

Motnje hranjenja in požiranja pri otrocih z razcepi v orofacialnem področju

Feeding and swallowing disorders in children with clefts in the orofacial region

Nika Jelenc,¹ Andreja Eberlinc,² Irena Hočevnar Boltežar^{3,4}

¹ Univerzitetni rehabilitacijski inštitut Republike Slovenije – Soča, Ljubljana, Slovenija

² Klinični oddelek za maksilofacialno in oralno kirurgijo, Kirurška klinika, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Ljubljana, Slovenija

³ Klinika za otorinolaringologijo in cervikofacialno kirurgijo, Univerzitetni klinični center Ljubljana, Ljubljana, Slovenija

⁴ Medicinska fakulteta, Univerza v Ljubljani, Ljubljana, Slovenija

Korespondenca/ Correspondence:

Nika Jelenc, e: nika.jelenc@ir-rs.si

Ključne besede:

razcepi v orofacialnem področju; težave s hranjenjem in požiranjem; vprašalnik; dejavniki tveganja; obravnava

Key words:

orofacial clefts; feeding and swallowing problems; questionnaire; risk factors; interventions

Prispelo: 27. 10. 2018

Sprejeto: 24. 3. 2019

Izvleček

Izhodišče: Orofacialni razcep je najpogostejša prirojena obrazna nepravilnost. Otroci z razcepi v orofacialnem področju imajo poleg težav z govorom tudi težave na področju hranjenja in požiranja. Raziskave kažejo, da so simptomi težav s hranjenjem precej raznoliki. V skrajnih primerih je potrebno uvesti nadomestne načine hranjenja. V Sloveniji še ni bila narejena raziskava o pojavljanju težav s hranjenjem pri otrocih z razcepi v orofacialnem področju.

Metode: Ugotoviti smo želeli pogostost in vrsto težav s hranjenjem otrok z razcepi v orofacialnem področju, starih od pet mesecev do šest let. V ta namen smo izoblikovali anonimni vprašalnik za starše o vrsti orofacialnega razcepa, možnih otrokovih težavah pri hranjenju, požiranju in govoru ter pripomočkih za hranjenje. Vprašalnik je bil najprej pilotsko preizkušen pri starših otrok z orofacialnimi razcepi med kontrolnimi ambulantnimi pregledi, nato pa poslan 93 staršem otrok z orofacialnimi razcepi, rojenih v obdobju treh zaporednih let. Z opisno statistiko smo predstavili pogostnost pojavljanja težav ter analizirali dejavnike, ki so se pogosteje pojavljali pri otrocih s težavami pri hranjenju.

Rezultati: Starši 58 otrok z orofacialnimi razcepi so izpolnili vprašalnik. Ugotovili smo, da je imelo skoraj tri četrtine otrok težave z vzpostavitvijo hranjenja takoj po rojstvu, kasneje so se težave s hranjenjem zmanjšale, vendar so bile v četrtini primerov še vedno prisotne do zaključenega kirurškega zdravljenja. Največ težav se je pojavljalo zaradi uhajanja hrane in pijače skozi nos, požiranja zraka pri hranjenju po steklenički in podaljšanega časa hranjenja. Otroci z razcepom neba z razcepom ustnice ali brez so imeli bistveno več težav s hranjenjem kot otroci samo z razcepom ustnice. Večina staršev je za hranjenje uporabljala prilagojeno stekleničko in je bila z uporabo zadovoljna. Več kot polovica staršev je izjavila, da so prejeli premalo informacij v zvezi s hranjenjem pred in takoj po rojstvu otroka.

Zaključek: Kljub dobro organizirani multidisciplinarni skrbi za otroke z orofacialnimi razcepi v Sloveniji starši še vedno pogrešajo konkretna navodila o hranjenju otroka z orofacialnim razcepom, zaradi česar bo potrebno dodatno izobraziti predvsem medicinske sestre, ki delajo v porodnišnicah. Glede na visoke cene pripomočkov za hranjenje otrok z orofacialnimi razcepi bi bilo dobrodošlo, da bi kril stroške ZZZS.

Abstract

Background: Orofacial clefts are the most common congenital craniofacial malformations. Children with orofacial clefts do not only have problems with speech, but also with feeding and swallowing. Alternative methods of feeding need to be introduced in severe cases. Until now there has not been conducted a single study regarding feeding and swallowing problems in children with orofacial clefts in Slovenia.

Methods: The aim of the study was to determine the prevalence and the type of feeding and swallowing problems in children with orofacial clefts, aged between five months and six years. An anonymous questionnaire for parents was created, containing questions about the type of the child's orofacial cleft, child's possible feeding, swallowing and speech problems, and special feeding gadgets. The questionnaire was initially tested in a pilot study during routine medical follow-up visits. Afterwards, it was sent to 93 parents of children with clefts, born in a period of three consecutive years. A descriptive statistics was used to present the prevalence of feeding and swallowing problems in children with orofacial clefts. The factors correlated with feeding problems were analysed.

Results: Almost three-quarters of children had problems with feeding immediately after birth; problems with feeding later decreased, but they were still present in one quarter of all cases until the completed surgical treatment. Most difficulties occurred due to nasal regurgitation, excessive air intake while bottle feeding, and prolonged feeding time. Children with cleft palate with or without cleft lip had significantly more feeding problems in comparison to children with cleft lip only. Most parents used special feeding bottles and were generally satisfied with their use. More than a half of the parents believed that they had received too little information about feeding before and immediately after the child's birth.

