

Linguistic Features in the Connected Speech for Primary Progressive Aphasia: Evidence from a Meta-analysis

Jimin Park, Jee Eun Sung, Young Tae Kim

Department of Communication Disorders, Ewha Womans University, Seoul, Korea

Correspondence: Young Tae Kim, PhD
Department of Communication Disorders,
Ewha Womans University, 52 Ewhayeodae-gil,
Seodaemun-gu, Seoul 03760, Korea
Tel: +82-2-3277-2120
Fax: +82-2-3277-2122
E-mail: youngtae@ewha.ac.kr

This research was partly supported by the National Research Council of Science & Technology (NST) grant by the Korea government (MSIT) (No. CAP21052-000), the National Research Foundation of Korea (NRF) grant funded by the Korea government (MSIT) (2022R1A2C2005062) and Basic Science Research Program through the National Research Foundation of Korea (NRF) funded by the Ministry of Education (NRF-2022R111A4063209).

Received: July 7, 2022
Revised: August 12, 2022
Accepted: August 12, 2022

Objectives: Primary progressive aphasia (PPA) is a neurodegenerative disease, where language disorder is a predominant symptom. Previous studies demonstrated that individuals with PPA shows different syntactic abilities when compared to other degenerative syndromes, suggesting that connected speech is the appropriate task for examining syntactic features. Therefore, the current study investigated the linguistic features of PPA in connected speech by conducting a systematic review. **Methods:** Thirteen studies were extracted from the three foreign databases (CINAHL EBSCO, PubMed, SCOPUS). Fluency, syntactic, and lexical features were converted to Hedges' *g* to calculate the effect size of speech production among people with PPA and the control, and between linguistic features. **Results:** First, the PPA group showed a worse performance overall in the connected speech tasks compared to the control, having a moderate effect on only linguistic features. Second, the PPA group showed worse performance compared to the control in the fluency features, having PPA types as a moderator. Third, the control had better performance in the syntactic features, showing severity as a moderator. Lastly, performance between the PPA group and the control in lexical features had a moderate effect on PPA type. **Conclusion:** The current study demonstrated that the speech production of individuals with PPA in connected speech has a moderate effect on linguistic features. Moreover, the analysis of linguistic features of PPA in connected speech showed that each linguistic features has a different moderator. To be specific, fluency and lexical features were both discriminated by the PPA types, whereas syntactic features were differentiated by the severity, demonstrating that all people with all PPA types had difficulty in syntactic features.

Keywords: Primary progressive aphasia, Connected speech, Meta-analysis, Linguistic features

원발진행실어증(primary progressive aphasia, PPA)은 언어 능력에 저하가 있지만, 상대적으로 인지 능력은 보존된 것이 주된 특징인 신경변성질환(neurodegenerative disease) 중 하나이다(Mesulam, 2007). PPA 환자들은 3가지 하위 유형으로 나뉘는데, 의미변이 원발진행실어증(semantic variant PPA, sv-PPA), 로고페닉 원발진행실어증(logopenic variant PPA, lv-PPA), 그리고 비유창 원발진행실어증(non-fluent variant PPA, nfv-PPA)으로 구분할 수 있다(Gorno-Tempini et al., 2011; Josephs et al., 2008). 먼저 sv-PPA는 의미적 결함(semantic deficit)이 주된 특성으로, 대면 이름대기와 단

단어(single-word) 이해에 주된 어려움을 나타내지만, 상대적으로 따라 말하기(repetition)와 말운동(motor speech) 측면에서 보존된 능력을 보인다. 둘째, lv-PPA는 어휘 회상(retrieval)과 따라 말하기에 주된 결함을 나타내는 반면, 단 단어 이해와 의미적 측면에서는 상대적으로 양호한 능력을 나타낸다. 마지막으로 nfv-PPA는 실문법증(agrammatism), 노력성 발화(effortful speech), 말소리(speech sound) 오류가 주된 특성이지만, 상대적으로 단 단어 이해와 의미적 측면에서는 보존된 능력을 나타낸다. 이처럼, 같은 PPA 환자들 이지만, 하위 유형에 따라 나타나는 언어적 특성에 차이가 있다.

PPA 환자들을 하위 유형으로 구분하는 것에 회의적인 학자들도 있다(Croot, Ballard, Leyton, & Hodges, 2012). 이들은 뇌 병변 위치 및 범위, 그리고 나타나는 언어적 특성에 따라 하나 이상의 PPA 하위 유형에 해당될 수도 있기 때문이라고 설명한다. 그러나 Brambati 등(2015)은 언어적인 특성 뿐만 아니라 뇌 병변 위치에 따라서도 PPA 하위 유형을 구분할 수 있다고 주장했다. 이들은 각 PPA 하위 유형 별로 환자들의 뇌 병변 위치를 측정하고 1년 후 추적하였다(follow-up). 그 결과, 각 PPA 하위 유형에 따라 특정 뇌 병변이 진행되는 것을 발견했다. Sv-PPA는 내측 측두엽(medial temporal lobe)과 외측 측두엽(lateral temporal lobe)에서 주된 병변이 진행되었고, lv-PPA는 내측 측두엽과 후측 측두엽(posterior temporal lobe), 내측 두정엽(medial parietal lobe)에 주된 병변이 진행되는 것으로 나타났으며, nfv-PPA는 좌뇌의 전두엽(frontal lobe)과 피질하 영역(subcortical regions)에 손상이 진행되는 것으로 나타났다. 그리고 모든 PPA 하위 유형은 위 뇌 영역들에서 백색질 섬유(white matter fibers)의 부피가 유의미하게 수축되는 결과를 나타냈다. 즉, PPA 환자들은 언어적 특성 뿐만 아니라 뇌 병변의 위치에 의해서도 하위 유형으로 분류할 수 있음을 알 수 있다.

선행연구에서는 PPA와 같이 신경변성질환을 가진 환자들의 언어적 능력은 연속 발화(connected speech)에서 가장 적절하게 평가할 수 있다고 주장한다(Boschi et al., 2017). 그 이유는 구문 능력이 다른 신경변성질환과 PPA를 구분하는 데 가장 중요한 요인이고(Mesulam, 2008), PPA 환자들의 구문 능력은 연속 발화에서 가장 적절하게 살펴볼 수 있기 때문이다(Saffran, Berndt, & Schwartz, 1989; Thompson & Shapiro, 1995).

연속 발화를 수집할 수 있는 과제에는 그림 설명하기(picture description), 스토리텔링(storytelling), 반 구조화된 인터뷰(semi-structured interview), 그리고 일상 대화(conversation)가 있다. 이들 중 어떤 과제를 사용하든지 연속 발화 수집에 차이가 없다고 보는 연구자들도 있는 반면, 차이가 있다고 보는 연구자들도 있다. Sajjadi, Patterson, Arnold, Watson과 Nestor (2012)는 반 구조화된 인터뷰와 그림 설명하기 과제를 통해 sv-PPA 환자들의 발화 특성을 분석하였다. 이들은 반 구조화된 인터뷰가 그림 설명하기 과제보다 sv-PPA 환자들의 형태-구문론적(morpho-syntactic) 특성을 더 민감하게 측정하였다고 주장했는데, 이는 반 구조화된 인터뷰가 그림 설명하기 과제보다 일상 생활 대화와 유사한 방식이었기 때문이다(Sajjadi, Patterson, Tomek, & Nestor, 2012b). 그러나 Ash 등(2013)은 그림 설명하기와 스토리텔링 과제 간 PPA 환자들의 발화 수집에 유의한 차이가 없었다고 주장하며, 음운적(phonetic), 의미적(semantic), 그리고 구문론적(syntactic) 특성을 분석하기 위해 연

속 발화 과제를 자유롭게 사용될 수 있다고 주장하였다. 한편, Weintraub 등(2009)은 오히려 그림 설명하기나 스토리텔링과 같이 통제된 과제를 사용해야 PPA 환자들을 임상에서 간단하게 평가하고 분석할 수 있다고 주장하였다.

PPA 환자들이 연속 발화에서 어떤 언어학적 특성을 보이는지, 하위 유형 간 어떤 차이가 있는지 여러 선행연구에서 다루고 있지만(Boschi et al., 2017; Marcotte et al., 2017; Sajjadi, Patterson, Arnold et al., 2012), 모든 PPA 하위 유형을 포함하여 분석한 연구가 적고, 여러 연속 발화 과제를 다룬 연구도 적으며, 연구마다 대상자의 수와 언어학적 분석 기준도 매우 다양하다. 또한 PPA 환자들의 중증도(severity)에 따라 분석한 연구도 찾기 어려웠다. 따라서 본 연구에서는 통제된 연속 발화 과제 중 그림 설명하기와 스토리텔링에서 PPA 환자들의 언어 능력을 살펴본 연구들을 수집하여, 정상과 PPA 환자들 간의 언어 능력 차이의 효과크기를 살펴보기 위해 메타 분석을 실시하고자 한다. 또한, PPA 하위 유형 및 중증도가 이 효과크기를 유의하게 설명할 수 있는지 살펴보고자 한다. 더 나아가, 언어학적 특성별로도 효과크기를 분석하고 PPA 유형 및 중증도로 이를 설명할 수 있는지 분석하고자 한다. 이에 따른 연구 질문은 다음과 같다.

1. 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 언어 능력 차이의 효과크기가 유의한가?
2. 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 언어 능력 차이의 효과크기가 이질적이라면, 조절변인(PPA 유형, 언어학적 특성, 중증도)에 따라 유의한 차이가 있는가?
3. 연속 발화 과제에서 언어학적 특성(유창성, 구문, 어휘)에 따라 정상 집단과 PPA 집단 간 차이의 효과크기가 유의한가?
 - 3-1. 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 유창성의 차이에 따른 효과크기가 유의한가?
 - 3-2. 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 구문 특성의 차이에 따른 효과크기가 유의한가?
 - 3-3. 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 어휘 특성의 차이에 따른 효과크기가 유의한가?
4. 연속 발화 과제에서 언어학적 특성(유창성, 구문, 어휘)에 따라 정상 집단과 PPA 집단 간 차이의 효과크기가 이질적이라면, 조절변인(PPA 유형, 중증도)에 따라 유의한 차이가 있는가?

