenther, F. H. (2019). Articulating : The Neural Mechanisms of Speech Production. *Language, cognition and neuroscience*, 34(9), 1214-1229. <https://doi.org/10.1080/23273798.2019.1589541>
- Kennedy, W. R., Alter, M., & Sung, J. H. (1968). Progressive proximal spinal and bulbar muscular atrophy of late onset. A sex-linked recessive trait. *Neurology*, 18(7), 671-680.
- Kent, J. F., Kent, R. D., Rosenbek, J. C., Weismer, G., Martin, R., Sufit, R., & Brooks, B. R. (1992). Quantitative description of the dysarthria in women with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech and Hearing Research*, 35(4), 723-733. <https://doi.org/10.1044/jshr.3504.723>
- Kent, R. D. (2015). Nonspeech Oral Movements and Oral Motor Disorders : A Narrative Review. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 24(4), 763-789. https://doi.org/10.1044/2015_AJSLP-14-0179
- Kent, R. D., & Kent, J. F. (2000). Task-based profiles of the dysarthrias. *Folia Phoniatica et Logopaedica: Official Organ of the International Association of Logopedics and Phoniatrics (IALP)*, 52(1-3), 48-53. <https://doi.org/10.1159/000021512>

- Kent, R. D., Kent, J. F., & Rosenbek, J. C. (1987). Maximum Performance Tests of Speech Production. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 52(4), 367-387. <https://doi.org/10.1044/jshd.5204.367>
- Kent, R. D., Sufit, R. L., Rosenbek, J. C., Kent, J. F., Weismer, G., Martin, R. E., & Brooks, B. R. (1991). Speech deterioration in amyotrophic lateral sclerosis : A case study. *Journal of Speech and Hearing Research*, 34(6), 1269-1275. <https://doi.org/10.1044/jshr.3406.1269>
- Kent Raymond D., Kent Jane F., Weismer Gary, Sufit Robert L., Rosenbek John C., Martin Ruth E., & Brooks Benjamin R. (1990). Impairment of Speech Intelligibility in Men with Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 55(4), 721-728. <https://doi.org/10.1044/jshd.5504.721>
- Konietschke, F., Placzek, M., Schaarschmidt, F., & Hothorn, L. A. (2015). nparcomp : An R Software Package for Nonparametric Multiple Comparisons and Simultaneous Confidence Intervals. *Journal of Statistical Software*, 64(9), 1-17. <https://doi.org/10.18637/jss.v064.i09>
- Koo, T. K., & Li, M. Y. (2016). A Guideline of Selecting and Reporting Intraclass Correlation Coefficients for Reliability Research. *Journal of Chiropractic Medicine*, 15(2), 155-163. <https://doi.org/10.1016/j.jcm.2016.02.012>
- Kuruvilla, M. S., Green, J. R., Ayaz, H., & Murman, D. L. (2013). Neural correlates of cognitive decline in ALS: An fNIRS study of the prefrontal cortex. *Cognitive neuroscience*, 4(2), 115-121. <https://doi.org/10.1080/17588928.2013.797889>
- Kuruvilla, M. S., Green, J. R., Yunusova, Y., & Hanford, K. (2012). Spatiotemporal coupling of the tongue in amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 55(6), 1897-1909. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2012/11-0259\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2012/11-0259))
- Kuruvilla-Dugdale, M., & Chuquilin-Arista, M. (2017). An investigation of clear speech effects on articulatory kinematics in talkers with ALS. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 31(10), 725-742. <https://doi.org/10.1080/02699206.2017.1318173>
- Kuruvilla-Dugdale, M., Custer, C., Heidrick, L., Barohn, R., & Govindarajan, R. (2018). A Phonetic Complexity-Based Approach for Intelligibility and Articulatory Precision Testing: A Preliminary Study on Talkers With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 61(9), 2205-2214. https://doi.org/10.1044/2018_JSLHR-S-17-0462
- Kuruvilla-Dugdale, M., & Mefferd, A. (2017). Spatiotemporal movement variability in ALS: Speaking rate effects on tongue, lower lip, and jaw motor control. *Journal of Communication Disorders*, 67, 22-34. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2017.05.002>
- Kuznetsova, A., Brockhoff, P. B., & Christensen, R. H. B. (2017). lmerTest Package : Tests in Linear Mixed Effects Models. *Journal of Statistical Software*, 82, 1-26. <https://doi.org/10.18637/jss.v082.i13>

- Laganaro, M., Fougeron, C., Pernon, M., Levêque, N., Borel, S., Fournet, M., Catalano Chiuvé, S., Lopez, U., Trouville, R., Ménard, L., Burkhard, P. R., Assal, F., & Delvaux, V. (2021). Sensitivity and specificity of an acoustic- and perceptual-based tool for assessing motor speech disorders in French: The MonPaGe-screening protocol. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 1-16. <https://doi.org/10.1080/02699206.2020.1865460>
- Lancheros, M., Friedrichs, D., & Laganaro, M. (2023). What Do Differences between Alternating and Sequential Diadochokinetic Tasks Tell Us about the Development of Oromotor Skills? An Insight from Childhood to Adulthood. *Brain Sciences*, 13(4), 655. <https://doi.org/10.3390/brainsci13040655>
- Lancheros, M., Pernon, M., & Laganaro, M. (2022). Is there a continuum between speech and other oromotor tasks? Evidence from motor speech disorders. *Aphasiology*, 0(0), 1-20. <https://doi.org/10.1080/02687038.2022.2038367>
- Langmore Susan E. & Lehman Mark E. (1994). Physiologic Deficits in the Orofacial System Underlying Dysarthria in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 37(1), 28-37. <https://doi.org/10.1044/jshr.3701.28>
- Larsen, K., & Smith, T. A. (2005). ["Jaw drop" as an atypical manifestation of Kennedy's disease]. *Ugeskrift for Laeger*, 167(35), 3310-3311.
- Le Forestier, N. (2001). Does primary lateral sclerosis exist? : A study of 20 patients and a review of the literature. *Brain*, 124(10), 1989-1999. <https://doi.org/10.1093/brain/124.10.1989>
- Lee, E., Xing, F., Ahn, S., Reese, T. G., Wang, R., Green, J. R., Atassi, N., Wedeen, V. J., El Fakhri, G., & Woo, J. (2018). Magnetic resonance imaging based anatomical assessment of tongue impairment due to amyotrophic lateral sclerosis: A preliminary study. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 143(4), EL248-EL254. <https://doi.org/10.1121/1.5030134>
- Lee, J., & Bell, M. (2018). Articulatory Range of Movement in Individuals With Dysarthria Secondary to Amyotrophic Lateral Sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 1. https://doi.org/10.1044/2018_AJSLP-17-0064
- Lee, J., Bell, M., & Simmons, Z. (2018). Articulatory Kinematic Characteristics Across the Dysarthria Severity Spectrum in Individuals With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 27(1), 258-269. https://doi.org/10.1044/2017_AJSLP-16-0230
- Lee, J., Littlejohn, M. A., & Simmons, Z. (2017). Acoustic and tongue kinematic vowel space in speakers with and without dysarthria. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 19(2), 195-204. <https://doi.org/10.1080/17549507.2016.1193899>
- Lee, J., Rodriguez, E., & Mefferd, A. (2020). Direction-Specific Jaw Dysfunction and Its Impact on Tongue Movement in Individuals With Dysarthria Secondary to Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 63(2), 499-508. https://doi.org/10.1044/2019_JSLHR-19-00174

- Lee, J.-H., Shin, J.-H., Park, K.-P., Kim, I.-J., Kim, C.-M., Lim, J.-G., Choi, Y.-C., & Kim, D.-S. (2005). Phenotypic variability in Kennedy's disease: Implication of the early diagnostic features. *Acta Neurologica Scandinavica*, 112(1), 57-63. <https://doi.org/10.1111/j.1600-0404.2005.00428.x>
- Lenth, R. (2020). emmeans: Estimated marginal means, aka leastsquares means. R package version 1.5.1. <https://CRAN.Rproject.org/package=emmeans>
- Lévêque, N., Slis, A., Lancia, L., Bruneteau, G., & Fougeron, C. (2022). Acoustic Change Over Time in Spastic and/or Flaccid Dysarthria in Motor Neuron Diseases. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 1-17. https://doi.org/10.1044/2022_JSLHR-21-00434
- Logroscino, G., Traynor, B. J., Hardiman, O., Chio', A., Couratier, P., Mitchell, J. D., Swingler, R. J., Beghi, E., & EURALS. (2008). Descriptive epidemiology of amyotrophic lateral sclerosis: New evidence and unsolved issues. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 79(1), 6-11. <https://doi.org/10.1136/jnnp.2006.104828>
- Londral, A., Pinto, A., Pinto, S., Azevedo, L., & De Carvalho, M. (2015). Quality of life in amyotrophic lateral sclerosis patients and caregivers: Impact of assistive communication from early stages: Communication and QoL in ALS. *Muscle & Nerve*, 52(6), 933-941. <https://doi.org/10.1002/mus.24659>
- Lowit, A., Marchetti, A., Corson, S., & Kuschmann, A. (2018). Rhythmic performance in hypokinetic dysarthria: Relationship between reading, spontaneous speech and diadochokinetic tasks. *Journal of Communication Disorders*, 72, 26-39. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2018.02.005>
- Maas, E. (2018). Speech and nonspeech: What are we talking about? 24.
- Mano, T., Katsuno, M., Banno, H., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Araki, A., Hijikata, Y., Tanaka, S., Takatsu, J., Watanabe, H., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2015). Head Lift Exercise Improves Swallowing Dysfunction in Spinal and Bulbar Muscular Atrophy. *European Neurology*, 74(5-6), 251-258. <https://doi.org/10.1159/000431088>
- Mano, T., Katsuno, M., Banno, H., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Araki, A., Watanabe, H., Tanaka, S., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2014). Tongue pressure as a novel biomarker of spinal and bulbar muscular atrophy. *Neurology*, 82(3), 255-262. <https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000000041>
- Mariotti, C., Castellotti, B., Pareyson, D., Testa, D., Eoli, M., Antozzi, C., Silani, V., Marconi, R., Tezzon, F., Siciliano, G., Marchini, C., Gellera, C., & Di Donato, S. (2000). Phenotypic manifestations associated with CAG-repeat expansion in the androgen receptor gene in male patients and heterozygous females: A clinical and molecular study of 30 families. *Neuromuscular Disorders*, 10(6), 391-397. [https://doi.org/10.1016/S0960-8966\(99\)00132-7](https://doi.org/10.1016/S0960-8966(99)00132-7)

- Mayka, M.A., Corcos D.M., Leurgans, S.E., Vaillancourt D.E. (2006). Three-dimensional locations and boundaries of motor and premotor cortices as defined by functional brain imaging : a meta-analyse. *Neuroimage*, 15; 31 (4) : 1453-1474. <https://doi.org/10.1016/j.neuroimage.2006.02.004>
- McHenry, M. A. (2003). The effect of pacing strategies on the variability of speech movement sequences in dysarthria. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 46(3), 702-710. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2003/055\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2003/055))
- McKenna, M. C., Corcia, P., Couratier, P., Siah, W. F., Pradat, P.-F., & Bede, P. (2021). Frontotemporal Pathology in Motor Neuron Disease Phenotypes: Insights From Neuroimaging. *Frontiers in Neurology*, 12, 723450. <https://doi.org/10.3389/fneur.2021.723450>
- Mefferd, A. (2015). Articulatory-to-Acoustic Relations in Talkers With Dysarthria : A First Analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 58(3), 576-589. https://doi.org/10.1044/2015_JSLHR-S-14-0188
- Mefferd, A. S., & Dietrich, M. S. (2020). Tongue- and Jaw-Specific Articulatory Changes and Their Acoustic Consequences in Talkers With Dysarthria due to Amyotrophic Lateral Sclerosis : Effects of Loud, Clear, and Slow Speech. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 1-12. https://doi.org/10.1044/2020_JSLHR-19-00309
- Mefferd, A. S., Green, J. R., & Pattee, G. (2012). A novel fixed-target task to determine articulatory speed constraints in persons with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Communication Disorders*, 45(1), 35-45. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2011.09.002>
- Mefferd, A. S., Pattee, G. L., & Green, J. R. (2014). Speaking rate effects on articulatory pattern consistency in talkers with mild ALS. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 28(11), 799-811. <https://doi.org/10.3109/02699206.2014.908239>
- Miller, H. E., & Guenther, F. H. (2021). Modelling speech motor programming and apraxia of speech in the DIVA/GODIVA neurocomputational framework. *Aphasiology*, 35(4), 424-441. <https://doi.org/10.1080/02687038.2020.1765307>
- Mitchell, H. L., Hoit, J. D., & Watson, P. J. (1996). Cognitive-linguistic demands and speech breathing. *Journal of Speech and Hearing Research*, 39(1), 93-104. <https://doi.org/10.1044/jshr.3901.93>
- Miyata, M., Kakeda, S., Hashimoto, T., Korogi, Y., & Adachi, H. (2019). The facial nerve atrophy with spinal and bulbar muscular atrophy patients (SBMA) : Three case reports with 3D fast imaging employing steady-state acquisition (FIESTA). *Journal of the Neurological Sciences*, 406, 116461. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2019.116461>
- Munhall, K. G. (2001). Functional imaging during speech production. *Acta Psychologica*, 107(1-3), 95-117. [https://doi.org/10.1016/S0001-6918\(01\)00026-9](https://doi.org/10.1016/S0001-6918(01)00026-9)

- Murray, E., McCabe, P., Heard, R., & Ballard, K. J. (2015). Differential Diagnosis of Children with Suspected Childhood Apraxia of Speech. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 58(1), 43-60. https://doi.org/10.1044/2014_JSLHR-S-12-0358
- Murry, T. (1978). Speaking Fundamental Frequency Characteristics Associated with Voice Pathologies. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 43(3), 374-379. <https://doi.org/10.1044/jshd.4303.374>
- Neel, A. T., & Palmer, P. M. (2012). Is Tongue Strength an Important Influence on Rate of Articulation in Diadochokinetic and Reading Tasks? *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 55(1), 235-246. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2011/10-0258\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2011/10-0258))
- Neel, A. T., Palmer, P. M., Sprouls, G., & Morrison, L. (2015). Muscle Weakness and Speech in Oculopharyngeal Muscular Dystrophy. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 58(1), 1-12. https://doi.org/10.1044/2014_JSLHR-S-13-0172
- Nevler, N., Ash, S., McMillan, C., Elman, L., McCluskey, L., Irwin, D. J., Cho, S., Liberman, M., & Grossman, M. (2020). Automated Analysis of Natural Speech in Amyotrophic Lateral Sclerosis Spectrum Disorders. *Neurology*. <https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000010366>
- New, B., Pallier, C., Brysbaert, M., & Ferrand, L. (2004). Lexique 2 : A new French lexical database. *Behavior Research Methods, Instruments, & Computers*, 36(3), 516-524. <https://doi.org/10.3758/BF03195598>
- Nishio, M., & Niimi, S. (2006). Comparison of Speaking Rate, Articulation Rate and Alternating Motion Rate in Dysarthric Speakers. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 58(2), 114-131. <https://doi.org/10.1159/000089612>
- on behalf of the French Kennedy's Disease Writing Group, Pradat, P.-F., Bernard, E., Corcia, P., Couratier, P., Jublanc, C., Querin, G., Morélot Panzini, C., Salachas, F., Vial, C., Wahbi, K., Bede, P., & Desnuelle, C. (2020). The French national protocol for Kennedy's disease (SBMA) : Consensus diagnostic and management recommendations. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 15(1). <https://doi.org/10.1186/s13023-020-01366-z>
- Parboosingh, J. S., Figlewicz, D. A., Krizus, A., Meininger, V., Azad, N. A., Newman, D. S., & Rouleau, G. A. (1997). Spinobulbar muscular atrophy can mimic ALS : The importance of genetic testing in male patients with atypical ALS. *Neurology*, 49(2), 568-572. <https://doi.org/10.1212/WNL.49.2.568>
- Patel, R., & Campellone, P. (2009). Acoustic and Perceptual Cues to Contrastive Stress in Dysarthria. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 52(1), 206-222. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2008/07-0078\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2008/07-0078))
- Pedroso, J. L., Vale, T. C., Barsottini, O. G., Oliveira, A. S. B., & Espay, A. J. (2018). Perioral and tongue fasciculations in Kennedy's disease. *Neurological Sciences: Official Journal of the Italian Neurological Society and of the Italian Society of Clinical Neurophysiology*, 39(4), 777-779. <https://doi.org/10.1007/s10072-017-3170-8>

- Pernon, M., Lévêque, N., Delvaux, V., Assal, F., Borel, S., Fougeron, C., Trouville, R., & Laganaro, M. (2020). MonPaGe, un outil de screening francophone informatisé d'évaluation perceptive et acoustique des troubles moteurs de la parole (dysarthries, apraxie de la parole). *Rééducation orthophonique*, 281, 171.
- Portnoy, R. A., & Aronson, A. E. (1982). Diadochokinetic syllable rate and regularity in normal and in spastic and ataxic dysarthric subjects. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 47(3), 324-328. <https://doi.org/10.1044/jshd.4703.324>
- Poupplier, M., Pastätter, M., Hoole, P., Marin, S., Chitoran, I., Lentz, T. O., & Kochetov, A. (2022). Language and cluster-specific effects in the timing of onset consonant sequences in seven languages. *Journal of Phonetics*, 93, 101153. <https://doi.org/10.1016/j.wocn.2022.101153>
- Praline, J., Guennoc, A.-M., Malinge, M.-C., de Toffol, B., & Corcia, P. (2008). Pure bulbar motor neuron involvement linked to an abnormal CAG repeat expansion in the androgen receptor gene. *Amyotrophic Lateral Sclerosis: Official Publication of the World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases*, 9(1), 40-42. <https://doi.org/10.1080/17482960701553915>
- Pringle, C. E., Hudson, A. J., Munoz, D. G., Kiernan, J. A., Brown, W. F., & Ebers, G. C. (1992). Primary lateral sclerosis. Clinical features, neuropathology and diagnostic criteria. *Brain: A Journal of Neurology*, 115 (Pt 2), 495-520. <https://doi.org/10.1093/brain/115.2.495>
- Querin, G., Bede, P., Marchand-Pauvert, V., & Pradat, P.-F. (2018). Biomarkers of Spinal and Bulbar Muscle Atrophy (SBMA): A Comprehensive Review. *Frontiers in Neurology*, 9, 844. <https://doi.org/10.3389/fneur.2018.00844>
- Ramig, L. A., Scherer, R. C., Titze, I. R., & Ringel, S. P. (1988). Acoustic analysis of voices of patients with neurologic disease: Rationale and preliminary data. *The Annals of Otology, Rhinology, and Laryngology*, 97(2 Pt 1), 164-172. <https://doi.org/10.1177/000348948809700214>
- Ramig, L. O., Scherer, R. C., Klasner, E. R., Titze, I. R., & Horii, Y. (1990). Acoustic analysis of voice in amyotrophic lateral sclerosis: A longitudinal case study. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 55(1), 2-14. <https://doi.org/10.1044/jshd.5501.02>
- Riddel, J., McCauley, R. J., Mulligan, M., & Tandan, R. (1995). Intelligibility and Phonetic Contrast Errors in Highly Intelligible Speakers With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 38(2), 304-314. <https://doi.org/10.1044/jshr.3802.304>
- Ringholz, G. M., Appel, S. H., Bradshaw, M., Cooke, N. A., Mosnik, D. M., & Schulz, P. E. (2005). Prevalence and patterns of cognitive impairment in sporadic ALS. *Neurology*, 65(4), 586-590. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000172911.39167.b6>
- Robert, D., Pouget, J., Giovanni, A., Azulay, J. P., & Triglia, J. M. (1999). Quantitative voice analysis in the assessment of bulbar involvement in amyotrophic lateral sclerosis. *Acta Oto-Laryngologica*, 119(6), 724-731. <https://doi.org/10.1080/00016489950180702>

- Rong, P., Loucks, T., Kim, H., & Hasegawa-Johnson, M. (2012). Relationship between kinematics, F2 slope and speech intelligibility in dysarthria due to cerebral palsy. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 26(9), 806-822. <https://doi.org/10.3109/02699206.2012.706686>
- Rong, P., Yunusova, Y., Eshghi, M., Rowe, H. P., & Green, J. R. (2019). A speech measure for early stratification of fast and slow progressors of bulbar amyotrophic lateral sclerosis: Lip movement jitter. *Amyotrophic Lateral Sclerosis & Frontotemporal Degeneration*, 1-8. <https://doi.org/10.1080/21678421.2019.1681454>
- Rong, P., Yunusova, Y., Richburg, B., & Green, J. R. (2018). Automatic extraction of abnormal lip movement features from the alternating motion rate task in amyotrophic lateral sclerosis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 1-14. <https://doi.org/10.1080/17549507.2018.1485739>
- Rong, P., Yunusova, Y., Wang, J., & Green, J. R. (2015). Predicting Early Bulbar Decline in Amyotrophic Lateral Sclerosis: A Speech Subsystem Approach. *Behavioural Neurology*, 2015, 183027. <https://doi.org/10.1155/2015/183027>
- Rong, P., Yunusova, Y., Wang, J., Zinman, L., Pattee, G. L., Berry, J. D., Perry, B., & Green, J. R. (2016). Predicting Speech Intelligibility Decline in Amyotrophic Lateral Sclerosis Based on the Deterioration of Individual Speech Subsystems. *PLOS ONE*, 11(5), e0154971. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0154971>
- Rowland, L. P., & Shneider, N. A. (2001). Amyotrophic lateral sclerosis. *The New England Journal of Medicine*, 344(22), 1688-1700. <https://doi.org/10.1056/NEJM200105313442207>
- Shellikeri, S., Green, J. R., Kulkarni, M., Rong, P., Martino, R., Zinman, L., & Yunusova, Y. (2016). Speech Movement Measures as Markers of Bulbar Disease in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 59(5), 887-899. https://doi.org/10.1044/2016_JSLHR-S-15-0238
- Shellikeri, S., Marzouqah, R., Brooks, B. R., Zinman, L., Green, J. R., & Yunusova, Y. (2021). Psychometric Properties of Rapid Word-Based Rate Measures in the Assessment of Bulbar Amyotrophic Lateral Sclerosis: Comparisons With Syllable-Based Rate Tasks. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 64(11), 4178-4191. https://doi.org/10.1044/2021_JSLHR-21-00038
- Silbergleit, A. K., Johnson, A. F., & Jacobson, B. H. (1997). Acoustic analysis of voice in individuals with amyotrophic lateral sclerosis and perceptually normal vocal quality. *Journal of Voice: Official Journal of the Voice Foundation*, 11(2), 222-231. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(97\)80081-1](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(97)80081-1)
- Singer, M. A., Kojan, S., Barohn, R. J., Herbelin, L., Nations, S. P., Trivedi, J. R., Jackson, C. E., Burns, D. K., Boyer, P. J., & Wolfe, G. I. (2005). Primary Lateral Sclerosis: Clinical and Laboratory Features in 25 Patients. *Journal of Clinical Neuromuscular Disease*, 7(1), 1-9. <https://doi.org/10.1097/01.cnd.0000176974.61136.45>

