

Subjektivna procjena nazalnosti govora kod predškolske djece s postalveolarnim rascjepom nakon palatoplastike

Ljubas, Ljerka

Master's thesis / Diplomski rad

2019

Degree Grantor / Ustanova koja je dodijelila akademski / stručni stupanj: **University of Zagreb, Faculty of Education and Rehabilitation Sciences / Sveučilište u Zagrebu, Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet**

Permanent link / Trajna poveznica: <https://urn.nsk.hr/urn:nbn:hr:158:637224>

Rights / Prava: [In copyright](#) / [Zaštićeno autorskim pravom.](#)

Download date / Datum preuzimanja: **2024-04-25**



Repository / Repozitorij:

[Faculty of Education and Rehabilitation Sciences - Digital Repository](#)



Sveučilište u Zagrebu
Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet

DIPLOMSKI RAD

**Subjektivna procjena nazalnosti govora kod predškolske djece s
postalveolarnim rascjepom nakon palatoplastike**

Ljerka Ljubas

Mentori:

Prof. dr.sc. Mladen Heđever
Prof. dr. sc. Draženka Blaži

Zagreb, siječanj 2019.
Sveučilište u Zagrebu

Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet

DIPLOMSKI RAD

**Subjektivna procjena nazalnosti govora kod predškolske djece s
postalveolarnim rascjepom nakon palatoplastike**

Ljerka Ljubas

Mentori:

Prof. dr.sc. Mladen Heđever

Prof. dr. sc. Draženka Blaži

Zagreb, prosinac 2018.

Izjava o autorstvu rada

Potvrđujem da sam samostalno napisala rad *Subjektivna procjena nazalnosti govora kod predškolske djece s postalveolarnim rascjepom nakon palatoplastike* da sam njegov autorica.

Svi dijelovi rada, nalazi ili ideje koje su u radu citirane ili se temelje na drugim izvorima jasnosu označeni kao takvi te su adekvatno navedeni u popisu literature.

Ime i prezime: Ljerka Ljubas
Mjesto i datum: Zagreb, prosinac 2018.

Zahvale

Ovim putem se najprije zahvaljujem svojim mentorima prof. dr.sc. Mladenu Heđeveru i prof. dr. sc. Draženki Blaži na pomoći, strpljenju i savjetima u izradi diplomskog rada.

Najveća hvala profesorici Ani Dembitz bez koje prikupljanje ispitanika ne bi bilo moguće. Veliko hvala na pomoći oko kreiranja ispitnog materijala, korisnim savjetima za procjenu, pomoći oko snimanja govornog uzorka i na Vašoj literaturi.

Zahvaljujem se i svojim roditeljima i obitelji koji su me podržavali i pratili tijekom moga školovanja. Hvala Vam što ste mi pomogli ostvariti moj san!

Sadržaj

1. UVOD.....	3
1.1. Orofacijalni rascjepi.....	3
1.2. Anatomija usne šupljine	4
1.3. Etiologija orofacijalnih rascjepa	5
1.4. Učestalost kraniofacijalnih anomalija	6
1.5. Spol i rascjepi	8
1.6. Klasifikacija orofacijalnih rascjepa.....	9
1.6.1. Kratki povijesni pregled klasifikacija orofacijalnih rascjepa	9
1.6.2. Sindromski i nesidromski rascjepi	11
1.6.3. Genetska osnova orofacijalnih rascjepa	12
1.6.4. Submukozni rascjep nepca.....	14
1.7. Utjecaj rascjepa na hranjenje	14
1.8. Utjecaj rascjepa na slušanje i govor	15
1.8.1. Poremećaj rezonancije	15
1.8.2. Poremećaji glasa.....	18
1.8.3. Artikulacijski poremećaji.....	18
1.8.4. Nazalni šum	20
1.8.5. Facijalne grimase	20
1.8.6. Sluh	20
1.9. Liječenje rascjepa	21
1.9.1. Kirurško liječenje	21
1.9.2. Logopedska procjena i terapija	22
1.10. Subjektivna procjena	23
1.11. Instrumentalna procjena	25
1.11.1. Nazometrija.....	25
1.11.2. Aerodinamičko mjerenje.....	25
1.11.3. Videofluoroskopija.....	25
1.11.4. Nazofaringoskopija	26
1.11.5. See-scape	26
1.12. Logopedska terapija	27
2. PROBLEM ISTRAŽIVANJA	29
2.1. CILJ ISTRAŽIVANJA.....	29
2.2. HIPOTEZE ISTRAŽIVANJA	29
3. METODE ISTRAŽIVANJA.....	30
3.1. UZORAK ISPITANIKA	30

3.2. MJERNI INSTRUMENTI	31
3.3. POSTUPAK PRIKUPLJANJA GOVORNOG UZORKA.....	32
3.4. PROCJENA GOVORA	32
3.5. METODE OBRADE PODATAKA.....	33
4. REZULTATI ISTRAŽIVANJA	34
4.1. Prvi ispitanik.....	34
4.2. Drugi ispitanik	36
4.3. Treći ispitanik	37
4.4. Četvrti ispitanik	38
4.5. Peti ispitanik.....	39
4.6. Šesti ispitanik	40
5. RASPRAVA.....	42
5.1. OGRANIČENJA ISTRAŽIVANJA	44
6. ZAKLJUČAK.....	46
7. LITERATURA	47
8. PRILOZI	51

Sažetak

Govorni ishodi nakon palatoplastike nedovoljno su istražena tema u Hrvatskoj. Nazalnost je glavna karakteristika govora djece rođene s rascjepom nepca, a vrlo često ostaje prisutna u govoru i nakon kirurške korekcije. Za procjenu posljedica koje rascjep ima na govor najvažnija je subjektivna procjena govora.

Cilj ovog istraživanja je subjektivnom procjenom procijeniti i opisati nazalanost i razumljivost govora kod šestero djece predškolske dobi s rascjepom nepca nakon palatoplastike, u obliku prikaza šest studija slučaja.