연구방법

문헌검색

연속 발화 과제에서 PPA 환자들의 언어 능력을 살펴보기 위해

2022년 4월에 국외 데이터베이스(CINAHL EBSCO, PubMed, 그리고 SCOPUS) 3개를 통해 관련 연구를 수집하였다. 국외 데이터베이스에서만 연구를 수집한 이유는 언어권에 따른 언어학적 및 문화적 특성 차이를 최소화하기 위함이었다(Sung, DeDe, & Lee, 2016). 검색어는 ‘aphasia or primary progressive aphasia or PPA or neurodegenerative’와 ‘discourse or picture description or story telling or connected speech or narrative’으로 입력하였고, 출판년도는 2002년 이후로 설정하였다.

논문 선정 기준

문헌검색을 통해 CINAHL (EBSCO)에서 1,003편, PubMed에서 1,232편, SCOPUS에서 1,705편, 총 3,940편을 수집하였다. 1차적으로 중복된 논문 2,333편을 제외하였고, PPA 환자가 아닌 다른 신경언어장애군인 뇌졸중으로 인한 실어증(stroke aphasia), 외상성 뇌손상(traumatic brain injury)으로 인한 실어증, 우반구 손상(right-hemisphere damage)을 동반한 실어증 등의 연구 1,514편을 제외하였다. 그 결과, 93편의 논문이 PPA 환자를 대상으로 한 연속 발화 과제 연구로 추려졌다.

추려진 93편의 논문으로 2차 선별 과정을 진행하였다. 본 연구에서 보고자 하는 연구 과제가 아닌 경우(35편), 유창성, 구문, 어휘 능력을 볼 수 있는 언어학적 특성에 대한 결과가 없는 경우(28편), 사례 연구 또는 단일 대상 설계 연구인 경우(5편), 정상 집단이 없는 경우(3편), PPA 하위 유형별 결과가 제시되지 않은 경우(2편), 문헌 고찰인 경우(2편), 이중언어 혹은 다중언어 환자군을 다룬 경우(2편), 영어가 모국어가 아닌 환자군을 다룬 경우(1편), 원문이 없는 경우(1편), 총 81편이 2차 선별 과정에서 제외되었다.

1차와 2차 선별 과정을 통해 최종 12편의 논문이 선정되었고, 1편의 논문은 매뉴얼 검색 (manual searching)으로 추가되어, 총 13편의 논문이 본 연구에서 분석되었다. 선정 및 제외 기준은 Table 1에, 전체 논문 선정 과정의 순서도는 Figure 1에 제시하였다.

연구의 질 평가 방법

Varkanitsa와 Caplan (2018)의 체크리스트를 본 연구에 맞게 수정하여 연구의 질 평가를 실시하였다. 이 체크리스트는 실어증 환자를 대상으로 한 메타 분석 논문에서 연구의 질을 평가하기 위한 목적으로 개발되었고, Critical Appraisal Skills Programme (CASP) (<http://www.casp-uk.net/>), JBI Critical Appraisal Checklist for Qualitative Research (<http://joannabriggs.org/research/criticalappraisal-tools.html>), 그리고 Murray, Salis, Martin과 Dralle (2016)에서 사용한 Adapted Study Quality Rating Tool을 참

Table 1. Inclusion and exclusion criteria for study selection

	Inclusion criteria	Exclusion criteria
Research design	Group design (control group included)	Single-subject design Case study Review article
Participants	Semantic variant PPA (sv-PPA) Logopenic variant PPA (lv-PPA) Non-fluent variant PPA (nfv-PPA)	Aphasia due to stroke Severe dysarthria or apraxia TBI Right-hemisphere stroke Multilingual Non-native English speaker
Stimuli	Picture description (single picture) Storytelling	Interview Conversation Sequential picture description Story-retelling
Outcome measures	Fluency features Syntactic features Lexical features	Other measures

PPA = primary progressive aphasia; TBI = traumatic brain injury.

고하였다. 본 연구에서는 이를 수정하여 대상자, 과제, 그리고 자료 관련 항목으로 구성하였고, 제시 유무로 평가하였다.

구체적으로 첫번째 대상자 항목에서는 대상자의 수(n > 10), 배경 정보 제시 여부, 중증도 측정 여부, 통제집단 포함 여부, PPA 하위 유형 제시 유무로 설정하였다. 대상자 수는 논문에서의 각 집단을 기준으로 설정하였고, 해당 논문에 있는 모든 집단이 이 기준을 넘는 경우와 일부만 넘는 경우를 구분하여 평가하였다. PPA 하위 유형의 경우, 어떤 하위 유형이 포함되었는지 평가하였다. 두번째 과제 항목에서는 그림 설명하기와 스토리텔링으로 나누어 제시 여부를 평가하였고, 언어학적 특성도 마찬가지로 구분하여 제시 여부를 평가하였다. 마지막 자료 항목에서는 평균과 표준편차 제시 여부를 평가하였다.

코딩 및 자료 분석

각 논문의 개별적인 특성을 파악하기 위해 저자, 출판년도, 언어권, 연구 대상자의 수, 연령, 교육연수, 중증도, 과제 유형, PPA 유형, 언어학적 특성 하위 요소별 결과를 코딩하였다. 중증도는 논문마다 측정항목이 다양하여, 각 검사마다 제시된 중증도 기준에 따라 의심(probable), 경도(mild), 중도(moderate), 알 수 없음(unknown)으로 분류하였다. 심도(severe)는 어느 논문에도 해당하지 않아 제외하였다. 연령 및 교육연수는 전체 논문에서 집단 간 평균을 산출했고, 그 결과 2SD를 벗어나는 논문은 존재하지 않았다. 연령($p = .093$) 및 교육연수($p = .606$) 모두 집단 간 차이가 통계적으로 유의하지 않았으며, 본 연구에서는 통제 변수로 설정하였다.

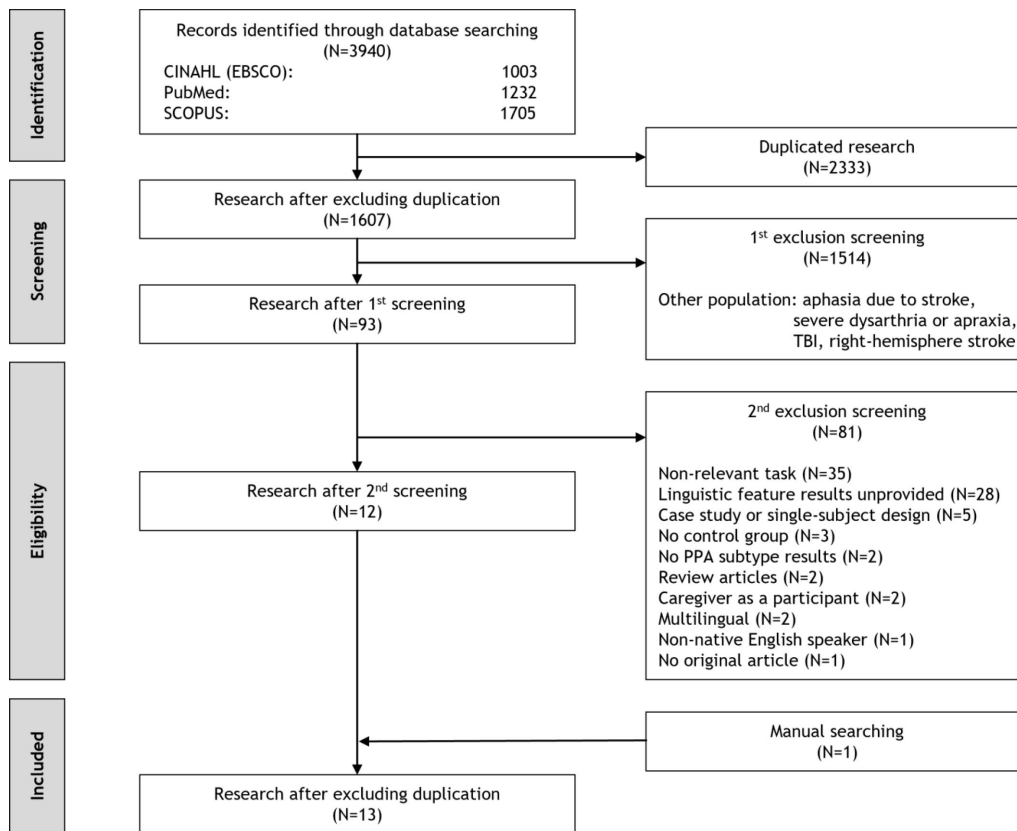


Figure 1. Flow-chart of study selection, exclusion, and inclusion.

언어학적 특성은 연구마다 매우 다양하여, 유창성, 구문 특성, 그리고 어휘 특성에 해당하는 대표적인 몇 가지 종속변수로 한정하였다. 본 연구에서 포함한 언어학적 특성은 유창성에 분당 단어 수 (words per minute, WpM)와 초당 음절 수 (syllables per second, SpS), 구문 특성에 평균 발화 길이 (mean length utterance, MLU)와 문법적 오류가 없는 문장 (grammatically correct sentences, GCS), 그리고 어휘 특성에 총 단어 수 (number of words, NoW), 의미 단위 수 (content unit, CU), 명사 대 동사 산출 비율 (noun to verb ratio, N-V ratio), 내용어 대 기능어 산출 비율 (open to closed class words, O-C ratio)로 선정하였다.

전체 효과크기 및 종속변인별 효과크기는 각 논문에서 추출한 언어학적 특성 하위 요소별 평균과 표준편차를 Hedges' *g* (Hedges & Olkin, 1985)로 변환하여 산출하였다. 이는 본 연구에서 표본이 크고 작은 연구들이 섞여 있어, 표본이 작은 연구의 효과크기가 과대추정되는 오류를 줄이기 위해 Cohen's *d* (Cohen, 1988)를 교정한 Hedges' *g*로 변환한 것이다 (Bernard & Borokhovski, 2009). 각 논문들은 연구 시점, 연구 환경, 연구 대상자의 특성 등이 서로 달라, 무선평과모형 (random effect model)으로 분석하였다. 논문 간 효

과크기의 이질성 (heterogeneity) 여부는 *Q*값의 유의수준 ($\alpha = .05$) 및 *I*로 판단하였다. 효과크기에 이질성이 있다고 판단될 경우, 언어학적 특성, PPA 유형, 중증도에 따라 메타 ANOVA를 통해 조절효과를 분석하였으며, 연구 간 분산이 동일하다는 가정으로 분석하였다.