- Slis, A., Lévêque, N., Fougeron, C., Pernon, M., Assal, F., & Lancia, L. (2021). Analysing spectral changes over time to identify articulatory impairments in dysarthria. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 149(2), 758-769. <https://doi.org/10.1121/10.0003332>
- Solomon, N. P., Makashay, M. J., Helou, L. B., & Clark, H. M. (2017). Neurogenic Orofacial Weakness and Speech in Adults With Dysarthria. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 26(3), 951-960. https://doi.org/10.1044/2017_AJSLP-16-0144
- Sperfeld, A.-D., Hanemann, C. O., Ludolph, A. C., & Kassubek, J. (2005). Laryngospasm: An underdiagnosed symptom of X-linked spinobulbar muscular atrophy. *Neurology*, 64(4), 753-754. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000151978.74467.E7>
- Staiger, A., Schölderle, T., Brendel, B., Bötzel, K., & Ziegler, W. (2017). Oral Motor Abilities Are Task Dependent: A Factor Analytic Approach to Performance Rate. *Journal of Motor Behavior*, 49(5), 482-493. <https://doi.org/10.1080/00222895.2016.1241747>
- Staiger, A., & Ziegler, W. (2008). Syllable frequency and syllable structure in the spontaneous speech production of patients with apraxia of speech. *Aphasiology*, 22(11), 1201-1215. <https://doi.org/10.1080/02687030701820584>
- Stegmann, G., Charles, S., Liss, J., Shefner, J., Rutkove, S., & Berisha, V. (2023). A speech-based prognostic model for dysarthria progression in ALS. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 0(0), 1-6. <https://doi.org/10.1080/21678421.2023.2222144>
- Stipancic, K. L., Yunusova, Y., Campbell, T. F., Wang, J., Berry, J. D., & Green, J. R. (2021). Two Distinct Clinical Phenotypes of Bulbar Motor Impairment in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Frontiers in Neurology*, 12, 664713. <https://doi.org/10.3389/fneur.2021.664713>
- Strand, E. A., Buder, E. H., Yorkston, K. M., & Ramig, L. O. (1994). Differential phonatory characteristics of four women with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Voice: Official Journal of the Voice Foundation*, 8(4), 327-339. [https://doi.org/10.1016/s0892-1997\(05\)80281-4](https://doi.org/10.1016/s0892-1997(05)80281-4)
- Sumner, C. J., & Fischbeck, K. H. (2002). Jaw drop in Kennedy's disease. *Neurology*, 59(9), 1471-1472.
- Swinnen, B., & Robberecht, W. (2014). The phenotypic variability of amyotrophic lateral sclerosis. *Nature Reviews. Neurology*, 10(11), 661-670. <https://doi.org/10.1038/nrneurol.2014.184>
- Tahedl, M., Tan, E. L., Shing, S. L. H., Chipika, R. H., Siah, W. F., Hengeveld, J. C., Doherty, M. A., McLaughlin, R. L., Hardiman, O., Finegan, E., & Bede, P. (2023). Not a benign motor neuron disease: Longitudinal imaging captures relentless motor connectome disintegration in primary lateral sclerosis. *European Journal of Neurology*, 30(5), 1232-1245. <https://doi.org/10.1111/ene.15725>
- Tanaka, S., Banno, H., Katsuno, M., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Mano, T., Araki, A., Watanabe, H., Adachi, H., Tatsumi, H., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2014). Distinct acoustic

- features in spinal and bulbar muscular atrophy patients with laryngospasm. *Journal of the Neurological Sciences*, 337(1-2), 193-200. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2013.12.010>
- Tanaka, S., Hashizume, A., Hijikata, Y., Yamada, S., Ito, D., Nakayama, A., Kurita, K., Yogo, H., Banno, H., Suzuki, K., Yamamoto, M., Sobue, G., & Katsuno, M. (2019). Nasometric Scores in spinal and bulbar muscular atrophy—Effects of palatal lift prosthesis on dysarthria and dysphagia. *Journal of the Neurological Sciences*, 407, 116503. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2019.116503>
- Tartaglia, M. C., Rowe, A., Findlater, K., Orange, J. B., Grace, G., & Strong, M. J. (2007). Differentiation between primary lateral sclerosis and amyotrophic lateral sclerosis: Examination of symptoms and signs at disease onset and during follow-up. *Archives of Neurology*, 64(2), 232-236. <https://doi.org/10.1001/archneur.64.2.232>
- Tasko, S. M., & McClean, M. D. (2004). Variations in Articulatory Movement With Changes in Speech Task. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 47(1), 85-100. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2004/008\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2004/008))
- Titze, I. R. (1991). A model for neurologic sources of aperiodicity in vocal fold vibration. *Journal of Speech and Hearing Research*, 34(3), 460-472. <https://doi.org/10.1044/jshr.3403.460>
- Tjaden, K., Sussman, J. E., & Wilding, G. E. (2014). Impact of clear, loud, and slow speech on scaled intelligibility and speech severity in Parkinson's disease and multiple sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 57(3), 779-792. https://doi.org/10.1044/2014_JSLHR-S-12-0372
- Tomik, B., Partyka, D., Sułek, A., Kurek-Gryz, E. A., Banach, M., Ostrowska, M., Zaremba, J., Figlewicz, D. A., & Szczudlik, A. (2006). A phenotypic-genetic study of a group of Polish patients with spinal and bulbar muscular atrophy. *Amyotrophic Lateral Sclerosis: Official Publication of the World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases*, 7(2), 72-79. <https://doi.org/10.1080/17482960600664839>
- Tomik, B., Zur, K. A., & Szczudlik, A. (2008). Pure primary lateral sclerosis—Case reports. *Clinical Neurology and Neurosurgery*, 110(4), 387-391. <https://doi.org/10.1016/j.clineuro.2007.12.002>
- Tomiyasu, K., Saito, T., Nukazawa, T., Ito, H., & Kowa, H. (1996). [A case of X-linked bulbospinal muscular atrophy with bilateral abductor vocal cord paralysis]. *Rinsho shinkeigaku = Clinical neurology*, 36(5), 683-686.
- Tourville, J. A., & Guenther, F. H. (2011). The DIVA model: A neural theory of speech acquisition and production. *Language and Cognitive Processes*, 26(7), 952-981. <https://doi.org/10.1080/01690960903498424>
- Trouville, R., Delvaux, V., Fougeron, C., Laganaro, M., (2021). Logiciel d'évaluation de la parole (version screening) MonPaGe-2.0.s [Computer program] Retrieved on 18/03/2023 from <https://lpp.in2p3.fr/monpage/>

- Turner, G. S., Tjaden, K., & Weismer, G. (1995). The Influence of Speaking Rate on Vowel Space and Speech Intelligibility for Individuals With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 38(5), 1001-1013. <https://doi.org/10.1044/jshr.3805.1001>
- Turner, G. S., & Weismer, G. (1993). Characteristics of Speaking Rate in the Dysarthria Associated With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 36(6), 1134-1144. <https://doi.org/10.1044/jshr.3606.1134>
- Turner, M. R., Barohn, R. J., Corcia, P., Fink, J. K., Harms, M. B., Kiernan, M. C., Ravits, J., Silani, V., Simmons, Z., Statland, J., van den Berg, L. H., Delegates of the 2nd International PLS Conference, & Mitsumoto, H. (2020). Primary lateral sclerosis : Consensus diagnostic criteria. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*. <https://doi.org/10.1136/jnnp-2019-322541>
- Turner, M. R., Scaber, J., Goodfellow, J. A., Lord, M. E., Marsden, R., & Talbot, K. (2010). The diagnostic pathway and prognosis in bulbar-onset amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of the Neurological Sciences*, 294(1-2), 81-85. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2010.03.028>
- Uloza, V., Saferis, V., & Uloziene, I. (2005). Perceptual and acoustic assessment of voice pathology and the efficacy of endolaryngeal phonosurgery. *Journal of Voice: Official Journal of the Voice Foundation*, 19(1), 138-145. <https://doi.org/10.1016/j.jvoice.2004.01.009>
- Van Der Merwe, A. (2021). New perspectives on speech motor planning and programming in the context of the four- level model and its implications for understanding the pathophysiology underlying apraxia of speech and other motor speech disorders. *Aphasiology*, 35(4), 397-423. <https://doi.org/10.1080/02687038.2020.1765306>
- Vandenbergh, N., Bouhour, F., Petiot, P., Gonnaud, P.-M., Latour, P., Broussolle, E., & Vial, C. (2009). L'amyotrophie bulbospinale liée à l'X ou maladie de Kennedy : Variations phénotypiques. *Revue Neurologique*, 165(1), 31-37. <https://doi.org/10.1016/j.neurol.2008.06.005>
- Waito, A. A., Valenzano, T. J., Peladeau-Pigeon, M., & Steele, C. M. (2017). Trends in Research Literature Describing Dysphagia in Motor Neuron Diseases (MND): A Scoping Review. *Dysphagia*, 32(6), 734-747. <https://doi.org/10.1007/s00455-017-9819-x>
- Waito, A. A., Wehbe, F., Marzouqah, R., Barnett, C., Shellikeri, S., Cui, C., Abrahao, A., Zinman, L., Green, J. R., & Yunusova, Y. (2021). Validation of Articulatory Rate and Imprecision Judgments in Speech of Individuals With Amyotrophic Lateral Sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 30(1), 137-149. https://doi.org/10.1044/2020_AJSLP-20-00199
- Wang, Y., Kent, R. D., Duffy, J. R., Thomas, J. E., & Weismer, G. (2004). Alternating motion rate as an index of speech motor disorder in traumatic brain injury. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 18(1), 57-84. <https://doi.org/10.1080/02699200310001596160>

- Wang, Y.-T., Green, J. R., Nip, I. S. B., Kent, R. D., & Kent, J. F. (2010). Breath Group Analysis for Reading and Spontaneous Speech in Healthy Adults. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 62(6), 297-302. <https://doi.org/10.1159/000316976>
- Wang, Y.-T., Kent, R. D., Duffy, J. R., & Thomas, J. E. (2005). Dysarthria in Traumatic Brain Injury : A Breath Group and Intonational Analysis. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 57(2), 59-89. <https://doi.org/10.1159/000083569>
- Warnecke, T., Oelenberg, S., Teismann, I., Suntrup, S., Hamacher, C., Young, P., Ringelstein, E. B., & Dziewas, R. (2009). Dysphagia in X-linked bulbospinal muscular atrophy (Kennedy disease). *Neuromuscular Disorders*, 19(10), 704-708. <https://doi.org/10.1016/j.nmd.2009.06.371>
- Weismer, G. (2006). Philosophy of research in motor speech disorders. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 20(5), 315-349. <https://doi.org/10.1080/02699200400024806>
- Weismer, G., Laures, J. S., Jeng, J.-Y., Kent, R. D., & Kent, J. F. (2000). Effect of Speaking Rate Manipulations on Acoustic and Perceptual Aspects of the Dysarthria in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 52(5), 201-219. <https://doi.org/10.1159/000021536>
- Weismer, G., Martin, R., Kent, R. D., & Kent, J. F. (1992). Formant trajectory characteristics of males with amyotrophic lateral sclerosis. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 91(2), 1085-1098. <https://doi.org/10.1121/1.402635>
- Westbury JR, Dembowski J. (1993) : Articulatory kinematics of normal diadochokinetic performance. *Ann Bull RILP*;27:13–36.
- Xu, Y. (2010). In defense of lab speech. *Journal of Phonetics*, 38(3), 329-336. <https://doi.org/10.1016/j.wocn.2010.04.003>
- Yorkston, K. M., Hammen, V. L., Beukelman, D. R., & Traynor, C. D. (1990). The effect of rate control on the intelligibility and naturalness of dysarthric speech. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 55(3), 550-560.
- Yunusova, Y., Graham, N. L., Shellikeri, S., Phuong, K., Kulkarni, M., Rochon, E., Tang-Wai, D. F., Chow, T. W., Black, S. E., Zinman, L. H., & Green, J. R. (2016). Profiling Speech and Pausing in Amyotrophic Lateral Sclerosis (ALS) and Frontotemporal Dementia (FTD). *PLOS ONE*, 11(1), e0147573. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0147573>
- Yunusova, Y., Green, J. R., Greenwood, L., Wang, J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2012). Tongue Movements and Their Acoustic Consequences in Amyotrophic Lateral Sclerosis. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 64(2), 94-102. <https://doi.org/10.1159/000336890>
- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Ball, L. J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2010). Kinematics of disease progression in bulbar ALS. *Journal of Communication Disorders*, 43(1), 6-20. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2009.07.003>

- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2013). Speech in ALS : Longitudinal Changes in Lips and Jaw Movements and Vowel Acoustics. *Journal of Medical Speech-Language Pathology*, 21(1), 1-13.
- Yunusova, Y., Green, J. R., Wang, J., Pattee, G., & Zinman, L. (2011). A Protocol for Comprehensive Assessment of Bulbar Dysfunction in Amyotrophic Lateral Sclerosis (ALS). *Journal of Visualized Experiments*, 48. <https://doi.org/10.3791/2422>
- Yunusova, Y., Plowman, E. K., Green, J. R., Barnett, C., & Bede, P. (2019). Clinical Measures of Bulbar Dysfunction in ALS. *Frontiers in Neurology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.00106>
- Yunusova, Y., Weismer, G., Kent, R. D., & Rusche, N. M. (2005). Breath-group intelligibility in dysarthria : Characteristics and underlying correlates. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research: JSLHR*, 48(6), 1294-1310. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2005/090\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2005/090))
- Yunusova, Y., Weismer, G., Westbury, J. R., & Lindstrom, M. J. (2008). Articulatory Movements During Vowels in Speakers With Dysarthria and Healthy Controls. *Journal of Speech Language and Hearing Research*, 51(3), 596. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2008/043\)](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2008/043))
- Ziegler, W. (2002). Task-Related Factors in Oral Motor Control : Speech and Oral Diadochokinesis in Dysarthria and Apraxia of Speech. *Brain and Language*, 80(3), 556-575. <https://doi.org/10.1006/brln.2001.2614>
- Ziegler, W. (2003). To speak or not to speak : Distinctions between speech and nonspeech motor control. *Aphasiology*, 17(2), 99-105. <https://doi.org/10.1080/729255218>
- Ziegler, W., & Ackermann, H. (2013). Neuromotor Speech Impairment : It's All in the Talking. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 65(2), 55-67. <https://doi.org/10.1159/000353855>
- Ziegler, W., Schölderle, T., Brendel, B., Amsellem, J., & Staiger, A. (2019). Higher-Faster-Farther : Maximum Performance Tests in the Assessment of Neurogenic Speech Impairment. *Folia Phoniatica et Logopaedica*, 71(5-6), 261-274. <https://doi.org/10.1159/000495784>
- Ziegler, W., & von Cramon, D. (1986). Spastic dysarthria after acquired brain injury : An acoustic study. *The British Journal of Disorders of Communication*, 21(2), 173-187. <https://doi.org/10.3109/13682828609012275>

ANNEXES

1) Liste des patients : données cliniques

Patients	Sexe	Age	Pathologie	Durée d'évolution de la maladie en mois	Forme De début La maladie	ALSFRS-R (sous-score bulbaire/12)	Score Perceptif de la BECD /20	Sévérité de la dysarthrie	Type de dysarthrie
0012PT	M	60	MK	64	S	11	1	Légère	Flasque
0002BT	M	59	MK	48	S	11	2	Légère	Flasque
0023SB	M	46	MK	264	S	11	2	Légère	Flasque
0039GC	M	43	MK	132	S	11	2	Légère	Flasque
0011PG	M	66	MK	48	S	10	3	Légère	Flasque
0033TM	M	58	MK	276	S	9	3,5	Légère	Flasque
0018NT	M	64	MK	99	S	10	4	Légère	Flasque
0021LJ	M	68	MK	168	S	8	4	Légère	Flasque
0006NP	M	73	MK	108	S	9	5	Légère	Flasque
0051CM	M	49	MK	84	S	9	5,5	Légère	Flasque
0014BJ	M	85	MK	81	S	10	6	Légère	Flasque
0022SM	M	72	MK	195	S	9	6	Légère	Flasque
0042AD	M	61	MK	408	B	8	6	Légère	Flasque
0044CB	M	71	MK	216	S	8	6	Légère	Flasque
0007GB	M	59	MK	52	S	9	8	Modérée	Flasque
0056FW	M	49	MK	132	S	9	8	Modérée	Flasque
0003GS	M	76	MK	156	B	7	11	Modérée	Flasque
0048MC	M	85	MK	180	B	9	13	Modérée	Flasque
0001FC	M	47	SLA	9	S	11	8	Modérée	Mixte
0004MG	M	61	SLA	32	S	9	3	Légère	Mixte
0008DC	F	64	SLA	12	B	9	8	Modérée	Mixte
0009HC	M	75	SLA	132	B	9	12	Modérée	Mixte
0010TL	F	56	SLA	16	B	7	12	Modérée	Mixte
0017AS	F	61	SLA	21	S	11	5	Légère	Mixte
0020TE	M	39	SLA	51	S	8	8	Modérée	Mixte
0025TE	F	67	SLA	13	S	8	9	Modérée	Mixte
0026FP	M	63	SLA	85	B	9	9	Modérée	Mixte
0029DJ	M	79	SLA	45	S	11	4	Légère	Mixte
0030ME	M	61	SLA	9	S	10	9	Modérée	Mixte
0032JD	M	50	SLA	12	S	9	4,5	Légère	Mixte

0035FF	F	62	SLA	9	S	10	10	Modérée	Mixte
0036LG	M	71	SLA	11	B	8	5,5	Légère	Mixte
0037AN	F	63	SLA	55	S	12	3	Légère	Mixte
0038SC	F	68	SLA	7	B	9	4,5	Légère	Mixte
0040MD	F	60	SLA	18	B	8	9	Modérée	Mixte
0041HM	M	49	SLA	6	S	8	8	Modérée	Mixte
0043VJ	M	71	SLA	9	B	7	12,5	Modérée	Mixte
0045DF	F	63	SLA	11	S	11	2	Légère	Mixte
0046GS	M	36	SLA	36	S	7	8	Modérée	Mixte
0047DM	F	61	SLA	23	S	9	8,5	Modérée	Mixte
0050BG	M	75	SLA	288	B	6	13	Modérée	Mixte
0052JJ	M	67	SLA	48	S	10	9	Modérée	Mixte
0053DS	F	72	SLA	13	S	9	8,5	Modérée	Mixte
0057DY	F	73	SLA	12	S	9	3	Légère	Mixte
0058LP	M	67	SLA	8	S	9	8	Modérée	Mixte
0059HJ	M	86	SLA	12	S	10	7	Modérée	Mixte
0060GH	M	67	SLA	6	B	9	13	Modérée	Mixte
0061VG	M	72	SLA	5	B	9	6,5	Modérée	Mixte
0063AC	F	68	SLA	16	B	8	13	Modérée	Mixte
0064AN	F	71	SLA	298	S	11	4	Légère	Mixte
0065BP	F	68	SLA	77	S	10	3	Légère	Mixte
0066BL	M	51	SLA	12	S	11	3	Légère	Mixte
0067LF	M	63	SLA	18	B	9	7	Modérée	Mixte
0068CJ	M	60	SLA	6	B	8	13	Modérée	Mixte
0005SF	M	55	SLP	68	S	10	1	Légère	Spastique
0013DC	F	65	SLP	216	S	9	8	Modérée	Spastique
0015CG	M	71	SLP	360	S	8	11	Modérée	Spastique
0016FJ	M	71	SLP	48	S	8	8	Modérée	Spastique
0019SF	M	66	SLP	240	S	8	10	Modérée	Spastique
0024HG	M	58	SLP	17	S	10	5	Légère	Spastique
0027GM	F	64	SLP	144	S+B	10	8	Modérée	Spastique
0028ET	M	72	SLP	144	S	9	3	Légère	Spastique
0031ON	F	59	SLP	144	S+B	8	11,5	Modérée	Spastique
0034CB	F	71	SLP	19	B	8	6	Légère	Spastique
0049LN	F	88	SLP	288	S+B	9	5	Légère	Spastique
0054BM	M	64	SLP	10	S	10	6,5	Modérée	Spastique
0055BC	F	60	SLP	81	S	11	8	Modérée	Spastique
0062CG	M	70	SLP	180	S	8	13	Modérée	Spastique
0069MF	M	80	SLP	39	S	10	6,5	Modérée	Spastique
0070RD	M	64	SLP	108	S	10	4	Légère	Spastique
0071GC	F	64	SLP	29	B	6	13	Modérée	Spastique

Tableau 37 Liste des patients inclus dans l'étude et leurs données cliniques : le sexe, l'âge, la pathologie (SLA = Sclérose Latérale Amyotrophique, SLP = Sclérose Latérale Primitive, MK = Maladie de Kennedy), la durée approximative de l'évolution de la maladie en mois, la forme de début de la maladie (S = forme spinale et B = forme bulbaire), le sous-score bulbaire de l'ALS Functional Rating Scale-Revised (ALSFRRS-R) sur /12 (12 = pas d'atteinte), le score perceptif de la Batterie d'Évaluation Clinique de la Dysarthrie /20 (0 = normal), la sévérité de la dysarthrie définie par le score perceptif de la BECD (1-6 : dysarthrie légère ; 7-13 : dysarthrie modérée) et le type de la dysarthrie.

2) Les critères diagnostiques de l'El Escorial révisés

Le diagnostic de SLA repose sur : les critères consensuels de diagnostic de la SLA déterminés lors de la conférence d'Airlie House tenue en 1998 (Brooks et al., 2000)

La présence :	L'absence :
de signes d'atteinte du motoneurone périphérique détectés lors de l'examen clinique, électro-physiologique (EMG) ou neuro-pathologique ;	a) de signes électro-physiologiques ou pathologiques en faveur d'une autre pathologie pouvant expliquer les signes de la dégénérescence des motoneurons périphériques et/ou centraux ;
de signes d'atteinte du motoneurone central détectés lors de l'examen clinique ;	b) de signes en neuro-imagerie en faveur d'une autre maladie qui pourrait expliquer les signes cliniques et électro-physiologiques observés.
de l'évolution progressive des symptômes ou des signes dans un territoire, ou plusieurs territoires, déterminée lors de l'interrogatoire.	

Le diagnostic défini de SLA est déterminé par :	Le diagnostic probable de SLA est déterminé par :
la présence de signes cliniques évidents d'une atteinte des motoneurons centraux, et périphériques, localisés dans la sphère bulbaire et dans au moins deux régions spinales, ou dans trois régions spinales.	la présence de signes cliniques évidents d'une atteinte des motoneurons centraux, et périphériques, localisés dans au moins deux régions, les signes centraux étant nécessairement localisés géographiquement au-dessus des signes périphériques.

Tableau 38 Appréciation de l'extension de la maladie dans la SLA (nombre de territoires atteints)

3) Les critères consensuels de diagnostic de la SLP

Le diagnostic de SLP se pose sur les critères suivants (Gordon et al., 2006; M. R. Turner et al., 2020)

La présence :	L'absence :
a) âge \geq 25 ans ;	a) de symptômes sensitifs (inexpliqués par une comorbidité) ;
b) de symptômes d'une dégénérescence progressive des motoneurons centraux depuis au moins 2 ans ;	b) d'une dégénérescence des motoneurons périphériques repérée lors de l'examen électro-physiologique (EMG) ;
c) de signes cliniques d'une atteinte des motoneurons centraux (spasticité, amplification des réflexes, syndrome pseudobulbaire) dans au moins 2 des 3 régions : membres inférieurs, membres supérieurs, sphère bulbaire.	c) d'un diagnostic alternatif : pathologie centrale identifiée en neuro-imagerie ou encore biomarqueurs expliquant la symptomatologie clinique observée.

Le diagnostic défini de SLP est déterminé par : l'absence de signes d'atteinte du motoneurone périphérique dans un délai de 4 ans ou plus, depuis le début des symptômes.	Le diagnostic probable de SLP est déterminé par : l'absence de signes d'atteinte du motoneurone périphérique dans un délai de 2 à 4 ans depuis le début des symptômes.
------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------	---------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------------

Tableau 39 Appréciation de l'extension de la maladie dans la SLP (nombre de territoires atteints)

4) Items du sous-score bulbaire de l'ALS FRS

	4	3	2	1	0
Parole	Normale	Petite modification de la voix	Intelligible mais on fait répéter	Parole et communication non vocale	Pas de parole possible
Salivation	Normale	Peu augmentée et bavage la nuit	Modérément augmentée et bavage possible	Très augmentée et bavage	Utilisation constante de mouchoirs
Déglutition	Normale	S'étrangle parfois	A changé ses habitudes alimentaires	Sonde nasogastrique intermittente	Sonde

5) Le nombre de stimuli testés dans les pseudo-mots

	/p/	/t/	/k/	/b/	/d/	/g/	/f/	/s/	/ʃ/	/v/	/z/	/ʒ/	/l/	/m/	/n/	/ʁ/	/j/	/w/
MK	36	54	36	36	53	36	35	54	36	36	54	36	36	36	36	54	36	36
SLA	72	108	72	72	107	72	72	108	72	72	108	71	72	72	72	108	70	72
SLP	32	38	32	32	47	32	32	47	32	32	46	31	32	32	32	47	32	31

Tableau 40 : nombre de consonnes simples évaluées par population. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

	dadada	dayaza	fichoussu	kitoukitou	ménabainban	ouiouioui	takadacha	tatata
MK	54	54	54	72	72	54	72	54
SLA	108	108	108	144	144	108	144	107
SLP	48	45	48	64	64	48	64	48

Tableau 41 Nombre de consonnes évaluées dans les mots longs par population. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

	/i/	/e/	/ɛ/	/a/	/o/	/ɔ/	/u/	/y/	/ø/	/ɔ̃/	/ɑ̃/	/ɛ̃/
MK	36	36	18	36	36	36	18	36	36	36	36	36
SLA	72	72	36	72	72	72	36	72	72	72	72	72
SLP	32	32	16	32	32	32	16	31	32	32	32	31

Tableau 42 Nombre de voyelles écoutées par population. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

	/bl/	/sp/	/spl/	/stʁ/
MK	72	72	72	72
SLA	142	144	144	144
SLP	64	64	64	64

Tableau 43 nombre de stimuli écoutés par cluster et par population. MK : n = 18 locuteurs ; SLA : n = 36 ; SLP : n = 15.