Conclusion: Despite the well-organized multidisciplinary care of children with orofacial clefts in Slovenia, parents still miss the professional counselling about feeding their children. Therefore, an additional education of nurses working in maternity hospitals will be necessary in the future. Considering the high prices of special feeding gadgets for children with orofacial clefts, covering of their costs by the health insurance would be welcome.

Citirajte kot/Cite as: Nika Jelenc, Andreja Eberlinc, Irena Hočevnar Boltežar. [Feeding and swallowing disorders in children with clefts in the orofacial region]. *Zdrav Vestn.* 2019;88(9–10):405–14.

DOI: 10.6016/ZdravVestn.2892

1 Uvod

Orofacialni razcep je najpogostejša prirojena obrazna nepravilnost. V Sloveniji se rodi približno 1,77 posameznikov z razcepom v orofacialnem področju na 1.000 živorojenih otrok (1). Večina orofacialnih razcepov nastane kot kombinacija genetskih in zunanjih faktorjev in se razvije v zgodnji fazi nosečnosti (2).

Orofacialne razcepe delimo v štiri skupine. V prvo skupino sodi razcep ustnice (*cheiloschisis* – *CL*) ali ustnice in čeljustnega grebena na eni ali obeh straneh (*cheilognathoschisis unilateralis/bilateralis* – *CLA*). V drugo skupino sodi razcepljena ustnica, čeljustni greben in nebo na eni ali obeh straneh (*cheilognathopalatoschisis unilateralis* – *UCLP* / *bilateralis* – *BCLP*). Pri tretji skupini

orofacialnih razcepov gre za razcepljeno nebo (*palatoschisis* – *CP*). V četrto skupino sodijo redke oblike orofacialnih razcepov na drugih predelih obraza (2,3). Orofacialni razcep se lahko pojavi kot del sindromske simptomatike. Obstaja več kot 400 sindromov, povezanih z razcepom ustnice in/ali neba (4). Približno 30 % vseh orofacialnih razcepov se pojavi v sklopu sindroma (5).

Razcep v orofacialnem področju lahko v veliki meri vpliva na izgled, govor, sluh ter rast in razvoj obraza, ne nazadnje pa tudi psiho-socialno in ekonomsko prizadene otroka in njegovo družino ter s tem močno zniža kakovost življenja (2,6).

Hranjenje je osnovna funkcija človeka. Hranjenje in požiranje zajema celo-

ten akt od sprejema hrane v usta do oblikovanja grizljaja in potovanja grizljaja prek žrela v požiralnik in želodec (7).

Številne študije so pokazale, da imajo otroci z orofacialnimi razcepi težave s hranjenjem različnih razsežnosti, vendar si strokovnjaki niso enotni glede simptomatike težav. Lahko prihaja do davljenja, kašlja, požiranja zraka in podaljšanega časa hranjenja, s tem pa tudi do neustreznega pridobivanja na teži, dehidracije in potrebe po nadomestnem načinu hranjenja (8,9). Najpogosteje opisana težava pri hranjenju novorojenčkov z razcepom neba je oralna motorična disfunkcija in zahajanje hrane skozi nos ter nizka učinkovitost pri hranjenju. Največ tveganja za nastanek težav s hranjenjem obstaja pri otrocih z Robinovo sekvenco (10).

De Vries in sodelavci (8) so s pomočjo vprašalnikov za starše (90 udeležencev) ugotavljali pogostost težav s hranjenjem pri osebah s CP. Kar 67 % v študijo zajetih otrok z CP je kazalo visoko tveganje za nastanek težav s hranjenjem. Pogosto je bilo potrebno uvesti hranjenje prek nazogastrične sonde (v 32 %). Jones (11) je navajal težave s hranjenjem pri 25 % otrok z različnimi orofacialnimi razcepi, Spriestersbach s sodelavci (12) pa je ugotovil, da je imelo kar 73 % otrok z izoliranim CP težave s hranjenjem. Reid in sodelavci (13) so preiskovali večšine hranjenja pri dojenčkih s shizo in poskušali prepoznati dejavnike tveganja. Ugotovili so, da ima 32 % novorojenčkov z orofacialnimi razcepi šibke večšine hranjenja, prevalenca se pri treh mesecih starosti zniža na 19 % in pri 14 mesecih na 15 %. Le redki novorojenčki z določenimi orofacialnimi razcepi se lahko hranijo z dojenjem. De Vries in sodelavci (8) so zabeležili, da 86 % mater otrok z razcepi neba ni nikoli poskusilo dojiti. Trenouth in Campbell (14) sta ugotovili, da so samo pri novorojenčkih z izoliranim CL uspeli

vzdrževati ustrezno telesno težo le z dojenjem.

Reid in sodelavci (15) so raziskovali, kakšno je sesanje novorojenčkov, rojenih z orofacialnimi razcepi. Ugotovili so, da so otroci z izoliranim CL izkazovali podobno sesanje kot vrstniki, pri novorojenčkih s CP s CL ali brez pa so zaznali spremenjen vzorec sesanja.

Strokovnjaki opozarjajo, da je hranjenje potrebno obravnavati povsem drugače, kadar gre za orofacialni razcep v okviru kraniofacialnega sindroma. Takrat poleg prizadetih obraznih struktur na hranjenje vpliva še vrsta drugih strukturnih, dihalnih in živčno-mišičnih posebnosti otroka (16,17).