Prikupljen je govorni uzorak od šestero djece rođene s rascjepom mekog i/ili tvrdog nepca predškolskog uzrasta (KD=4;02-6;02 godine). Govorni uzorak sastoji se od riječi i rečenica zasićenih glasovima koji se tvore usmjeravanjem zračne struje na usta (okluzivi, frikativi, afrikate) i ne sadrže nazale.

Subjektivna procjena provedena je na Edukacijsko-rehabilitacijskom fakultetu u Laboratoriju za slušnu i govornu akustiku. Za provedbu istraživanja sastavljen je upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora. Procjenjivači, studenti logopedije, dva su puta slušali snimke riječi i rečenica i procjenjivali najprije nazalnost, a zatim i razumljivost govora te bilježili odgovore na upitniku prema ponuđenoj ljestvici brojeva od jedan do pet pri čemu jedan označava najveću nazalnost i nerazumljiv govor, a broj pet razumljiv izgovor bez nazalnosti. Svi prikupljeni podaci, anamnestički kao i rezultati procjene opisno su prikazani. Prva pretpostavka da će govor djece biti nazalniji i manje razumljiv u produkciji rečenica potvrdila se kod četiri od ukupno šest ispitanika. Druga pretpostavka djelomično je potvrđena jer je govor djeteta s rascjepom i tvrdog i mekog nepca procijenjen kao najviše nazalan, dok je govor djeteta s rascjepom samo mekog nepca procijenjen kao najmanje nazalan. Treća pretpostavka također je djelomično potvrđena. Najviše ocjene na varijabli razumljivost govora dobila su djeca koja su bila uključena u program rane intervencije i kasnije su praćena ili uključena u direktni oblik terapije.

Ovaj prikaz niza slučajeva otvara prostor za daljnja temeljitija istraživanja koja će moći dati odgovor o stupnju narušenosti govora i govornim ishodima i u drugim parametrima govora i glasa.

Ključne riječi: rascjep nepca, nazalnost, subjektivna procjena govora, prikaz niza slučajeva

Abstract

Perceptual assessment of nasality in preschool children with a repaired cleft palate

Speech outcomes after a palatoplasty is not sufficiently researched in Croatia. Nasality is the main characteristic of speech of children born with a cleft palate which very often remains present in speech even after surgical correction. To assess the effects that cleft palate has on speech the most important is a subjective assessment of speech.

The aim of this research is to subjectively evaluate and describe in detail nasality and speech intelligibility in six preschool children born with cleft palate, as a form of six case studies. A speech sample of 6 preschool children born with soft and/or hard cleft palate was collected. The age range is from 4,2 to 6,2 years. The recorded speech sample contains isolated words and sentences saturated with plosives and fricatives and doesn't contain nasal sounds.

The assessment was conducted in a Laboratory for hearing and speech acoustics in the Faculty of Education and Rehabilitation Sciences, University of Zagreb. Assessors were speech and language pathology (SLP) students. Each word and sentence was listened twice, after which the students first evaluated nasality, and then comprehensibility by comparing the answers to the questionnaire according to the offered scale of numbers from one to five, one indicating the greatest nasality and incomprehensible speech, and the number five indicating comprehensible speech without nasality. All collected data, anamnestic as well as evaluation results are descriptively presented. The first premise that children's speech will be more nasal and less understandable in the production of sentences is confirmed in four out of six respondents. The second hypothesis was partially confirmed because the speech of the child with the cleft of hard and soft palate was evaluated as the most nasal, while the speech of the child with the only soft palate cleft was evaluated as the least nasal. The third premise has also been partially confirmed. The highest scores on the speech intelligibility variable were obtained by children who were included in the early intervention program and were later monitored or included in the direct form of therapy.

This case series study opens up space for further thorough research that will provide an answer to the degree of speech nasalance in preschool children as well as outcomes in other speech and voice parameter.

Key words: cleft palate, nasality, perceptual assessment of speech, case series study

1. UVOD

1.1. Orofacijalni rascjepi

Rascjepi usne i nepca su jedna od najčešćih malformacija na području lica kod svih populacija i etničkih skupina. U narodu su poznati pod nazivom „zečja usna“ i/ili „vučje ždrijelo“. Prema Zorić, Knežević i Aras (2014) rascjepi predstavljaju funkcionalni i estetski problem i zahtijevaju multidisciplinarni pristup u liječenju. Prema Zorić i sur. (2014) rascjep je urođeni nedostatak tkiva koji je lociran na gornjoj usni, alveolarnom (zubnom) grebenu i/ili nepcu te iako se na prvi pogled može govoriti o nedostatku ili manjku tkiva usne i nepca, zapravo taj anatomske dio ne nedostaje, nego je samo skriven ili se nalazi na krivom mjestu. Budući da se usna i nepce formiraju u različito vrijeme moguće je da se dijete rodi samo s rascjepom usne, s rascjepom i usne i nepca ili samo s rascjepom nepca (Knežević, 2008). Orofacijalni rascjepi narušavaju izgled, otežavaju razvoj govora, slušanja, žvakanja i gutanja i zbog toga je ključan timski pristup liječenju. Tim čine kirurg, ortodont, logoped, fonijatar, pedijatar, anesteziolog, otorinolaringolog, stomatolog, protetičar, socijalni radnik i psiholog. Uloga logopeda iznimno je važna. Roditelji dolaze na logopedsko savjetovanje i prije rođenja djeteta. Praćenje i savjetovanje nastavlja se nakon djetetova rođenja te se uključuje u neposrednu terapiju po potrebi. Roditelji najčešće izražavaju zabrinutost o tome hoće li njihova beba moći sisati i u kojoj mjeri su narušeni govor i izgled nakon operacija zatvaranja usne i nepca (Knežević 2008). Svakom roditelju iznimno je važno da njihovo dijete stekne odgovarajuće komunikacijske i jezično-govorne vještine koje su potrebne za svakodnevno funkcioniranje, integraciju u predškolske odgojno-obrazovne skupine i kasnije za školu. Logoped u predškolskoj dobi procjenjuje djetetovu komunikaciju jezik i govor. Ako pretpostavimo da je dijete urednih intelektualnih sposobnosti i nema dodatnih teškoća uz rascjep, logopedska procjena i intervencija usmjerene su na govor (rezonancija i artikulacija). Iako postoje metode instrumentalne procjene kvalitete govora djece s rascjepom, subjektivna procjena i dalje predstavlja zlatni standard. Objektivne metode mjerenja potvrđuju i nadopunjavaju subjektivnu procjenu. Prema logopedskoj procjeni, koja je temelj, kreiraju se daljnji ciljevi logopedske terapije.