본 연구결과의 타당성을 검증하기 위해 funnel plot, Egger의 회귀분석 (Egger, Smith, Schneider, & Minder, 1997), 그리고 trim-and-fill (Duval & Tweedie, 2000)을 이용하여 출간 오류 (publication bias)를 분석하였다. Funnel plot을 통해 시각적으로 비대칭성을 확인한 후, Egger의 회귀분석을 통해 비대칭성에 대한 통계적 분석을 실시하였다. 출간 오류가 있다고 판단되었을 경우, trim-and-fill을 통해 출간 오류를 조정하였다. Trim 단계에서 효과크기가 대칭이 될 수 있도록 불필요한 연구를 제외하고, and 단계에서 다시 효과크기의 평균을 구하였으며, 마지막 fill 단계에서 다시 구한 효과크기의 평균을 중심으로 제외한 연구를 다시 복원시키고, 대칭이 되기 위해 누락된 연구를 채웠다. 이 과정을 통해 funnel plot의 비대칭성을 조정하였다. 모든 통계적 분석은 R version 4.2.0을 사용하여 실시하였다.

연구결과

선정된 연구 특성

본 연구에서 분석에 사용된 논문은 총 13편으로, 각 언어학적 특성 하위 요소 별로 a, b 등으로 표기하여 총 103개의 자료를 분석하였다. 분석에 사용된 모든 논문은 출판연도가 2002년부터 2022년 4월까지였고, 언어권은 모두 영어였으며, 연구 대상자 수는 집단 별로 4명부터 45명까지 다양했다. 총 대상자 수는 798명으로, 정상 집

단 246명, sv-PPA는 151명, lv-PPA는 211명, 그리고 nfv-PPA는 190명이었고, 모든 논문은 최소 1가지의 PPA 유형을 포함하고 있었다.

본 연구에 포함된 논문들은 PPA 환자들의 증증도를 다양한 평가 도구로 측정하였다. 7편의 논문에서 Mini-Mental State Examination (MMSE; Folstein, Folstein, & McHugh, 1975)으로, 3편의 논문에서 Clinical Dementia Rating scale (CDR; Knopman, Weintraub, & Pankratz, 2011)로, 3편의 논문에서 Western Aphasia Battery (WAB; Kertesz, 1982) 또는 Western Aphasia Battery-Revised (WAB-R; Kertesz, 2006)로, 2편의 논문에서 Dementia Rating

Table 2. Quality assessment of the included studies

	Ash et al. (2013)	Ash et al. (2006)	Berube et al. (2018)	Cordella et al. (2017)	Fraser et al. (2014)	Gallee et al. (2021)	Lavoie et al. (2021)
Participants							
Adequate sample size (> 10)	√	√	△	△	√	√	√
Demographic information provided	√	√	√	√	√	√	√
Specification of severity	√	√	×	√	√	√	√
Control group included	√	√	√	√	√	√	√
Semantic variant PPA included	√	√	√	√	√	√	×
Logopenic variant PPA included	√	×	√	√	×	√	√
Non-fluent variant PPA included	√	√	√	√	√	√	×
Task							
Picture description task assessed	√	×	√	√	×	√	√
Storytelling task assessed	×	√	×	×	√	×	√
Fluency features assessed	√	√	×	√	×	×	×
Syntactic features assessed	√	√	×	×	√	×	√
Lexical features assessed	√	×	√	×	√	√	√
Data							
Mean and SD provided for each group	√	√	√	√	√	√	√
	Mack et al. (2015)	Mack et al. (2021)	Matias-Guiu et al. (2022)	Thompson et al. (2012)	Thompson et al. (2013)	Wilson et al. (2010)	
Participants							
Adequate sample size (> 10)	√	√	√	△	√	√	
Demographic information provided	√	√	√	√	√	√	
Specification of severity	√	√	√	√	√	√	
Control group included	√	√	√	√	√	√	
Semantic variant PPA included	√	√	√	√	×	√	
Logopenic variant PPA included	√	√	√	√	√	√	
Non-fluent variant PPA included	√	√	√	√	√	√	
Design							
Picture description task assessed	×	×	√	×	×	√	
Story telling task assessed	√	√	×	√	√	×	
Fluency features assessed	√	×	√	√	√	√	
Syntactic features assessed	√	√	√	√	√	√	
Lexical features assessed	√	×	√	√	√	√	
Data							
Mean and SD provided for each group	√	√	√	√	√	√	

√=adequate; △=partially adequate; ×=missing; N/A=non applicable; SD=standard deviation.

Scale-R (DRS-R; Jurica, Leitten, & Mattis, 2001)로, 1편의 논문에서 Progressive Aphasia Severity Scale (PASS; Sapolsky et al., 2010)로, 그리고 1편의 논문에서 Montreal Cognitive Assessment (MoCA; Nasreddine et al., 2005)를 사용하였다. 각 평가도구의 매뉴얼에 따라 의심(probable) 173명, 경도(mild) 280명, 중도(moderate) 75명, 알 수 없음(unknown) 24명이었다.

연결 발화 과제 유형별로 논문을 분석한 결과, 그림 설명하기 과제를 사용한 논문 6편, 스토리텔링 과제를 사용한 논문 6편, 두 과제를 모두 사용한 논문 1편이 포함되었다. 그림 설명하기 과제는 Boston Diagnostic Aphasia Examination (Goodglass, Barresi, & Kaplan, 1983)에 있는 Cookie Theft, Miro라는 연구자가 그림을 변형한 *Cookie Theft*, WAB (Kertesz, 1982)에 있는 *Picnic Scene*이 포함되었다. 스토리텔링 과제는 Mayer (1969)의 *Frog, Where Are You?*와 Saffran 등(1989)의 *Cinderella story*가 포함되었다.

언어학적 특성은 각 논문마다 다르게 분류하고 있어, 본 연구에서는 유창성, 구문 특성, 어휘 특성으로 구분하여 분석하였다. 유창성을 종속변인으로 제시한 논문은 7편, 구문 특성은 10편, 어휘 특성은 10편이 포함되었고, 언어학적 특성별 자료의 수를 살펴보면, 유창성 22개, 구문 특성은 39개, 그리고 어휘 특성 42개의 자료가 포함되었다.

본 연구에 포함된 모든 논문의 특성은 Appendix 1에 첨부하였다.

선정된 연구 질 평가 결과

Varkanitsa와 Caplan (2018)의 체크리스트를 참고하여 본 연구에 맞게 수정되었고, 각 평가 항목에 대한 결과를 Table 2에 제시하였다.

분석 결과

언어 능력 전체 평균 효과 크기

총 13편의 논문에서 103개의 언어학적 특성으로 분리되었고, 이

를 토대로 전체 연구의 평균 효과 크기를 Hedges' *g*로 산출하였다. 그 결과, $g = -1.53$ (CI: -1.85, -1.21, $p < .0001$)로, 작은 부적 효과 크기를 나타냈다. 즉, 정상 집단과 PPA 집단 간 차이가 통계적으로 유의하였다. 또한 $I^2 = 88.1\%$ ($Q = 855.02$, $df = 101$, $p < .0001$)로 큰 크기의 이질성을 나타냈고, 실제 분산은 $\tau^2 = 2.5013$ 으로 나타났다. 정상 및 PPA 환자 간 언어 능력의 차이에 대한 효과 크기는 Appendix 2에 forest plot으로 제시하였다.

이질성 검증: 조절변인 분석

언어 능력에 대한 전체 효과 크기의 이질성을 설명하기 위해 언어학적 특성, PPA 유형, 그리고 중증도를 조절변인으로 설정하였다. 첫째, 언어학적 특성 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의한 것으로 나타났다($Q_b = 7.59$, $df = 2$, $p = .02$). 유창성($g = -2.22$)이 구문 특성($g = -1.66$)과 어휘 특성($g = -1.04$)보다 큰 부적 효과 크기를 나타냈으며, 언어학적 특성에 따라 전체 연구 간 분산의 7.3%가 설명되었다(Figure 2). 어떤 언어학적 특성 간 차이로 인한 결과인지 살펴보기 위해, 사후분석을 실시하였다. 그 결과, 유창성과 어휘 특성 간 차이($p = .02$)에 의한 것으로 나타났다. 유창성과 구문 특성 간 차이($p = .24$)와 구문문법 및 어휘 특성 간 차이($p = .06$)는 통계적으로 유의하지 않았다.

둘째, PPA 유형 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의하지 않은 것으로 나타났고($Q_b = .65$, $df = 2$, $p = .72$), 셋째, 중증도 역시 통계적으로 유의하지 않은 것으로 나타났다($Q_b = 7.43$, $df = 3$, $p = .06$).

유창성에 대한 전체 평균 효과 크기

총 7편의 논문에서 22개의 유창성 하위 요소로 분리되었고, 이를 토대로 전체 유창성 연구의 평균 효과 크기를 Hedges' *g*로 산출하였다. 그 결과, $g = -2.22$ (CI: -3.05, -1.39, $p < .0001$)로, 정상 집단과

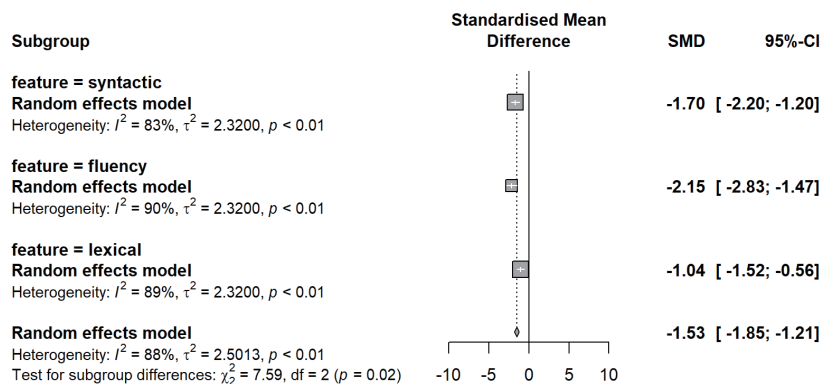


Figure 2. Forest plot of combined correlation coefficients between linguistic features.

PPA 집단 간 차이가 통계적으로 유의한 것으로 나타났다. 또한 $I^2 = 90\%$ ($Q = 220.32, p < .0001$)로 큰 크기의 이질성을 나타냈고, 실제 분산은 $\tau^2 = 3.6153$ 으로 나타났다. 정상 및 PPA 환자 간 유창성 차이에 대한 효과크기는 Figure 3에 제시하였다.