Pomembno je vedeti, da je zdravljenje otrok z orofacialnimi razcepi dolgotrajno in zapleteno, vanj so od otrokovega rojstva naprej vključeni različni specialisti, ki se redno sestajajo, skupaj načrtujejo zdravljenje najbolj zahtevnih otrok z orofacialnimi razcepi, vrednotijo svoje delo, iščejo vzroke za neuspehe, jih skušajo pojasniti in odpravljati (18). Člani tima ugotavljajo nastale motnje, sami obravnavajo otroka z orofacialnim razcepom ali ga napotijo k drugim ožje usmerjenim strokovnjakom v bližini otrokovega doma (19,20).

Doslej v Sloveniji še ni bilo študije, ki bi sistematično raziskovala probleme hranjenja in požiranja pri otrocih z orofacialnimi razcepi in njihovo reševanje.

2 Metode

Preiskovana populacija so bili predšolski otroci z razcepom v orofacialnem področju, stari od 6 mesecev do 6 let. Za namen raziskave smo na podlagi podatkov iz literature (17,21) oblikovali anonimni vprašalnik. Vprašanja so bila vezana na splošne informacije o otroku, podatke o njegovem hranjenju in požiranju, uporabljenih pripomočkih za hranjenje,

spremljajočih težavah poleg hranjenja (občutljivost pri sprejemanju dotikov v ustih in umivanju zob, težave pri razvoju govora, stres staršev ob hranjenju), ter podatke o podpori in pomoči strokovnih delavcev pri hranjenju otroka z orofacialnim razcepom.

Vprašalnik smo najprej pilotno preizkusili z 19 starši, ki so pripeljali svoje otroke z orofacialnimi razcepi na kontrolni pregled k maksilofacialnemu kirurgu, nato pa ga razposlali vsem staršem otrok z orofacialnimi razcepi, rojenih v treh zaporednih letih, od 1. 1. 2013 do 31. 12. 2016. Vprašalnik je bil anonimen, le s pripisanim imenom otroka in podpisanim dovoljenjem staršev smo lahko povzeli medicinske podatke otrok iz zdravstvene dokumentacije in z njimi dopolnili rezultate vprašalnika (gestacijska starost ob rojstvu in tip orofacialnega razcepa).

Rezultate smo analizirali s programom Excel 2013 in IBM SPSS Statistics 22.0. Predstavili smo jih z opisno statistiko, nato pa primerjali rezultate vprašalnika med skupino otrok z orofacialnimi

razcepi, ki so imeli težave s hranjenjem in požiranjem, in skupino otrok, za katere so starši navedli, da težav s hranjenjem niso imeli. Uporabili smo test hi-kvadrat oziroma Fisherjev natančni test.

Raziskavo je odobrila Komisija za medicinsko etiko Republike Slovenije (odločba št. 0120-107/2017).

3 Rezultati

Odziv na poslani vprašalnik je bil 47 %, od 93 poslanih vprašalnikov smo jih dobili vrnjenih 44. V končno analizo je bilo skupaj vključenih 58 vprašalnikov, poleg 44 vrnjenih še 14 popolnoma izpolnjenih vprašalnikov iz pilotske raziskave, in sicer tistih, ki so jih izpolnjevali starši otrok, starih 6 let in manj. Končno skupino so tako sestavljali otroci, ki so bili stari med šest in 72 mesecev (srednja vrednost 30 mesecev, standardni odklon 16,8 mesecev). Udeležence raziskave smo razdelili v skupine glede na vrsto orofacialnega razcepa (Tabela 1).

Skupaj 53 (91,4 %) otrok, vključenih v raziskavo, je bilo rojenih po dopolnjenem 37. tednu gestacijske starosti. Pri desetih otrocih (17,2 %) se je shiza pojavila v sklopu sindroma: pri 6 otrocih v sklopu Robinove sekvence, pri 2 v sklopu van der Woudovega sindroma, 1 je imel orofacioidigitalni sindrom, 1 pa je imel poleg orofacialnega razcepa še Downov sindrom.

Težave s hranjenjem je v nekem obdobju svojega življenja imelo 42 (72,4 %) otrok. Mesec dni po rojstvu so težave vztrajale še pri 24 (40,4 %), do zaključnega kirurškega zdravljenja pa je težave imelo 14 otrok (24,1 %), pri 8 (13,8 %) pa so bile težave ves čas prisotne. Med temi 8 otroki so imeli trije CP, štirje UCLP, eden pa bilateralno CL. Dva sta imela orofacialni razcep, ki je bil del sindroma (Robinova sekvenca, sindrom van der Woude).

Tabela 1: Vrsta orofacialnega razcepa glede na spol udeležencev raziskave (N = 58).

Vrsta	Moški (%)	Ženske (%)	Skupaj (%)
UCL	3 (5,2)	2 (3,4)	5 (8,6)
UCLA	1 (1,7)	2 (3,4)	3 (5,2)
BCLA	1 (1,7)	2 (3,4)	3 (5,2)
CP	11 (19,0)	13 (22,4)	24 (41,4)
UCLP	9 (15,5)	7 (12,1)	16 (27,6)
BCLP	6 (10,3)	1 (1,7)	7 (12,1)
Skupaj	31 (53,4)	27 (46,6)	58 (100,0)

Legenda: UCL – enostranski razcep ustnice, UCLA – enostranski razcep ustnice in čeljustnega grebena, BCLA – obojestranski razcep ustnice in čeljustnega grebena, CP – razcep neba, UCLP – enostranski razcep ustnice, čeljustnega grebena in neba, BCLP – obojestranski razcep ustnice, čeljustnega grebena in neba.