1.2. Anatomija usne šupljine

Za razumijevanje ukupne problematike koju donosi rascjep usne i/ili nepca važno je poznavati osnovna anatomska obilježja usne šupljine. U usnoj šupljini razlikujemo predvorje usne šupljine od usne šupljine u užem smislu. Predvorje se nalazi između usana i obraza te zubi i alveolarnih nastavaka. Usna šupljina u užem smislu leži iza zubi, a proteže se do ždrijela. Krov usne šupljine čine tvrdo i meko nepce. Pri zatvorenoj čeljusti i očuvanom zubalu nema dodira između predvorja usne šupljine i usne šupljine u užem smislu. Usne i obrazi tvore vanjsku stjenku predvorja usne šupljine (Kahle i sur. 1990). Mišićni oralni sfinkter čini kompleksan položaj mnoštva mišića koji imaju važne uloge u disanju, govoru, žvakanju kao i ukupnoj mimici lica. Naše usne pomiče čak 14 mišića, a najvažniji mišić u skupini je kružni mišić usana (*musculus orbicularis oris*). Svrstavamo ga u skupinu mimičnih mišića jer ima važnu ulogu u ekspresiji izraza lica, kao i u sisanju, žvakanju, zviždanju i izgovoru pojedinih glasova. Na području gornje usne nalazi se i usneni žlijeb ili filtrum koji se proteže od nosne pregrade do ruba gornje usne. U kirurgiji rascjepa usne posebna pažnja usmjerava se na što bolju rekonstrukciju filtra jer ima važnu ulogu u mimici lica, a pravodobno uspostavljanje pravilnih anatomske odnosa mišića kod rascjepa važno je za rast i oblikovanje lica (Zorić i sur. 2014.) Uz gornju usnu i nepce može biti zahvaćeno rascjepom. Nepce koje je krov usne šupljine anatomske razdvajamo na dva dijela, tvrdo i meko nepce. Tvrdo nepce čini prednji koštani dio nepca koji nastaje spajanjem parnih palatinalnih nastavaka gornje čeljusti. Prekriveno je sluznicom nosne šupljine s gornje strane i sluznicom usne šupljine s donje strane. Tvrdo nepce koje čini kost je nepokretno, a meko nepce koje čine mišići je pokretno. Nepce ima važnu ulogu u velofaringealnoj funkciji. U kirurškom liječenju rascjepa nepca prvenstveno je važno uspostaviti dobre anatomske odnose rascijepljenih mišića nepca kako bi se omogućilo odvijanje složene funkcije nepca važne za disanje, govor i gutanje (Zorić i sur. 2014). Meko nepce čine sljedeći parni mišići: *musculus tensor veli palatini*, *musculus levator veli palatini*, *musculus palatopharyngeus*, *musculus palatoglossus* i *musculus uvulae*. *Musculus tensor veli palatini* mišić je koji je važan za gutanje i istodobno otvara slušnu cijev što omogućuje prozračivanje srednjeg uha. *Musculus levator veli palatini* također ima zaštitnu ulogu pri gutanju jer zatvara gornje dišne puteve i sprječava prolazak hrane u nazofarinks. *Musculus palatoglossus* je mišić podizač stražnjeg dijela jezika koji pomaže u započinjanju akta gutanja potiskujući bolus prema orofarinksu. *Musculus uvulae* također sudjeluje u zatvaranju nazofarinksa pri gutanju (Kahle i sur. 1990).

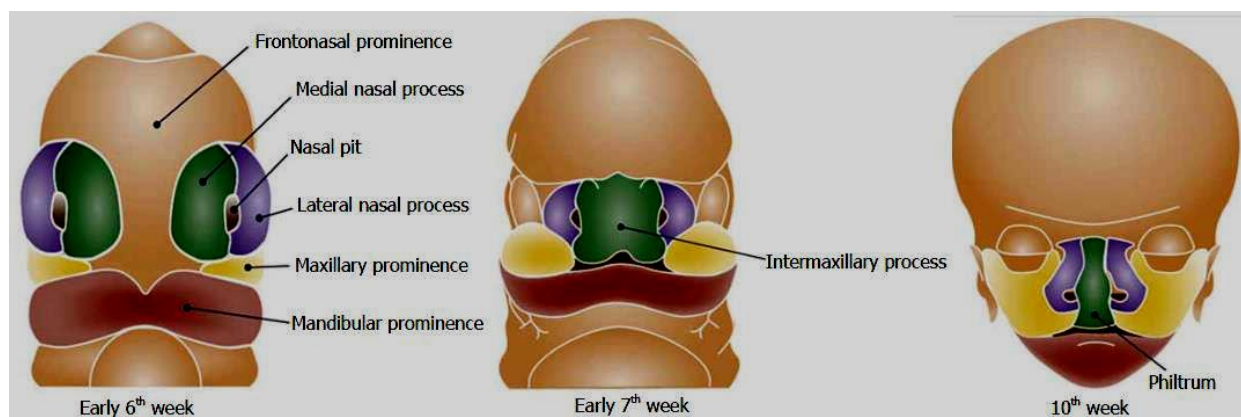
1.3. Etiologija orofacijalnih rascjepa

Da bismo razumjeli kako nastaju rascjepi potrebno je poznavati osnove embriologije. Lice djeteta formira se već u prvim tjednim intrauterinog razvoja. Između petog i desetog tjedna događa se proces oblikovanja lica. Sve bebe u početku, do otprilike šestog tjedna, imaju rascjep nepca (Zorić i sur. 2014.) U tom ranom razdoblju još uvijek razdvojeni embrionalni nastavci prolaze proces približavanja i spajanja. Kod približno jedne bebe na 700 djece ovaj proces približavanja i spajanja ne dogodi se kako treba. Razlog tome još nije u potpunosti razjašnjen (Zorić i sur. 2014)