이질성 검증: 조절변인 분석

유창성 효과크기의 이질성을 설명하기 위해 PPA 유형과 중증도를 조절변인으로 설정하였다. 첫째, PPA 유형 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의한 것으로 나타났다 ($Q_b = 14.31, df = 2, p = .0008$). Nfv-PPA ($g = -3.74$)가 lv-PPA ($g = -1.92$)와 sv-PPA ($g = -0.75$)보다 큰 부정 효과크기를 나타냈으며,

PPA 유형에 따라 유창성 연구 간 분산의 44.8%가 설명되었다(Figure 4). 어떤 PPA 유형 간 차이로 인한 결과인지 살펴보기 위해, 사후 분석을 실시하였다. 그 결과, sv-PPA와 nfv-PPA 간 차이($p < .01$)에 의한 것으로 나타났다. Lv-PPA와 nfv-PPA 간 차이($p = .05$)와 sv-PPA와 lv-PPA 간 차이($p = .08$)는 통계적으로 유의하지 않았다.

둘째, 중증도 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의하지 않은 것으로 나타났다($Q_b = 4.89, df = 2, p = .09$).

구문 특성에 대한 전체 평균 효과 크기

총 10편의 논문에서 39개의 구문 구문 특성 하위 요소로 분리되었고, 이를 토대로 구문 특성 연구의 평균 효과 크기를 Hedges' g 로 산출하였다. 그 결과, $g = -1.66$ (CI: -2.08, -1.23, $p < .0001$)로, 정상 집단과 PPA 집단 간 차이가 통계적으로 유의한 것으로 나타났다. 또한 $I^2 = 83\%$ ($Q = 230.09, df = 38, p < .0001$)로 큰 크기의 이질성을 나타냈고, 실제 분산은 $\tau^2 = 1.6128$ 으로 나타났다. 그 결과는 Figure 5에 제시하였다.

이질성 검증: 조절변인 분석

구문 특성 효과크기의 이질성을 설명하기 위해 PPA 유형과 중증도를 조절변인으로 설정하였다. 첫째, PPA 유형 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의하지 않은 것으로 나타났다($Q_b = 3.80, df = 2, p = .15$).

둘째, 중증도 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의한 것으로 나타났다($Q_b = 6.54, df = 2, p = .04$) (Figure 6). 경도(mild) (-2.09)가 의심(probable) (-1.23)과 중도(moderate) (-0.93)보다 큰 부정 효과크기를 나타냈고, 중증도에 따라 구문 특성 연구 간 분산의 12.5%가 설명되었다. 어떤 중증도 간 차이로 인한 결과인지 살펴보기 위해, 사후 분석을 실시하였다. 그

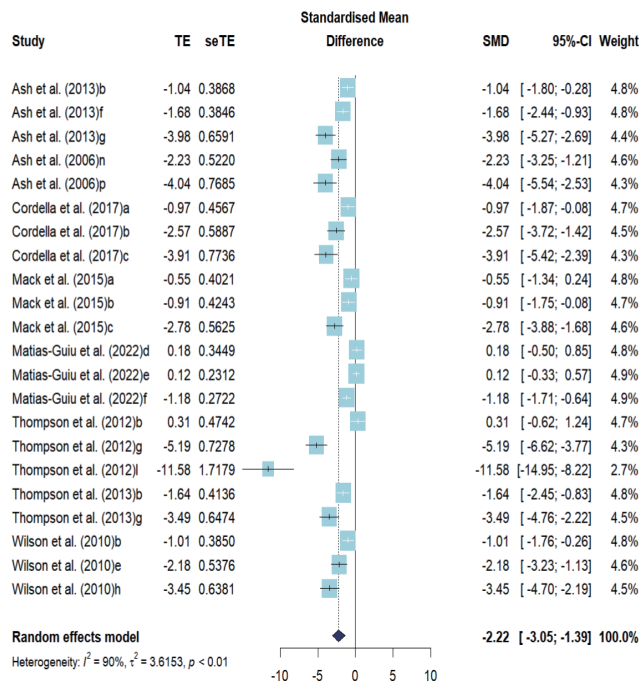


Figure 3. Forest plot of combined correlation coefficients of the fluency data.

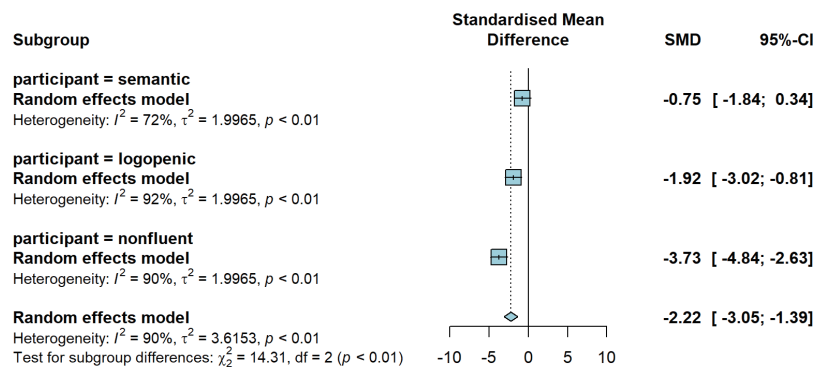


Figure 4. Forest plot of combined correlation coefficients between PPA types in the fluency data.

결과, 경도(mild)와 중도(moderate) 간 차이($p < .01$)에 의한 것으로 나타났다. 반면, 의심(probable)과 중도(moderate) 간 차이($p = .05$), 의심(probable)과 중도(moderate) 간 차이($p = .10$)는 통계적으로

유의하지 않았다.

어휘 특성에 대한 전체 평균 효과 크기

총 10편의 논문에서 42개의 구문 특성 하위 요소로 분리되었고, 이를 토대로 어휘 특성 연구의 평균 효과 크기를 Hedges' g 로 산출하였다. 그 결과, $g = -1.04$ (CI: -1.52, -0.56, $p < .0001$)로, 정상 집단과 PPA 집단 간 차이가 통계적으로 유의한 것으로 나타났다. 또한 $I^2 = 89\%$ ($Q = 360.01$, $df = 41$, $p < .0001$)로 큰 크기의 이질성을 나타냈고, 실제 분산은 $\tau^2 = 2.3272$ 로 나타났다. 그 결과는 Figure 7에 제시하였다.

이질성 검증: 조절변인 분석

어휘 특성 효과크기의 이질성을 설명하기 위해 PPA 유형과 중증도를 조절변인으로 설정하였다. 우선, PPA 유형 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의한 것으로 나타났다($Q_b = 9.47$, $df = 2$, $p = .0088$). Sv-PPA ($g = -1.75$)가 lv-PPA ($g = -1.34$)와 nfv-PPA ($g = -0.08$)보다 큰 부적 효과크기를 나타냈고, PPA 유형에 따라 어휘 특성 연구 간 분산의 17%가 설명되었다. 어떤 PPA 유형 간 차이로 인한 결과인지 살펴보기 위해, 사후분석을 실시하였다. 그 결과, sv-PPA와 nfv-PPA 간 차이($p < .01$), 그리고 lv-PPA와 nfv-PPA 간 차이($p < .01$)로 인한 것으로 나타났다. Sv-PPA와 lv-PPA 간 차이는 통계적으로 유의하지 않았다($p = .43$). 이 결과는 Figure 8에 제시하였다. 반면, 중증도 간 효과 크기 동일성에 대한 통계적 유의성 검증 결과, 통계적으로 유의하지 않은 것으로 나타났다($Q_b = 1.87$, $df = 3$, $p = .60$).

출간 오류 분석

본 연구의 분석 결과가 타당하지 살펴보기 위해 전체 연구 및 언어학적 특성별로 funnel plot 및 Egger의 회귀분석으로 오류 존재

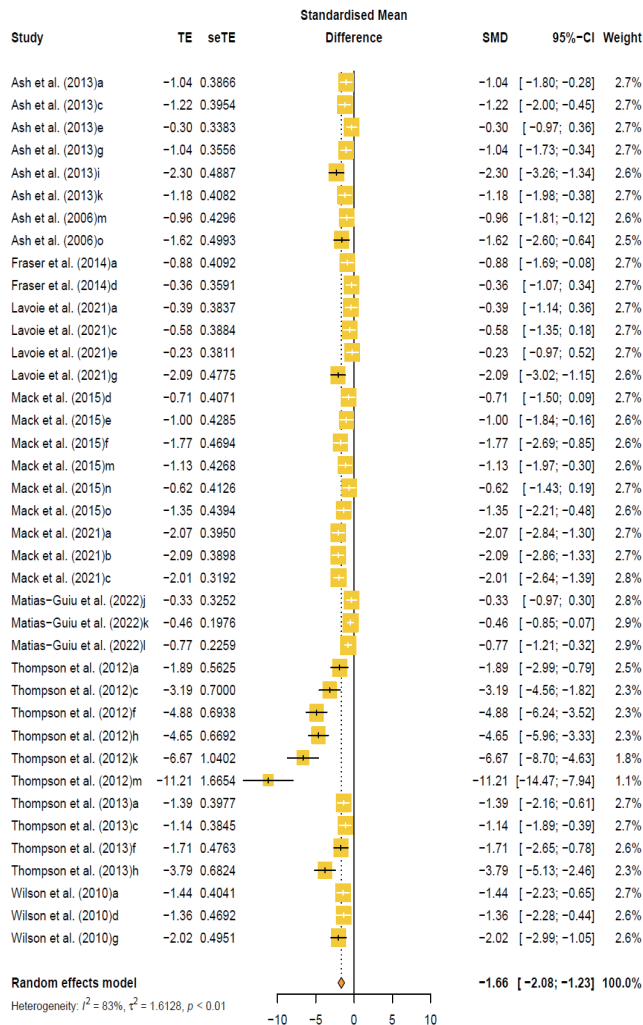


Figure 5. Forest plot of combined correlation coefficients of the syntactic data.