Enajst otrok je bilo dojenih vsaj en mesec, med njimi je bilo osem otrok s CL z razcepom čeljustnega grebena ali brez in 3 otroci s CP (eden od teh je imel submukozni razcep neba, eden pa nepopoln razcep mehkega neba).

Po nazogastrični sondi je bilo neko obdobje hranjenih 6 otrok z orofacialnim razcepom. Povprečen čas hranjenja po nazogastrični sondi je bil 3,2 meseca, vsem otrokom so sondo vstavili v prvem mesecu življenja. Od otrok, hranjenih po sondi, so imeli trije CP, trije pa UCLP. Pri štirih je bil CLP prisoten v sklopu sindroma. Dva sta imela Robinovo sekvenco, eden sindrom van der Woude in eden orofacioidigitalni sindrom. Po gastrostomi je bil hranjen le en otrok in sicer od 8. do 16. meseca starosti, pred tem je imel

vstavljeno nazogastrično sondo. Poleg CP je imel tudi Robinovo sekvenco, bil je dvojček in nedonošenček.

V Tabeli 2 so prikazane težave s hranjenjem in požiranjem otrok z orofacialnimi razcepi po pogostosti:

Poleg izraženih težav s hranjenjem je 20 otrok z orofacialnimi razcepi slabo prenašalo dotike v ustih, 14 otrok pa je imelo težave pri umivanju zob. Trije od šestih otrok, ki so bili hranjeni po nazogastrični sondi, so imeli tudi težave s sprejemanjem dotikov v ustih, med otroki brez uporabe sonde pa je bilo takih le tretjina. Izmed 14 otrok, ki so imeli težave z grizenjem in žvečenjem, jih je 9 slabo prenašalo dotike v ustih, 2 sta bila neko obdobje hranjena po nazogastrični cevki, 1 od teh 2 je bil nato še 8 mesecev hranjen po gastrostomi.

V našem vzorcu je imelo po mnenju staršev 24 otrok težave pri govoru, od tega 11 otrok s CP, 13 pa s CLP. Pri 8 otrocih se je govor razvijal normalno, brez pomoči logopeda. Med njimi jih je imelo pet CL ali CLA, trije CP in dva UCLP. 24 otrok je bilo premladih, da bi starši lahko presojali prisotnosti težav pri govoru.

Uporaba prilagojene stekleničke je pomagala k zmanjševanju težav s hranjenjem pri 35 otrocih (81,4 % tistih, ki so prilagojeno stekleničko uporabljali). Po pričetku uporabe nebne ploščice so starši 19 otrok (75 % tistih, ki so nebno ploščico uporabljali) opazili, da so se tudi težave s hranjenjem zmanjšale.

Več kot tretjina staršev (20 oseb) je v nekem obdobju hranjenje svojega otroka doživljala kot stres.

Slika 1 prikazuje, kateri strokovnjaki so staršem svetovali glede hranjenja in požiranja.

Samo 15 (25,9 %) staršev je že pred rojstvom vedelo, da se jim bo rodil otrok z orofacialnim razcepom. Vsi so imeli razcepljeno vsaj ustnico in čeljustni gre-

Tabela 2: Težave s hranjenjem pri otrocih z orofacialnimi razcepi po pogostosti (N = 58).

Težave s hranjenjem	Število (%)
Zahajanje hrane skozi nos pred zaključenim kirurškim zdravljenjem	37 (63,8)
Požiranje zraka ob hranjenju po steklenički	25 (43,1)
Otrok zaspi med hranjenjem po steklenički	25 (43,1)
Podaljšan čas obroka	23 (39,7)
Zahajanje hrane iz ust med hranjenjem po steklenički	20 (24,5)
Težave z grizenjem in žvečenjem	14 (24,6)
Uhajanje goste hrane iz ust	14 (24,1)
Kašelj, dušenje pri uživanju goste hrane	12 (20,7)
Bruhanje, polivanje ob hranjenju po steklenički	12 (20,7)
Jok ob hranjenju po steklenički	12 (20,7)
Kašelj, dušenje ob hranjenju po steklenički	11 (19,0)
Neustrezno pridobivanje na teži	9 (15,5)
Jok ob uživanju goste hrane	7 (12,1)
Hranjenje po sondi	6 (10,3)
Bruhanje pri uživanju goste hrane	3 (5,2)
Zahajanje hrane skozi nos po zaključenem kirurškem zdravljenju	1 (1,7)

ben. Med njimi ni bilo otrok samo s CL in otrok samo s CP.

Dobri dve tretjini (41 staršev) bi se želelo udeležiti izobraževanja na temo hranjenja in požiranja že pred rojstvom ali takoj po rojstvu otroka z orofacialnim razcepom.

Pri primerjavi otrok z orofacialnimi razcepi, ki so imeli težave s hranjenjem v nekem obdobju življenja, in otrok brez težav, smo ugotovili statistično pomembno razliko med skupinama glede vrste orofacialnega razcepa, prisotnosti sindroma, kasnejših težav v govoru in starševskega doživljanja stresa ob hranjenju otroka. Mejno značilno je bilo tudi pridobivanje ne telesni teži (Tabela 3). Zaradi majhnega števila otrok, ki so imeli ves čas prisotne težave s hranjenjem, smo rezultate primerjave teh otrok z ostalimi prikazali samo z opisno statistiko (Tabela 4).