Oko trećeg tjedna intrauterinog razvoja formira se primitivna nosna šupljina koja je od usne šupljine odvojena bukonazalnom membranom. Ova membrana u urednom razvoju kasnije nestaje. U četvrtom tjednu oko usne jamice pojavljuje se pet nastavaka. Prvi nastavak s gornje strane je neparni čeonni nastavak (*processus frontonasalis*) na čijim lateralnim rubovima su nosne ili njušne plakode, koje se u petom tjednu udubljuju u nosne jamice. Sa svake strane nosnih jamica bujanjem mezenhima (embrionalnog tkiva) nastaje medijalni i lateralni nastavak. Medijalni nosni nastavak brže raste i dodiruje maksilarni koji ga potiskuje prema sredini lica, a potom se spajaju tvoreći osnovu gornje usnice. Medijalni se nosni nastavci u šestom i sedmom tjednu potiskuju i spajaju tvoreći intermaksilarni segment od kojeg se razvijaju filtrum, dio gornje čeljusti i primarno nepce – *os incisivum*. Lateralni nosni nastavci su nazolakrimalnom brazdom odvojeni od maksilarnih nastavaka. Nazolakrimalna brazda je osnova za nazolakrimalni kanal. Maksilarni nastavci rastu prema medijalno i iz njih se razvija gornja čeljust. Primarno nepce ostaje tvoreći kasnije intermaksilarnu kost. Ostali dio nepca nastaje od maksilarnih nastavaka od kojih se pružaju palatinalni nastavci (*processus palatini laterales*) i u devetom tjednu sraštaju potiskujući jezik u usnu šupljinu (Rinologija.

Preuzeto

s: http://neuron.mefst.hr/docs/katedre/orl/medicina/Knjiga_ORL-rinologija.pdf).



Slika 1 Embriologija nepca

IZVOR:

https://www.google.hr/search?q=cleft+palate+embryology&rlz=1C1GGRV_enHR751HR751&source=lnms&tbn=isch&sa=X&ved=0ahUKEwiXp7jC67XeAhWMB8AKHRGGBogQ_AUIDigB&biw=1366&bih=626#imgsrc=V61FruXzKHXXBM:

1.4. Učestalost kraniofacijalnih anomalija

U kraniofacijalne anomalije ubrajamo: oralne rascjepove koji podrazumijevaju rascjep usne (CL-Cleft lip), rascjep usne i nepca (CLP- Cleft lip & Palate) i rascjep nepca (CP-Cleft Palate); atipične facijalne rascjepove; anomalije središnjeg živčanog sustava; anomalije oka; mandibularne i dentalne anomalije (Mossey i Castilla, 2001).

Iako se kraniofacijalne anomalije, a unutar njih i orofacijalni rascjepi ubrajaju u najčešće prirođene anomalije, sve do početka 21. stoljeća u svijetu nije postojao internacionalni registar oboljelih. Podaci o prevalenciji i incidenciji kraniofacijalnih anomalija jako variraju u svijetu. Razlog tome je neusuglašenost oko osnovnih informacija poput klasifikacije anomalija i načina prikupljanja podataka koji ulaze u registar. Napredak koji se krajem 20. stoljeća dogodio u medicini, genetici i tehnologiji doveli su do pojave velikog broja istraživanja na temu uzroka i prevencije orofacijalnih rascjepa, povezanosti sa štetnim okolinskim faktorima, prenatalne dijagnostike i multidisciplinarnog pristupa liječenju. U skladu s tim javila se potreba za stvaranjem globalnog registra u svrhu proširivanja dotadašnjih spoznaja o cjelokupnom aspektu kraniofacijalnih anomalija. Petogodišnji projekt Svjetske zdravstvene organizacije rezultirao je globalnim registrom kraniofacijalnih anomalija iz čijeg izvješća su izneseni podaci o učestalosti u svijetu (Mossey i Castilla, 2001).

1.4.1. Učestalost rascjepa u svijetu

Rascjep usne i/ili nepca (CL/P)

Najveću učestalost pojave rascjepa usne s ili bez udruženog rascjepa nepca ima Bolivija i iznosi 2.28 na 10 000 (Mossey i Castilla, 2001). Podaci koji o tome govore prikupljeni su u gradu La Paz koji se nalazi na nadmorskoj visini od 4000 m čije je stanovništvo većinski indijansko. Ovi zanimljivi podaci o geografskom položaju i etničkim obilježjima važni su za razumijevanje visoke stope pojavnosti orofacijalnih rascjepa. Naime, povećanje nadmorske visine dovodi do smanjenja atmosferskog tlaka gdje u takvom razrijeđenom zraku ima manje molekula kisika. Život na gotovo 4000 metara nadmorske visine dovodi do kronične hipoksije ili stanja smanjene opskrbe tijela kisikom koje može imati brojne posljedice za dijete u prvom tromjesečju kada se formiraju osnovni organi. Nadalje, genetska istraživanja potvrdila su da mongolska rasa nosi određene predispozicije za rascjepe koje se aktiviraju u interakcijis brojnim okolinskim faktorima. Najniža pojavnost zabilježena kod afričkog stanovništva ili negroidne rase dok kod bijelaca, kavkazoidne rase, nalazimo na neke srednje vrijednosti u odnosu na crnu i žutu rasu. Tako u zemljama poput Argentine, Čilea i Bolivije u kojima se nalazi miješana rasa Mestici koji su potomci američkih starosjedilaca, Indijanaca i bijelaca, najčešće španjolaca, prevalencija orofacijalnih rascjepa je veća (Opća enciklopedija JLZ, 1979). Sukladno tome u zemljama u kojima živi više crnačkog stanovništva, kao u SAD-u, ta je brojka manja (Mossey i Castilla, 2001).

Najveća incidenicija izoliranih rascjepa nepca zabilježena je u Finskoj i Škotskoj i kreće se od 10 na 10.000 za Finsku, a prati ju Škotska s 8 na 10.000 živorođene djece (Mossey i Castilla, 2001).