6) Les publications de l'équipe sur l'étude des MFCC dans les séquences de glides



Research Article

Acoustic Change Over Time in Spastic and/or Flaccid Dysarthria in Motor Neuron Diseases

Nathalie Lévêque,^{a,b} Anneke Slis,^a Leonardo Lancia,^a Gaëlle Bruneteau,^b and Cécile Fougeron^a

^aLaboratoire de Phonétique et de Phonologie, UMR 7018, CNRS/University Sorbonne-Nouvelle, Paris, France ^bAssistance Publique – Hôpitaux de Paris, Department of Neurology, Hôpital Pitié-Salpêtrière, ALS Reference Center, Paris, France

ARTICLE INFO

Article History:

Received August 10, 2021

Revision received December 8, 2021

Accepted January 20, 2022

Editor-in-Chief: Bharath Chandrasekaran

Editor: Kate Bunton

https://doi.org/10.1044/2022_JSLHR-21-00434

ABSTRACT

Purpose: This study aims to investigate acoustic change over time as biomarkers to differentiate among spastic–flaccid dysarthria associated with amyotrophic lateral sclerosis (ALS), spastic dysarthria associated with primary lateral sclerosis (PLS), flaccid dysarthria associated with spinal and bulbar muscular atrophy (SBMA), and to explore how these acoustic parameters are affected by dysarthria severity.

Method: Thirty-three ALS patients with mixed flaccid–spastic dysarthria, 17 PLS patients with pure spastic dysarthria, 18 SBMA patients with pure flaccid dysarthria, and 70 controls, all French speakers, were included in the study. Speakers produced vowel–glide sequences targeting different vocal tract shape changes. The mean and coefficient of variation of the total squared change of mel frequency cepstral coefficients were used to capture the degree and variability of acoustic changes linked to vocal tract modifications over time. Differences in duration of acoustic events were also measured.

Results: All pathological groups showed significantly less acoustic change compared to controls, reflecting less acoustic contrast in sequences. Spastic and mixed spastic–flaccid dysarthric speakers showed smaller acoustic changes and slower sequence production compared to flaccid dysarthria. For dysarthria subtypes associated with a spastic component, reduced degree of acoustic change was also associated with dysarthria severity.

Conclusions: The acoustic parameters partially differentiated among the dysarthria subtypes in relation to motor neuron diseases. While similar acoustic patterns were found in spastic–flaccid and spastic dysarthria, crucial differences were found between these two subtypes relating to variability. The acoustic patterns were much more variable in ALS. This method forms a promising clinical tool as a diagnostic marker of articulatory impairment, even at mild stage of dysarthria progression in all subtypes.

Motor neuron diseases (MNDs) embrace a group of neurodegenerative diseases affecting lower motor neuron (LMN) and/or upper motor neuron (UMN) systems. One of the diseases that involves the LMN system is spinal and bulbar muscular atrophy (SBMA), also known as Kennedy's disease (Kennedy et al., 1968). Primary lateral sclerosis (PLS) purely affects the UMN system (Gordon et al., 2006), and amyotrophic lateral sclerosis (ALS) is defined as a disease affecting both systems resulting in

heterogenous clinical profiles depending on the predominance of LMN or UMN involvement (Charcot & Joffroy, 1869; Ince et al., 1998). The major challenge in clinical practice is the lack of biomarkers to validate LMN and UMN involvement (Bede & Pradat, 2019). SBMA and PLS are frequently misdiagnosed as ALS, at least at onset of the disease. A correct distinction between these diseases is of utmost interest because the median disease duration until death is much longer in PLS (Pringle et al., 1992) and in SBMA (Atsuta et al., 2006) than in ALS (Logroscino et al., 2008). It is crucial to find objective and reliable tools to assist the neurologic differential diagnosis, to monitor and predict disease progression across MNDs.

Correspondence to Nathalie Lévêque: nathalie.leveque@aphp.fr. **Disclosure:** The authors have declared that no competing financial or non-financial interests existed at the time of publication.

When the lower and/or UMN, which both innervate the orofacial and laryngeal regions, are damaged, motor speech function is altered. As a result, dysarthria is common in these three pathologies (Atsuta et al., 2006; Banno et al., 2017; Bede & Finegan, 2018; Finegan et al., 2019; Miyata et al., 2019; Pedrosa et al., 2018; Praline et al., 2008; Querin et al., 2018; Tomik et al., 2006; M. R. Turner et al., 2020; Yunusova et al., 2019). The Mayo Clinic system (Darley et al., 1969a, 1969b, 1975) classifies dysarthria perceptually into several subgroups, based on the underlying neuropathology. Speech impairment, associated with LMN lesions, such as in SBMA, is categorized as flaccid dysarthria; speech impairment due to UMN damage, such as in PLS, is typically classified as spastic dysarthria, and finally, ALS is classified as mixed flaccid-spastic dysarthria, involving both LMN and UMN impairment. The degree of spasticity and flaccidity affecting the orofacial and laryngeal regions depends in this latter case on the extent of damage of the UMN and LMN systems, respectively (Tomik & Guiloff, 2010). In the Mayo Clinic classification, articulatory distortions, described as distorted vowels and imprecise consonant productions, figure among the most deviant speech characteristics encountered in these three dysarthria subtypes. Slow rate is also described to be a prominent feature in both spastic and flaccid-spastic dysarthria subtypes. In the field of motor speech disorders, there are ongoing efforts to identify acoustic biomarkers to support the differential diagnosis in dysarthria. The motivation of this study is that, to our knowledge, no study compared the nature of dysarthric speech deficits in these three neurodegenerative MNDs. Hence, the current study investigates acoustic parameters as biomarkers to differentiate dysarthria subtypes between these three MNDs.

Acoustic and kinematic studies examining flaccid dysarthria subtypes due to different etiologies have shown several important articulatory, spectral, and temporal characteristics. Flaccid dysarthria is explained by muscular weakness involving the lingual, laryngeal, and velopharyngeal systems. In this broad subtype of flaccid dysarthrias originating from different lesions in the motor unit, speech impairments are usually characterized by velopharyngeal insufficiency, resulting in hypernasality, distorted labial and/or lingual phonemes, and distorted vowels. Slow speech rate and slow labial and/or lingual alternating motion rates have also been described. Yet, reduced speech rate is usually not perceived in flaccid dysarthria, unless impairment is severe (Duffy, 2019). In SBMA specifically, hypernasality has been shown to be significantly higher in patients compared to controls and increased vocal cords adduction during phonation has been observed as well, which is associated with laryngospasms (Tanaka et al., 2014, 2019). Although muscular atrophy and weakness of the tongue have been related to swallowing troubles in SBMA (Banno et al., 2017; Hashizume et al., 2017; Mano

et al., 2014, 2015), to our knowledge, acoustic and articulatory studies investigating the effect of SBMA on the articulatory dimension do not exist.

Acoustic and articulatory studies examining spastic dysarthria due to various etiologies demonstrate slow and incomplete velopharyngeal and lingual movements, reduced speech rate, increased duration of phoneme-to-phoneme transitions, reduced alternating motion rates, reduced speed and range of tongue and jaw movements, reduced rate and slope of second formant (F2) transitions, smaller vowel space, and centralization of vowel formants (Clark et al., 2014; Hirose et al., 1982; Kent et al., 1999; Ozawa et al., 2001; Portnoy & Aronson, 1982; Rong et al., 2012; Roy et al., 2001; Schölderle et al., 2016; Ziegler & von Cramon, 1986). Many of these observations, however, were based on studies including one or a few speakers (Duffy, 2019), and articulatory impairments specifically arising in speakers with PLS have not been investigated yet.

Articulatory deficits in ALS have been examined the most extensive. Dysarthria associated with ALS can be either flaccid or spastic at onset, becoming mixed spastic-flaccid as dysarthria progresses. Both acoustic and kinematic studies report impaired articulatory range of movement with flattened F2 slopes and reduced vowel space, decreased range of movement of the tongue, and exaggerated range or the movement of the jaw (DePaul & Brooks, 1993; Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Langmore & Lehman, 1994; Lee et al., 2018, 2020; Lee & Bell, 2018; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; A. S. Mefferd et al., 2012; Rong et al., 2015, 2018; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2008, 2010, 2012, 2013). The range of movement of the tongue was shown to decrease across the severity continuum of dysarthria (Lee et al., 2018, 2020; Lee & Bell, 2018; A. S. Mefferd & Dietrich, 2020; Rong et al., 2018; Shellikeri et al., 2016; Yunusova et al., 2010, 2012, 2013). Whereas Slis et al. (2021) found higher variability in acoustic energy change, indicating more variability in vocal tract shape change, variability of the tongue, and lips and jaw movements were demonstrated to be reduced in several other studies (Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Kuruvilla-Dugdale & Mefferd, 2017; A. S. Mefferd et al., 2014). Acoustic and kinematic studies also showed impaired temporal aspects of speech rate and articulatory movements (Ball et al., 2002; Caruso & Burton, 1987; Kuruvilla-Dugdale & Chuquilin-Arista, 2017; Mefferd, 2015; Mefferd & Dietrich, 2020; Mefferd et al., 2014; Rong et al., 2018; Shellikeri et al., 2016; G. S. Turner & Weismer, 1993; M. R. Turner et al., 2020; Weismer et al., 2000; Yunusova et al., 2008, 2010, 2012). Speech rate was shown to decline with the progression of the dysarthria (Allison et al., 2019; Lee & Bell, 2018; Lee et al., 2018; Yunusova et al., 2016, 2019).

Because dysarthria is presumably spastic only in PLS and flaccid only in SBMA, the correct distinction between spastic dysarthria, flaccid dysarthria, and mixed

spastic–flaccid dysarthria associated with ALS can assist neurologic differential diagnosis. This study includes these three distinct groups to investigate whether a set of acoustic biomarkers differentiates among flaccid, spastic, and mixed spastic–flaccid dysarthria, associated with these three neurodegenerative MNDs.

Acoustic measures can be used as biomarkers of dysarthria in neurodegenerative diseases. A method using mel frequency cepstral coefficients (MFCCs), which provide a measure of spectral energy changes over time, recently showed to be a sensitive tool in capturing and identifying specificities in vocal tract shape changes from one articulatory configuration to the next, in flaccid–spastic dysarthria in ALS and hypokinetic dysarthria associated with Parkinson disease (Slis et al., 2021). MFCCs provide a measure of spectral energy in a temporal window; changes in these values from window to window reflect how this spectral energy changes over time. These spectral changes have shown to correlate with vocal tract shape modifications (Goldstein, 2019). Slis et al. (2021) measured the spectral energy changes over time during the productions of successive identical vowel–glide syllables. These productions were characterized in terms of the overall amount of acoustic change in the sequence—which is expected to be large to reflect the acoustic contrast between the segments—and in terms of variability of these acoustic changes—which is expected to be low to reflect the fact that the successive identical syllables are articulated the same way. Compared to controls and dysarthric patients with Parkinson disease, dysarthric patients with ALS showed reduced values of these spectral changes over time, suggesting hypoarticulation, and more variability indicating instability in articulatory movements.

The goal of this study was to capture spectral changes over time using MFCCs during the production of successive identical vowel–glide sequences to differentiate among the three dysarthria subtypes, associated with ALS, PLS, and SBMA. Based on previous studies, we expected a smaller amount of spectral change, suggesting hypoarticulation, in speakers with ALS and PLS, and

higher variability in speakers with ALS compared to controls, suggesting instability in articulatory movements. Due to the lack of research available for dysarthric speech of speakers diagnosed with PLS and SBMA, no specific hypotheses related to variability were formulated for these speakers. To further differentiate dysarthria subtypes, we also examined temporal measures during the production of the same sequences. Based on previous literature, slower sequence productions were expected in speakers with ALS and PLS compared to speakers with SBMA.

Finally, we explored the relation between the acoustic measures and dysarthria severity. For speakers with ALS, it was expected that the amount of the spectral changes correlated negatively with severity, and thus decreased, and duration of utterances correlated positively, and increased with the severity of dysarthria. Due to the lack of research available in dysarthric speech associated with PLS and SBMA, no specific hypotheses were formulated about the relation between the acoustic measures and dysarthria severity for speakers with these two pathologies.

Method

Participants

One hundred thirty-eight participants aged between 23 and 90 years were enrolled in this experiment: 70 non-dysarthric French controls (40 from Paris and 30 from Geneva) who reported no history of neurological impairment or speech and language disorders and 68 participants diagnosed with MNDs contributed speech recordings to this study. Among the patients, 33 patients with ALS, 17 patients diagnosed with PLS, and 18 patients diagnosed with SBMA were recruited (see Table 1 for distribution of the groups). All patients were diagnosed by neurologists of the “ALS and other rare MNDs expert center” of the Pitié-Salpêtrière University Hospital (Paris, France). ALS patients were diagnosed based on

Table 1. Cohort description in terms of distribution across sex (*n* [M/F]: number of male and female speakers); age (mean [*M*], standard deviation [*SD*], and range); ALSFRS-R bulbar subscores, used to assess bulbar involvement (mean and standard deviation); perceptible score scores, used to assess the dysarthria severity (mean and standard deviation); and dysarthria subtypes.

Group	<i>n</i> (M/F)	Age <i>M</i> (<i>SD</i>) [range]	ALSFRS-R Bulbar subscore <i>M</i> (<i>SD</i>)	Perceptive score (BECD) <i>M</i> (<i>SD</i>)	Dysarthria subtypes
ALS	20/13	63.67 (10.90) [36–86]	9.00 (1.32)	8.05 (3.11)	Mixed flaccid–spastic
PLS	10/7	67.18 (8.18) [55–88]	8.94 (1.25)	7.65 (3.56)	Spastic
SBMA	18/0 ^a	63.56 (12.28) [43–85]	9.33 (1.19)	5.29 (2.75)	Flaccid
Controls	29/41	58.10 (20.02) [23–90]	NA	NA	NA

Note. M = male; F = female; ALSFRS-R = ALS Functional Rating Scale–Revised; BECD = Batterie d’Evaluation Clinique de la Dysarthrie; ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy; NA = not applicable.

^aSBMA is a male, X-linked recessive disease.

the El Escorial criteria (Brooks et al., 2000) and had “probable” or “definite” ALS. PLS patients were diagnosed based on the consensus diagnostic criteria and had “probable” or “definite” PLS (Gordon et al., 2006; M. R. Turner et al., 2020). SBMA patients were diagnosed based on the genetic test that estimates cytosine–adenine–guanine expansion number in the androgen-receptor genes, considering more than 38 repeats to be pathologic. The protocol for the study (including participant recruitment, data management, consent forms, and information leaflets) was approved by the following ethics committees: CPP Sud-Est III, ClinicalTrials.gov ID: NCT03560661 for the patients and the Commission Cantonale d’Ethique de la Recherche – 2018-00212 (Switzerland) and CPP Sud Ouest et Outre Mer (ID_RCB: 2019-A02553–54; France) for the control group recruitment. Prior to inclusion, all study participants provided informed consent.

To be eligible for this study, patients had to show presence of functional signs of bulbar involvement and be diagnosed with mild to moderate dysarthria. Subjects were ineligible for inclusion if they showed evidence of cognitive impairment and/or respiratory troubles according to the routine neurologist examination.

The presence of functional signs of bulbar involvement was assessed by an experienced speech-language pathologist (SLP; first author) using the bulbar subscore of the ALS Functional Rating Scale–Revised (ALSFRRS-R; Cedarbaum et al., 1999). This subscore reflects the bulbar-related handicap across three items (speech, salivation, and swallowing) that are rated on a 5-point scale (from 0 = *severe impairment* to 4 = *normal function*) yielding a maximum bulbar subscore of 12. A bulbar subscore less than 12 indicates impaired orofacial function.

The severity of dysarthria was assessed by the perceptual score (PS) from the Batterie d’Evaluation Clinique de la Dysarthrie (BECD; Auzou & Rolland-Monnoury, 2006). The PS is a composite score summing the evaluation of five speech dimensions (intelligibility, naturalness of speech, prosody, voice quality and articulatory precision) with a 5-point scale score for each dimension (0 = *normal*, 1 = *mild*, 2 = *moderate*, 3 = *severe*, and 4 = *very severe impairment*). A recent study investigating clinician-based adjectival rating of dysarthria severity in ALS found excellent intrarater and interrater reliability (Stipancic et al., 2021). The total sum/20 indicates the severity of dysarthria following the cutoffs for severity group assignment suggested in the BECD: 1–6 = *mild dysarthria* and 7–13 = *moderate dysarthria*. Two experienced SLPs rated the dysarthria severity by listening to 3- to 5-min samples of connected speech. One of the SLPs (first author) recorded the patients and provided the severity ratings at the same time. The other SLP performed the ratings on the recordings of the same sample of connected speech. Since the first rater was not blind to the participants’ neurological deficits,

the second rater was informed about the patients’ diagnosis. Based on the level of overall score/20, intraclass correlations (ICCs) were used to calculate the PS score interrater reliability (as described in the work of Koo & Li, 2016). ICCs estimates and their 95% confidence intervals (CIs) were calculated, based on a single rating, absolute-agreement, two-way random-effects model in R. Overall reliability between the two raters were excellent with a value greater than .90 (ICC = .94, $p < .0001$, 95% CI [.91 < ICC < .96]). For ALS and PLS, reliability was excellent as well (ICC = .94, $p < .0001$, 95% CI [.87 < ICC < .97]) and ICC = .97, $p < .0001$, 95% CI [.92 < ICC < .99], respectively). For SBMA, reliability was good (ICC = .89, $p < .0001$, 95% CI [.72 < ICC < .96]). Based on these high levels of interrater reliability, the PS scores were averaged.

Table 1 presents the population. As shown by the ALSFRS-R bulbar subscore, the population was quite homogenous in terms of functional signs of bulbar involvement. However, even though both mild and moderate cases of dysarthria were present in all subgroups (see regression in Figure 3), speakers in the SBMA group showed milder scores for dysarthria overall, which is also frequently observed in clinical practice. During recruitment, a first screening of the patients made by the first author permitted to determine the subtypes of dysarthria based on the cardinal speech features corresponding to each dysarthria subtype (Darley et al., 1969a).

Speech Material and Recording Procedure

The speakers were instructed to produce three sequences composed of three repetitions of the same syllable, either a vowel–glide syllable in /ajajaj/ and /ujujuj/, both meaning “ouch, ouch, ouch” in French; or a glide–vowel syllable in /wiwiwi/ meaning “yes, yes, yes” in French. The stimuli were selected because they elicit successive vocal tract shape modifications, which result in easily traceable acoustic outcomes with continuous resonances. During /ajajaj/, the aperture of the vocal tract changes during the transition from vowel to glide with active tongue and/or jaw movements resulting in dominant resonance changes in the lower part of the spectrum (first formant area). /ujujuj/ and /wiwiwi/ require back/front movement of the tongue and successive rounding/unrounding of the lips, which induce acoustic changes dominant in midfrequency range. These last two sequences also vary in terms of syllabic structure with a nucleus-coda structure in /ujujuj/ and an onset-nucleus structure for /wiwiwi/.

The orthographic forms “aie, aie, aie,” “ouille, ouille,” and “oui, oui, oui” were presented on the screen of a laptop and produced at a comfortable rate and loudness. Each sequence was repeated 4 times ($n = 12$ sequences per speaker), and sequences were presented in the same order for all speakers. The participants were

instructed to produce each sequence in a continuous manner. Each participant attended a single recording session. Recordings took place in a quiet room with the first author present. A high-quality acoustic recording equipment was used with a Focusrite Scarlett (2i4) external audio card and a professional quality Shure SM35-XLR earset microphone that was positioned approximately 3 cm from the mouth during recordings. The speech was recorded at a sampling rate of 22.5 kHz and 16-bit resolution.

Acoustic Data Analysis

All sound files were resampled to 16 kHz. Audio-based segmentation and annotation of each sequence were manually performed in Praat (Praat: Doing Phonetics by Computer, n.d.). To compute the amount of acoustic change produced over the utterance, MFCCs were calculated as follows. First, the spectra were calculated over 25-ms time frames sliding over time in 2-ms steps. To target the frequencies relevant for vocal tract shape changes, only the spectral coefficients between 300 and 8000 Hz were considered. The trimmed frequency scale was then converted into a mel frequency scale, which approaches the filter characteristics of the human ear (O’Shaughnessy, 1987). Next, the spectra were log-transformed and submitted to a discrete cosine transformation (Davis & Mermelstein, 1980), resulting in a set of coefficients. Because the first coefficient contains information about the overall average spectral energy, this coefficient was disregarded and only the second to 13th coefficient were considered. Next, the differences between coefficients 2 and 13 in two consecutive windows were calculated and squared; information about the direction of change is thus removed, and only the magnitude of energy change is preserved. Finally, these difference values were summed (see also the work of Slis et al., 2021). This method results in values of total squared changes of MFCCs, referred to as TSC_MFCCs. Plotting all TSC_MFCCs, a contour resulted, consisting of increasing and decreasing TSC_MFCC values as illustrated in Figure 1, which presents the contours of the degree of acoustic change during a /ujujuj/ sequence, produced 4 times by a talker of each group.

Maxima in this contour aligns with the part of the speech production, during which the most vocal tract shape change is observed, that is, during the transition from a vowel to a glide or glide to a vowel. Minima align with the part during which the vocal tract shape is relatively steady, that is, during the steady state of the speech production.

Derived Metrics

The complete TSC_MFCC contour was delimited from the steady part of the first segment (i.e., the first

valley) to the steady part of the last segment (i.e., the last valley). Next, three measures were extracted (see also the work of Slis et al., 2021):

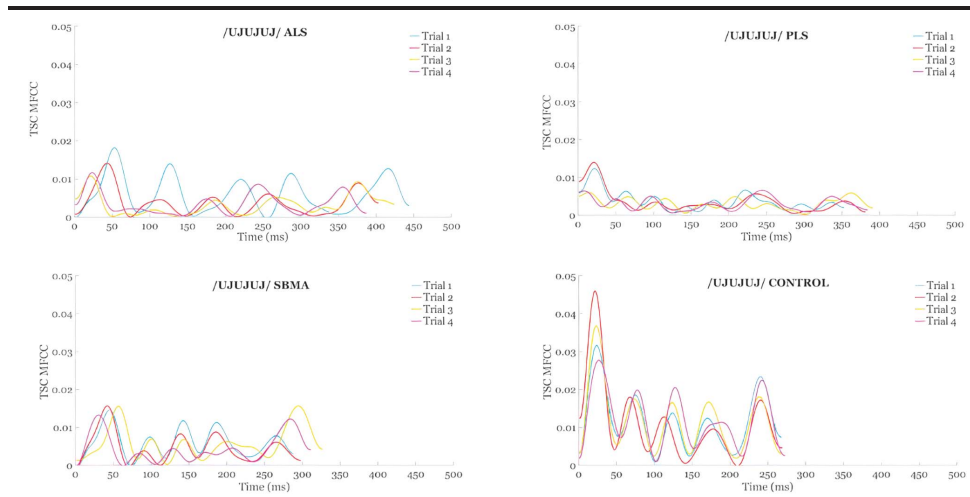
- MEAN: the mean of the complete TSC_MFCC values capturing the average amount of acoustic change over time during the sequence. It is expected to lower with decreased acoustic contrastiveness between the successive segments, for example, during a hypoarticulated sequence with little vocal tract changes.
- VARCO: The coefficient of variation of the complete contour determined the degree of variability of the acoustic changes over the sequence. In other words, it aimed to capture the stability in the acoustic contrasts, resulting from repeated successive syllables of the sequence. The value is expected to be lower if the successive elements of the sequence are articulated the same way and to increase with instability in the articulation over the successive elements.
- eventDUR: To capture differences in articulation rate, maximum and minimum velocity values in the contour were automatically determined by a peak-picking algorithm in MATLAB. Values were then manually checked. Each interval duration from each valley to the next was then computed. These intervals included the acoustic transition between one segment to the next in the /ajajaj/, /ujujuj/, and /wiwiwi/ sequences since valleys in the TSC_MFCC contour occur where there is little acoustic changes before and after each transition.