Tabela 3: Primerjava skupin otrok z razcepi v orofacialnem področju glede na težave s hranjenjem, prisotne v nekem obdobju življenja (N = 58).

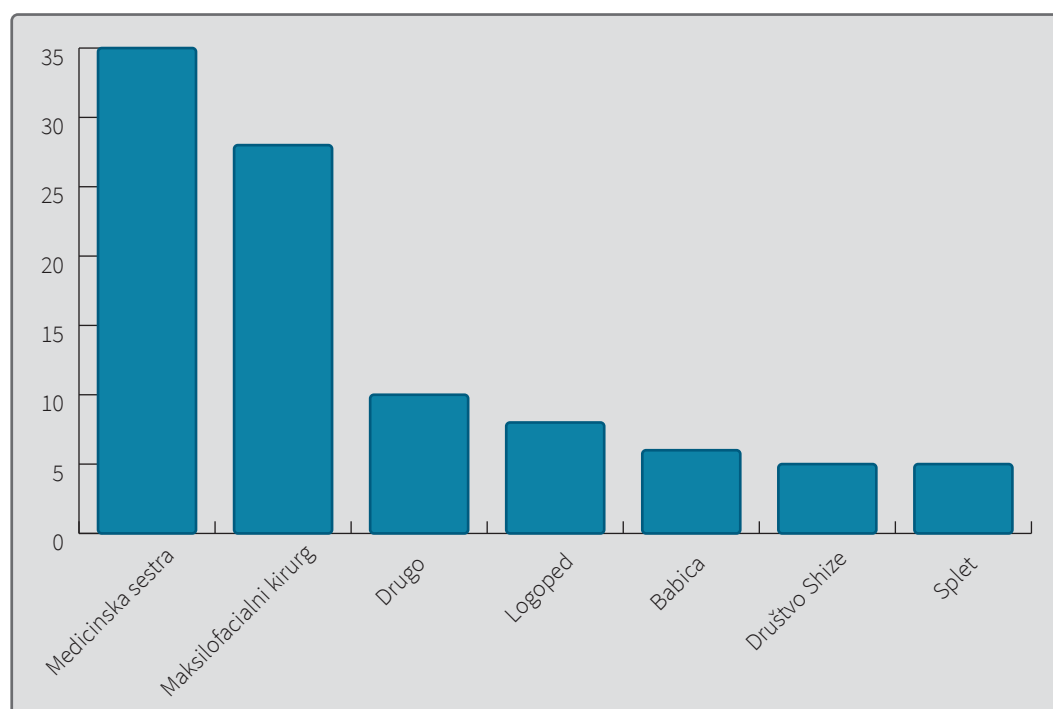
	Težave s hranjenjem (v nekem obdobju življenja)		p
	DA N = 42	NE N = 16	
CL / CLA (N = 11)	3	8	0,001
CP / CLP (N = 47)	39	3	0,001
Prisotnost sindroma (N = 10)	10	0	0,048
Težave v govoru (N = 24)	20	4	0,034
Nazogastrično hranjenje (N = 6)	6	0	0,173
Neustrezno pridobivanje na teži (N = 9)	9	0	0,051
Slabo prenašanje dotikov v ustih (N = 20)	16	4	0,371
Starši doživljajo stres ob hranjenju (N = 20)	18	2	0,032

Legenda: CL – razcep ustnice, CLA – razcep ustnice in čeljustnega grebena, CP – razcep neba, CLP – razcep ustnice, čeljustnega grebena in neba.

4 Razpravljanje

Glede na to, da se v Sloveniji na leto rodi med 30 in 40 otrok z orofacialnimi razcepi (1), smo v naš vzorec zajeli še dokaj velik delež otrok (58 oseb), starih med 6 mesecev in 6 let. Za pošiljanje vprašalnika otrokom, ki so bili v času raziskave stari od 6 mesecev do 3 let, smo se odločili, ker smo želeli dobiti predvsem podatke o začetnih težavah s hranjenjem. V pilotnem delu raziskave za evalvacijo vprašalnika smo zajeli otroke, ki so zaporedoma prihajali na kontrolni pregled k maksilofacialnemu kirurgu. V analizo smo nato vključili samo predšolske otroke, saj s podaljševanjem obdobja od rojstva otroka do izpolnjevanja vprašalnika nekatere težave lahko staršem zbledijo iz spomina.

Reid in sodelavci (13) so raziskovali pogostost težav s hranjenjem pri otrocih z orofacialnimi razcepi in ugotovili, da se težave s starostjo otroka zmanjšujejo in se pogostost težav s hranjenjem do 14. meseca zmanjša na 15 %. Rezultati naše raziskave so pokazali, da je imelo v prvem mesecu življenja slabe tri četrtine otrok težave s hranjenjem, pri 24 % so težave vztrajale do zaključenega kirurškega zdravljenja. To pomeni, da se je največ težav s hranjenjem pojavljalo pri poskusu dojenja ali pri hranjenju po steklenički v prvih mesecih življenja, le v manjšem številu primerov so težave vztrajale kasneje pri uvajanju goste in formirane hrane. Tudi Jones s sodelavci (11) in Reid (10) so ugotovili podobno. Podatkov o pogostosti težav s požiranjem pri otroški populaciji na splošno ni veliko. Iz ZDA poročajo, da je v letu 2012 približno 1 % otroške populacije v državi imel težave pri požiranju, vendar jih je le približno 13 % poiskalo ustrezno strokovno pomoč (22). Podatkov za Slovenijo ni, vendar pa je ob primerjavi pogostosti disfagije v ameriški raziskavi



Slika 1: Vir informacij glede hranjenja otroka z orofacialnim razcepom.

med splošno otroško populacijo ter rezultatov naše raziskave jasno, da so težave s hranjenjem pomemben problem otrok z orofacialnimi razcepi tudi še po

zaključenem kirurškem zdravljenju. Le dva od osmih otrok (13,8 %), ki so imeli težave s hranjenjem po končanem kirurškem zdravljenju, sta imela sindrom. Težave s požiranjem torej najverjetneje niso samo posledica drugačnih anatomskih razmer (orofacialnega razcepa), ampak tudi drugih dejavnikov.