Prevalencija nesindromskih i sindromskih rascjepa

Prema istraživanju o pojavnosti nesindromskih rascjepa čiji su podaci prikupljeni iz 57 registara iz zemalja diljem svijeta podaci o pojavnosti su sljedeći. Stopa pojavljivanja rascjepa nepca bez rascjepa usne je 5 na 10.000 novorođene djece, a stopa pojavljivanja rascjepa usne s ili bez rascjepa nepca iznosila je 8 na 10.000. I ovo istraživanje potvrdilo je varijacije u pojavnosti u različitim zemljama svijeta te je prevalencija veća u zemljama Južne Amerike (Bolivija i Paragvaj), a manja u afričkim zemljama (Mossey i Castilla, 2001).

Isti autori navode kako 20% djece koja se rode s rascjepom ima još udružene anomalije. Istraživanja su pokazala da su najčešće udružene malformacije: urođene srčane mane (28,6%); malformacije udova kao polidaktilija (16,2%); hidrocefalus (11,4%); malformacije oka anoftalmija i mikroftalmija (8,3%) i druge deformacije (14,6). Rascjepi nepca najčešće su udruženi sa srčanim manama (21,1%) (Mossey i Castilla, 2001).

1.4.2. Učestalost pojave rascjepa u Hrvatskoj

O podacima u Hrvatskoj saznaje se iz istraživanja Magdalenić-Meštrović i sur. (2005) koje obuhvaća razdoblje od 1988. do 1998. U deset godina praćenja u Hrvatskoj rođeno je ukupno 525 298 djece. Podatci dobiveni iz nekoliko hrvatskih neonatoloških centara koji provode primarno zbrinjavanje i kirurško liječenje djece s orofacijalnim rascjepima zabilježili su 903 djece rođene s rascjepom. Incidencija navedenog razdoblja iznosi 1,7/1000, ali su se primijetila variranja tijekom godina. Tako je tijekom ratnih godina od 1991. do 1995. zabilježen porast broja rascjepa u usporedbi s prijeratnim i poslijeratnim godinama. Incidencija nesindromskih rascjepa je 1,56/1000. Incidencija rascjepa usne s ili bez rascjepa nepca iznosi 1,05/1000, a incidencija izoliranih rascjepa nepca iznosi 0,66/1000. Gledano po regijama, najviše rascjepa zabilježeno je u srednjoj Hrvatskoj, a najmanje u Lici i u sjevernom Primorju.

1.5. Spol i rascjepi

Istraživanja su pokazala da postoji razlika u učestalosti pojave određene vrste rascjepa s obzirom na spol. Prema rezultatima domaćeg istraživanja rođeno je više dječaka, nego djevojčica s rascjepom, 56,4% u odnosu na 43,6%. Izolirani rascjep nepca ipak je bio češći kod djevojčica što je u skladu s europskim i svjetskim istraživanjima (Magdalenić-Meštrović i sur., 2005).

Rascjep usne s ili bez rascjepa nepca češće se pojavljuje kod dječaka. Budući da istraživanja najčešće ne uključuju mrtvorođenu djecu i prekinute trudnoće, trebalo bi napomenuti da brojke ukazuju na postojanje veće stope intrauterine smrtnosti djevojčica s rascjepom usne i/ili nepca. Razlog većoj prenatalnoj smrtnosti djevojčica nije poznat. Što se tiče izoliranih rascjepa nepca ova vrsta ipak je češća kod djevojčica (Mossey i Castilla, 2001). Weathers i sur. (2014) navode da se kod djevojčica spajanje nepčanih nastavaka događa tjedan kasnije u odnosu na dječake što može biti razlog češće pojave izoliranih rascjepa nepca kod djevojčica. Nadalje, obrazac nasljeđivanja je autosomno dominantno i vezano uz X kromosom prema čemu djevojčice imaju dvostruko veći rizik od nasljeđivanja mutiranog X kromosoma (Burg i sur. 2016).

1.6. Klasifikacija orofacijalnih rascjepa

Djeca rođena s rascjepom nepca mogu se jako razlikovati jedna od drugih. Tako rascjep ponekad zahvati samo meko nepce i stoga nije odmah uočljiv, a može zahvatiti područje od nosa i usne preko alveolarnog grebena i tvrdog nepca sve do mekog nepca što je uočljivo već intrauterino ultrazvučnim pregledom. Nadalje, rascjepi se pojavljuju kao samostalna anomalija ili kao dio različitih sindroma. Budući da je klinička slika vrlo raznolika potrebno je klasificirati rascjepe.

Ne postoji jedinstvena i općeprihvaćena klasifikacija orofacijalnih rascjepa. Klasifikacija je potrebna jer se usklađivanjem nazivlja omogućuje poboljšanje komunikacije stručnjaka unutar interdisciplinarnog tima. Nadalje, klasificiranje je važno za stvaranje registara osoba s rascjepom koji trebaju biti usklađeni i dostupni za prikupljanje podataka za istraživanja (Shankar, 2018). Kroz povijest je nastao velik broj različitih klasifikacija od najjednostavnijih do onih koje nude simboličke sustave za prikaz mjesta i opsega orofacijalnog područja zahvaćenog rascjepom.

Prema Shankar (2018) podjele imaju različite osnove, a neke od njih temelje se na mogućim nasljednim obrascima pa tako razlikujemo:

- nesindromski rascjep usne s ili bez rascjepa nepca
- nesindromski rascjep nepca
- sindromski rascjep usne s ili bez rascjepa nepca
- sindromski rascjep nepca

Nadalje, postoji i podjela rascjepa na potpune i nepotpune rascjepe pri čemu potpuni rascjep označava onaj koji zahvaća područje od nosa pa sve do mekog nepca.