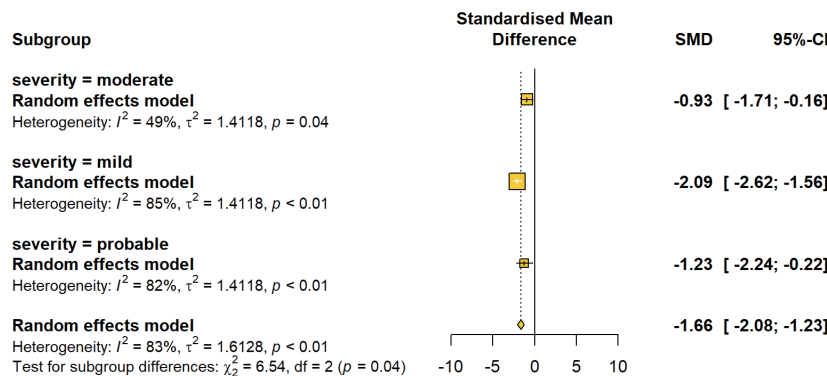


Figure 6. Forest plot of combined correlation coefficients between severity in the syntactic data.

여부를 확인하였다. 우선, 전체 연구로 확인한 결과, funnel plot에서 비대칭성을 나타냈고, Egger의 회귀 분석 결과에서도 $bias = -6.36$ ($t = -9.46$, $df = 101$, $p < .0001$)으로 나타나, 출간 오류가 있는

것으로 나타났다. 이에 따라 출간 오류를 조정하기 위해 trim-and-fill 분석 방법을 사용하였다. 그 결과, 비대칭성을 대칭으로 조절하기 위해 30개의 연구를 투입해야 하는 것으로 나타났다.

언어학적 특성 중 유창성 분석의 funnel plot 및 Egger 회귀분석 결과, 마찬가지로 비대칭성을 나타냈다($bias = -7.66$, $t = -7.72$, $df = 20$, $p < .0001$). Trim-and-fill을 이용하여 출간 오류를 조정했을 때, 9개의 연구를 투입해야 하는 것으로 나타났다. 구문론적 분석에서도 비대칭성을 나타냈으며($bias = -6.20$, $t = -7.75$, $df = 37$, $p < .0001$), 14개의 연구를 투입해야 하는 것으로 나타났다. 마지막으로 어휘론적 분석에서도 비대칭성을 나타냈으며($bias = -5.03$, $t = -3.42$, $df = 40$, $p = .0015$), 6개의 연구를 투입해야 하는 결과로 나타났다. 전체 연구결과 및 언어학적 특성별로 조정된 funnel plot은 Figure 9에 제시하였다.

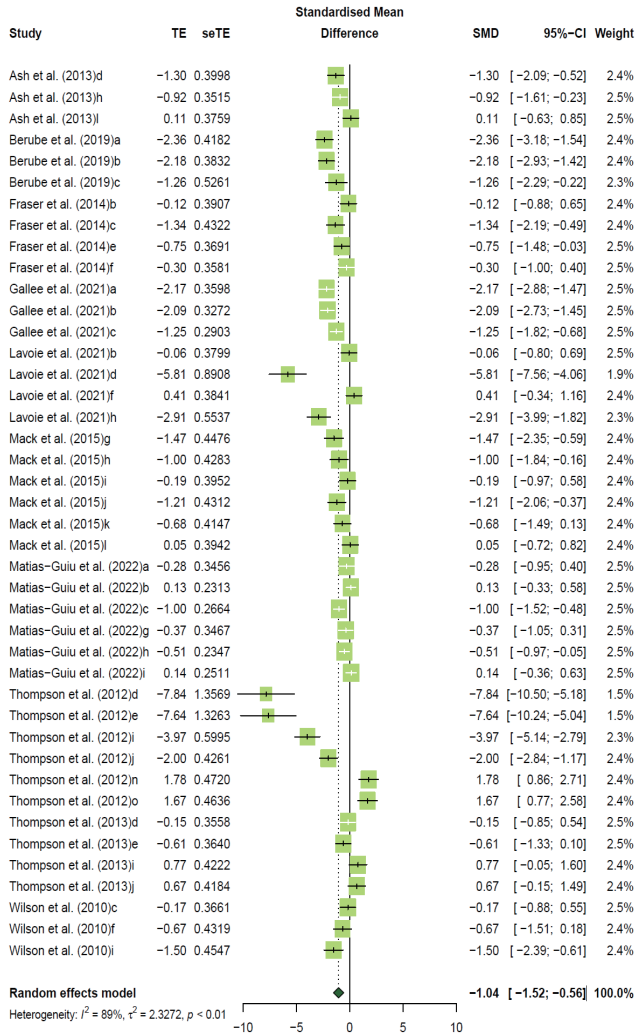


Figure 7. Forest plot of combined correlation coefficients of the lexical data.

논의 및 결론

본 연구는 연속 발화 과제에서 정상 집단과 PPA 집단 간 언어 능력의 차이를 살펴보고, 언어 능력을 유창성, 구문 특성, 어휘 특성으로 세분화하여 언어학적 특성에 따른 수행력 차이를 살펴보기 위해 메타 분석을 실시하였다. 전체 연구 및 언어학적 특성별 효과 크기를 분석하고, 이질성이 있다고 판단될 경우 조절효과 분석을 실시하였다. 또한 본 연구의 출간 오류를 확인하기 위해 funnel plot, Egger의 회귀분석, 그리고 trim-and-fill 분석을 실시하였다.

최종적으로 선정 기준 및 제외 기준에 따라 13편의 논문이 선정되었으며, 종속변수로 유창성을 분석한 논문은 7편, 구문 특성과 어휘 특성은 각각 10편씩이었다. 각 논문에서 대상자 정보(연령, 교육연수, 중증도) 및 언어학적 특성(유창성, 구문 특성, 어휘 특성)에 대한 결과를 추출하여, 총 103개의 자료를 분석하였다. 연구대상은 정상 집단 246명, PPA 집단 552명이었고, PPA 환자 내에서 sv-PPA

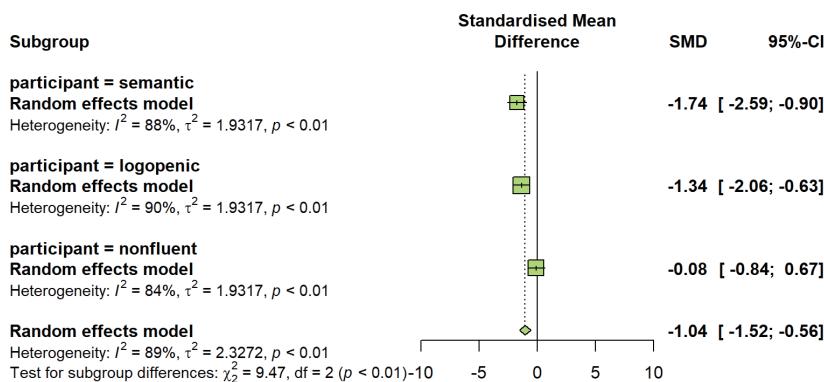


Figure 8. Forest plot of combined correlation coefficients between PPA types in the lexical data.

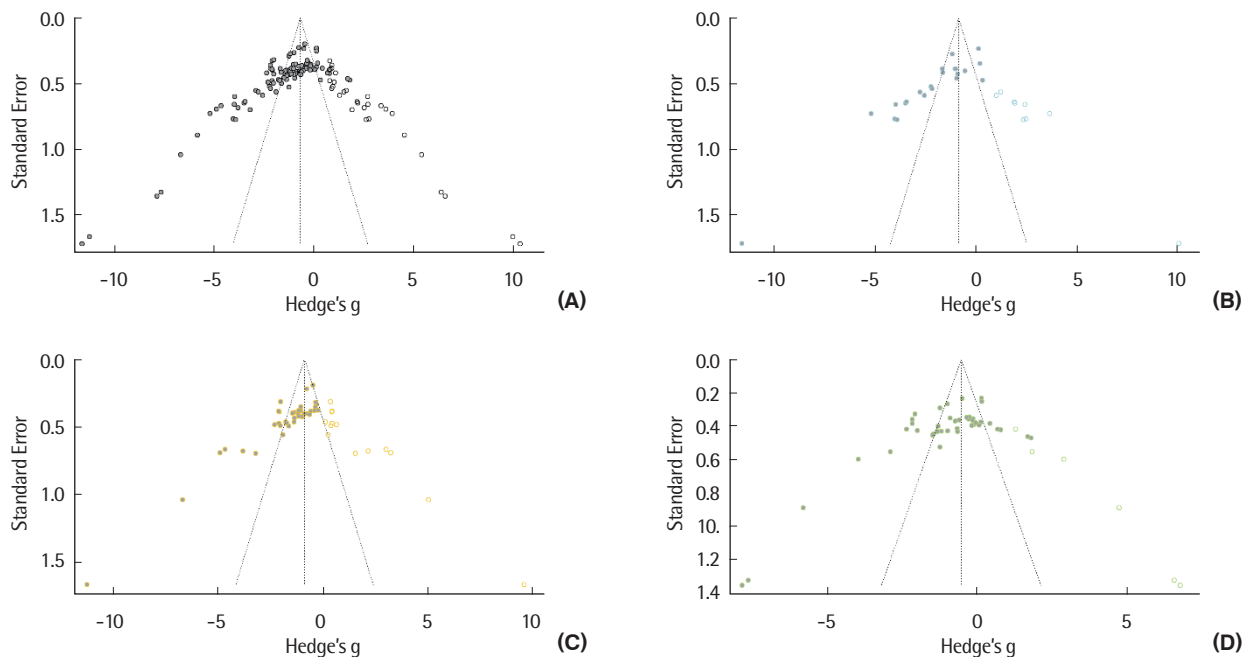


Figure 9. Adjusted funnel plot for the total data and linguistic features. (A) total data, (B) fluency feature data, (C) syntactic feature data, and (D) lexical feature data.

151명, lv-PPA 211명, nfv-PPA 190명이었다. 연구 과제는 그림 설명 하기를 다룬 논문 6편, 스토리텔링을 다룬 논문 6편, 두 과제를 모두 다룬 논문 1편이었다.