Statistical Analysis

Main effects of SPEAKER CONDITION (CONTROLS, ALS, PLS, and SBMA) and SEQUENCE TYPE (/aj/, /uj/, /wi/) as well as the interaction between the two were examined, using linear mixed-effect models (LMMs) for the three acoustic metrics (MEAN, VARCO, and eventDUR). Because measurements were based on four repetitions of a sequence for each speaker, speakers were considered as random effect variables. When findings of the LMM models revealed statistically main or interaction effects, post hoc comparisons were performed applying Tukey adjustments for multiples comparisons. The critical alpha level for all tests was set to $p < .05$.

To assess the possible relationship between the dysarthria severity and the dependent variables, individual linear regressions for each pathological condition (ALS, PLS, SBMA) were used. Since the perceptual score is measured by participant and is the same for the 12 sequences (3 sequences \times 4 repetitions) for each participant, we decided to create a unique variable by combining the values of the 12 sequences to avoid convergence issues. Hence, speakers were not considered as random effect

Figure 1. Examples of contours showing the amount of acoustic change over time during the production of the /ujuju/ sequence, repeated 4 times by a speaker of each group. Peaks in the TSC_MFCC are coinciding with maximum acoustic change, expected to occur during the transition from vowel to glide and from glide to vowel. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.



variables. Because normality and/or homogeneity assumptions were frequently rejected, we did not consider standard error and t values, which can be biased in such cases with potential misleading p values. Confidence intervals for the linear regression slopes, estimated by using a bootstrap approach, were used to test the null hypothesis. The linear association between the dysarthria severity level and the dependent variables was considered statistically significant when the 95% CI excluded the value of 0.

For each analysis, values below the first percentile and over the 99th percentile were removed for each dependent variable. Residuals normality assumptions were checked using Shapiro–Wilk test and quantile–quantile plots. The residual homogeneity assumption was checked visually by plotting the standardized residuals as a function of the corresponding fitted values. Because data were unbalanced and there was an interaction effect between the independent variables, a Type III sum of squares methodology was used to assess significance, and a p value of $< .05$ for a two-sided test was considered significant.

All statistical analyses were done using R (Version 4.0.2). LMMs were fitted using the lmer function of the lme4 (Bates et al., 2015) and the lmerTest packages (Kuznetsova et al., 2017). p values were computed using Kenward-Roger's approximation of the degree of freedom. Post hoc comparisons were done using the emmeans

function of the emmeans package (Lenth, 2020), and CIs of slope were estimated using the Boot function of the car package (Fox & Weisberg, 2019).

Results

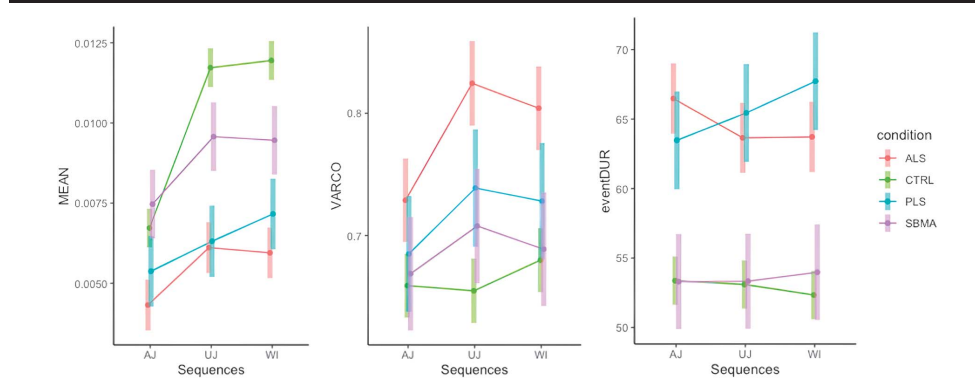
Acoustic Measures

Figure 2 presents the condition averages for the three measures MEAN, VARCO, and eventDUR across all sequences. Variables were compared between the controls from Geneva and from Paris with the talker's origin as fixed effect. No statistical differences were found between them, excluding a potential regional differences effect. They were thus grouped in a single control population in the analyses.

i. MEAN

A significant main effect was found for SPEAKER CONDITION and SEQUENCE TYPE (see Table 2). Overall, MEAN acoustic change was significantly smaller for ALS and PLS compared with SBMA (respectively $p < .001$ and $p < .01$) and controls ($p < .001$). No significant difference was found between ALS and PLS ($p = .5$) and between SBMA and controls ($p = .1$). Overall, the sequence /ajajaj/ elicited

Figure 2. MEAN, VARCO, and eventDUR as a function of sequences. Dispersion bars around the mean values represent confidence intervals. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; CTRL = control; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.



significantly smaller MEAN acoustic change than /ujujuj/ and /wiwiwi/ ($p < .0001$). No significant difference was found between /ujujuj/ and /wiwiwi/ ($p = .3$).

The interaction between SPEAKER CONDITION \times SEQUENCE TYPE was significant. During the production of /ajajaj/, the MEAN acoustic change for ALS speakers was significantly smaller than for CONTROL and SBMA speakers, and the MEAN acoustic change for PLS speakers was significantly smaller compared to SBMA speakers (see Table 3). No significant difference was found between ALS and PLS, CONTROL and PLS, and CONTROL and SBMA (ALS < SBMA and controls; PLS < SBMA).

During the production of /ujujuj/ and /wiwiwi/, the MEAN acoustic change for ALS and PLS speakers was significantly smaller than for CONTROL and SBMA and the MEAN acoustic change of SBMA speakers was significantly smaller than that of CONTROL (ALS and PLS < SBMA < CONTROL). No significant difference was found between the two conditions ALS and PLS.

As shown in Table 4, all the groups showed a larger degree of acoustic change over the back–front/rounded–unrounded sequences compared to /ajajaj/. Only for speakers with PLS, the sequence /wiwiwi/ elicited significantly greater MEAN acoustic change than the sequence /ujujuj/.

ii. VARCO

A main effect was found for SPEAKER CONDITION and SEQUENCE TYPE (see Table 2). ALS showed higher VARCO values than CONTROL ($p < .0001$), PLS ($p = .04$), and SBMA ($p = .001$). The sequences /ujujuj/ and /wiwiwi/ resulted in greater VARCO than the sequence /ajajaj/ ($p < .0001$).

The SPEAKER CONDITION \times SEQUENCE TYPE interaction was significant. As shown in Table 5, a significantly greater VARCO in the ALS condition compared to CONTROL across the three sequences /ajajaj/, /ujujuj/, and /wiwiwi/ was observed. During the /ujujuj/ production, ALS speakers also showed greater VARCO compared to the PLS and the SBMA speakers, and PLS speakers had significantly greater VARCO than CONTROL speakers (ALS > PLS and SBMA; PLS > CONTROL). Finally, during the production of the sequence /wiwiwi/, ALS speakers also showed greater VARCO compared to the SBMA.

As shown in Table 6, for both PLS and ALS, the alternating back–front/rounded–unrounded sequences induced more irregularity in the successive articulation than the open–close /ajajaj/. It is shown in the VARCO for /ujujuj/ and /wiwiwi/ for ALS and for /ujujuj/ in PLS. In SBMA, no difference in VARCO is found according to the sequence.

iii. eventDUR

A significant effect was found for SPEAKER CONDITION, for SPEAKER CONDITION \times SEQUENCE TYPE interaction, but not for SEQUENCE TYPE (see Table 2). As shown in Tables 7 and 8, ALS and PLS speakers are slower than both SBMA and CONTROL speakers for all sequences. Again, the back–front/rounded–unrounded sequences differed from the /ajajaj/ sequence for the ALS speakers, with longer eventDUR for /ajajaj/ compared with /ujujuj/ and /wiwiwi/. For speakers with PLS, the /wiwiwi/ sequence showed longer eventDUR values than /ajajaj/. For CONTROL and speakers with SBMA, eventDUR values did not change according to SEQUENCE TYPE.

Table 2. Linear mixed-effects model results for the fixed effects "SPEAKER CONDITION" and "SEQUENCE TYPE" and its interaction for MEAN, VARCO, and eventDUR.

Variable	MEAN			VARCO			eventDUR			
	χ^2	<i>p</i>	η^2 (partial)	χ^2	<i>p</i>	η^2 (partial)	χ^2	<i>p</i>	η^2 (partial)	90% CI
CONDITION	116.41	< .001***	0.48	44.17	< .001***	0.26	93.60	< .001***	0.40	[0.30, 0.49]
SEQUENCE	470.16	< .001***	0.26	31.62	< .001***	0.02	1.56	.45	2.01e-04	[0.00, 0.00]
CONDITION: SEQUENCE	267.06	< .001***	0.17	28.94	< .001***	0.02	34.16	< .001***	4.37e-03	[0.00, 0.01]

Note. Effect sizes are measured by eta squared, and confidence intervals (CIs) are at a level of 90%.
 ***Indicates a significance $p < .001$.

Table 3. Estimate, standard error (SE), and *t* and *p* values for condition's comparisons for the metric MEAN acoustic change.

Condition's comparisons	MEAN								
	AJ			UJ			WI		
	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>
ALS-CONTROL	-0.002 (0.0005)	-4.76	< .0001***	-0.005 (0.0005)	-11.10	< .0001***	-0.005 (0.0005)	-11.89	< .0001***
ALS-PLS	-0.001 (0.0006)	-1.53	.42	-0.0001 (0.0006)	-0.28	.99	-0.001 (0.0006)	-1.76	.29
ALS-SBMA	-0.003 (0.0006)	-4.67	< .0001***	-0.003 (0.0006)	-5.13	< .0001***	-0.003 (0.0006)	-5.21	< .0001***
CONTROL-PLS	0.001 (0.0006)	2.11	.15	0.005 (0.0006)	8.43	< .0001***	0.004 (0.0006)	7.52	< .0001***
CONTROL-SBMA	-0.0007 (0.0006)	-1.20	.62	0.002 (0.0006)	3.45	< .01**	0.002 (0.0006)	3.99	< .01**
PLS-SBMA	-0.002 (0.0007)	-2.69	.03*	-0.003 (0.0007)	-4.17	< .001***	-0.002 (0.0007)	-2.95	.01***

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

*Indicates a significance of *p* < .05. **Indicates a significance of *p* < .01. ***Indicates a significance of *p* < .001.

Relationship Between Metrics and Dysarthria Severity

Relations between the acoustic measurements and dysarthria severity (expressed in a perceptual score taken as a discrete quantitative variable) are shown in Figure 3. Table 9 displays the findings of the linear regression analyses for each pathological condition.

The linear association between dysarthria severity and MEAN was statistically significant only in ALS and PLS. MEAN acoustic change decreases when dysarthria severity increases. The linear association between the dysarthria severity and VARCO was statistically significant only in SBMA. As shown in Figure 3, there was an apparent decrease in VARCO with dysarthria severity in SBMA. However, this trend was mainly due to sparse distribution of the mild dysarthric speakers (PS < 5), with some speakers showing a high VARCO, similar to that of ALS speakers. No linear association was found between dysarthria severity and eventDUR in any condition. In ALS and PLS, three

clusters appear in the distribution (see Figure 3): Mild dysarthric speakers (PS < 7) showed eventDUR around 50–65 ms, moderate dysarthric speakers (7 < PS < 11) showed longer eventDUR between 65 and 85 ms with a few speakers between 70 and 85 ms, but a few speakers with more severe dysarthria (11 < PS < 13) showed eventDUR that were shorter (< 70 ms) than the moderate dysarthric speakers.

Discussion

This study explored the use of an acoustic measure, which indirectly captured vocal tract shape changes, to differentiate flaccid, spastic, and mixed spastic-flaccid dysarthria subtypes associated with SBMA, PLS, and ALS, respectively. Several findings indicate that the tool is efficient in describing articulatory differences between the three dysarthria subtypes, and the following sections discuss for each dysarthria subtype how the results of mean acoustic change, variability, and duration inform on these distinctions.

Table 4. Estimate, standard error (SE), and *t* and *p* values for the sequence's comparisons for the metric MEAN.

Conditions	Sequence's comparisons	Estimate	SE	<i>t</i> ratio	<i>p</i>
ALS	AJ-UJ	-0.0017	0.0002	-7.511	< .0001***
	AJ-WI	-0.0016	0.0002	-6.881	< .0001***
	UJ-WI	0.00016	0.0002	0.685	.77
CONTROL	AJ-UJ	-0.0049	0.0001	-27.596	< .0001***
	AJ-WI	-0.0052	0.0001	-28.656	< .0001***
	UJ-WI	-0.0002	0.0001	-1.231	.43
PLS	AJ-UJ	-0.0009	0.0003	-2.766	.01**
	AJ-WI	-0.0017	0.0003	-5.424	< .0001***
	UJ-WI	-0.0008	0.0003	-2.526	.031*
SBMA	AJ-UJ	-0.0021	0.0003	-6.631	< .0001***
	AJ-WI	-0.0019	0.0003	-6.271	< .0001***
	UJ-WI	0.0001	0.0003	0.360	.93

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

*Indicates a significance of *p* < .05. **Indicates a significance of *p* < .01. ***Indicates a significance of *p* < .001.

Table 5. Estimate, standard error (SE), and *t* and *p* values for the condition's comparisons for the metric VARCO.

Condition's comparison	VARCO								
	AJ			UJ			WI		
	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>
ALS-CONTROL	0.06 (0.02)	3.21	< .001***	0.16 (0.02)	7.69	< .0001***	0.12 (0.02)	5.68	< .0001***
ALS-PLS	0.04 (0.02)	1.48	.45	0.08 (0.03)	2.85	.02*	0.07 (0.02)	2.55	.05
ALS-SBMA	0.06 (0.02)	2.05	.17	0.11 (0.02)	3.94	< .001***	0.11 (0.02)	3.94	< .001***
CONTROL-PLS	-0.02 (0.02)	-0.94	.78	-0.08 (0.02)	-3.03	.01**	-0.04 (0.02)	-1.75	.29
CONTROL-SBMA	-0.01 (0.02)	-0.36	.98	-0.05 (0.02)	-1.94	.21	-0.01 (0.02)	-0.33	.98
PLS-SBMA	0.01 (0.03)	0.48	.96	0.03 (0.03)	0.91	.79	0.03 (0.03)	1.16	.64

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

*Indicates a significance of $p < .05$. **Indicates a significance of $p < .01$. ***Indicates a significance of $p < .001$.

Flaccid Dysarthria in SBMA

For flaccid dysarthria in SBMA, involving LMN system, it was hypothesized that temporal aspects of speech were reduced compared to controls as a consequence of motor weakness or as a strategy to compensate for this weakness (Duffy, 2019). Studying articulatory impairments in SBMA was novel in this research, as they have already been reported in LMN involvement due to other origins before (Duffy, 2019). No hypotheses were formulated concerning the amount and the variability of the acoustic change, as well as the relation between dysarthria severity and the outcome measures.

Mean Acoustic Change

Compared to speech of nondysarthric speakers, the speech of patients with SBMA showed a lower amount of acoustic energy change, suggesting diminished possibilities to change the vocal tract shape. As stated earlier, the acoustic changes, measured by the MFCCs, capture changes between the successive vocal tract configurations

required to produce the three-syllable sequences. A reduced amount of acoustic energy change was thus interpreted as a sign of hypoarticulation during the vowel–glide and glide–vowel sequences. Interestingly, signs of hypoarticulation were only found in the productions of the sequences /ujujuj/ and /wiwiwi/. These sequences specifically involve back–front tongue movements and rounded–unrounded lip movements. The marked amyotrophy and weakness of the tongue described in SBMA, causing swallowing problems (Banno et al., 2017; Mano et al., 2014) possibly explain why the alternating front–back movements of the tongue required for these sequences were difficult to achieve for the speakers with SBMA. Despite the reported jaw weakness in SBMA resulting in cases of jaw dropping (Larsen & Smith, 2005; Sumner & Fischbeck, 2002), speakers in the current study managed to preserve acoustic spectral energy changes during /ajajaj/. The observation that speakers with SBMA showed a tendency for larger values of acoustic energy change than the other groups during productions requiring jaw movements (see Figure 2) suggests a jaw aperture overshoot during /ajajaj/ resulting from poor control; this interpretation is merely speculative and must be

Table 6. Estimate, SE, and *t* and *p* values for the sequence's comparisons for the metric VARCO.

Conditions	Sequence's comparisons	Estimate	SE	<i>t</i> ratio	<i>p</i>
ALS	AJ-UJ	-0.095	0.0155	-6.159	< .0001***
	AJ-WI	-0.075	0.0153	-4.927	< .0001***
	UJ-WI	0.02035	0.0156	1.305	.39
CONTROL	AJ-UJ	-0.0042	0.0118	0.358	.93
	AJ-WI	-0.0209	0.0117	-1.781	.17
	UJ-WI	-0.02512	0.0118	-2.123	.08
PLS	AJ-UJ	-0.0539	0.0215	-2.510	.03*
	AJ-WI	-0.0432	0.0212	-2.037	.10
	UJ-WI	-0.0107	0.0215	0.499	.87
SBMA	AJ-UJ	-0.0390	0.0212	-1.842	.15
	AJ-WI	-0.02	0.0209	-0.957	.60
	UJ-WI	0.019	0.0212	0.897	.64

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

*Indicates a significance of $p < .05$. **Indicates a significance of $p < .01$. ***Indicates a significance of $p < .001$.

Table 7. Estimate, SE, and *t* and *p* values for the condition's comparisons for the metric eventDUR.

Condition's comparisons	eventDUR								
	AJ			UJ			WI		
	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>	Estimate (SE)	<i>t</i> ratio	<i>p</i>
ALS-CONTROL	13.11 (1.59)	8.26	< .0001***	10.56 (1.58)	6.67	< .0001***	11.38 (1.59)	7.16	< .0001***
ALS-PLS	3 (2.24)	1.34	.53	-1.79 (2.24)	-0.80	.85	-4.00 (2.24)	-1.78	.28
ALS-SBMA	13.17 (2.20)	5.99	< .0001***	10.32 (2.20)	4.69	< .0001***	9.74 (2.21)	4.41	< .001***
CONTROL-PLS	-10.10 (2.03)	-4.98	< .0001***	-12.35 (2.03)	-6.08	< .0001***	-15.39 (2.03)	-7.59	< .0001***
CONTROL-SBMA	0.06 (1.98)	0.03	1.00	-0.23 (1.98)	-0.10	.99	-1.64 (1.99)	-0.82	.84
PLS-SBMA	10.17 (2.54)	4	< .001***	12.11 (2.54)	4.77	< .0001***	13.75 (2.54)	5.41	< .0001***

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

***Indicates a significance of *p* < .001.

considered as an interesting line of future research, exploring the behavior of the jaw in speakers with SBMA.

The amount of acoustic change did not decrease with increased perceptually assessed dysarthria severity for this group of speakers with pure flaccid dysarthria. Compared to the other populations, there was a large diversity in speaker-specific patterns, as shown in Figure 3, which was not related to severity. Different possible explanations for this result are proposed. First, the findings might have been influenced by the way severity was assessed. The perceptual score indicated a composite measure of severity, not only related to articulatory dimensions. Therefore, the severity of dysarthria might have been rated on other prominent altered speech dimensions, such as voice quality or nasal resonance, which are particularly affected in SBMA (Tanaka et al., 2014, 2019). Second, it is speculated that the decrease of acoustic change was not affected by severity progression in this population because our sample did not cover the same range of severity

as the other populations. Indeed, SBMA patients usually present mild levels of dysarthria, and this was reflected in our population; only five moderate (vs. 13 mild) dysarthric patients were recruited.

Variability

Poor lingual mobility did not seem to be related to the stability of vocal tract shape changes. Indeed, except for a few speakers, SBMA speakers showed similar low variability values as controls and PLS speakers. Recall that the VARCO measure captures the articulatory stability of the successive syllables in the sequence. It was speculated that one of the reasons for this stability was due to the slow progression of this disease, allowing patients to find compensatory adjustments. This idea was supported by the high VARCO profiles of some of the mildest dysarthric SBMA speakers, while all speakers with more progression in the dysarthria (PS > 5) achieved to produce more stable acoustic patterns (see Figure 3).

Duration

Our findings do not support the notion that tongue weakness results in slow speech rate in flaccid dysarthria associated with SBMA as suggested in the literature for flaccid dysarthria due to other etiologies (Duffy, 2019). Speakers with pure flaccid dysarthria in SBMA showed the same temporal patterns as controls in all sequences possibly related to the fact that the group of SBMA patients was mildly dysarthric (PS < 7).

Spastic and Spastic-Flaccid Dysarthria in PLS and ALS

Mean Acoustic Change

Based on previous studies stated earlier on articulatory impairments in ALS and other pathologies involving

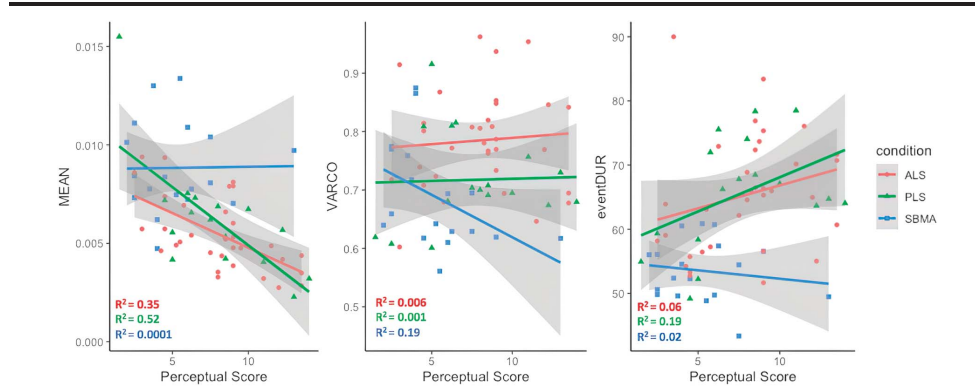
Table 8. Estimate, SE, and *t* and *p* values for the sequence's comparisons for the metric eventDUR.

Conditions	Sequence's comparison	Estimate	SE	z ratio	<i>p</i>
	AJ-WI	2.759	0.787	3.504	< .01**
	UJ-WI	-0.067	0.784	-0.086	.99
CONTROL	AJ-UJ	0.2761	0.536	0.515	.86
	AJ-WI	1.0331	0.540	1.913	.13
	UJ-WI	0.7570	0.537	1.410	.34
PLS	AJ-UJ	-1.9699	1.085	-1.816	.16
	AJ-WI	-4.2537	1.078	-3.946	< .001***
	UJ-WI	-2.2838	1.081	-2.113	.09
SBMA	AJ-UJ	-0.0266	1.053	-0.025	.99
	AJ-WI	-0.6747	1.068	-0.632	.80
	UJ-WI	-0.6481	1.068	-0.607	.82

Note. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

Indicates a significance of *p* < .01. *Indicates a significance of *p* < .001.

Figure 3. Relationships between the three acoustic measures (MEAN, VARCO, and eventDUR) and the dysarthria severity (indexed by the perceptual score taken as a discrete quantitative variable) for the three dysarthric populations. Shaded areas indicate 95% confidence interval of regression estimates. R^2 is the coefficient of determination. ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.



pure UMN dysfunction, it was expected that speakers with ALS and PLS showed a reduction in the degree of acoustic energy changes, implicating smaller vocal tract shape changes and thus hypoarticulation. This was indeed the case: Speakers with dysarthria associated with ALS and PLS both displayed a comparable low amount of acoustic change, which was even lower than observed for speakers with SBMA. For both groups, the acoustic energy differences declined with dysarthria severity and confirmed the findings on progressively reduced tongue movement range in speakers with ALS (Kuruvilla et al., 2012; Lee & Bell, 2018; Lee et al., 2018).

Compared to flaccid dysarthric speakers and nondysarthric speakers, the back-front sequences /ujujuj/ and /wiwiwi/ were especially affected, which is in agreement with the previous kinematic studies demonstrating a reduced articulatory range of tongue movements detected in the anterior-posterior dimension in ALS patients (Lee & Bell, 2018).

Compared to speakers with pure flaccid dysarthria associated with SBMA, however, both speakers with mixed spastic-flaccid and pure spastic dysarthria also displayed significant reduced acoustic energy changes in the sequence /ajajaj/. It is speculated that the absence of hypoarticulation in the /ajajaj/ sequence for the SBMA speakers is caused by the fact that for this sequence, compensation is still possible to achieve the appropriate opening and closing movements. Muscle weakness associated with LMN involvement only affects isolated muscles, but the spasticity typically associated with UMN involvement affects patterns of movements and coordination between them (Duffy, 2019). Impaired movement patterns and coordination probably explain the lower values of mean energy change in dysarthric speakers with UMN involvement. It is speculated that the similarities, found between dysarthric speakers associated with ALS and PLS, are originating as a consequence of their shared UMN involvement. Although studies have shown

Table 9. Slope estimate and bootstrap bca (bias-corrected and accelerated) confidence intervals (CIs, 95%) of the relationship between dysarthria severity level and acoustic measures MEAN, VARCO, and DURATION for each pathological group.