Na kraju, postoji i anatomske utemeljena podjela prema kojoj rascjepe dijelimo na:

- unilateralni rascjep usne
- bilateralni rascjep usne
- rascjepi primarnog nepca i alveola
- rascjepi sekundarnog nepca

1.6.1. Kratki povijesni pregled klasifikacija orofacijalnih rascjepa

Morianova podjela iz 1887. godine (Shankar, 2018) jedna je od prvih klasifikacija rascjepa. Opisana su dva tipa rascjepa u kojem Tip 1, tzv. okulonazalni rascjep označava regiju između infraorbitalnog kanala i središnje linije lica, a Tip 2 označava područje od infraorbitalnog kanala do vanjskog dijela lica. Davis i Ritchies 1922. godine (prema Shankar, 2018) donose klasifikaciju orofacijalnih rascjepa na četiri grupe:

Grupa 1. prealveolarni rascjepi

Grupa 2. Postalveolarni rascjepi

Grupa 3. Jednostrani alveolarni rascjepi

Grupa 4. Obostrani alveolarni rascjepi

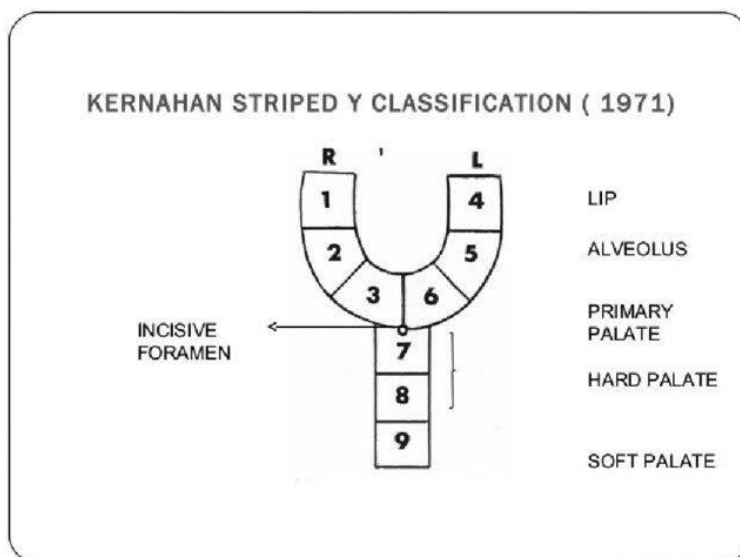
Nadalje, Brophy 1923. (prema Shankar, 2018) predstavlja vrlo opsežnu klasifikaciju prema 16 različitih morfoloških oblika rascjepa što je smatrano previše kompliciranim i nepraktičnim.

Naposljetku, Kernahan i Starks 1958. (prema Shankar, 2018) podijelili su rascjepe prema embriološkoj osnovi. Klasifikacija Kernahana i Starksa jedna je od šire prihvaćenih klasifikacija. Nazopalatinalni ili incizivni kanal prihvaćena je kao točka koja razdjeljuje primarno od sekundarnog nepca. Primarno nepce, dakle, obuhvaća dio ispred nazopalatinalnog kanala (usne i incizivna ili sjekutična kost) dok je sekundarno nepce sve iza incizivnog kanala. Ova klasifikacija dijeli rascjepe u tri grupe prikazane u stupcima tablice

Tabela 1 Kernahan i Starks klasifikacija rascjepa iz 1958. (Shankar, 2018)

RASCJEPI PRIMARNOG NEPCA	RASCJEPI SEKUNDARNOG NEPCA	RASCJEPI I PRIMARNOG I SEKUNDARNOG NEPCA
Unilateralni - Potpuni - Djelomični	Potpuni	Unilateralni - Potpuni - Djelomični
Središnji - Potpuni - Djelomični	Djelomični	Središnji - Potpuni - Djelomični
Bilateralni - Potpuni - Djelomični	Submukozni	Bilateralni - Potpuni - Djelomični

Nekoliko autora (Kernahan (1971), Millard (1977), Friedman (1991) prema Shankar (2018)) ponudilo je i simboličke klasifikacije gdje polja označena slovima ili brojevima predstavljaju područja zahvaćena rascjepom. Takve su primjerice Kernahanova klasifikacija iz 1971. tzv. *Striped Y* klasifikacija(Shankar 2018).



Slika 2 Kernahanova simbolička klasifikacija orofacijalnih rascjepa iz 1971. nazvana Stripped Y

IZVOR:

https://www.researchgate.net/publication/319983479_Cleft_Lip_and_Palate_Management_from_Birth_to_Adulthood_An_Overview/figures?lo=1

1.6.2. Sindromski i nesindromski rascjepi

Jedna od osnovnih podjela rascjepa nepca zasigurno je podjela na sindromske i nesindromske rascjepe. Sindromski rascjepi nepca povezani su s dodatnim strukturalnim abnormalnostima koje se pojavljuju izvan orofacijalne regije uz neki genetski sindrom. Nesindromski rascjepi nepca podrazumijeva izolirani poremećaj kojeg ne možemo povezati s nekom dodatnom anomalijom. Oko 30% rascjepa su sindromski rascjepi, odnosno velika većina rascjepa (70%) je nesindromska. Udružene anomalije češće se pojavljuju uz izolirani rascjep nepca, nego uz kompletan rascjep usne i nepca. Oko 50% izoliranih rascjepa nepca povezani su sa sindromima za razliku od samo 15% rascjepa koji zahvaćaju i usnu i nepce. Najčešće udružene anomalije povezane s rascjepom nepca su: urođene srčane mane, hidrocefalus, poremećaji urinarno trakta i polidaktilija(Mossey & Castilla 2001).

Sindromski rascjepi pojavljuju se unutar više od 200 različitih stanja koje sve karakterizira prisutnost specifičnog malformacijskog obrasca rascjepa usne i/ili nepca uz neke dodatne anomalije. Sindromski rascjepi nepca povezani su s više od 300 različitih sindroma, a neki od najpoznatijih su Pierre-Robin Treacher-Collins, Trisomija 3 i 18, sindrom Apert, Stiklerov sindrom(Shankar 2018).