Tabela 4: Primerjava skupin otrok z razcepi v orofacialnem področju glede na ves čas prisotne težave s hranjenjem (N = 58).

	Težave s hranjenjem (ves čas prisotne)	
	DA N = 8	NE N = 50
CL / CLA (N = 11)	1	10
CP / CLP (N = 47)	7	40
Prisotnost sindroma (N = 10)	2	8
Težave v govoru (N = 24)	2	22
Nazogastrično hranjenje (N = 6)	3	3
Neustrezno pridobivanje na teži (N = 9)	2	7
Slabo prenašanje dotikov v ustih (N = 20)	4	16
Starši doživljajo stres ob hranjenju (N = 20)	6	14

Legenda: CL – razcep ustnice, CLA – razcep ustnice in čeljustnega grebena, CP – razcep neba, CLP – razcep ustnice, čeljustnega grebena in neba.

Peterson-Falzone ugotavlja, da ima velik delež otrok z orofacialnimi razcepi v zgodnjem obdobju težave z vzpostavitvijo normalnega vzorca hranjenja, največ težav nastane zaradi komunikacije med ustno in nosno votlino. Posledica tega je nezmožnost ustvarjanja negativnega tlaka v ustni votlini. S tem se zmogljivost sesanja zmanjša (3). Najpogostejša težava v naši raziskavi je bila ravno zahajanje hrane v nos, poleg tega pa še požiranje zraka pri hranjenju po steklenički, zaspanost med hranjenjem po steklenički, podaljšan čas obroka, zahajanje hrane iz ust ob uporabi stekleničke ter težave z grizenjem in žvečenjem. Večina težav je bila torej posledica komunikacije med ustno in nosno votlino. Podobno

so ugotovili tudi drugi avtorji (8,13,21). Zaspanost med hranjenjem bi lahko pripisovali večji porabi energije otroka ob neuspešnem sesanju ter zato hitrejšo utrujenostjo ob hranjenju. Kasnejše težave z grizenjem in žvečenjem bi lahko vsaj delno razložili s spremenjeno senzibiliteto v ustni votlini zaradi orofacialnega razcepa in posledic zdravljenja, saj je devet od 14 otrok, ki so imeli vsaj neko obdobje težave z grizenjem in žvečenjem, slabo prenašalo dotike v ustih.

McDonald je v svoji raziskavi ugotovila, da vrsta orofacialnega razcepa pomembno vpliva na dojenje, saj se je 60 % otrok s CL dojilo več kot 6 mesecev, medtem ko so bili le redki otroci s CP dojeni več kot 6 mesecev (21). V naši raziskavi je bilo dojenih samo enajst otrok z orofacialnim razcepi (19 %), med njimi le trije z CP, kar se ujema s podatki strokovne literature (21,14).

Ugotovili smo, da vrsta orofacialnega razcepa statistično pomembno vpliva na težave s hranjenjem in požiranjem, saj imajo otroci s CL ali CLA bistveno manj težav kot otroci s CP ali CLP (Tabela 3). Ta rezultat je logična posledica anatomskih razmer, ki obstajajo do zaključenega kirurškega zdravljenja, redkokdaj tudi še kasneje. Otroci s težavami pri hranjenju v nekem obdobju življenja so glede na podatke iz literature pričakovano pogosteje neustrezno pridobivali na teži, bili hranjeni po nazogastrični sondi in imeli poleg orofacialnega razcepa tudi sindrom (Tabela 3).

Pri 3 od 6 otrok, ki so bili hranjeni po nazogastrični sondi, so starši opisovali slabo prenašanje dotikov v ustni votlini. Ti otroci so najverjetneje razvili čezmerno občutljivost zaradi pomanjkanja izkušenj v zgodnji starosti, ko se živčne povezave med periferijo in centralnim živčevjem še vzpostavljajo in zorijo.

Le pri 8 otrocih so težave s hranjenjem vztrajale še po kirurškem zdravljenju.

Ta skupina otrok se je tudi pogosto hranila na nadomesten način (3/8), starši 6 otrok so ob hranjenju doživljali stres. Poleg možnih neoptimalnih anatomskih razmer za hranjenje in požiranje so pri njih najverjetneje udeleženi tudi drugi dejavniki – npr. spremenjeno doživljanje čutilnih dražljajev kot posledica dogajanj v ustni votlini v prvih letih življenja ali druge spremljajoče težave. Kar polovica otrok s stalno prisotnimi težavami s hranjenjem je slabo prenašala dotike v ustni votlini. Na zaznavanje dražljajev v ustni votlini vplivajo tudi kirurški posegi, uporaba nazogastrične cevke ali gastrostome za hranjenje in do neke mere morda tudi uporaba nebne ploščice (6,23).