Variables	ALS	PLS	SBMA
	Lower bound CI < slope estimate < upper bound CI	Lower bound CI < slope estimate < upper bound CI	Lower bound CI < slope estimate < upper bound CI
MEAN	-0.0004 < -3.521e-04 < -0.0001	-0.0011 < -0.0005 < -0.0002	-0.0003 < 1.151e-05 < 0.0003
VARCO	-0.009 < 0.002 < 0.013	-0.015 < 0.0007 < 0.010	-0.028 < -0.014 < -0.004
eventDUR	-0.69 < 0.71 < 1.54	-0.13 < 1.06 < 2.49	-1.08 < -0.26 < 0.67

Note. When confidence intervals do not contain the value of 0, then the null hypothesis about slope equality to 0 is rejected, and it was assumed that there was evidence of a linear relationship between dysarthria severity of speech and variables (bold figures). ALS = amyotrophic lateral sclerosis; PLS = primary lateral sclerosis; SBMA = spinal and bulbar muscular atrophy.

that the jaw displayed exaggerated range of movement in ALS (Kuruville et al., 2012; Lee & Bell, 2018; Lee et al., 2018, 2020; Yunusova et al., 2008), it seemed that this compensation was not achieved by the ALS and PLS speakers in this study. A possible interpretation explaining the lack of compensation by ALS and PLS speakers is that these speakers may present jaw spasticity resulting in reduced range of jaw movements (for a review on spasticity, see the work of Synnot et al., 2017).

Variability

Whereas speakers with spastic and mixed dysarthria set themselves apart from speakers with flaccid dysarthria and nondysarthric speakers regarding the amount of acoustic energy change, they can be separated from each other further in terms of variability of acoustic energy change. While similar patterns of mean acoustic energy change was shown in speakers with spastic and mixed dysarthria, speakers with mixed dysarthria showed a much higher degree of variability overall, especially caused by the /ujujuj/ sequence. This great variability observed in patients with ALS is likely multifactorial. First, the well-known fatigue in ALS (Beukelman et al., 2011) might have contributed to higher variability, and second, the fact that the progression of this disease is very fast compared with PLS prevents speakers from establishing solid compensatory strategies, likely resulting in more variability. Finally, because both the UMN and LMN systems are affected in ALS resulting in mixed dysarthria, we speculate that productive compensation strategies are more difficult to achieve.

Duration

Based on the literature cited in the introduction, which demonstrated impaired temporal aspects in speech production, in ALS as well as in other pathologies involving pure UMN dysfunction, we expected slower sequence production in mixed and spastic dysarthria. Our results indeed confirmed that both spastic and mixed dysarthric speakers showed longer segment duration in the vowel–glide sequences than the controls and speakers with flaccid dysarthria. These results are comparable to those of Mefferd (2015) and Lee et al. (2018), who found, respectively, that the duration of the diphthong /ai/ in the word “kite” and /wi/ in the word “whip” was prolonged for speakers with mixed dysarthria. Interestingly, the current findings showed an interaction in the sense that the duration values for /wiwiwi/ were higher than /ajajaj/ for the spastic dysarthric speakers while the opposite was found for the mixed dysarthric speakers ($/ajajaj/ > /wiwiwi/$). It is speculated that the slower duration of the sequence /ajajaj/ for speakers associated with ALS was caused by

the fact that the jaw is especially affected in this disease, maybe because both UMN and LMN are involved. The exact reason for this finding, however, is not clear, and the authors cannot provide a satisfactory explanation for this interaction.

Both in ALS and PLS, speakers with more severe dysarthria showed a slower speech rate than speakers with milder dysarthria. The lack of association, however, between the temporal aspects and the severity in this study is contradictory to our expectation. Indeed, a link between severity and slow rate has been described in the literature, particularly in ALS (for instance, Allison et al., 2019; Lee & Bell, 2018; Lee et al., 2018). A possible explanation of the lack of association in this study is that eight patients with ALS and PLS, judged with more severe dysarthria ($11 < PS < 13$), demonstrated shorter eventDUR than patients who were judged less dysarthric ($7 < PS < 10$). Furthermore, one patient with ALS judged with mild dysarthria showed the longest eventDUR. While speech rate and intelligibility are usually employed as severity indices in ALS (Ball et al., 2002; Green et al., 2013; Kuruville et al., 2012; Lee et al., 2018), we used a generalized rating of speech with five dimensions of speech (intelligibility, prosody, voice quality, naturalness, and articulatory precision) making speech rate less important as a determining factor. It is possible that the severity of dysarthria of each patient was judged according to different dimensions, not specifically related to temporal aspects.

Limitation of the Study

One of the factors that complicates studies like the current one is that the rate of disease progression varies considerably across these diseases. ALS can be a very fast progressive disease, leaving little time to develop compensation strategies, whereas PLS and SBMA are typically very slow in the speed of progression. Since the dysarthria characteristics may be related not only to UMN or LMN involvement but also to the presence or absence of compensation strategies, our findings need to be considered with caution. In addition, our findings regarding the relation between severity and the outcome measures studied here likely differ from studies using severity indices such as speech rate or intelligibility. Finally, more balanced sample size across dysarthria severity continuum in each subtype would provide stronger conclusions about the relation between severity and the outcome measures.

Clinical Implications and Conclusions

The acoustic parameters used in this study partially differentiated among the dysarthria subtypes in relation to MNDs: Smaller vocal tract shape changes from one

articulatory configuration to the next were shown in flaccid dysarthria but to a less extent than in spastic and spastic-flaccid dysarthria. These latter showed similar acoustic patterns. We speculate that these similarities are due to their common spastic component. Yet, crucial differences between spastic and spastic-flaccid dysarthria were found in the stability of the acoustic patterns. In spastic-flaccid dysarthria, these patterns were much more variable, suggesting articulatory instability of the successive syllables in the sequence. The method used in the current study forms a promising clinical tool as a diagnostic marker of diminished vocal tract shape changes, interpreted as hypoarticulation here, even at a mild stage of dysarthria progression, and as an objective monitoring indicator of the disease progression in the bulbar territory in ALS and PLS. Future research goals that are interesting to pursue are investigating more in depth the relation between the current acoustic measures and articulatory patterns to better understand articulatory deficiencies in MNDs. Because this method does not require advanced instrumentation, the acoustic measures used in this study are well suited to assess vocal tract shape changes in a clinical setting. We are currently working on integrating this method in the MonPaGe assessment tool (Laganaro et al., 2021; Pernon et al., 2020).

Author Contributions

Nathalie Lévêque: Conceptualization (Equal), Data curation (Lead), Formal analysis (Lead), Funding acquisition (Equal), Investigation (Lead), Methodology (Equal), Software (Equal), Validation (Equal), Visualization (Equal), Writing – original draft (Lead), Writing – review & editing (Equal). **Anneke Slis:** Conceptualization (Equal), Data curation (Lead), Formal analysis (Equal), Methodology (Equal), Software (Equal), Validation (Supporting), Visualization (Supporting), Writing – original draft (Equal), Writing – review & editing (Equal). **Leonardo Lancia:** Conceptualization (Equal), Data curation (Equal), Formal analysis (Supporting), Methodology (Lead), Software (Lead), Validation (Equal), Visualization (Equal), Writing – review & editing (Supporting). **Gaëlle Bruneteau:** Conceptualization (Equal), Data curation (Supporting), Formal analysis (Supporting), Funding acquisition (Equal), Investigation (Supporting), Methodology (Supporting), Supervision (Supporting), Validation (Supporting), Visualization (Supporting), Writing – original draft (Supporting), Writing – review & editing (Supporting). **Cécile Fougeron:** Conceptualization (Equal), Data curation (Equal), Formal analysis (Equal), Funding acquisition (Equal), Investigation (Supporting), Methodology (Equal), Software (Supporting), Supervision (Lead), Validation (Equal), Visualization (Equal), Writing – original draft (Equal), Writing – review & editing (Equal).

Acknowledgments

This research was funded by Assistance Publique – Hôpitaux de Paris, Délégation de la Recherche Clinique et de l'Innovation (awarded to the first author), by the Swiss National Science Foundation, Sinergia program (CRSII5_173711, 10.2017-9.2020) and by two French government grants managed by the Agence Nationale de la Recherche. The first, under the program "Investissements d'Avenir" with the reference ANR-10-LABX-0083 and the second to the project PASDCODE with the reference ANR-235672. It contributes to the IdEx University of Paris - ANR-18-IDEX-0001. The authors are thankful to the participants for taking part in this project. The authors would also like to thank François Salachas, Nadine Le Forestier, Pierre-François Pradat, Timothée Lenglet, Maria Del Mar Amador, Adèle Hesters, Giorgia Querin for supporting patients' recruitment and Michaela Pernon, Claire Della Vedova, and Speech'n Co colleagues for their help in this project. The authors thank the reviewers of the article for their inspiring comments.

References

- Allison, K. M., Yunusova, Y., & Green, J. R. (2019). Shorter sentence length maximizes intelligibility and speech motor performance in persons with dysarthria due to amyotrophic lateral sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 28(1), 96–107. https://doi.org/10.1044/2018_AJSLP-18-0049
- Atsuta, N., Watanabe, H., Ito, M., Banno, H., Suzuki, K., Katsuno, M., Tanaka, F., Tamakoshi, A., & Sobue, G. (2006). Natural history of spinal and bulbar muscular atrophy (SBMA): A study of 223 Japanese patients. *Brain: A Journal of Neurology*, 129(6), 1446–1455. <https://doi.org/10.1093/brain/awl096>
- Auzou, P., & Rolland-Monnoury, V. (2006). *BECD: Batterie d'Évaluation clinique de la dysarthrie* [Clinical Dysarthria Assessment Battery].
- Ball, L. J., Beukelman, D. R., & Pattee, G. L. (2002). Timing of speech deterioration in people with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Medical Speech-Language Pathology*, 10(4), 231–235.
- Banno, H., Katsuno, M., Suzuki, K., Tanaka, S., Suga, N., Hashizume, A., Mano, T., Araki, A., Watanabe, H., Fujimoto, Y., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2017). Swallowing markers in spinal and bulbar muscular atrophy. *Annals of Clinical and Translational Neurology*, 4(8), 534–543. <https://doi.org/10.1002/acn3.425>
- Bates, D., Maechler, M., Bolker, B., & Walker, S. (2015). Fitting linear mixed-effects models using lme4. *Journal of Statistical Software*, 67(1), 1–48. <https://doi.org/10.18637/jss.v067.i01>
- Bede, P., & Finegan, E. (2018). Revisiting the pathoanatomy of pseudobulbar affect: Mechanisms beyond corticobulbar dysfunction. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 19(1–2), 4–6. <https://doi.org/10.1080/21678421.2017.1392578>
- Bede, P., & Pradat, P.-F. (2019). Editorial: Biomarkers and clinical indicators in motor neuron disease. *Frontiers in Neurology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.01318>

- Beukelman, D., Fager, S., & Nordness, A. (2011). Communication support for people with ALS. *Neurology Research International*, 2011, 1–6. <https://doi.org/10.1155/2011/714693>
- Brooks, B. R., Miller, R. G., Swash, M., Munsat, T. L., & World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases. (2000). El Escorial revisited: Revised criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Other Motor Neuron Disorders*, 1(5), 293–299. <https://doi.org/10.1080/146608200300079536>
- Caruso, A. J., & Burton, E. K. (1987). Temporal acoustic measures of dysarthria associated with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 30(1), 80–87. <https://doi.org/10.1044/jshr.3001.80>
- Cedarbaum, J. M., Stambler, N., Malta, E., Fuller, C., Hilt, D., Thurmond, B., & Nakanishi, A. (1999). The ALSFRS-R: A revised ALS functional rating scale that incorporates assessments of respiratory function. BDNF ALS Study Group (Phase III). *Journal of the Neurological Sciences*, 169(1–2), 13–21. [https://doi.org/10.1016/S0022-510X\(99\)00210-5](https://doi.org/10.1016/S0022-510X(99)00210-5)
- Charcot, J.-M., & Joffroy, A. (1869). *Deux cas d'atrophie musculaire progressive: Avec lésions de la substance grise et des faisceaux antéro-latéraux de la moelle épinière* [Two cases of progressive muscular atrophy with lesions of the grey matter and of the anterolateral fascicles of the white matter]. V. Masson.
- Clark, H. M., Duffy, J. R., Whitwell, J. L., Ahlskog, J. E., Sorenson, E. J., & Josephs, K. A. (2014). Clinical and imaging characterization of progressive spastic dysarthria. *European Journal of Neurology*, 21(3), 368–376. <https://doi.org/10.1111/ene.12271>
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1969a). Clusters of deviant speech dimensions in the dysarthrias. *Journal of Speech and Hearing Research*, 12(3), 462–496. <https://doi.org/10.1044/jshr.1203.462>
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1969b). Differential diagnostic patterns of dysarthria. *Journal of Speech and Hearing Research*, 12(2), 246–269. <https://doi.org/10.1044/jshr.1202.246>
- Davis, S. W., & Mermelstein, P. (1980). Comparison of parametric representations for monosyllabic word recognition in continuously spoken sentences. *IEEE Transactions on Acoustics, Speech, and Signal Processing*, 28(4), 357–366. <https://doi.org/10.1109/TASSP.1980.1163420>
- Darley, F. L., Aronson, A. E., & Brown, J. R. (1975). *Motor speech disorders*. Saunders.
- DePaul, R., & Brooks, B. R. (1993). Multiple orofacial indices in amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech and Hearing Research*, 36(6), 1158–1167. <https://doi.org/10.1044/jshr.3606.1158>
- Duffy, J. R. (2019). *Motor speech disorders e-book: Substrates, differential diagnosis, and management*. Elsevier Health Sciences.
- Finegan, E., Chipika, R. H., Li Hi Shing, S., Doherty, M. A., Hengeveld, J. C., Vajda, A., Donaghy, C., McLaughlin, R. L., Pender, N., Hardiman, O., & Bede, P. (2019). The clinical and radiological profile of primary lateral sclerosis: A population-based study. *Journal of Neurology*, 266(11), 2718–2733. <https://doi.org/10.1007/s00415-019-09473-z>
- Fox, J., & Weisberg, W. (2019). *An {R} companion to applied regression* (3rd ed.). Sage. <https://socialsciences.mcmaster.ca/jfox/Books/Companion/>
- Goldstein, L. (2019). The role of temporal modulation in sensorimotor interaction. *Frontiers in Psychology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fpsyg.2019.02608>
- Gordon, P. H., Cheng, B., Katz, I. B., Pinto, M., Hays, A. P., Mitsumoto, H., & Rowland, L. P. (2006). The natural history of primary lateral sclerosis. *Neurology*, 66(5), 647–653. <https://doi.org/10.1212/01.wnl.0000200962.94777.71>
- Green, J. R., Yunusova, Y., Kuruvilla, M. S., Wang, J., Pattee, G. L., Synhorst, L., Zinman, L., & Berry, J. D. (2013). Bulbar and speech motor assessment in ALS: Challenges and future directions. *Amyotrophic Lateral Sclerosis and Frontotemporal Degeneration*, 14(7–8), 494–500. <https://doi.org/10.3109/21678421.2013.817585>
- Hashizume, A., Banno, H., Katsuno, M., Hijikata, Y., Yamada, S., Inagaki, T., Suzuki, K., & Sobue, G. (2017). Quantitative assessment of swallowing dysfunction in patients with spinal and bulbar muscular atrophy. *Internal Medicine*, 56(23), 3159–3165. <https://doi.org/10.2169/internalmedicine.8799-16>
- Hirose, H., Kiritani, S., & Sawashima, M. (1982). Patterns of dysarthric movement in patients with amyotrophic lateral sclerosis and pseudobulbar palsy. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 34(2), 106–112. <https://doi.org/10.1159/000265636>
- Ince, P. G., Lowe, J., & Shaw, P. J. (1998). Review. *Neuropathology and Applied Neurobiology*, 24(2), 104–117. <https://doi.org/10.1046/j.1365-2990.1998.00108.x>
- Kennedy, W. R., Alter, M., & Sung, J. H. (1968). Progressive proximal spinal and bulbar muscular atrophy of late onset. A sex-linked recessive trait. *Neurology*, 18(7), 671–680. <https://doi.org/10.1212/WNL.18.7.671>
- Kent, R. D., Weismer, G., Kent, J. F., Vorperian, H. K., & Duffy, J. R. (1999). Acoustic studies of dysarthric speech: Methods, progress, and potential. *Journal of Communication Disorders*, 32(3), 141–180. [https://doi.org/10.1016/S0021-9924\(99\)00004-0](https://doi.org/10.1016/S0021-9924(99)00004-0)
- Koo, T. K., & Li, M. Y. (2016). A guideline of selecting and reporting intraclass correlation coefficients for reliability research. *Journal of Chiropractic Medicine*, 15(2), 155–163. <https://doi.org/10.1016/j.jcm.2016.02.012>
- Kuruvilla, M. S., Green, J. R., Yunusova, Y., & Hanford, K. (2012). Spatiotemporal coupling of the tongue in amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 55(6), 1897–1909. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2012\)11-0259](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2012)11-0259)
- Kuruvilla-Dugdale, M., & Chuquilin-Arista, M. (2017). An investigation of clear speech effects on articulatory kinematics in talkers with ALS. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 31(10), 725–742. <https://doi.org/10.1080/02699206.2017.1318173>
- Kuruvilla-Dugdale, M., & Mefferd, A. (2017). Spatiotemporal movement variability in ALS: Speaking rate effects on tongue, lower lip, and jaw motor control. *Journal of Communication Disorders*, 67, 22–34. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2017.05.002>
- Kuznetsova, A., Brockhoff, P. B., & Christensen, R. H. B. (2017). lmerTest package: Tests in linear mixed effects models. *Journal of Statistical Software*, 82(13), 1–26. <https://doi.org/10.18637/jss.v082.i13>
- Laganaro, M., Fougeron, C., Pernon, M., Levêque, N., Borel, S., Fournet, M., Catalano Chiuvi, S., Lopez, U., Trouville, R., Ménard, L., Burkhard, P. R., Assal, F., & Delvaux, V. (2021). Sensitivity and specificity of an acoustic- and perceptual-based tool for assessing motor speech disorders in French: The MonPaGe-screening protocol. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 35(11), 1060–1075. <https://doi.org/10.1080/02699206.2020.1865460>
- Langmore, S. E., & Lehman, M. E. (1994). Physiologic deficits in the orofacial system underlying dysarthria in amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech and Hearing Research*, 37(1), 28–37. <https://doi.org/10.1044/jshr.3701.28>
- Larsen, K., & Smith, T. A. (2005). “Jaw drop” as an atypical manifestation of Kennedy’s disease. *Ugeskrift for Laeger*, 167(35), 3310–3311.
- Lee, J., & Bell, M. (2018). Articulatory range of movement in individuals with dysarthria secondary to amyotrophic lateral

- sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 27(3), 996–1009. https://doi.org/10.1044/2018_AJSLP-17-0064
- Lee, J., Bell, M., & Simmons, Z. (2018). Articulatory kinematic characteristics across the dysarthria severity spectrum in individuals with amyotrophic lateral sclerosis. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 27(1), 258–269. https://doi.org/10.1044/2017_AJSLP-16-0230
- Lee, J., Rodriguez, E., & Mefferd, A. (2020). Direction-specific jaw dysfunction and its impact on tongue movement in individuals with dysarthria secondary to amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 63(2), 499–508. https://doi.org/10.1044/2019_JSLHR-19-00174
- Lenth, R. (2020). *emmeans: Estimated marginal means, aka least-squares means. R package version 1.5.1*. <https://CRAN.R-project.org/package=emmeans>
- Logrosino, G., Traynor, B. J., Hardiman, O., Chio, A., Couratier, P., Mitchell, J. D., Swinger, R. J., Beghi, E., & EURALS. (2008). Descriptive epidemiology of amyotrophic lateral sclerosis: New evidence and unsolved issues. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 79(1), 6–11. <https://doi.org/10.1136/jnnp.2006.104828>
- Mano, T., Katsuno, M., Banno, H., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Araki, A., Hijikata, Y., Tanaka, S., Takatsu, J., Watanabe, H., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2015). Head lift exercise improves swallowing dysfunction in spinal and bulbar muscular atrophy. *European Neurology*, 74(5–6), 251–258. <https://doi.org/10.1159/000431088>
- Mano, T., Katsuno, M., Banno, H., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Araki, A., Watanabe, H., Tanaka, S., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2014). Tongue pressure as a novel biomarker of spinal and bulbar muscular atrophy. *Neurology*, 82(3), 255–262. <https://doi.org/10.1212/WNL.0000000000000041>
- Mefferd, A. (2015). Articulatory-to-acoustic relations in talkers with dysarthria: A first analysis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 58(3), 576–589. https://doi.org/10.1044/2015_JSLHR-S-14-0188
- Mefferd, A. S., & Dietrich, M. S. (2020). Tongue- and jaw-specific articulatory changes and their acoustic consequences in talkers with dysarthria due to amyotrophic lateral sclerosis: Effects of loud, clear, and slow speech. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 63(8), 2625–2636. https://doi.org/10.1044/2020_JSLHR-19-00309
- Mefferd, A. S., Green, J. R., & Pattee, G. (2012). A novel fixed-target task to determine articulatory speed constraints in persons with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Communication Disorders*, 45(1), 35–45. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2011.09.002>
- Mefferd, A. S., Pattee, G. L., & Green, J. R. (2014). Speaking rate effects on articulatory pattern consistency in talkers with mild ALS. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 28(11), 799–811. <https://doi.org/10.3109/02699206.2014.908239>
- Miyata, M., Kakeda, S., Hashimoto, T., Korogi, Y., & Adachi, H. (2019). The facial nerve atrophy with spinal and bulbar muscular atrophy patients (SBMA): Three case reports with 3D fast imaging employing steady-state acquisition (FIESTA). *Journal of the Neurological Sciences*, 406, 116461. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2019.116461>
- O'Shaughnessy, D. (1987). *Speech communications: Human and machine* (1st ed.). Addison-Wesley.
- Ozawa, Y., Shimoto, O., Ishizaki, F., & Watanori, T. (2001). Symptomatic differences in decreased alternating motion rates between individuals with spastic and with ataxic dysarthria: An acoustic analysis. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, 53(2), 67–72. <https://doi.org/10.1159/000052656>
- Pedroso, J. L., Vale, T. C., Barsottini, O. G., Oliveira, A. S. B., & Espay, A. J. (2018). Perioral and tongue fasciculations in Kennedy's disease. *Neurological Sciences*, 39(4), 777–779. <https://doi.org/10.1007/s10072-017-3170-8>
- Pernon, M., Lévêque, N., Delvaux, V., Assal, F., Borel, S., Fougeron, C., Trouville, R., & Laganaro, M. (2020). MonPaGe, a French-language computerized screening tool for the perceptual and acoustic evaluation of motor speech disorders. *Speech Therapy*, 281, 171–197.
- Portnoy, R. A., & Aronson, A. E. (1982). Diadochokinetic syllable rate and regularity in normal and in spastic and ataxic dysarthric subjects. *The Journal of Speech and Hearing Disorders*, 47(3), 324–328. <https://doi.org/10.1044/jshd.4703.324>
- Praat: Doing Phonetics by Computer. (n.d.). Retrieved October 12, 2020, from <https://www.fon.hum.uva.nl/praat/>
- Praline, J., Guennoc, A.-M., Malinge, M.-C., de Toffol, B., & Corcia, P. (2008). Pure bulbar motor neuron involvement linked to an abnormal CAG repeat expansion in the androgen receptor gene. *Amyotrophic Lateral Sclerosis*, 9(1), 40–42. <https://doi.org/10.1080/17482960701553915>
- Pringle, C. E., Hudson, A. J., Munoz, D. G., Kiernan, J. A., Brown, W. F., & Ebers, G. C. (1992). Primary lateral sclerosis. Clinical features, neuropathology and diagnostic criteria. *Brain: A Journal of Neurology*, 115(2), 495–520. <https://doi.org/10.1093/brain/115.2.495>
- Querin, G., Bede, P., Marchand-Pauvert, V., & Pradat, P.-F. (2018). Biomarkers of spinal and bulbar muscle atrophy (SBMA): A comprehensive review. *Frontiers in Neurology*, 9, 844. <https://doi.org/10.3389/fneur.2018.00844>
- Rong, P., Loucks, T., Kim, H., & Hasegawa-Johnson, M. (2012). Relationship between kinematics, F2 slope and speech intelligibility in dysarthria due to cerebral palsy. *Clinical Linguistics & Phonetics*, 26(9), 806–822. <https://doi.org/10.3109/02699206.2012.706686>
- Rong, P., Yunusova, Y., Richburg, B., & Green, J. R. (2018). Automatic extraction of abnormal lip movement features from the alternating motion rate task in amyotrophic lateral sclerosis. *International Journal of Speech-Language Pathology*, 20(6), 610–623. <https://doi.org/10.1080/17549507.2018.1485739>
- Rong, P., Yunusova, Y., Wang, J., & Green, J. R. (2015). Predicting early bulbar decline in amyotrophic lateral sclerosis: A speech subsystem approach. *Behavioural Neurology*, 2015, Article ID 183027, 1–11. <https://doi.org/10.1155/2015/183027>
- Roy, N., Leeper, H. A., Blomgren, M., & Cameron, R. M. (2001). A description of phonetic, acoustic, and physiological changes associated with improved intelligibility in a speaker with spastic dysarthria. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 10(3), 274–290. [https://doi.org/10.1044/1058-0360\(2001\)025](https://doi.org/10.1044/1058-0360(2001)025)
- Schölderle, T., Staiger, A., Lampe, R., Strecker, K., & Ziegler, W. (2016). Dysarthria in adults with cerebral palsy: Clinical presentation and impacts on communication. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 59(2), 216–229. https://doi.org/10.1044/2015_JSLHR-S-15-0086
- Shellikeri, S., Green, J. R., Kulkarni, M., Rong, P., Martino, R., Zinman, L., & Yunusova, Y. (2016). Speech movement measures as markers of bulbar disease in amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 59(5), 887–899. https://doi.org/10.1044/2016_JSLHR-S-15-0238
- Slis, A., Lévêque, N., Fougeron, C., Pernon, M., Assal, F., & Lancia, L. (2021). Analysing spectral changes over time to identify articulatory impairments in dysarthria. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 149(2), 758–769. <https://doi.org/10.1121/10.0003332>