Sindromi su najviše vezani uz monogenske i kromosomske poremećaje. Van der Woude syndrome također se često spominje uz rascjep i čini oko 2% svih rascjepa. Pojavljuje se u rasponu od 1:35000 do 1:100000 u bijeloj populaciji. Ovaj sindrom karakteriziraju prepoznatljive jamice na donjoj usni i rascjep usne i/ili nepca. Manifestacija bolesti vrlo je varijabilna čak i unutar obitelji i pojavljujući se u obliku jedva primjetnih jamica do jako vidljivih koje su udružene s kompletnim rascjepom (Stuppia i sur. 2011). Smatra se da je gen IRF6 odgovoran za VWS sindrom. Mutacije ovog gena odgovorne su i za Sindrom poplitealnog pterigija kojeg karakterizira prisutnost obostrane potkoljениčne mreže, sindaktilija ili spojeni prsti, genitalne anomalije i anomalije noktiju uz prepoznatljive promjene na donjoj usni i rascjep. Još neki sindromi povezani s rascjepom nepca su primjerice Kallmanov sindrom, kojeg uzrokuje mutacija drugog gena, FGFR1, zatim rijetki EEC sindrom i Gorlinov sindrom (Stuppia i sur. 2011).

Nesindromski rascjepi s druge strane, sastoje se od izoliranih, nespecifičnih malformacija koje imaju multifaktorsku etiologiju uslijed interakcije genetske podloge i okolinskih faktora. Posljednja istraživanja na ovu temu izdvajaju sljedeće okolinske faktore koji u interakciji s genetskom osnovom dovode do nesindromskog rascjepa nepca: pušenje i izloženost dimu cigarete, alkohol, loša prehrana, virusne infekcije, droga i teratogeni faktori u prvom tromjesečju trudnoće. Neki autori posebno izdvajaju psihološki i emocionalni stres kao čimbenike koji dovode do ove malformacije (Stuppia i sur. 2011). Povišeni stres, osobito produženi traumatski stres, može dovesti do oksidacijskogoštećenja na staničnoj razini poremećajem regulacije na osi hipotalamus-hipofiza-nadbubrežna žlijezda (HPA), povišenje kortizola i proizvodnje citokina. Učinak ovog hormonalnog pomaka je ponovno usmjeravanje opskrbe krvlju prema majčinim mišićima, čime se smanjuje opskrba posteljice i tako uzrokujući potencijalni nedostatak priskrbliivanja potrebnih hranjivih tvari fetusu što može rezultirati genetskom promjenom fetusa. Drugim riječima, fetalni rast i razvoj direktno je povezan s količinom krvi koju fetus primi. Hormoni majke koja doživljava stres prolaze i kroz posteljicu i tako smanjuju distribuciju krvi prema fetusu te dovode do promjena u njegovom razvoju (Wallace i sur., 2011).

1.6.3. Genetska osnova orofacijalnih rascjepa

Prema Zorić i sur. (2014) genetska predispozicija odgovorna je za samo 20-30% osoba s rascjepom usne i/ili nepca. Mehanizam nasljeđivanja rascjepa nije u potpunosti razjašnjen. Poznato je da se rascjepi nasljeđuju multigeniski. Statistički promatrano, svaki roditelj može dobiti dijete s rascjepom s rizikom 1 na 700. Ukoliko roditelji već imaju dijete s rascjepom, vjerojatnost da će opet imati dijete s rascjepom kreće se od 2-5%. Isti autori ističu kako brat

ili sestra djeteta s rascjepom imaju veći rizik (1 na 100) da i sami dobiju dijete s rascjepom u odnosu na općeniti rizik (1 na 700) kada nema pozitivne obiteljske anamneze.

Važno je istaknuti kako su izolirani rascjepi nepca genetički neovisni o rascjepima usne s ili bez rascjepa nepca. Zorić i sur. (2014) pojašnjavaju da roditelji s izoliranim rascjepom nepca genetskim nasljeđivanjem mogu dobiti samo dijete sa izoliranim rascjepom nepca, ali ne i dijete s rascjepom usne i/ili nepca.

Genetska istraživanja nesindromskih rascjepa otkrila su nekoliko gena koji u kombinaciji s ranije navedenim okolinskim faktorima (pušenje, alkohol, droga, stres i dr.) povećavaju rizik od pojave rascjepa. Neki od njih su: faktor rasta TGFA i TGFb3, faktor transkripcije MSX1 i TBX22, geni povezani s metabolizmom ksenobiotika CYP1A1, GSTM1, NAT2, geni određeni za imunosne odgovore PVL1 i MTHFR i RARA za razgradnju folne kiseline. Ono što je zanimljivo jest da je najveća povezanost nesindromskih rascjepa ipak s IRF6 genom čije mutacije povezujemo sa sindromskim rascjepima što su potvrdila i druga istraživanja (Birnbau i sur. (2009) i Pan i sur. (2010)). Drugo važno istraživanje koje navode Stuppia i sur. (2011) vezano je uz korelaciju specifične varijacije gena s jednim određenim okolinskim faktorom. Primjerice, TGFA mutacija i pušenje ili MSX1 i alkohol. Istraživanje Romitti i sur. (1999) pokazalo je da kada postoji varijacija alela navedenih gena uz majčino pušenje (10 i više cigareta dnevno) ili konzumiranje alkohola (4 i više pića mjesečno) značajno povećavaju rizik za nastankom rascjepa nepca (Romitti i sur., 1999). Ova saznanja imaju velik značaj za prevenciju rascjepa nepca u budućnosti. Uvjet je, naravno, pravovremena detekcija genetskih varijacija majke prema čemu se može djelovati na zaustavljanje izlaganja trudnice specifičnim štetnim faktorima (pušenje/alkohol) i na taj način smanjivanje rizika od pojave rascjepa kod djeteta. U tom smjeru istraživanja su već došla do važnih spoznaja za preventijsko djelovanje kod majki koje imaju mutacije IRF6 gena, najčešće spominjanog kada se govori o rascjepima. Naime, spoznalo se da multivitaminska dopuna u ranoj trudnoći smanjuje rizik od pojave rascjepa kod djeteta. Sve u svemu, važno je naglasiti kako je pravovremeno djelovanje najvažniji čimbenik i da uspješnost metode s multivitaminima djeluje jedino u vrlo ranoj fazi trudnoće. Stoga je poželjno da majke kod kojih postoji rizik, pozitivna obiteljska anamneza na rascjepu učine testiranja i potraže savjete genetičara i liječnika prije trudnoće, ukoliko je to moguće (Stuppia i sur., 2011).