전체 메타 분석 결과, PPA 집단의 언어 능력이 정상 집단보다 유의하게 낮은 것으로 나타났다. 이는 여러 선행연구에서 밝히듯, PPA 환자들의 발화 산출 능력이 정상 성인보다 낮은 것과 일치하는 결과이다(Gorno-Tempini et al., 2011). 그러나 분석된 연구 간 이질성이 큰 것으로 나타나, 언어학적 특성, PPA 유형, 그리고 중증도를 통해 조절효과 분석을 실시하였다. 그 결과, 언어학적 특성에서 유창성과 어휘 특성 간 차이가 유의한 것으로 나타나, 언어학적 특성으로 정상과 PPA 집단 간 차이를 설명할 수 있었다. 그러나 PPA 유형과 중증도는 유의미하지 않은 조절변인 것으로 나타났다. 이는 PPA 유형보다 PPA 환자들 간 이질성이 크다는 것에서 기인한 것일 수도 있고(Louwrsheimer et al., 2016), 본 연구에서는 여러 논문을 종합하여 몇 백명의 대상자를 분석하였으므로, 전체 메타 분석으로는 PPA 환자들의 발화 특성을 살펴보기에 한계가 있을 수도 있다. 따라서, PPA 환자들의 발화 특성을 구체적으로 살펴보기 위해 언어학적 유형을 범주로 하여 범주형 분석(categorical analyses)을 실시하였고, 조절변인으로 PPA 유형 및 중증도를 설정하여 추가 분석을 실시하였다.

첫째, 유창성의 전체 효과크기는 이질성이 큰 것으로 나타났고, 이를 설명하기 위해 PPA 유형 및 중증도를 사용하여 조절효과 분

석을 실시하였다. 그 결과, PPA 유형이 유의미한 조절변수로 작용하였고, sv-PPA와 nfv-PPA 간의 차이가 유의한 것으로 설명할 수 있었다. Boschi 등(2017)은 PPA 환자들의 연속 발화 관련 논문 15편을 분석하여, PPA 유형 간 발화 특성에 어떤 차이가 있는지 살펴 보았다. 이들은 유창성 측면에서 sv-PPA가 nfv-PPA와 달리 음운적 오류나 말속도에 어려움이 없는 반면, lv-PPA와는 유사하다고 설명하였다. 이들의 결과는 본 연구와 일치하며, sv-PPA가 유창성 측면에서 보존된 유창성 능력을 가지고 있는 것으로 해석할 수 있다(Gorno-Tempini et al., 2011). 또한, nfv-PPA가 sv-PPA보다 유의미하게 낮은 유창성을 보인다는 다른 선행연구와도 일치하는 결과이다(Mesulam, Wieneke, Thompson, Rogalski, & Weintraub, 2012). 한편, 중증도는 유창성의 효과크기를 유의하게 설명할 수 없었다. 이는 nfv-PPA와 sv-PPA가 유의미한 중증도 차이를 보이지 않았기 때문으로 해석된다. Scheffel, Duffy, Strand와 Josephs (2021)은 PPA 하위 유형 및 말실행증을 동반한 PPA 환자들에게 의미 및 음소 유창성 과제를 실시하여, 집단 간 수행력을 비교하였다. 그 결과, 중증도를 통제한 PPA 하위 유형 간 유창성 과제에서의 수행력 차이가 없었다고 보고하였다. 이는 본 연구결과에서 중증도가 유창성의 조절효과를 유의미하게 설명할 수 없었던 것과 일치하는 결과이다.

둘째, 구문 특성은 효과크기의 이질성이 큰 것으로 나타났고, 중증도가 유의한 조절변수로 나타났다. 이는 경도(mild)와 중도

(moderate) 간 차이로 인한 결과였다. 문법적으로 적절한 문장을 구성하고 산출하기 위해서는 조작적으로 정보를 처리하는 부담이 증가한다(Keller, Carpenter, & Just, 2001). 그런데 중증도가 높을수록, 즉 인지적 저하가 심할수록 조작적으로 정보를 처리하는 것에 어려움이 생겨, 적절한 구문을 산출하는 것이 어렵게 된다. 그러므로 본 연구결과에서 PPA 환자들의 중증도가 구문 특성을 유의미하게 설명하는 조절변수로 나타난 것으로 볼 수 있다. 한편, PPA 유형은 구문 특성의 효과크기를 설명할 수 없었다. 이는 PPA 환자들이 PPA 유형과 무관하게 복잡한 문장구조를 산출하기 어렵다는 특성을 공통적으로 보이는 것으로 해석할 수 있다(Ash et al., 2019; Gorno-Tempini et al., 2011). Auclair-Ouellette, Macoir, Laforce Jr, Bier와 Fossard (2016)는 sv-PPA의 굴절 형태소(inflexional morphemes)를 활용한 이해 및 산출 과제를 실시하였다. 그 결과, sv-PPA도 굴절 형태소를 적절하게 이해 및 산출하는 것에 어려움이 있는 것으로 나타나, nfv-PPA만이 보이는 특성이 아닐 수 있음을 제시하였다. 그러나 여전히 구문형태론적 어려움이 nfv-PPA만이 두드러지게 보이는 특성인지 아닌지에 대한 의견이 분분하다(Butts et al., 2015; Sajjadi, Patterson, Arnold et al., 2012).

마지막, 어휘 특성에 따른 전체 평균 효과크기는 큰 이질성을 보였고, PPA 유형으로 유의하게 설명할 수 있었다. Sv-PPA와 nfv-PPA 간 차이, lv-PPA와 nfv-PPA 간 차이로 인한 결과였으며, nfv-PPA가 나머지 두 집단보다 보존된 언어 능력을 가진 것으로 나타났다. 이는 선행연구와 일치하는 결과로(Gorno-Tempini et al., 2011; Kemmerer, 2015), sv-PPA와 lv-PPA 모두 어휘 인출과 관련된 의미적 영역에 대한 손상이 특징인 반면, nfv-PPA는 어휘성에 대한 손상이 특징이기 때문이다. 반면, 중증도는 어휘 특성의 효과크기를 설명하는 조절변수가 아니었다. Sv-PPA와 lv-PPA 모두 의미적 손상이 두드러지지만, 본 연구에서의 PPA 환자들은 대부분 의심(probable)과 경도(mild)였으므로, 의미적 손상으로 중증도를 설명하기에는 어려웠을 것으로 해석된다.

본 연구는 출간 오류가 있는 것으로 나타났는데, 이는 연구 내 집단 간 대상자 수의 편차가 큰 경우가 있었고, 중증도가 중도(moderate) 이상인 경우가 거의 포함되지 않았기 때문으로 해석된다. 또한, PPA가 지속된 기간과 증상의 진전 정도에 따라 PPA 환자들 간 이질성이 컸을 것으로 보인다. 그러나 Rosenthal (1979) 및 Orwin (1983)의 기준으로 안정성 계수인 fail-safe N을 분석했을 때, 본 연구의 출간 오류는 모두 크지 않은 것으로 나타났다. 즉, 출간 오류는 어떤 기준을 적용하는지에 따라 상이한 결과가 나타날 수 있음을 알 수 있다. 따라서 후속연구에서는 더 다양한 논문을 추가하여 분석하여 본 연구결과를 부연 설명할 수 있는 결과를 찾아볼 수

있을 것이다. 또한, 본 연구는 그림 설명하기와 스토리텔링으로 한정하여 분석하였는데, 반 구조화된(semi-structured) 인터뷰 등을 통해 PPA 환자들의 일상생활 발화 특성을 살펴볼 필요성이 있다. 그림 설명하기와 스토리텔링 과제와 달리, 인터뷰 형식은 최소한의 주제나 질문 외에 제시되는 단서 없이 이루어져, 대상자가 가지고 있는 언어학적 능력을 민감하게 분석할 수 있을 것이다(Sajjadi, Patterson, Arnold et al., 2012).

연속 발화 과제에서 PPA 환자들의 언어학적 특성을 분석하고, PPA 유형 간 그 차이를 확인했다는 점에서 본 연구는 의의가 있다. 또한 선행연구와 같이, PPA 환자들은 모두 구문 특성에서 어려움을 나타내, 중증도는 유의한 조절변수였으나 PPA 유형은 아니었다. 최근 신경변성질환에 대한 관심이 증가하고 있고, 이를 민감하게 발견하고 예측할 수 있는 요인 중 언어가 중요한 요인으로 꼽히고 있어, 이들의 언어학적 특성에 대한 연구는 매우 중요하다. 따라서, PPA 환자들의 언어학적 특성을 다루는 메타 분석이 다양하게 이루어져, 기존 논문에서 제시할 수 없었던 새로운 결과 및 해석을 한다면, 언어를 통해 신경변성질환을 조기발견 하는 데 중요한 역할을 할 수 있을 것이다.

REFERENCES

(*indicates studies used for meta-analysis)

- *Ash, S., Evans, E., O'Shea, J., Powers, J., Boller, A., Weinberg, D., & Grossman, M. (2013). Differentiating primary progressive aphasias in a brief sample of connected speech. *Neurology*, 81(4), 329-336.
- *Ash, S., Moore, P., Antani, S., McCawley, G., Work, M., & Grossman M. (2006). Trying to tell a tale: discourse impairments in progressive aphasia and frontotemporal dementia. *Neurology*, 66(9), 1405-1413.
- Ash, S., Nevler, N., Phillips, J., Irwin, D. J., McMillan, C. T., Rascovsky, K., & Grossman, M. (2019). A longitudinal study of speech production in primary progressive aphasia and behavioral variant frontotemporal dementia. *Brain & Language*, 194, 46-57.
- Auclair-Ouellet, N., Macoir, J., Laforce Jr, R., Bier, N., & Fossard, M. (2016). Regularity and beyond: impaired production and comprehension of inflectional morphology in semantic dementia. *Brain & Language*, 155-156, 1-11.
- Bernard, R., & Borokhovski, E. (2009). *Effect size calculation for meta-analysis*. Proceedings of the 2009 Campbell Colloquium in Oslo.
- *Berube, S., Nonnemacher, J., Demsky, C., Glenn, S., Saxena, S., Wright, A., ... & Hillis, A. E. (2019). Stealing cookies in the twenty-first century: mea-