- Stipancic, K. L., Palmer, K. M., Rowe, H. P., Yunusova, Y., Berry, J. D., & Green, J. R. (2021). "You say severe, I say mild": Toward an empirical classification of dysarthria severity. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *64*(12), 4718–4735. https://doi.org/10.1044/2021_JSLHR-21-00197
- Sumner, C. J., & Fischbeck, K. H. (2002). Jaw drop in Kennedy's disease. *Neurology*, *59*(9), 1471–1472. <https://doi.org/10.1212/01.WNL.0000033325.01878.13>
- Synnot, A., Chau, M., Pitt, V., O'Connor, D., Gruen, R. L., Wasiak, J., Clavisi, O., Pattuwage, L., & Phillips, K. (2017). Interventions for managing skeletal muscle spasticity following traumatic brain injury. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, *11*, CD008929. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD008929.pub2>
- Tanaka, S., Banno, H., Katsuno, M., Suzuki, K., Suga, N., Hashizume, A., Mano, T., Araki, A., Watanabe, H., Adachi, H., Tatsumi, H., Yamamoto, M., & Sobue, G. (2014). Distinct acoustic features in spinal and bulbar muscular atrophy patients with laryngospasm. *Journal of the Neurological Sciences*, *337*(1–2), 193–200. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2013.12.010>
- Tanaka, S., Hashizume, A., Hijikata, Y., Yamada, S., Ito, D., Nakayama, A., Kurita, K., Yogo, H., Banno, H., Suzuki, K., Yamamoto, M., Sobue, G., & Katsuno, M. (2019). Nasometric scores in spinal and bulbar muscular atrophy—Effects of palatal lift prosthesis on dysarthria and dysphagia. *Journal of the Neurological Sciences*, *407*, 116503. <https://doi.org/10.1016/j.jns.2019.116503>
- Tomik, B., & Guillof, R. J. (2010). Dysarthria in amyotrophic lateral sclerosis: A review. *Amyotrophic Lateral Sclerosis*, *11*(1–2), 4–15. <https://doi.org/10.3109/17482960802379004>
- Tomik, B., Partyka, D., Sulek, A., Kurek-Gryz, E. A., Banach, M., Ostrowska, M., Zaremba, J., Figlewicz, D. A., & Szczudlik, A. (2006). A phenotypic-genetic study of a group of Polish patients with spinal and bulbar muscular atrophy. *Amyotrophic Lateral Sclerosis*, *7*(2), 72–79. <https://doi.org/10.1080/17482960600664839>
- Turner, G. S., & Weismer, G. (1993). Characteristics of speaking rate in the dysarthria associated with amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *36*(6), 1134–1144. <https://doi.org/10.1044/jslr.3606.1134>
- Turner, M. R., Barohn, R. J., Corcia, P., Fink, J. K., Harms, M. B., Kiernan, M. C., Ravits, J., Silani, V., Simmons, Z., Statland, J., van den Berg, L. H., Mitsumoto, H., & Delegates of the 2nd International PLS Conference. (2020). Primary lateral sclerosis: Consensus diagnostic criteria. *Journal of Neurology, Neurosurgery, & Psychiatry*, *91*(4), 373–377. <https://doi.org/10.1136/jnnp-2019-322541>
- Weismer, G., Laures, J. S., Jeng, J.-Y., Kent, R. D., & Kent, J. F. (2000). Effect of speaking rate manipulations on acoustic and perceptual aspects of the dysarthria in amyotrophic lateral sclerosis. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, *52*(5), Article 201–219. <https://doi.org/10.1159/000021536>
- Yunusova, Y., Graham, N. L., Shellikeri, S., Phuong, K., Kulkarni, M., Rochon, E., Tang-Wai, D. F., Chow, T. W., Black, S. E., Zinman, L. H., & Green, J. R. (2016). Profiling speech and pausing in amyotrophic lateral sclerosis (ALS) and frontotemporal dementia (FTD). *PLOS ONE*, *11*(1), Article e0147573. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0147573>
- Yunusova, Y., Green, J. R., Greenwood, L., Wang, J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2012). Tongue movements and their acoustic consequences in amyotrophic lateral sclerosis. *Folia Phoniatrica et Logopaedica*, *64*(2), 94–102. <https://doi.org/10.1159/000336890>
- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Ball, L. J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2010). Kinematics of disease progression in bulbar ALS. *Journal of Communication Disorders*, *43*(1), 6–20. <https://doi.org/10.1016/j.jcomdis.2009.07.003>
- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Pattee, G. L., & Zinman, L. (2013). Speech in ALS: Longitudinal changes in lips and jaw movements and vowel acoustics. *Journal of Medical Speech-Language Pathology*, *21*(1), 1–13.
- Yunusova, Y., Plowman, E. K., Green, J. R., Barnett, C., & Bede, P. (2019). Clinical measures of bulbar dysfunction in ALS. *Frontiers in Neurology*, *10*. <https://doi.org/10.3389/fneur.2019.00106>
- Yunusova, Y., Weismer, G., Westbury, J. R., & Lindstrom, M. J. (2008). Articulatory movements during vowels in speakers with dysarthria and healthy controls. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, *51*(3), 596–611. [https://doi.org/10.1044/1092-4388\(2008\)043](https://doi.org/10.1044/1092-4388(2008)043)
- Ziegler, W., & von Cramon, D. (1986). Spastic dysarthria after acquired brain injury: An acoustic study. *The British Journal of Disorders of Communication*, *21*(2), 173–187. <https://doi.org/10.3109/13682828609012275>

Analysing spectral changes over time to identify articulatory impairments in dysarthria

A. Slis,¹ N. Lévêque,^{2,a)} C. Fougeron,^{1,b)} M. Pernon,^{3,a)} F. Assal,³ and L. Lancia¹

¹LPP, UMR 7018, CNRS/University Sorbonne-Nouvelle, Paris, France

²APHP, Department of Neurology, Pitié-Salpêtrière Hospital, ALS Reference Center, France

³Department of Clinical Neurosciences, Geneva University Hospital, Switzerland

ABSTRACT:

Identifying characteristics of articulatory impairment in speech motor disorders is complicated due to the time-consuming nature of kinematic measures. The goal is to explore whether analysing the acoustic signal in terms of total squared changes of Mel-Frequency Cepstral Coefficients (TSC_MFCC) and its pattern over time provides sufficient spectral information to distinguish mild and moderate dysarthric French speakers with Amyotrophic Lateral Sclerosis (ALS) and Parkinson's Disease (PD) from each other and from healthy speakers. Participants produced the vowel-glide sequences /ajajaj/, /ujujuj/, and /wiwiwi/. From the time course of TSC_MFCCs, event-related and global measures were extracted to capture the degree of acoustic change and its variability. In addition, durational measures were obtained. For both mild and moderately impaired PD and ALS speakers, the degree of acoustic change and its variability, averaged over the complete contour, separated PD and ALS speakers from each other and from healthy speakers, especially when producing the sequences /ujujuj/ and /wiwiwi/. Durational measures separated the moderate ALS from healthy and moderate PD speakers. Using the approach on repetitive sequences targeting the lingual and labial articulators to characterize articulatory impairment in speech motor disorders is promising. Findings are discussed against prior findings of articulatory impairment in the populations studied.

© 2021 Author(s). All article content, except where otherwise noted, is licensed under a Creative Commons Attribution (CC BY) license (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>). <https://doi.org/10.1121/10.0003332>

(Received 12 September 2020; revised 25 November 2020; accepted 17 December 2020; published online 2 February 2021)

[Editor: Paavo Alku]

Pages: 758–769

I. INTRODUCTION

To better understand processes underlying articulatory behavior, scientists rely on a variety of techniques to extract vocal tract information from the speaker. Articulatory behavior is measured kinematically with, for example, ultrasound or electromagnetic articulography, or supra-laryngeal characteristics extrapolated from the acoustic output. Kinematic data are more difficult to acquire compared to acoustic data. Articulatory studies on a large set of speakers demand time and expertise for the acquisition and the analyses of the data, and specialized equipment, which is frequently not on location in, for example, hospitals. Consequently, acoustic data as a source of information about vocal tract changes during speech are a desirable and fast alternative to study this population. It has been recognized, however, that frequently no reliable one-to-one relationship exists between the actual movements in the vocal tract and the acoustic outcomes and that articulation affects the acoustic output in a nonlinear manner, making it difficult to relate acoustic information to articulatory events (see, e.g., Whitfield and Goberman, 2014; Yunusova *et al.*, 2012). The current

study uses Mel Frequency Cepstral Coefficients (MFCC) to capture vocal tract shape information (Davis and Mermelstein, 1980; Khan *et al.*, 2014; Rudzicz *et al.*, 2016). These coefficients represent the information contained in the acoustic spectrum. They are computed by applying a discrete cosine transform to the coefficients of a power spectrum whose frequency bands are equally spaced on the Mel scale (see Sec. II C 1 for a more detailed explanation). The changes over time of MFCCs are theorized to acoustically represent articulatory movement behavior (see, e.g., Goldstein, 2019). The objective of the current study, therefore, is to extract indirect information about vocal tract fluctuations from the acoustic output in terms of the total squared change of Mel Frequency Cepstral Coefficients (TSC_MFCCs) and their change over time to capture global articulatory impairment, and to validate whether the proposed method provides sufficient information to distinguish dysarthric speakers at different levels of articulatory impairment from each other and from healthy speakers.

Parkinson's Disease (PD) and Amyotrophic Lateral Sclerosis (ALS) are both neurodegenerative diseases that eventually result in dysarthria, which is a motor speech disorder characterized by impairments at the respiratory, laryngeal, and articulatory level (Darley *et al.*, 1975; Duffy, 2014). Speech of individuals with PD is identified,

^{a)}Also at: LPP, UMR 7018, CNRS/U. Sorbonne-Nouvelle, Paris, France.

^{b)}Electronic mail: cecile.fougeron@sorbonne-nouvelle.fr, ORCID: 0000-0002-1192-5848.

among other things, by reduced loudness, hoarse and breathy voice, momentary rushes of speech, variable speech rate, less variability of pitch, imprecise articulation, and dysfluent speech production, resulting in hypokinetic dysarthria (Darley *et al.*, 1969; Skodda *et al.*, 2013; Tjaden, 2008). Speech of ALS patients is marked by a strained, breathy, and hoarse voice, excessive prolonged speech segments, and imprecise consonants and hypernasality, resulting in mixed flaccid-spastic dysarthria (Darley *et al.*, 1969; Duffy, 2014; Hanson *et al.*, 2011; Mefferd and Dietrich, 2020; Rong *et al.*, 2019; Tomik and Guiloff, 2010; Yunusova *et al.*, 2019). Although both PD and ALS individuals develop motor speech disorders, the underlying etiology is different. PD is a slowly progressing neurodegenerative disease caused by deficient cortico-basal ganglia-thalamic neural circuits (Duffy, 2014). ALS is a quickly progressing neurodegenerative disorder involving deteriorating upper and lower motor neurons in the cerebral cortex, brainstem, and spinal cord (Kiernan *et al.*, 2011). The strained and hoarse voice quality and slow speaking rate in ALS speakers are associated with an impairment in the function of the upper motor neurons (UMN) and are referred to as spastic dysarthria. The breathy and weak voice quality, hypernasality, nasal emissions and articulatory imprecision indicate an impairment in the function of the lower motor neurons (LMN) and are referred to as flaccid dysarthria (Tomik and Guiloff, 2010). Despite their different etiology and the fact that their speech productions at the level of breathing, voice and articulation are perceived as different, many of the acoustic and kinematic characteristics of dysarthric speech of PD and ALS individuals are similar. Kinematically, smaller movement amplitudes and slower peak velocity of articulatory movements are typical in PD and ALS speakers (Ackermann and Ziegler, 1991; Ackermann *et al.*, 1997; Caligiuri, 1989; Connor *et al.*, 1989; Delvaux *et al.*, 2016; Forrest and Weismer, 1995; Forrest *et al.*, 1989; Lansford and Liss, 2014; Lee *et al.*, 2017; Mefferd, 2015; Shellikeri *et al.*, 2016; Walsh and Smith, 2012; Yunusova *et al.*, 2008; Yunusova *et al.*, 2012). Acoustically, reduced $F2$ slopes and smaller vowel space have been measured in both PD and ALS speakers (Forrest *et al.*, 1989; Kim *et al.*, 2009; Lansford and Liss, 2014; Lee *et al.*, 2017; Mefferd, 2015; Skodda *et al.*, 2012; Walsh and Smith, 2012; Whitfield and Goberman, 2014; Yunusova *et al.*, 2012). Consequently, even though speech productions of individuals with PD and ALS are perceptually very distinct, the impairments at the articulatory level of different types of dysarthria have been very difficult to classify objectively based on the “traditional” acoustic markers such as acoustic vowel space, $F2$ slope, or $F0$ range (Kim *et al.*, 2011). One of the factors that potentially affects the outcomes of acoustic studies is the lack of sensitivity of the individual measures employed. For instance, isolating and relying solely on formant frequency contours is not only time consuming and susceptible to error (Shadle *et al.*, 2016; Whitfield and

Goberman, 2014), but also ignores other potentially relevant sources of acoustic information reflecting changes in vocal tract shape. This study explores the feasibility of considering the complete shape of the spectral envelope and its patterns of change over time by extracting MFCCs (Davis and Mermelstein, 1980; Fletcher *et al.*, 2017; Goldstein, 2019; Rudzicz *et al.*, 2016), thus avoiding *a priori* assumptions about the important features of a spectrum. Although other techniques using the complete shape of the spectrum possibly describe articulatory behavior successfully as well, the strength of MFCCs lies in the fact that they provide a non-redundant representation of spectral information that captures the relevant perceptual, articulatory, and phonological characteristics of the speech signal (Davis and Mermelstein, 1980; Khan *et al.*, 2014; Rudzicz *et al.*, 2016). This success is related, among others, to the fact that MFCCs separate the source from the filter, the latter containing acoustic information about the vocal tract resonator (Rudzicz *et al.*, 2016). MFCCs are commonly used in the field of speech technology (Huang *et al.*, 2001; Khan *et al.*, 2014; Lokesh and Devi, 2019; Rudzicz *et al.*, 2012; Rudzicz *et al.*, 2016) and have been promising in identifying and classifying speech disorders (Fletcher *et al.*, 2017; Khan *et al.*, 2014; Rudzicz *et al.*, 2016).

Recently, it has been shown that the time course of TSC_MFCC correlates consistently across speakers with the degree of vocal tract change, as represented by the changes over time of articulator marker positions in X-ray microbeam images (Goldstein, 2019). To the authors’ knowledge, the TSC_MFCC measure has not been applied for clinical or research purposes. Based on evidence that TSC_MFCCs closely represents the degree of change of vocal tract shape, the working hypothesis for the current study is that the resulting patterns of successive TSC_MFCCs are associated with kinematic events in the spatial domain.¹ Consequently, it is expected that several derivatives of this acoustic measure successfully describe articulatory impairment in ALS and PD speech.

II. METHODS

A. Participants

A total of 129 French speakers participated in the study in the context of a larger project.² Twenty-six French speakers with PD were recruited at the Hôpitaux Universitaires in Geneva, Switzerland, 33 French speakers with ALS were recruited at the Pitié-Salpêtrière University Hospital in Paris, and 70 healthy French speakers (40 from Paris, 30 from Geneva) were recruited as control participants. The healthy speakers were matched in age and gender on a group level.

All ALS patients were diagnosed by neurologists of the “ALS and other rare MNDs center” of the Pitié-Salpêtrière University Hospital (Paris, France). ALS patients were diagnosed based on the El Escorial criteria (Brooks *et al.*, 2000). Functional signs of bulbar involvement according to the

bulbar subscore of the ALSFRS-R scale had to be present (Cedarbaum *et al.*, 1999). Subjects were not included if they showed evidence of cognitive impairment and/or had respiratory issues according to a routine neurologist examination. Patients with severe dysarthria were also excluded (Perceptual Score, PS > 14, see below). All PD patients were taking Levodopa and two (one mild and one moderate) on a combination of Levodopa and Carbidopa. During the recordings, all the PD speakers were on the Med-ON stage.

The PD and ALS speakers were diagnosed with dysarthria by certified speech-language pathologists, responsible for the recruitment, and only participants identified with mild to moderate dysarthria were included in the cohorts. Two expert speech-language pathologists judged the severity of dysarthria on five dimensions on a 5-point scale: voice quality, phonetic realisation, prosody, intelligibility, and naturalness of speech (Auzou and Rolland-Monnoury, 2019). This evaluation was done separately by the two judges on 3–5-min audio recordings of a spontaneous speech sample of each patient, presented in a random order. The five sub-scores were then summed into a PS ranging from 0 to 20 (0 = normal to 20 = severe).

The interrater measurements were performed at the level of the overall/20 score. Intraclass Correlation (ICC) estimates and their 95% confidence intervals were calculated based on a single-rating, absolute-agreement, two-way random-effects model (Koo and Li, 2016). The overall reliability score between the two raters was high (ICC = 0.93, $p < 0.001$, 95%-Confidence Interval: 0.89 < ICC < 0.96). For ALS speakers the reliability was excellent (ICC = 0.94, $p < 0.001$, 95%-Confidence Interval: 0.87 < ICC < 0.97) and for the PD population the reliability was good (ICC = 0.86, $p < 0.01$, 95%-Confidence Interval: 0.71 < ICC < 0.93). Because of the high reliability scores, the two PS scores were averaged. Following Auzou and Rolland-Monnoury (2019), the PS score was used to define a group with mild dysarthria (PS 1–6) and a group with moderate dysarthria (PS 6–14). The distribution of the population per sub-groups is described in Table I.

B. Task and stimuli

The participants produced onomatopoeic expressions made of glides and vowels, which are quite naturally

produced in French: “aïe aïe aïe” /ajajaj/ and “ouille ouille ouille”/ujujuj/ (both meaning “ouch ouch ouch”) and “oui oui oui” /wiwiwi/ (“yes yes yes”). These sequences are characterized by continuous articulatory movements and are rich in transitional acoustic information. These three sequences also targeted different alternative vocal tract shapes: successive opening-closing with the tongue body and the jaw moving from the open /a/ to the palatal /j/ in /ajajaj/, successive back-front movements of the tongue and rounding-unrounding of the lips from the back rounded /u/ to the unrounded palatal /j/ for /ujujuj/ and the labio-velar /w/ to the unrounded front /i/. These last two sequences also differed in syllabic structure—a nucleus-coda structure for /ujujuj/ and onset-nucleus structure for /wiwiwi/. Because of this set of sequences targeting different articulatory and acoustic patterns, the material was also tested for its ability to capture different distorted articulations.

Speakers were instructed to produce the vowel-glide expressions presented in their orthographic forms (e.g., “oui oui oui”) as naturally as possible, at a comfortable speaking rate, and in a continuous manner (i.e., with no pause between the three “oui”). Examples were given if this last instruction was not understood. The three sequences were presented four times in a random order resulting in 12 trials per speaker. All the productions were recorded with a microphone (SM35-XLR, Shure) located at a distance of 2–3 cm (sampling rate of 44.1 kHz), via an external audio card (scarlett-2i4, Focusrite) in a quiet room and stored on a laptop.

C. Acoustic analysis

1. Extracting the TSC_MFCC as a measure of acoustic change

The onset and offset of the complete sequences /ajajaj/, /ujujuj/, and /wiwiwi/ were manually segmented in PRAAT (Boersma and Weenink, 2020) and if speakers produced more than one sequence during one trial, the first production was selected. Next, MATLAB scripts, developed at the Laboratoire de Phonétique et Phonologie (LPP), analyzed the selected sequences as follows. The annotated sound files were first resampled to 16 kHz and the resulting signal was

TABLE I. Distribution of the population (ALS, PD, and HEALTHY), severity (Mild, Moderate), and sex [Female (F) and Male (M)], with mean age (Age), and perceptual score (PS). Standard deviations of age are indicated in parentheses and minimum and maximum age are indicated between brackets. N = number of speakers in each group.

	ALS				PD				HEALTHY	
	Mild		Moderate		Mild		Moderate		F	M
	F	M	F	M	F	M	F	M		
N	6	4	7	16	6	13	2	5	41	29
Age	67.33 (4.22) [61-73]	62.75 (12.71) [50-79]	64 (5.07) [56-72]	62.38 (13.2) [36-86]	70.69 (10.07) [55-80]	72.63 (9.14) [5088]	84 (9.19) [75-93]	77.8 (5.00) [70-83]	62.94 (19.1) [23-90]	58.77 (20.75) [25-90]
PS	4.21 (1.1)	4.38 (1.13)	9.79 (1.87)	9.59 (2.22)	2.83 (1.22)	3.23 (1.39)	7.75 (1.41)	8.05 (0.97)		

pre-emphasised. To obtain the TSC_MFCCs (see also Goldstein, 2019, for a similar approach), the Fourier spectra were calculated from the individual segmented waveforms with a 25 ms window sliding over time in 2 ms steps. To target spectral information maximally relevant to the chosen linguistic material, only spectral coefficients between 300 and 4500 Hz were retained for further analyses. The trimmed spectra were processed with a filter bank composed of 20 triangular filters spaced evenly on the Mel-frequency scale, which is based on the filter characteristics of the human ear (O’Shaughnessy, 1987). The individual steps are illustrated in Fig. 1.

To obtain the final MFCCs, the resulting spectral energy values were log-transformed and submitted to a discrete cosine transform (Davis and Mermelstein, 1980). Changes in the first coefficient reflect changes in average spectral energy and this coefficient was

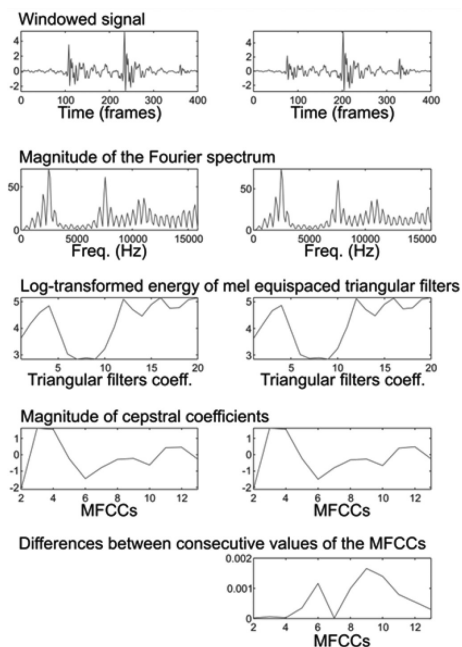


FIG. 1. Individual steps in the calculating the final envelope of total squared spectral energy changes. The topmost row displays two consecutive portions of 25 ms (400 samples) windowed signal 2 ms apart. The second row from the top displays the magnitude of the Fourier transform coefficients, while the third line from the top displays the log transformed energy levels captured by the MEL scale filter bank. The fourth row from the top displays the magnitude of the cepstral coefficients, while the bottom row displays the 12 squared differences between the corresponding values obtained from the analysis of the two portions of signal. The total degree of spectral change is obtained by summing these 12 squared differences [Eq. (1)].

discarded, leaving only the coefficients 2–13. Each MFCC was low pass filtered with a Butterworth filter of 12 Hz. Finally, to obtain the TSC_MFCCs, squared differences of cepstral energy values in consecutive frames were computed and summed at each time step according to the following equation:

$$MFCC_k = \sum_{i=2}^{13} (f(i, k + 1) - f(i, k))^2. \quad (1)$$

In which $f(i, k)$ is the i th MFCC at frame k .