Otroci, ki so imeli težave pri hranjenju, so pogosteje neustrezno pridobivali na teži in potrebovali nadomestni način hranjenja (Tabela 3). Uvajanje hranjenja po nazogastrični sondi ali celo gastrostomi je posledica neustrezne rasti in razvoja otroka. Pri veliki večini otrok je nadomestno hranjenje trajalo manj kot eno leto, nato pa so se spet hranili prek ust, čeprav je kar pet otrok imelo razcepjeno nebo. Enega otroka s CP v sklopu Robinove sekvence so najprej hranili preko nazogastrične cevke, nato je bil še osem mesecev hranjen po gastrostomi. Deček je bil eden od dvojčkov, rojen je bil tudi več kot mesec dni prezgodaj, kar bi bil tudi lahko vzrok za težave s hranjenjem vsaj takoj po rojstvu. Med 6 otroki, ki so potrebovali nadomestno hranjenje, so imeli štirje orofacialni razcep v sklopu sindroma. Tudi v strokovni literaturi poročajo, da je potrebno nadomestno hranjenje pogosteje uvesti pri otrocih s sindromi kot pri tistih z orofacialnim razcepom, ki ni del sindroma (16,17).

Da se otroci z orofacialnimi razcepi lahko uspešno nahranijo, obstajajo prilagojene stekleničke, ki povečajo vnos hrane in hkrati preprečijo, da bi otrok pogoltnil preveč zraka (23). Po poročanju

staršev smo ugotovili, da je v Sloveniji na voljo malo vrst prilagojenih stekleničk. V porodnišnici staršem običajno ponudijo eno znamko stekleničke, ki ni primerna za vse otroke, za starše pa predstavlja večji finančni zalogaj.

Nebno ploščico je uporabljalo 26 otrok. Čeprav je nebna ploščica del predoperativne čeljustno ortopedske obravnave (2), nekatere raziskave kažejo, da je njena uporaba v kombinaciji z drugimi ukrepi ena učinkovitih metod pri vzpostavljanju učinkovitega hranjenja dojenčka s shiz (20). V naši raziskavi so starši opazili zmanjšanje težav s hranjenjem po začetku uporabe nebne ploščice kar pri treh četrтинah otrok, ki so dobili nebno ploščico v sklopu predoperativne priprave za zdravljenja orofacialnega razcepa.

Zaradi postopkov uspešne zgodnje diagnostike nekateri starši že pred rojstvom otroka vedo za orofacialni razcep. V naši raziskavi je bilo takih staršev za četrтino (15 oseb). Strokovni tim bi bilo smiselno vključiti v pomoč bodočim staršem že pred rojstvom otroka, takrat ko starši zvedo, da se bo rodil otrok s shizo. Vsak od strokovnjakov bi jim tako podal informacije o funkcionalnih motnjah, s katerimi se sam največ ukvarja, in reševanju teh težav.

Prav tako bi bilo dobrodošlo, da bi otroke in njihove matere v porodnišnicah takoj po rojstvu obiskal poleg maksilofacialnega kirurga tudi klinični logoped, ki bi staršem dal informacije glede povezave med hranjenjem otroka in govornim razvojem ter otroka nadalje spremljal. V vsaki porodnišnici bi morala biti vsaj ena medicinska sestra ali drug zdravstveni delavec posebej izobražen glede funkcionalnih motenj otrok z orofacialnimi razcepi in pomoči pri hranjenju, da bi starši dobili pomoč takoj in bi se zmanjšala njihova stiska ob nezmožnos-

ti hranjenja novorojenčka z orofacialnim razcepom.

Starši so namreč v dopisanih pripombah posebej poudarili problem nezadostne podpore medicinskih sester in babic pri hranjenju. Raziskavo bi bilo smiselno nadgraditi s pregledom znanja medicinskega osebja o delu z otroki z orofacialnimi razcepi ter tako ugotoviti, v katerih delih Slovenije je strokovna usposobljenost kadra najslabša. Trenutno v Sloveniji že potekajo aktivnosti glede izobraževanja na temo hranjenja in požiranja otrok z orofacialnimi razcepi v orofacialnem področju, kjer dobijo strokovni delavci znanje o osnovnih načinih dela, svetovanja in izbire pripomočkov za hranjenje. V prihodnje bi bilo smiselno raziskati povezavo med hranjenjem in govorom ter vpliv zmanjšane aktivnosti v ustni votlini na razvoj govora in jezika.

5 Zaključek

Težave s hranjenjem pri otrocih z orofacialnimi razcepi so pogost pojav. V nekem obdobju življenja je imelo slabe tri četrтine otrok, udeleženih v raziskavi, težave s hranjenjem, pri dobri sedmini so težave vztrajale tudi po zaključenem kirurškem zdravljenju. Z raziskavo smo želeli opozoriti na pomembnost, da otroka zgodaj obravnava multidisciplinarni tim, ki bi lahko preprečil marsikatero težavo, ki nastane kot posledica dolgotrajnega neučinkovitega hranjenja. Zavedati se je treba, da neuspešno hranjenje zelo vpliva na celo družino, saj hranjenje ni samo zadovoljitev potrebe po vnosu kalorij, ampak krepi tudi navezanost mame in otroka. Zaključimo lahko, da je obravnava otrok z orofacialnimi razcepi v Sloveniji dobra, vseeno pa je zgodnjega svetovanja o hranjenju in izbiri ustreznih tehnik in pripomočkov za hranjenje premalo.