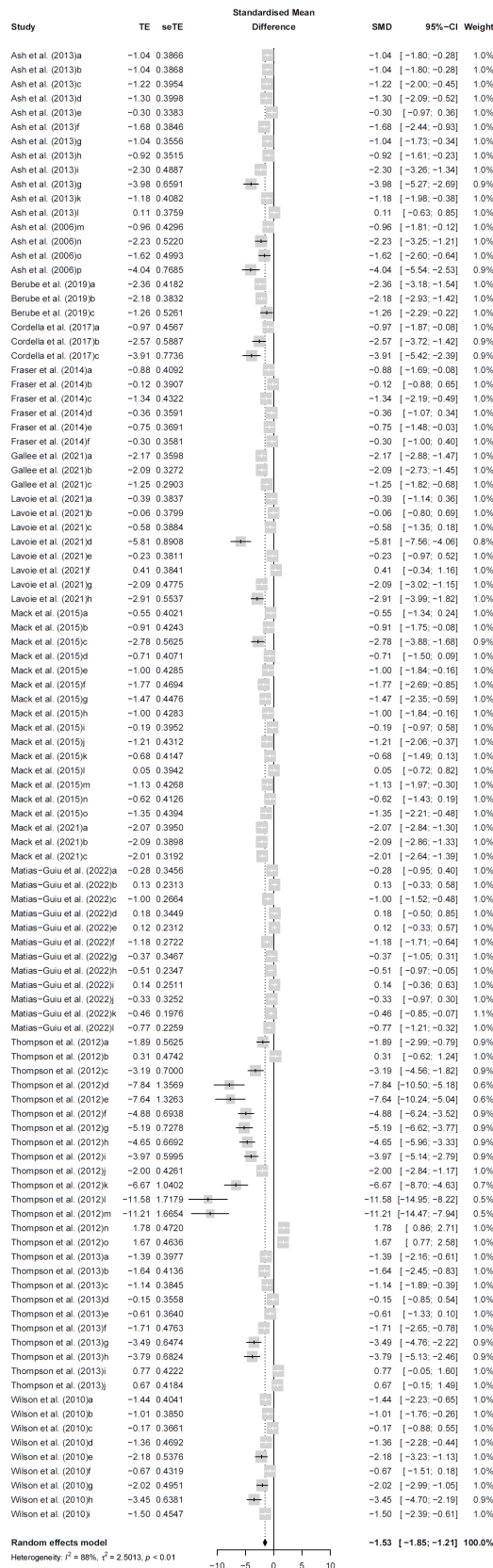
- sures of spoken narrative in healthy versus speakers with aphasia. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 28(1S), 321-329.
- Boschi, V., Catricala, E., Consonni, M., Chesi, C., Moro, A., & Cappa, S. F. (2017). Connected speech in neurodegenerative language disorders: a review. *Frontiers in Psychology*, 8, 1-21.
- Brambati, S. M., Amici, S., Racine, C. A., Neuhaus, J., Miller, Z., Ogar, J., Dronkers, N., Miller, B. L., Rosen, H., & Gorno-Tempini, M. L. (2015). Longitudinal gray matter contraction in three variants of primary progressive aphasia: a tensor-based morphometry study. *NeuroImage: Clinical*, 8, 345-355.
- Butts, A. M., Machulda, M. M., Duffy, J. R., Strand, E. A., Whitwell, J. L., & Josephs, K. A. (2015). Neuropsychological profiles differ among the three variants of primary progressive aphasia. *Journal of the International Neuropsychological Society*, 21(6), 429-435.
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis for the behavioral sciences* (2nd ed.). Hillsdale, NJ: Lawrence Erlbaum Associates, Publishers.
- *Cordella, C., Dickerson, B. C., Quimby, M., Yunusova, Y., & Green, J. R. (2017). Slowed articulation rate is a sensitive diagnostic marker for identifying non-fluent primary progressive aphasia. *Aphasiology*, 31(2), 241-260.
- Croot, K., Ballard, K., Leyton, C. E., & Hodges, J. R. (2012). Apraxia of speech and phonological errors in the diagnosis of nonfluent/agrammatic and logopenic variants of primary progressive aphasia. *Journal of Speech, Language, & Hearing Research*, 55(5), 1562-1572.
- Duval, S., & Tweedie, R. (2000). A nonparametric 'trim and fill' method of accounting for publication bias in meta-analysis. *Journal of the American Statistical Association*, 95(449), 89-98.
- Egger, M., Smith, G. D., Schneider, M., & Minder, C. (1997). Bias in meta-analysis detected by a simple, graphical text. *BMJ*, 315(7109), 629-634.
- Folstein, M. F., Folstein, S. F., & McHugh, P. R. (1975). "Mini Mental State": a practical method for grading the cognitive state of patients for the clinician. *Journal of Psychiatric Research*, 12(3), 189-198.
- *Fraser, K. C., Meltzer, J. A., Graham, N. L., Leonard, C., Hirst, G., Black, S. E., & Rochon, E. (2014). Automated classification of primary progressive aphasia subtypes from narrative speech transcripts. *Cortex*, 55, 43-60.
- *Gallée, J., Cordella, C., Fedorenko, E., Hochberg, D., Touroutoglou, A., Quimby, M., & Dickerson, B. C. (2021). Breakdowns in informativeness of naturalistic speech production in primary progressive aphasia. *Brain Sciences*, 11(2), 130.
- Goodglass, H., Barresi, B., & Kaplan, E. (1983). *The Boston diagnostic aphasia examination*. Philadelphia, USA: Lippincott Williams and Wilkins.
- Gorno-Tempini, M. L., Hillis, A. E., Weintraub, S., Kertesz, A., Mendez, M., Cappa, S. F., Ogar, J. M., ... & Grossman, M. (2011). Classification of primary progressive aphasia and its variants. *Neurology* 76(11), 1006-1014.
- Hedges, L. V., & Olkin, I. (1985). *Statistical methods for meta-analysis*. San Diego, CA: Academic Press.
- Josephs, K. A., Whitwell, J. L., Duffy, J. R., Vanvoorst, W. A., Strand, E. A., Hu, W. T., Boeve, B. F., ... Petersen, R. C. (2008). Progressive aphasia secondary to Alzheimer disease vs FTLN pathology. *Neurology*, 70(1), 25-34.
- Jurica, P. J., Leitten, C. L., & Mattis, S. (2001). *DRS-2: Dementia Rating Scale-2: professional manual*. Psychological Assessment Resources: California.
- Keller, T. A., Carpenter, P. A., & Just, M. A. (2001). The neural bases of sentence comprehension: a fMRI examination of syntactic and lexical processing. *Cerebral Cortex*, 11(3), 223-237.
- Kemmerer, D. (2015). *Cognitive neuroscience of language*. New York, NJ: Psychology Press.
- Kertesz, A. (1982). *Western Aphasia Battery*. New York: Grune & Stratton.
- Kertesz, A. (2006). *Western Aphasia Battery- Revised (WAB-R)*. Austin, TX: Pro-Ed.
- Knopman, D. S., Weintraub, S., & Pankratz, V. S. (2011). Language and behavior domains enhance the value of the clinical dementia rating scale. *Alzheimer's & Dementia*, 7(3), 293-299.
- *Lavoie, M., Black, S. E., Tang-Wai, D. F., Graham, N. L., Stewart, S., Leonard, C., & Rochon, E. (2021). Description of connected speech across different elicitation tasks in the logopenic variant of primary progressive aphasia. *International Journal of Language & Communication Disorders*, 56(5), 1074-1085.
- Louwersheimer, E., Keulen, M. A., Steenwijk, M. D., Wattjes, M. P., Jiskoot, L. C., Vrenken, H., Teunissen, C. E., ... Pijnenburg, Y. A.L. (2016). Heterogeneous language profiles in patients with primary progressive aphasia due to Alzheimer's disease. *Journal of Alzheimer's Disease*, 51(2), 581-590.
- *Mack, J. E., Barbieri, E., Weintraub, S., Mesulam, M. M., & Thompson, C. K. (2021). Quantifying grammatical impairments in primary progressive aphasia: structured language tests and narrative language production. *Neuropsychologia*, 151, 107713.
- *Mack, J. E., Chandler, S. D., Meltzer-Asscher, A., Rogalski, E., Weintraub, S., Mesulam, M. M., & Thompson, C. K. (2015). What do pauses in narrative production reveal about the nature of word retrieval deficits in PPA?. *Neuropsychologia*, 77, 211-222.
- Marcotte, K., Graham, N. L., Fraser, K. C., Meltzer, J. A., Tang-Wai, D. F.,