Plotting the TSC_MFCC values over time results in a TSC_MFCC contour representing the degree of spectral energy change from one 25 ms frame to the next, in 2 ms steps (Fig. 2). A large degree of energy change between two windows, i.e., a high TSC_MFCC value, shows up as a peak in the contour, which is expected to coincide with transitions from vowel-to-glide and glide-to-vowel. Because the working hypothesis for the current study was that the resulting patterns of successive TSC_MFCCs were associated with vocal tract changes, the magnitudes of maxima and minima in this TSC_MFCC contour were theorized to correlate with the speed at which the vocal tract changes and consequently are treated as velocity values in the current study (see for a similar approach using the amplitude envelope: He and Dellwo, 2017). To capture the relevant maximum and minimum values from this velocity contour and ignore other irrelevant events due to small instabilities during the vowel, the resulting contours were low pass filtered with a cut off frequency of 14 Hz.³

The lowest velocity values (minima) coincide with steady states of the vowel and glide and the highest values (maxima) coincide with the points of maximum spectral change during the transition from vowel to glide and vice versa (see Fig. 2).

2. Measures extracted from the TSC_MFCC contour

Two sets of measures were extracted from the velocity contours. The first set of “event-related measures”(i) was established by identifying the individual local minima and maxima in the velocity contour, while the second set of “global measures” (ii) was extracted from the complete velocity contour, without any prior sub-segmentation.

(i) Maximum and minimum velocity values in the contour, defined as ‘events’ in the contour, were automatically determined by a peak-picking algorithm in MATLAB. Values were manually removed when two maxima occurred close together in time (see Fig. 2). In this case, the highest value was selected. The first maximum in the contour marks an energy change from silence to onset of the first segment and this value was disregarded as well (see Fig. 2). In addition to the maximum velocity values, local minima were automatically identified on either side of a maximum and were theorized to coincide with the steady state of a segment.

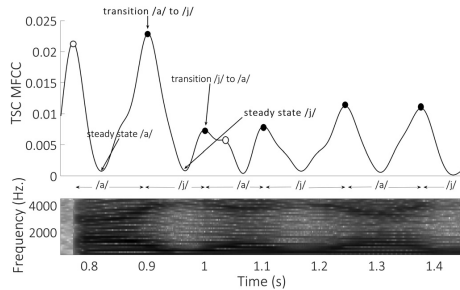


FIG. 2. Example of /ajajaj/ produced by a healthy speaker. Upper part: The vertical axis represents the degree of spectral energy change from one 25 ms frame to the next in 2 ms steps. The lower part displays the corresponding spectrogram in the range from 300 to 4500 Hz; horizontal axis shows time (s). Clear maxima in the contour occur during the formant transitions between the segment's steady states, visible on the spectrogram. The first maximum coincides with the onset of the first vowel and is disregarded in the analysis. The filled dots indicate selected maxima and open dots the disregarded maxima. The corresponding vowel and glide are shown between the two parts with arrows indicating the start and end.

Two measures were extracted from the maximum and minimum values, resembling articulatory measures in the spatial dimension of movement tracking data, and measures of the speed of acoustic change in He and Dellwo (2017):

- **Positive dynamics (POSDYN)** captured the steepness of degree of acoustic changes from acoustic steady-states, i.e., the minimum events, to subsequent points of maximal acoustic changes, i.e., the maximum events (similar to a positive velocity slope). The measure corresponded to the difference between a minimum and the following maximum velocity value divided by the duration from the interval between these minimum and maximum. The steepness was calculated instead of the actual maximum value to correct for the time it takes to reach this maximum. Some speakers reached a

maximum over a longer stretch of time, which was captured in the steepness measure. In Fig. 3, this has been indicated with “4a”/“1a.”

- **Negative dynamics (NEGDYN)** captured the steepness of the degree of acoustic energy changes from the point of maximal acoustic change (maxima) to the following acoustic steady-state (minima), similar to a negative velocity slope. It was computed as the difference between maximum and following minimum velocity value divided by the time from this maximum to minimum event. In Fig. 3, this has been indicated with “4b”/“1b.”

(ii) Global measurements were based on the complete velocity contour from the first minimum (segment 1 steady-state) to the last minimum (segment 6 steady-state). In this approach, the average degree of acoustic change in the sequence, taken as the mean of the complete contour values (*MEANCH*) and their coefficient of variation (standard deviation calculated from the complete contour values divided by *MEANCH*: *COVAR*), captured the modulation in acoustic change and its variability within the sequence.

Two additional measures related to duration of the event- and sequence production were extracted:

- **eventDUR**: from the “event-related measures,” the duration from each minimum to the next minimum was calculated and corresponded to the time between one segment steady state to the next steady state to capture segmental transition duration. This interval corresponded to “2” in Fig. 3.
- **globalDUR**: the total duration from first to the last minimum was computed to capture the duration of the whole sequence by taking the sum of the five eventDUR values in a sequence.

D. Statistical analysis

First, values below the first percentile and over the 99th percentile were removed from the event-related measures.

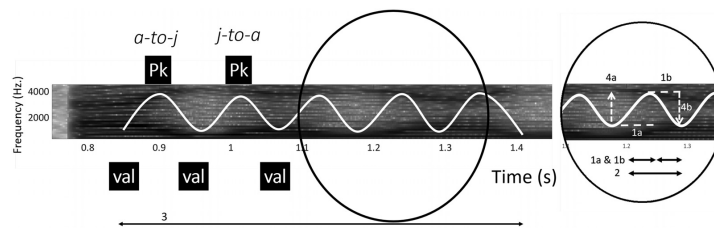


FIG. 3. Spectrogram of /ajajaj/ with a manually added “expected” velocity contour. The 5 peaks (Pk) coincide with the 5 transitions from segment: a1 to j1, j1 to a2, a2 to j2, j2 to a3, and a3 to j3. The isolated circle explains the extracted measures: “1a” and “1b” are the durations from minimum to maximum velocity and maximum to minimum velocity respectively and are used to calculate: 4a/1a = positive dynamics (POSDYN) and 4b/1b = negative dynamics (NEGDYN). “2” marks the steady state to steady state duration (val-to-val: eventDUR). The long arrow “3” indicates the duration of the complete contour.

TABLE II. LMM results for the fixed effects “population” and “sequence” and their interaction for the three dependent variables “POSDYN,” “NEGDYN,” and “eventDUR,” extracted from the event-related measures, and the three variables “MEANCH,” “COVAR,” and “globalDUR,” extracted from the global measures.

	Event-related measures					
	POSDYN		NEGDYN		eventDUR	
	χ^2	p	χ^2	p	χ^2	p
Population	91.06	<0.001	93.24	<0.001	62.90	<0.001
Sequence	1299.50	<0.001	1159.80	<0.001	27.88	<0.001
Population:Sequence	256.82	<0.001	214.08	<0.001	18.72	0.01
	Global measures					
	MEANCH		COVAR		globalDUR	
	χ^2	p	χ^2	p	χ^2	p
Population	100.55	<0.001	50.42	<0.001	69.98	<0.001
Sequence	866.04	<0.001	26.38	<0.001	20.74	<0.001
Population:Sequence	247.03	<0.001	69.91	<0.001	26.01	<0.01

Linear mixed models (LMM) were performed using R (R Core Team, 2020) to examine how the event-related and global measures derived from the velocity contour were predicted by the “population” (ALS_mild, ALS_moderate, PD_mild, PD_moderate, Healthy⁴), and “sequence” types (/ajajaj/, /ujujuj/, /wiwiwi/), with a random intercept per “speaker,” according to the model: $\text{lmer}[(\text{AM} \sim \text{population} + \text{sequence} + \text{population:sequence} + (1|\text{Speaker}))]$.

P -values estimates for linear regressions were based on Satterthwaite approximations through the *lmerTest*-function (Kuznetsova et al., 2017). The threshold at which

an effect was considered significant was set to $p < 0.05$. Likelihood ratio tests, as implemented in the *anova*-function, were performed to check main effects of each fixed factor and interactions. *Post hoc* comparisons were computed using the *lsmeans*-function from the library “emmeans” (Lenth, 2016). The following six contrasts were selected: Healthy versus ALS_mild, Healthy versus ALS_moderate, Healthy versus Parkinson_mild, Healthy versus Parkinson_moderate, ALS_mild versus Parkinson_mild, and ALS_moderate versus Park_moderate. P -values were adjusted by adopting the False Discovery Rate criterion (Benjamini and Hochberg, 1995).⁵

III. RESULTS

For all the event-related and global measures, the fixed effects “population,” “sequence,” and the interaction between the two were significant. Table II summarizes the individual χ^2 and p values of the fixed effects. As expected, the three sequences tested showed different TSC_MFCC patterns. /ajajaj/ was characterized by smaller values of “MEANCH,” “COVAR,” “POSDYN,” and “NEGDYN,” meaning that the degree of spectral change was smaller and less steep than the other two sequences, while /wiwiwi/ differed from /ujujuj/ with higher “POSDYN” and “NEGDYN” values and shorter duration. More interestingly, there is a population and population by sequence type interaction on most of the measures. These results will be reported in detail below. Pairwise comparisons between subgroups are summarized in Tables III and IV and presented in more detail in Tables V and VI in the Appendix.

TABLE III. Results of the LMM model, testing the effects of population (Healthy, ALS_mild, ALS_moderate, PD_mild, and PD_moderate) and sequence (/ajajaj/ (AJ), /ujujuj/ (UJ), and /wiwiwi/ (WI)) on the variables “POSDYN,” and “NEGDYN,” for event-related analyses, and “MEANCH,” and “COVAR,” for the global analyses. The results are indicated with ns = not significant, (*) = trend, * = $p < 0.05$, ** = $p < 0.01$, *** = $p < 0.001$. < and > specify the directions of significance based on the two groups in the header. The light gray boxes indicate the variables that separated all the groups from the healthy and ALS mild from PD mild successfully; dark gray boxes mark the variables that separated mild and moderate ALS speakers from the other groups.

Spatial measures							
Event-related							
		Healthy ALS_mild	Healthy ALS_moderate	Healthy PD_mild	Healthy PD_moderate	PD_mild ALS_mild	PD_moderate ALS_moderate
POSDYN ($R^2 = 0.45$)	AJ	>*	>***	ns	>*	>*	ns
	UJ	>***	>***	ns	>***	>***	ns
	WI	>***	>***	>**	>***	>***	ns
NEGDYN ($R^2 = 0.42$)	AJ	>*	>***	ns	>*	>*	ns
	UJ	>***	>***	ns	>***	>***	ns
	WI	>***	>***	>*	>***	>***	ns
global							
MEANCH ($R^2 = 0.77$)	AJ	>(*)	>***	ns	>(*)	ns	ns
	UJ	>***	>***	ns	>***	>***	ns
	WI	>***	>***	>**	>***	>***	ns
COVAR ($R^2 = 0.40$)	AJ	<*	<*	ns	ns	<*	ns
	UJ	<***	<***	ns	ns	<***	<***
	WI	ns	<***	ns	ns	<*	<***

TABLE IV. Results of the LMM model testing the effects of population on the variables “eventDUR” and “globalDUR” for each sequence /ajajaj/ (AJ), /ujujuj/ (UJ) and /wiwiwi/ (WI). The results are indicated with ns = not significant, (*) = trend, * = $p < 0.05$, ** = $p < 0.01$, *** = $p < 0.001$. < and > specify the directions of significance based on the two groups in the header.

Durational measures							
		Healthy ALS_mild	Healthy ALS_moderate	Healthy PD_mild	Healthy PD_moderate	PD_mild ALS_mild	PD_moderate ALS_moderate
EventDUR ($R^2 = 0.27$)	AJ	ns	<***	ns	ns	ns	<***
	UJ	ns	<***	ns	ns	ns	<*
	WI	ns	<***	ns	ns	ns	<**
GlobalDUR ($R^2 = 0.65$)	AJ	ns	<***	ns	ns	ns	<**
	UJ	ns	<***	ns	ns	ns	ns
	WI	ns	<***	ns	ns	ns	<**

A. Event-related measures

The two measures “POSDYN” and “NEGDYN” separated mild and moderately dysarthric ALS and PD speakers from each other and from the healthy speakers, especially in the productions of /wiwiwi/. Decreasing values were observed in the order: Healthy speakers > mild PD > mild ALS, and Healthy speakers > moderate PD and ALS. This means that the speech of healthy speakers showed a steeper degree of spectral energy change than the other groups, indicating that the vocal tract changes during the transitions were larger and/or reached the target position faster. Compared to mild ALS speakers, the mild PD speakers showed higher values in steepness of spectral energy change. Moderate ALS and PD showed the lowest values but were not different from each other. Although productions of /ujujuj/ and /ajajaj/ resulted in higher values for the healthy speakers than most disordered speakers, these sequences did not result in significantly different values for healthy speakers compared to mild PD, and moderate PD compared to moderate ALS.

B. Global measures

Inspecting the results in Table III and Fig. 4, similar patterns emerged for the global measures taking the complete contour into account as the event-related measures. The mild and moderate PD and ALS speakers differed consistently from healthy speakers in “MEANCH” values in the productions of /wiwiwi/ as follows: Healthy speakers > mild PD > mild ALS and Healthy speakers > moderate PD and ALS. The values for healthy speakers are in these instances significantly higher than the ones for the dysarthric population, meaning that there is more overall acoustic change in the productions of the healthy speakers. The moderate PD and ALS speakers showed the lowest “MEANCH” values, meaning the least overall acoustic change. And again, the measures that separated the healthy speakers from the PD and ALS speakers, also differentiated between mild PD and mild ALS in the production of /ujujuj/ and /wiwiwi/; the speakers with mild ALS showed significantly lower “MEANCH” than the mild PD speakers.

COVAR (The Coefficient of variation) separated mild and moderate ALS (which POSDYN, NEGDYN and MEANCH failed to do) from healthy, mild, and moderate PD speakers, especially during productions of /ujujuj/. COVAR values increased as follows: Healthy, mild, and moderate PD speakers < mild and moderate ALS. This implies that both groups of ALS speakers showed more variable TSC_MFCC values than the PD and healthy speakers.

C. Durational measures

Differences related to duration of the speech productions were found mostly for the ALS speakers, at a moderate level of impairment, as compared to the healthy and PD speakers.

At a moderate level of impairment, ALS speakers showed significantly longer event durations (eventDUR) for all the sequences, indicating that the complete transition from steady state vowel to steady state glide was longer (see Table IV and Fig. 5). The whole duration of the sequence (globalDUR) captured also the altered speech rate of the moderate ALS speakers as compared to the healthy speakers for all sequence types, but only for /ajajaj/ and /wiwiwi/ as compared to the moderate PD speakers.

IV. DISCUSSION

Our working hypothesis was that the contours derived from the changeover time of TSC_MFCC values indirectly conveyed information about underlying vocal tract shape changes, and that these changes would be different in the speech of healthy, mildly, and moderately dysarthric speakers with ALS and PD. Our findings show that the proposed measure successfully reveals differences between the groups and the results provide encouraging evidence that TSC_MFCCs captures acoustic subtleties in the signal that allow us to differentiate mildly and moderately dysarthric ALS and PD speech from the healthy ones and from each other effectively.

Before discussing the important findings, it is noted that the study distinguished between the event-related measures

“POSDYN” and “NEGDYN,” which were corrected for duration from steady-state to steady-state, and the global measure “MEANCH.” It should be noted, however, that the values for “POSDYN” and “NEGDYN” likely were not affected by the duration from steady-state to steady-state because the outcomes for “MEANCH” were identical to the outcomes for “POSDYN” and “NEGDYN.” In addition, durational data indicated that only moderate ALS speakers differed from healthy speakers on this dimension. Thus, one may argue that “NEGDYN” and “POSDYN,” which resulted both in higher values for healthy speakers compared to other speakers, indicated that the speech of healthy speakers differed from that of other populations only in the magnitude of the spectral change peaks. Therefore, the following discussion focusses on the results from “POSDYN,” “NEGDYN,” and “MEANCH” in terms of degree of spectral change.

Because the acoustic measure is not directly describing kinematic events, findings from earlier kinematic studies are first discussed to show that the proposed measure indeed captured properties linked to articulatory impairment in these dysarthric populations. First, the most consistent differences between groups were found when speakers produced the sequences /ujujuj/ and /wiwiwi/, which involves a front-back lingual and rounding/unrounding movements. For ALS speakers, the finding that the degree of spectral change was much lower than for the healthy speakers in these sequences, even at a mild level of severity, suggests smaller vocal tract changes and is consistent with earlier kinematic findings that demonstrated that lingual articulation is limited, especially in the posterior-anterior dimension (Lee *et al.*, 2017; Lee and Bell, 2018). Second, our study showed that mild PD speakers also realised /wiwiwi/ productions differently from healthy speakers, suggesting difficulties with these sequences at the earlier stages of dysarthria for this group as well. Individuals with PD have been shown to experience perioral stiffness (Caligiuri, 1987; Chu *et al.*, 2015). This likely affected the production of /wiwiwi/ more than the other sequences in the current study, as /wiwiwi/ involves both lip rounding and spreading. Although producing /ujujuj/ also involves a degree of lip rounding and unrounding, PD speakers did not differ from healthy speakers. A possible explanation is linked to the coarticulatory differences between these sequences. While /j/ is clearly sensitive to labial coarticulation allowing the full /ujujuj/ sequence to be produced on a single rounding gesture, the labial coarticulation is minimal in the /wiwiwi/ and its articulation requires a more complex alternation between rounded and unrounded lip positions. It would be interesting to examine the effect of articulatory complexity by employing alternating motion rate task in a follow-up study. This task is frequently used to test maximum motor performance to reveal neurological deficits and it has been shown, for example, that speakers with ALS face difficulty in adapting to the higher motor commands

on the articulatory system (Eshghi *et al.*, 2019). Depending on the type of neurodegenerative disease, different levels of adaptation are expected. Finally, the differences in degree of spectral change during productions of /ajajaj/ between mild ALS patients and mild PD and healthy speakers were not as salient as for the other sequences. This finding could be explained by the fact that the jaw serves as a compensating articulator for ALS speakers (Green *et al.*, 2013; Lee *et al.*, 2020; Mefferd, 2015; Yunusova *et al.*, 2013) and the deteriorating effects on lingual and bilabial articulatory control are thus longer obscured due to the efficiency of this articulator in supporting compensatory strategies /ajajaj/ sequences. The inherent lower degree of spectral changes for /ajajaj/ compared to the other two sequences might have played a role as well, causing a “floor” effect; the effect of the vocal tract changes between /a/ and /j/ on the extracted measures might not have been large enough to result in a significant difference between the different groups.

The type of sequence chosen to separate the different groups of dysarthric speakers is crucial and the study showed that especially /wiwiwi/ productions were affected in ALS and PD speakers. This stimulus dependent result is in accordance with Kim *et al.* (2009) who also found that the magnitude of the F2 slope differences between healthy and dysarthric PD speakers depended on the chosen material. Yunusova *et al.* (2008) revealed differences in kinematic measures as well depending on the spoken material suggesting differences in the role of individual articulators when producing words with diverse complexity of movement behavior.

Although the mild PD speakers also differed from the healthy speakers in the sense that they showed smaller degree of spectral change, they still showed larger degrees of change than the mild ALS speakers. The current metric of spectral energy change is successful in separating dysarthric speech of PD and ALS, possibly because the metric does not disregard any acoustic information which potentially reflects changes in vocal tract shape.

Whereas the degrees of acoustic change failed to distinguish moderate ALS from moderate PD, mild and moderate ALS showed much higher variability in acoustic change, and thus more variable vocal tract shape changes, compared to healthy and mild and moderate PD speakers, especially when producing /ujujuj/. This is an interesting finding which differs from findings of Kuruvilla-Dugdale and Mefferd (2017). In their kinematic study they found that mild and moderately dysarthric ALS speakers had less variable articulatory movements compared to healthy speakers, while only severely dysarthric speakers showed more spatiotemporal articulatory variability. Kuruvilla-Dugdale and Mefferd (2017) calculated spatiotemporal index variability across 12 repetitions of a sentence. Compared to healthy speakers, ALS patients in their study were thus less variable in their movement patterns across

repetitions of complete sentences and the method did not capture within-stimulus variability. Our study measured variability within a given sequence and the higher variability values likely reflect impairment at the level of execution. Methodological differences thus likely account for these different findings and more research is needed to examine variability within and across stimuli in speakers with motor speech disorders such as ALS.

Although moderate ALS speakers showed longer acoustic transitions between the individual segments and longer overall sequence measures than moderate PD and healthy speakers, duration values did not differ in the mild and healthy groups. These findings confirm evidence that dysarthric speech of ALS, especially at a more severe stage of dysarthria, is characterised by slower articulation and speaking rate, (Green *et al.*, 2013; Liss *et al.*, 2009; Yunusova *et al.*, 2008; Yunusova *et al.*, 2010; Yunusova *et al.*, 2012) and thus did not make it an efficient measure in our study to separate mild ALS from mild PD and healthy speakers.

It is concluded that TSC_MFCC measures correlated well with the findings observed on articulatory data in earlier studies investigating the two groups of motor speech disorders. Thus, it is tentatively assumed that the TSC_MFCC measure captures differences in vocal tract changes linked to

articulatory impairments successfully. Whereas the durational measures were a less sensitive measure, the measures of variability and degree of spectral change show a promising potential in differentiating mild and moderate dysarthric speakers from each other and from the healthy population. Using these measures as a potential diagnostic tool for these two dysarthria types showing quite different speech distortion types is relatively straightforward. The vowel-glides sequences are globally easy to produce for the patients and are well suited to capture acoustic changeover time.

Future studies will focus on the feasibility of this approach to separate other dysarthria types and/or speech impairments. In addition, the results need to be validated cross-linguistically by including other varieties of French and other languages.

ACKNOWLEDGMENTS

The study was funded by the Swiss National Science Foundation, Sinergia program (CRSII5_173711, 10.2017-9.2020) and by a grant from Assistance Publique—Hôpitaux de Paris, Délégation de la Recherche Clinique et de l’Innovation (DRCI) to the second author. We thank the reviewers of the manuscript for their inspiring comments and all the participants of this study.

APPENDIX

TABLE V. β , standard error (SE), t , and p values for the event-related measures for the six comparisons between groups.