Literatura

1. Koželj V. Računalniški informacijski sistem za spremljanje orofacialnih shiz v Sloveniji kot vir za epidemiološko analizo obdobja 1973-1993 in 1993-2012. *Zobozdrav Vestn.* 2015;70(3-5):135-42.
2. Watkins SE, Meyer RE, Strauss RP, Aylsworth AS. Classification, epidemiology, and genetics of orofacial clefts. *Clin Plast Surg.* 2014;41(2):149-63.
3. Peterson-Falzone SJ, Trost-Cardamone JE, Karnell MP, Hardin-Jones M. *The Clinician's Guide to Treating Cleft Palate Speech.* Philadelphia: Mosby Elsevier; 2006.
4. Shkroukani AM, Lawrence AL, Liebertz DJ, Svider FP. Cleft palate: A clinical review. *Birth Defects Res C Embryo Today.* 2014;102(4):333-42.
5. Crowley L, Gist KL, Gregson KM, Hufnagle K, Peterson-Falzone S, Smythe NC, et al. *Your baby's first year.* Chapel Hill: CPF Publications Committee; 2012.
6. Eberlinc A. Estetski problem pri pacientih s heilognatopalatoshizo. In: *Zbornik prispevkov: sodobne metode in nove tehnologije v maksilofacialni kirurgiji in stomatologiji*; 29. november 2014; Brdo pri Kranju, Slovenija. Ljubljana: Združenje za maksilofacialno in oralno kirurgijo Slovenije; 2014. p. 75.
7. Murry T, Carrau RL. *Clinical management of swallowing disorders.* 2nd ed. San Diego: Plural Publishing; 2006.
8. de Vries IA, Breugem CC, van der Heul AM, Eijkemans MJ, Kon M, Mink van der Molen AB. Prevalence of feeding disorders in children with cleft palate only: a retrospective study. *Clin Oral Investig.* 2014;18:1507-15.
9. Perlman AL, Christensen J. Topography and functional anatomy of the swallowing structures. In: Perlman AL, Schulze-Delrieu K, editors. *Deglutition and its disorders.* San Diego: Singular Publishing Group, INC; 1997. pp. 15-42.
10. Reid JA. A Review of Feeding Interventions for Infants With Cleft Palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2004;41(3):268-78.
11. Jones WB. Weight gain and feeding in the neonate with cleft: a three-center study. *Cleft Palate J.* 1988;25:379-84.
12. Spriestersbach DC, Dickson DR, Fraser FC, Horowitz SL, McWilliams BJ, Paradise JL, et al. Clinical research in cleft lip and cleft palate: the state of the art. *Cleft Palate J.* 1973;10:113-65.
13. Reid J, Kilpatrick N, Reilly S. A prospective, longitudinal study of feeding skills in a cohort of babies with cleft conditions. *Cleft Palate Craniofac J* 2006;43:702-9. <https://doi.org/10.1597/05-172>.
14. Trenouth MJ, Campbell AN. Questionnaire evaluation of feeding methods for cleft lip and palate neonates. *Int J Paediatr Dent.* 1996;6(4):241-4.
15. Reid J, Reilly S, Kilpatrick N. Sucking performance of babies with cleft conditions. *Cleft Palate Craniofac J.* 2007;44(3):312-20.
16. Miller CK. Feeding issues and interventions in infants and children with clefts and craniofacial syndromes. *Semin Speech Lang.* 2011;32(02):115-26.
17. Paes EB, De Vries IA, Penris WM, Hanny KH, Lavrijsen SW, Van Leerdam EK, et al. Growth and prevalence of feeding difficulties in children with Robin sequence: a retrospective cohort study. *Clin Oral Investig.* 2017;21(6):2063-76.
18. Hodgkinson DP, Brown S, Duncan D, Grant C, McNaughton A, Thomas P, et al. Management of children with cleft lip and palate: A review describing the application of multidisciplinary team working in this condition based upon the experiences of a regional cleft lip and palate centre in the United Kingdom. *Fetal Matern Med Rev.* 2005;16(1):1-27.
19. Jarc A, Hočevar Boltežar I. Skrb za osebe z razcepom ustnic, čeljusti in neba v Sloveniji. *Zbornik referatov: družbena skrb za vzgojo, izobraževanje in socialno varstvo oseb s posebnimi potrebami. II. International Alps-Adria Countries Congress*; 18.-20. oktober 2000; Portorož, Slovenija. Ljubljana: Društvo defektologov Slovenije; 2000. p. 631.
20. Koželj V, Drevenšek M, Hočevar Boltežar I, Jarc A. Koncept zdravljenja orofacialnih shiz. *Zbornik predavanj strokovnega srečanja: sodobni kirurško ortodontski koncepti*; 25. november 2006; Ljubljana, Slovenija. Ljubljana: Združenje za maksilofacialno in oralno kirurgijo Slovenije; 2006. p. 55.
21. McDonald SH. *To Investigate Infant Feeding in Children born with a Cleft in the West of Scotland [Thesis].* Faculty of Medicine: Glasgow; 2008.
22. Bhattacharyya N. The prevalence of pediatric voice and swallowing disorders in the United States. *Laryngoscope.* 2015;125(3):746-50.
23. Devi E, Sai Sankar AJ, Manoj Kumar MG, Sujatha B. Maiden morsel - feeding in cleft lip and palate infants. *J Int Soc Prev Community Dent.* 2012;2(2):31-7.