- Chow, T. W., Freedman, M., ... Rochon, E. (2017). White matter disruption and connected speech in non-fluent and semantic variants of primary progressive aphasia. *Dementia & Geriatric Cognitive Disorders*, 7(1), 52-73.
- *Matias-Guiu, J. A., Suárez-Coalla, P., Yus, M., Pytel, V., Hernández-Lorenzo, L., Delgado-Alonso, C., ... & Cuetos, F. (2022). Identification of the main components of spontaneous speech in primary progressive aphasia and their neural underpinnings using multimodal MRI and FDG-PET imaging. *Cortex*, 146, 141-160.
- Mayer, M. (1969). *Frog, Where Are You?*. New York: Penguin Books.
- Mesulam, M. M. (2007). Primary progressive aphasia: a 25-year retrospective. *Alzheimer Disease & Associated Disorders*, 21(4), S8-S11.
- Mesulam, M. M. (2008). Primary progressive aphasia pathology. *Annals of Neurology*, 63(1), 124-125.
- Mesulam, M. M., Wieneke, C., Thompson, C., Rogalski, E., & Weintraub, S. (2012). Quantitative classification of primary progressive aphasia at early and mild impairment stages. *Brain*, 135(5), 1537-1553.
- Murray, L., Salis, C., Martin, N., & Dralle, J. (2016). The use of standardised short-term and working memory tests in aphasia research: a systematic review. *Neuropsychological Rehabilitation*, 28(3), 1-43.
- Nasreddine, Z. S., Phillips, N. A., Bédirian, V., Charbonneau, S., Whitehead, V., Collin, I., Cummings, J. L., & Chertkow, H. (2005). The Montreal Cognitive Assessment, MoCA: a brief screening tool for mild cognitive impairment. *Journal of the American Geriatrics Society*, 53(4), 695-699.
- Orwin, R. G. (1983). A fail-safe N for effect size in meta-analysis. *Journal of Educational Statistics*, 8(2), 157-159.
- Rosenthal, R. (1979). The file drawer problem and tolerance for null results. *Psychological Bulletin*, 86(3), 638-64.
- Saffran, E. M., Berndt, R. S., & Schwartz, M. F. (1989). The quantitative analysis of agrammatic production: procedure and data. *Brain & Language*, 37(3), 440-479.
- Sajjadi, S. A., Patterson, K., Arnold, R. J., Watson, P. C., & Nestor, P. J. (2012b). Primary progressive aphasia: a tale of two syndromes and the rest. *Neurology*, 78(21), 1670-1677.
- Sajjadi, S. A., Patterson, K., Tomek, M., & Nestor, P. J. (2012a). Abnormalities of connected speech in semantic dementia vs Alzheimer's disease. *Aphasiology*, 26, 847e866.
- Sajjadi, S. A., Patterson, K., Tomek, M., & Nestor, P. J. (2012b). Abnormalities of connected speech in the non-semantic variants of primary progressive aphasia. *Aphasiology*, 26(10), 1219-1237.
- Sapolsky, D., Bakkour, A., Negreira, A., Nalipinski, P., Weintraub, S., Mesulam, M.-M., ... Dickerson, B.C. (2010). Cortical neuroanatomic correlates of symptom severity in primary progressive aphasia. *Neurology*, 75(4), 358-366.
- Scheffel, L., Duffy, J. R., Strand, E. A., & Josephs, K. A. (2021). Word fluency test performance in primary progressive aphasia and primary progressive apraxia of speech. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 30(6), 2635-2642.
- Sung, J. E., DeDe, G., & Lee, S. E. (2016). Cross-linguistic differences in a picture-description task between Korean and English-speaking individuals with aphasia. *American Journal of Speech-Language Pathology*, 25(4S), S813-S822.
- *Thompson, C. K., Cho, S., Hsu, C. J., Wieneke, C., Rademaker, A., Weitner, B. B., ... Weintraub, S. (2012). Dissociations between fluency and agrammatism in primary progressive aphasia. *Aphasiology*, 26(1), 20-43.
- *Thompson, C. K., Meltzer-Asscher, A., Cho, S., Lee, J., Wieneke, C., Weintraub, S., & Mesulam, M. (2013). Syntactic and morphosyntactic processing in stroke-induced and primary progressive aphasia. *Behavioural Neurology*, 26(1-2), 35-54.
- Varkanitsa, M., & Caplan, D. (2018). On the association between memory capacity and sentence comprehension: Insights from a systematic review and meta-analysis of the aphasia literature. *Journal of Neurolinguistics*, 48, 4-25.
- *Wilson, S. M., Henry, M. L., Besbris, M., Ogar, J. M., Dronkers, N. F., Jarrold, W., ... Gorno-Tempini, M. L. (2010). Connected speech production in three variants of primary progressive aphasia. *Brain*, 133(7), 2069-2088.

Appendix 1. 분석 논문 특성 요약표

	Language	Participants with PPA	Severity Measurement	Age (SD)	Education (SD)	Controls (SD)	Task	Linguistic features extracted
Ash et al. (2013)	English	18 sv-PPA 29 lv-PPA 15 nfv-PPA	MMSE	65.7 (8.2) 66.1 (9.3) 70.3 (10.6)	15.8 (3.0) 15.2 (3.0) 14.2 (2.8)	N=12 Age: 70.0 (8.3) Edu: 16.2 (2.6)	PD ^a	F: WpM S: MLU, GCS L: O-C ratio
Ash et al. (2006)	English	13 sv-PPA 10 nfv-PPA	MMSE	66.4 (7.1) 72.5 (7.6)	15.8 (2.7) 14.8 (2.9)	N=10 Age: 69.1 (4.8) Edu: 16.7 (2.6)	ST ^b	F: WpM S: MLU
Berube et al. (2019)	English	9 sv-PPA 11 lv-PPA 4 nfv-PPA	N/A	64.2 (9.6)	15.4 (1.9)	N=50 Age: 58.9 (18.2) Edu: 16.0 (0.7)	PD ^c	L: CU
Cordella et al. (2017)	English	13 sv-PPA 14 lv-PPA 11 nfv-PPA	PASS	66.0 (9.03) 71.8 (7.75) 66.4 (11.40)	17.2 (2.38) 16.9 (2.45) 16.6 (3.29)	N=8 Age: 61.7 (8.44) Edu: 15.8 (0.71)	PD ^d	F: SR
Fraser et al. (2014)	English	10 sv-PPA 14 nfv-PPA	MMSE DRS-R	65.6 (7.4) 64.9 (10.1)	17.5 (6.1) 14.3 (3.6)	N=16 Age: 67.8 (8.2) Edu: 16.8 (4.3)	ST ^e	S: MLU L: NoW
Gallee et al. (2021)	English	19 sv-PPA 26 lv-PPA 25 nfv-PPA	CDR	69.7 (8.35) 70.2 (7.17) 68.2 (8.28)	16.2 (2.30) 15.7 (2.38) 15.5 (2.73)	N=31 Age: 63.4 (8.20) Edu: 14.9 (1.83)	PD ^d	L: CU
Lavoie et al. (2021)	English	13 lv-PPA	MMSE MoCA DRS-R	68.9 (6)	15.8 (3.2)	N=13 Age: 68.8 (8.8) Edu: 16.1 (3.7)	PD ^a ST ^b	S: MLU, GCS L: NoW, O-C ratio
Mack et al. (2015)	English	12 sv-PPA 11 lv-PPA 12 nfv-PPA	MMSE	60.58 (5.65) 66.18 (6.24) 62.33 (7.34)	16.08 (3.15) 16.64 (1.43) 16.58 (2.47)	N=12 Age: 64 (6.76) Edu: 16 (2.52)	ST ^e	F: WpM S: MLU, GCS L: N-V ratio, O-C ratio
Mack et al. (2021)	English	15 sv-PPA 16 lv-PPA 34 nfv-PPA	WAB	65 (5.9) 68.4 (6) 65.8 (6.9)	15.9 (3.0) 17.4 (1.5) 15.8 (2.2)	N=25 Age: 63.6 (7.8) Edu: 15.8 (2.3)	ST ^e	S: GCS
Matias-Guiu et al. (2022)	English	11 sv-PPA 45 lv-PPA 31 nfv-PPA	CDR	64.45 (6.53) 73.96 (6.15) 70.32 (8.50)	13.36 (3.80) 12.42 (5.33) 12.00 (5.09)	N=31 Age: 69.45 (9.89) Edu: 12.74 (4.83)	PD ^a	F: WpM S: MLU L: NoW
Thompson et al (2012)	English	6 sv-PPA 20 lv-PPA 11 nfv-PPA	WAB-R	56.33 (1.52) 65.9 (2.03) 63.27 (1.77)	16.00 (0.89) 15.85 (0.49) 16.82 (0.80)	N=13 Age: 63.23 (1.63) Edu: 16.31 (0.70)	ST ^e	F: WpM S: MLU, GCS L: N-V ratio, O-C ratio
Thompson et al. (2013)	English	15 lv-PPA 9 nfv-PPA	MMSE WAB	66.5 (N/A) 63 (N/A)	15.9 (N/A) 16.6 (N/A)	N=15 Age: 62.6 (N/A) Edu: N/A	ST ^e	F: WpM S: MLU, GCS L: N-V ratio, O-C ratio
Wilson et al. (2010)	English	25 sv-PPA 11 lv-PPA 14 nfv-PPA	MMSE CDR	60.58 (5.65) 66.18 (6.24) 62.33 (7.34)	15.8 (2.5) 16.6 (2.8) 15.9 (3.1)	N=10 Age: 68.5 (5.9) Edu: 17.0 (1.7)	PD ^d	F: WpM S: MLU L: NoW

Appendix 2. 정상 및 PPA 환자 간 언어 능력 전체 효과 크기 Forest Plot



국문초록

연속 발화 과제에서 원발진행실어증 환자의 언어 특성에 관한 메타 분석

박지민 · 성지은 · 김영태

이화여자대학교 대학원 언어병리학과

배경 및 목적: 원발진행실어증(primary progressive aphasia, PPA)은 신경변성질환(neurodegenerative disease)의 하나로, 초기에 인지 저하가 나타나지 않지만 언어에서는 어려움을 나타낸다. 선행연구에서는 PPA가 언어학적 특성 중 구문 특성에서 다른 신경변성질환과 뚜렷한 차이가 있다고 보고한다. 구문 특성을 살펴보기에 가장 적절하다고 알려진 연속 발화(connected speech) 과제에서 PPA 환자의 발화 특성을 살펴보고자 메타 분석을 실시하였다. **방법:** 3개의 국외 데이터베이스(CINAHL EBSCO, PubMed, SCOPUS)에서 추출한 논문을 선정 및 제외 기준에 따라 총 13편의 논문을 분석하였다. 각 논문에서 언어학적 변수를 유창성, 구문 특성, 그리고 어휘 특성으로 하여, 각 결과값을 Hedges' g로 변환하여 효과크기를 산출하였다. **결과:** 첫째, PPA와 정상 간 차이가 유의하여 효과크기가 있는 것으로 나타났고, 언어학적 특성이 유의한 조절변수로 나타났다. 둘째, 언어학적 특성 중 유창성에서 효과크기가 유의하였으며, 이를 설명하는 조절변수는 PPA 유형이었다. 셋째, 언어학적 특성 중 구문 특성에서도 효과크기가 유의하였고, 중증도가 유의한 조절변수로 나타났다. 마지막으로, 어휘 특성에도 효과크기가 유의하였으며, PPA 유형이 유의한 조절변수로 나타났다. **논의 및 결론:** PPA 환자들은 유창성과 어휘 특성에서 유형 간 차이가 유의했지만, 구문 특성에서는 중증도 간 차이가 유의했다. 이는 PPA 유형과 관계없이, 모든 PPA 환자들이 구문 특성에서 결함이 두드러진다는 선행연구와 일치하는 결과이다.

핵심어: 원발진행실어증, 연속 발화, 메타 분석, 언어학적 특성

본 연구는 2022년도 정부(과학기술정보통신부)의 재원으로 국가과학기술연구회 창의형 융합연구사업(No. CAP21052-000)의 지원 및 정부(과학기술정보통신부)의 재원으로 한국연구재단(No. 2022R1A2C2005062)의 지원, 정부(교육부)의 재원으로 한국연구재단의 지원을 받아 수행된 기초연구사업임(No. NRF-2022R111A4063209).

ORCID

박지민(제1저자, 대학원생 <https://orcid.org/0000-0002-3367-893X>); 성지은(공동저자, 교수 <https://orcid.org/0000-0002-1734-0058>); 김영태((교신저자, 교수 <https://orcid.org/0000-0003-1738-6862>)