	POSDYN											
	AJ				UJ				WI			
	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
Healthy ALS_mild	10.72	4.16	2.57	0.03	19.84	4.15	4.78	<0.0001	30.71	4.17	7.37	<0.0001
Healthy ALS_moderate	16.14	2.96	5.46	<0.0001	34	2.96	11.47	<0.0001	36.09	2.96	12.19	<0.0001
Healthy Park_mild	-0.84	3.18	-0.26	0.79	-1.57	3.18	-0.49	0.62	8.54	3.19	2.68	<0.01
Healthy Park_moderate	11.15	4.87	2.29	0.03	24.65	4.87	5.07	<0.0001	29.06	4.88	5.95	<0.0001
ALS_mild PD_mild	-11.56	4.81	-2.40	0.03	-21.41	4.8	-4.46	<0.0001	-22.16	4.82	-4.60	<0.0001
ALS moderate PD_moderate	-4.99	5.31	-0.94	0.42	-9.35	5.3	-1.76	0.09	-7.03	5.32	-1.32	0.19
	NEGDYN											
	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
	Healthy ALS_mild	11.75	4.17	2.82	0.01	20.33	4.15	4.90	<0.0001	31.6	4.17	7.58
Healthy ALS_moderate	16.46	2.96	5.56	<0.0001	32.75	2.97	11.03	<0.0001	37.01	2.96	12.48	<0.0001
Healthy Park_mild	-1.01	3.19	-0.32	0.75	-2.32	3.18	-0.73	0.46	7.56	3.2	2.36	0.02
Healthy Park_moderate	11.1	4.88	2.28	0.03	24.17	4.87	4.96	<0.0001	29.11	4.89	5.96	<0.0001
ALS_mild PD_mild	-12.76	4.82	-2.65	0.02	-22.66	4.8	-4.72	<0.0001	-24.04	4.82	-4.99	<0.0001
ALS moderate PD_moderate	-5.36	5.31	-1.01	0.38	-8.59	5.31	-1.62	0.13	-7.9	5.32	-1.49	0.14
	eventDUR											
	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
	Healthy ALS_mild	-0.01	0.01	-1.98	0.10	-0.01	0.01	-1.71	0.13	-0.01	0.01	-1.19
Healthy ALS_moderate	-0.03	0.00	-9.11	<0.0001	-0.03	0.00	-6.90	<0.0001	-0.03	0.00	-8.53	<0.0001
Healthy Park_mild	0.00	0.00	-0.35	0.73	0.00	0.00	-0.32	0.75	0.00	0.00	-0.20	0.85
Healthy Park_moderate	-0.01	0.01	-1.24	0.26	-0.01	0.01	-2.19	0.09	-0.01	0.01	-1.76	0.16
ALS_mild PD_mild	0.01	0.01	1.48	0.21	0.01	0.01	1.27	0.24	0.01	0.01	0.90	0.44
ALS moderate PD_moderate	0.03	0.01	3.94	<0.0001	0.01	0.01	1.84	0.13	0.02	0.01	3.15	<0.0001

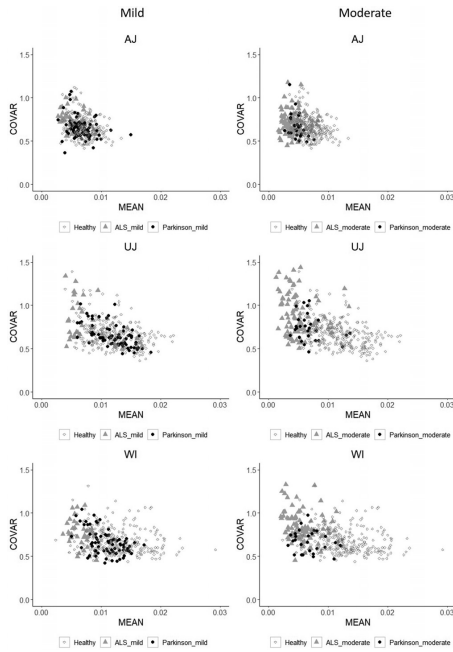


FIG. 4. Plot of mean values on the horizontal axis and the COVAR values on the vertical axis comparing the mild and moderate PD and ALS with Healthy speakers.

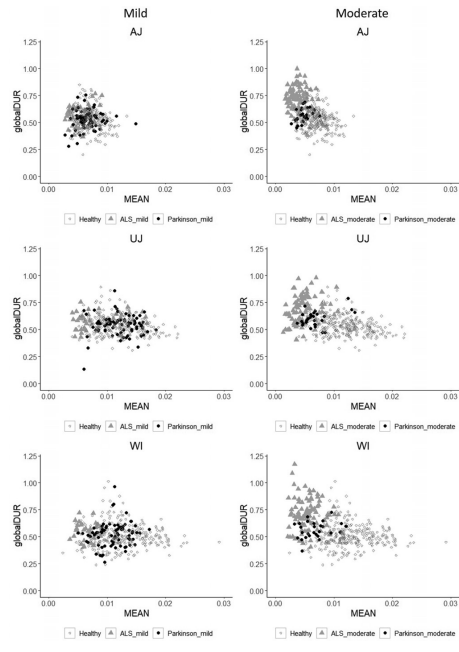


FIG. 5. Plot of MEANCH values of TSC_MFCC values over one sequence on the horizontal axis and the globalDUR values (seconds) on the vertical axis comparing the mild and moderate PD and ALS with Healthy speakers.

TABLE VI. β , SE, t , and p values for the global measures for the six comparisons between groups.

	MEANCH											
	AJ				UJ				WI			
	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
Healthy ALS_mild	171.93	78.2	2.20	0.06	355.00	78.20	4.54	<0.0001	599.30	78.2	7.67	<0.0001
Healthy ALS_moderate	294.78	55.6	5.30	<0.0001	692.83	55.6	12.46	<0.0001	714.48	55.6	12.46	<0.0001
Healthy Park_mild	26.73	59.8	0.44	0.66	-9.43	59.80	-0.16	0.87	178.46	59.9	2.98	<0.01
Healthy Park_moderate	214.15	91.7	2.34	0.06	505.55	91.70	5.52	<0.0001	580.73	91.7	6.34	<0.0001
ALS_mild PD_mild	-145.19	90.5	-1.61	0.16	-364.42	90.5	-4.03	<0.001	-420.83	90.5	-4.65	<0.0001
ALS moderate PD_moderate	-80.63	99.9	-0.81	0.50	-187.28	99.9	-1.87	0.07	-133.75	99.9	-1.34	0.18
	COVAR											
	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
Healthy ALS_mild	-0.09	0.03	-2.58	0.03	-0.12	0.03	-3.42	<0.01	-0.07	0.03	-2.03	0.07
Healthy ALS_moderate	-0.06	0.02	-2.38	0.04	-0.23	0.02	-9.21	<0.0001	-0.16	0.02	-6.44	<0.0001
Healthy Park_mild	0.01	0.03	0.58	0.67	0.01	0.03	0.54	0.59	0.02	0.03	0.79	0.51
Healthy Park_moderate	-0.02	0.04	0.39	0.69	-0.08	0.04	-1.89	0.07	0.01	0.04	0.26	0.79
ALS_mild PD_mild	0.10	0.04	2.61	0.03	0.13	0.04	3.31	<0.01	0.09	0.04	2.27	0.05
ALS moderate PD_moderate	0.04	0.04	0.96	0.51	0.15	0.04	3.38	<0.01	0.17	0.04	3.82	<0.001

globalIDUR

	β	SE	t.ratio	p	β	SE	z.ratio	p	β	SE	z.ratio	p
Healthy ALS_mild	-0.05	0.03	-1.85	0.13	-0.04	0.03	-1.51	0.20	-0.03	0.03	-1.12	0.39
Healthy ALS_moderate	-0.19	0.02	-9.40	<0.0001	-0.14	0.02	-7.01	<0.0001	-0.19	0.02	-9.52	<0.0001
Healthy Park_mild	-0.01	0.02	-0.32	0.75	0.00	0.02	-0.19	0.85	-0.01	0.02	-0.66	0.59
Healthy Park_moderate	-0.04	0.03	-1.29	0.24	-0.07	0.03	-1.99	0.10	-0.06	0.03	-1.76	0.16
ALS_mild PD_mild	0.04	0.03	1.39	0.24	0.04	0.03	1.19	0.28	0.02	0.03	0.54	0.59
ALS moderate PD_moderate	0.14	0.04	4.04	<0.001	0.07	0.04	2.08	0.10	0.13	0.04	3.68	<0.001

¹Spectral energy changes are not spatial in the sense that these are acoustic descriptors and not kinematic; however, in this study, we refer to them as “spatial” as they correlate well with kinematic measures (Goldstein, 2019).

²See <https://www.unige.ch/fapse/mospeed/>. For the patient data collection, ethics were approved by the “commission cantonale d’éthique de la Recherche (CCER), Direction Générale de la Santé, République et Canton de Genève” (PD) and the AHPH Ethics Committee (NCT03560661) in accordance with the 1964 Helsinki declaration and its later amendments (ALS). For the healthy control speakers, ethics were approved by the Faculty of Psychology (Switzerland), University of Geneva, and by the CPP SudOuest et OutreMer (ID_RCB: 2019-A02553-54) (France). Prior to inclusion, study participants provided informed consent.

³Examining different cut-off values showed that a higher frequency cut-off frequently resulted in a contour with too many valleys and peaks, not relevant for the vowel-glide and glide-vowel productions; a lower value, on the other hand, frequently resulted in instances in which relevant peaks and valleys were missed.

⁴To exclude the possibility that the healthy French speakers from Paris differed from the French speakers in Geneva due to regional differences, an analysis was run on the dependent variables “POSDYN”, “NEG DYN” and “eventDUR” with the speaker’s origin as fixed effect. No differences on any of these measures were found between the speakers from Paris and Geneva.

⁵The False Discovery Rate is the proportion of tests that may give a significant result by chance (i.e., the number of false discoveries) over (divided by) the number of tests in the experiments (the maximum number of discoveries). If p^i is the i th smallest P -value out of N total P -values, the quantity $q^i = p^i N/i$ represents the number of expected false positives based on the p -value, divided by the total number of positives accepted at that same P -value. To correct for the lack of monotonicity between q and p , each q^i is substituted by the smallest q^k with $i > k$ (i.e., by the smallest q obtained by a P -value which was ranked after p^i).

Ackermann, H., Konczak, J., and Hertrich, I. (1997). “The temporal control of repetitive articulatory movements in Parkinson’s disease,” *Brain Lang.* **56**(2), 312–319.

Ackermann, H., and Ziegler, W. (1991). “Articulatory deficits in parkinsonian dysarthria: An acoustic analysis,” *J. Neurol. Neurosurg. Psychiatr.* **54**(12), 1093–1098.

Auzou, P., and Rolland-Monnoury, V. (2019). *BECD: Batterie D’évaluation Clinique de la Dysarthrie [Clinical Dysarthria Assessment Battery]*, Ortho Edition (Isbergues, France).

Benjamini, Y., and Hochberg, Y. (1995). “Controlling the false discovery rate: A practical and powerful approach to multiple testing,” *J. R. Statistical Soc. Ser. B (Methodological)* **57**(1), 289–300.

Boersma, P., and Weenink, D. (2021). “Praat: Doing phonetics by computer [computer program].” Version 6.0.13, http://www.fon.hum.uva.nl/praat/manual/FAQ_How_to_cite_Praat.html (Last viewed 2 January 2021).

Brooks, B. R., Miller, R. G., Swash, M., and Munsat, T. L., and World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases (2000). “El Escorial revisited: Revised criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis,” *Amyotroph. Lateral Sclerosis Other Motor Neuron Disord.* **1**(5), 293–299.

Caligiuri, M. P. (1987). “Labial kinematics during speech in patients with parkinsonian rigidity,” *Brain* **110**(4), 1033–1044.

Caligiuri, M. P. (1989). “The influence of speaking rate on articulatory hypokinesia in Parkinsonian dysarthria,” *Brain Lang.* **36**(3), 493–502.

Cedarbaum, J. M., Stambler, N., Malta, E., Fuller, C., Hilt, D., Thurmond, B., and Nakanishi, A. (1999). “The ALSFRS-R: A revised ALS functional rating scale that incorporates assessments of respiratory function. BDNF ALS Study Group (Phase III),” *J. Neurolog. Sci.* **169**(1–2), 13–21.

Chu, S. Y., Barlow, S. M., and Lee, J. (2015). “Face-referenced measurement of perioral stiffness and speech kinematics in Parkinson’s disease,” *J. Speech Lang. Hear. Res.* **58**(2), 201–212.

Connor, N. P., Abbs, J. H., Cole, K. J., and Gracco, V. L. (1989). “Parkinsonian deficits in serial multiarticulate movements for speech,” *Brain* **112**(4), 997–1009.

Darley, F. L., Aronson, A. E., and Brown, J. R. (1969). “Differential diagnostic patterns of dysarthria,” *J. Speech Hear. Res.* **12**(2), 246–269.

Darley, F. L., Aronson, A. E., and Brown, J. R. (1975). *Motor Speech Disorders* (Saunders, Philadelphia, PA).

Davis, S. B., and Mermelstein, P. (1980). “Comparison of parametric representations for monosyllabic word recognition in continuously spoken sentences,” *IEEE Trans. Acoust. Speech Signal Process.* **28**(4), 357–365.

Delvaux, V., Roland, V., Huet, K., Piccaluga, M., Haelewyck, M. C., and Harmegnies, B. (2016). “The production of intervocalic glides in non dysarthric parkinsonian speech,” in *Proceedings of the Annual Conference of the International Speech Communication Association, INTERSPEECH*, September 8–12, San Francisco, CA, pp. 253–256.

Duffy, J. R. (2014). *Motor Speech Disorders*, 4th ed. (Elsevier, Amsterdam).

Eshghi, M., Stipancic, K. L., Mefferd, A., Rong, P., Berry, J. D., Yunusova, Y., and Green, J. R. (2019). “Assessing oromotor capacity in ALS: The effect of a fixed-target task on lip biomechanics,” *Front. Neurol.* **10**, 1288.

Fletcher, A. R., Wisler, A. A., McAuliffe, M. J., Lansford, K. L., and Liss, J. M. (2017). “Predicting intelligibility gains in dysarthria through automated speech feature analysis,” *J. Speech Lang. Hear. Res.* **60**(11), 3058–3068.

Forrest, K., and Weismer, G. (1995). “Dynamic aspects of lower lip movement in parkinsonian and neurologically normal geriatric speakers’ production of stress,” *J. Speech Lang. Hear. Res.* **38**(2), 260–272.

Forrest, K., Weismer, G., and Turner, G. S. (1989). “Kinematic, acoustic, and perceptual analyses of connected speech produced by Parkinsonian and normal geriatric adults,” *J. Acoust. Soc. Am.* **85**(6), 2608–2622.

Goldstein, L. (2019). “The role of temporal modulation in sensorimotor interaction,” *Front. Psychol.* **10**, 2608.

Green, J. R., Yunusova, Y., Kuruvilla, M. S., Wang, J., Pattee, G. L., Synhorst, L., Zinman, L., and Berry, J. D. (2013). “Bulbar and speech motor assessment in ALS: Challenges and future directions,” *Amyotroph. Lateral Sclerosis Frontotemp. Degen.* **14**(7–8), 494–500.

Hanson, E., Yorkston, K., and Britton, D. (2011). “Dysarthria in Amyotrophic Lateral Sclerosis: A systematic review of characteristics, speech treatment, and augmentative and alternative communication,” *J. Med. Speech Lang. Pathol.* **19**, 12–30.

He, L., and Dellwo, V. (2017). “Amplitude envelope kinematics of speech: Parameter extraction and applications,” *J. Acoust. Soc. Am.* **141**(5), 3582–3582.

Huang, X., Acero, A., Hon, H.-W., and Reddy, R. (2001). *Spoken Language Processing: A Guide to Theory, Algorithm, and System Development*, 1st ed. (Prentice Hall, Englewood Cliffs, NJ).

Khan, T., Westin, J., and Dougherty, M. (2014). “Classification of speech intelligibility in Parkinson’s disease,” *Biocybernet. Biomed. Eng.* **34**(1), 35–45.

- Kiernan, M. C., Vucic, S., Cheah, B. C., Turner, M. R., Eisen, A., Hardiman, O., Burrell, J. R., and Zoing, M. C. (2011). "Amyotrophic lateral sclerosis." *Lancet* **377**(9769), 942–955.
- Kim, Y., Kent, R. D., and Weismer, G. (2011). "An acoustic study of the relationships among neurologic disease, dysarthria type, and severity of dysarthria." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **54**(2), 417–429.
- Kim, Y., Weismer, G., Kent, R. D., and Duffy, J. R. (2009). "Statistical models of F2 slope in relation to severity of dysarthria." *Folia Phoniatr. Logopaed.* **61**(6), 329–335.
- Koo, T. K., and Li, M. Y. (2016). "A guideline of selecting and reporting intraclass correlation coefficients for reliability research." *J. Chiropr. Med.* **15**, 155–163.
- Kuznetsova, A., Brockhoff, P. B., and Christensen, R. H. B. (2017). "lmerTest Package: Tests in linear mixed effects models." *J. Stat. Softw.* **82**(1), 1–26.
- Kuruvilla-Dugdale, M., and Mefferd, A. (2017). "Spatiotemporal movement variability in ALS: Speaking rate effects on tongue, lower lip, and jaw motor control." *J. Commun. Disorders* **67**, 22–34.
- Lansford, K. L., and Liss, J. M. (2014). "Vowel acoustics in dysarthria: Speech disorder diagnosis and classification." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **57**(1), 57–67.
- Lee, J., and Bell, M. (2018). "Articulatory range of movement in individuals with dysarthria secondary to amyotrophic lateral sclerosis." *Am. J. Speech Lang. Pathol.* **27**(3), 996–1009.
- Lee, J., Littlejohn, M. A., and Simmons, Z. (2017). "Acoustic and tongue kinematic vowel space in speakers with and without dysarthria." *Int. J. Speech Lang. Pathol.* **19**(2), 195–204.
- Lee, J., Rodriguez, E., and Mefferd, A. (2020). "Direction-specific jaw dysfunction and its impact on tongue movement in individuals with dysarthria secondary to amyotrophic lateral sclerosis." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **63**(2), 499–508.
- Lenth, R. V. (2016). "Least-squares means: The R Package lsmeans." *J. Stat. Softw.* **69**(1), 1–33.
- Liss, J. M., White, L., Mattys, S. L., Lansford, K., Lotto, A. J., Spitzer, S. M., and Caviness, J. N. (2009). "Quantifying speech rhythm abnormalities in the dysarthrias." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **52**(5), 1334–1352.
- Lokesh, S., and Devi, M. R. (2019). "Speech recognition system using enhanced Mel frequency cepstral coefficient with windowing and framing method." *Cluster Comput.* **22**(5), 11669–11679.
- Mefferd, A. S. (2015). "Articulatory-to-acoustic relations in talkers with dysarthria: A first analysis." *J. Speech, Lang. Hear. Res.* **58**(3), 576–589.
- Mefferd, A., and Dietrich, M. (2020). "Tongue- and jaw-specific articulatory changes and their acoustic consequences in talkers with dysarthria due to amyotrophic lateral sclerosis: Effects of loud, clear, and slow speech." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **63**, 2625–2636.
- O'Shaughnessy, D. (1987). *Speech Communication: Human and Machine* (Addison-Wesley, Boston, MA).
- R Core Team (2020). *R: A Language and Environment for Statistical Computing*. R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria. <https://www.R-project.org/> (Last viewed 12 September 2020).
- Rong, P., Yunusova, Y., Eshghi, M., Rowe, H. P., and Green, J. R. (2019). "A speech measure for early stratification of fast and slow progressors of bulbar amyotrophic lateral sclerosis: Lip movement jitter." *Amyotrophic Lateral Sclerosis Frontotemp. Degen.* **21**, 1–8.
- Rudzicz, F., Frydenlund, A., Robertson, S., and Thaine, P. (2016). "Acoustic-articulatory relationships and inversion in sum-product and deep-belief networks." *Speech Commun.* **79**, 61–73.
- Rudzicz, F., Hirst, G., and van Lieshout, P. (2012). "Vocal tract representation in the recognition of cerebral palsied speech." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **55**(4), 1190–1207.
- Shadle, C. H., Nam, H., and Whalen, D. H. (2016). "Comparing measurement errors for formants in synthetic and natural vowels." *J. Acoust. Soc. Am.* **139**(2), 713–727.
- Shellikeri, S., Green, J. R., Kulkarni, M., Rong, P., Martino, R., Zinman, L., and Yunusova, Y. (2016). "Speech movement measures as markers of bulbar disease in Amyotrophic Lateral Sclerosis." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **59**(5), 887–899.
- Skodda, S., Grönheit, W., Mancinelli, N., and Schlegel, U. (2013). "Progression of voice and speech impairment in the course of Parkinson's disease: A longitudinal study." *Parkinson's Disease* **2013**, 1.
- Skodda, S., Grönheit, W., and Schlegel, U. (2012). "Impairment of vowel articulation as a possible marker of disease progression in Parkinson's disease." *PLoS ONE* **7**(2), e32132.
- Tjaden, K. (2008). "Speech and swallowing in Parkinson's disease." *Top. Geriatric Rehabil.* **24**(2), 115–126.
- Tomik, B., and Guiloff, R. J. (2010). "Dysarthria in amyotrophic lateral sclerosis: A review." *Amyotrophic Lateral Scler.* **11**(1–2), 4–15.
- Walsh, B., and Smith, A. (2012). "Basic parameters of articulatory movements and acoustics in individuals with Parkinson's disease." *Movement Disord.* **27**(7), 843–850.
- Whitfield, J. A., and Goberman, A. M. (2014). "Articulatory-acoustic vowel space: Application to clear speech in individuals with Parkinson's disease." *J. Commun. Disord.* **51**, 19–28.
- Yunusova, Y., Green, J. R., Greenwood, L., Wang, J., Pattee, G. L., and Zinman, L. (2012). "Tongue movements and their acoustic consequences in amyotrophic lateral sclerosis." *Folia Phoniatr. Logopaed.* **64**(2), 94–102.
- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Ball, L. J., Pattee, G. L., and Zinman, L. (2010). "Kinematics of disease progression in bulbar ALS." *J. Commun. Disord.* **43**(1), 6–20.
- Yunusova, Y., Green, J. R., Lindstrom, M. J., Pattee, G. L., and Zinman, L. (2013). "Speech in ALS: Longitudinal changes in lips and jaw movements and vowel acoustics." *J. Med. Speech Lang. Pathol.* **21**(1), 1–13.
- Yunusova, Y., Plowman, E. K., Green, J. R., Barnett, C., and Bede, P. (2019). "Clinical measures of bulbar dysfunction in ALS." *Front. Neurology* **10**, 106.
- Yunusova, Y., Weismer, G., Westbury, J. R., and Lindstrom, M. J. (2008). "Articulatory movements during vowels in speakers with dysarthria and healthy controls." *J. Speech Lang. Hear. Res.* **51**(3), 596–611.

Distinction entre maladies du motoneurone :
les marqueurs acoustiques, révélateurs de profils dysarthriques différents

Cette thèse étudie les apports de l'exploration de la parole dans le diagnostic différentiel entre les trois principales maladies du motoneurone de l'adulte, la sclérose latérale amyotrophique (SLA), la sclérose latérale primitive (SLP) et la maladie de Kennedy (MK). La parole de locuteurs contrôles et de patients présentant ces maladies, a été comparée, au travers de quatre dimensions : la phonation ; la coordination pneumo-phonatoire ; la précision articulatoire étudiée sous l'angle acoustique et perceptif ; les aspects temporels dans des tâches de performance et dans la parole continue (lecture et spontané) ; et l'organisation du discours explorée au travers de la durée des continuums de parole et des pauses dans le spontané. Cette thèse met en évidence des marqueurs acoustiques détectant la présence d'une dysarthrie, avec notamment une hypoarticulation retrouvée dans toutes les populations présentant une dysarthrie, et des aspects temporels très perturbés dans les populations SLA et SLP. Par ailleurs, ce travail identifie des marqueurs acoustiques diagnostiques, discriminant les profils dysarthriques entre eux. Le profil dysarthrique des populations SLA et SLP, se distingue clairement de celui de la population MK. Bien que très similaires, nos résultats montrent des différences dans le profil dysarthrique des populations SLA et SLP, soulevant des effets probablement plus importants de la perturbation de la programmation des gestes articulatoires dans la SLP, et de l'instabilité articulatoire dans la SLA. Ce travail ouvre des perspectives d'approfondissement dans la caractérisation de chacun de ces profils dysarthriques.

Mots clés : maladies du motoneurone, profils dysarthriques, dimension de la parole, marqueurs diagnostiques

Distinguishing between motor neuron diseases : acoustic markers reveal different dysarthric profiles

This dissertation studies the contribution of speech exploration to differential diagnosis between the three main motor neuron diseases of adults, amyotrophic lateral sclerosis (ALS), primary lateral sclerosis (PLS) and Kennedy's disease (KD). The speech of control speakers and of patients with these diseases was compared along four dimensions: phonation; pneumo-phonatory coordination; articulatory precision studied from acoustic and perceptual angles; temporal aspects in performance tasks and in continuous speech (reading and spontaneous); and speech organization explored through the duration of speech continua and pauses in spontaneous speech. This thesis highlights acoustic markers detecting the presence of dysarthria, notably hypoarticulation found in all dysarthric populations, and highly disturbed temporal aspects in the ALS and PLS populations. This study also identifies diagnostic acoustic markers that discriminate between dysarthric profiles. The dysarthric profile of the ALS and PLS populations clearly differs from that of the KD population. Although very similar, our results show differences in the dysarthric profile of the ALS and PLS populations, pointing to the probable greater effects of disrupted programming of articulatory gestures in PLS, and articulatory instability in ALS. This work opens up prospects for further characterization of each of these dysarthric profiles.

Keywords: motor neuron diseases, dysarthric profiles, speech dimensions, diagnostic markers

Université Sorbonne Nouvelle, École Doctorale 622 : Langage et Langues, alexandra.durand@sorbonne-nouvelle.fr