1.6.4. Submukozni rascjep nepca

Submukozni rascjep najmanje je uočljiva vrsta rascjepa. Naziv submukozni odnosi se na činjenicu da se rascjep nalazi ispod membrane, odnosno sluznice koja pokriva cijelu usnu šupljinu pa tako i nepce. Budući da je rascjep prekriven sluznicom ponekad ga je teško uočiti i često se ne otkrije sve dok dijete ne započne producirati riječi kada roditelji primijete da dijete "priča kroz nos", odnosno da je prisutna hipernazalnost u govoru.

Ranije je spomenuto kako nepce anatomski možemo podijeliti na tvrdo nepce (prednji dio) koje čini koštana podloga i meko nepce (stražnji dio) građeno od mišića. Na kraju mekog nepca nalazi se uvula. Submukozni rascjep može zahvatiti samo uvulu, uvulu i meko nepce ili se protezati duž mekog i tvrdog nepca (Zorić i sur. 2014). Submukozni rascjep mekog nepca karakteriziran je nedostatkom mišićnog tkiva i krivom preraspodjelom mišića.

Kada submukozni rascjep zahvati i tvrdo nepce uočava se nedostatak na središnjoj liniji tvrdog nepca koja se ponekad manifestira usjekom kosti tvrdog nepca i rascijepljenom resicom (Cleft Palate Foundation). Kaplan (1975) ističe kako klasičan oblik submukoznog rascjepa prepoznaje na osnovu tri obilježja: (1) uvula bifida, (2) brazda po sredini mekog nepca i (3) usjek u stražnjem dijelu tvrdog nepca. Međutim, postoje slučajevi bez uvule bifide koja je najčešći pokazatelj ovog oblika rascjepa te takva djeca ostanu neprepoznata dok ne progovore. Tada se uočava hipernazalnost u govoru koja uz učestale upale uha i teškoće gutanja ukazuje na mogućnost rascjepa nepca.

1.7. Utjecaj rascjepa na hranjenje

Zbog komunikacije usne i nosne šupljine bebe s rascjepima imaju teškoće hranjenja. Ovisno o tipu rascjepa teškoće su veće ili manje. Kod djelomičnog rascjepa usne uglavnom mogu odmah sisati pod uvjetom da su postavljene u nešto povišeniji položaj. Kada je prisutan rascjep nepca to otežava sisanje i gutanje jer se ne može stvoriti negativan tlak u ustima potreban za izvlačenje mlijeka i hrana lako odlazi u nos. Prema Blaži (2015), neki od znakova problema s hranjenjem i gutanjem su:

- zagrcavanje i kašljanje tijekom obroka
- umor
- produljeno vrijeme hranjenja
- pretjerana salivacija i curenje mlijeka na nos
- razdražljivost tijekom hranjenja
- izvijanje i ukočenost tijela tijekom obroka
- teškoće u koordinaciji disanja i gutanja

Modifikacije položaja mogu povećati djelotvornost i učinkovitost dojenja (Reilly i sur., 2013). Majkama se savjetuje da hrane bebu u povišenom položaju tako da se spriječi prolazak mlijeka u nos i olakša bebi disanje, sisanje i gutanje. Potrebno je češće nuditi obroke i koristiti posebno dizajnirane bočice za hranjenje s dudicama koje imaju šire rupice. Poželjno je i povremeno lagano pritiskati dudu i tako olakšati prolazak tekućine i nakon hranjenja djetetu isprati usta s malo mlake prokuhane vode, a u nos našpricati fiziološku otopinu (Reilly i sur., 2013).

Ukoliko postoji opasnost od aspiracije i neishranjenosti djeteta privremeno rješenje može biti postavljanje nazogastrične sonde (Ivšac, Blaži, Lulić, 2007). Važno je naglasiti da nazogastrična sonda ne može biti dugoročno rješenje i njezina upotreba treba se svesti na minimum. Peroralno hranjenje najbolje je za djetetov cjelokupni razvoj pa tako i govorni jer se tijekom sisanja ili hranjenja na bočicu aktiviraju mišići artikulatora čija je pokretljivost važna za funkciju govora.

1.8. Utjecaj rascjepa na slušanje i govor

Patologija govora povezana s orofacijalnim rascjepima odnosi se na promjene u fonaciji, produkciji glasova, rezonanciji i stvaranju auditivne i kinestetske predodžbe fonema (Blaži i sur. 2010).

1.8.1. Poremećaj rezonancije

Govor djeteta s rascjepom ima specifična obilježja koja ponekad perzistiraju i nakon kirurške intervencije. Kod rascjepa usne u govoru najčešće nema većih odstupanja. Ukoliko su prisutna, najčešće se odnose na poremećaj izgovora oralnih konsonanata (okluzivi, frikativi, afrikate) (prema Zorić i sur. 2014). Kod rascjepa nepca postoji širi problem od poremećaja izgovora pojedinih glasova. Zbog "komunikacije" usne i nosne šupljine javlja se poremećaj rezonancije. Patološko odstupanje od nosne rezonancije može se očitovati na dva načina: povećanom nazalnošću u glasu i u govoru (*hyperrhinophonia*) ili smanjenom nazalnošću u govoru i glasu (*hyporhinophonia*). Kod rascjepa nepca najčešće se nailazi na problem povećane nazalnosti ili hiperrinofonije. Kirurškim zatvaranjem nepca postupkom koji se zove palatoplastika rješava se dio problema, ali najčešće ostaje nazalnost u govoru koja uz artikulacijske poremećaje narušava razumljivost govora kod djeteta s rascjepom nepca (Zorić i sur. 2014.). Vuletić (1987) navodi kako je osnovna karakteristika govora osoba s rascjepom nepca upravo nazalnost.

"Nazalnost je prekomjerna količina percipirane nazalne rezonancije tijekom produkcije nenazalnih glasova koja je uzrokovana velofaringealnom insuficijencijom" (Boone i McFarlane, 2000 prema Blaži i sur. 2010.).

Stvaranje velofaringealne pregrade, često nazivane i velofaringealnim sfinkterom moguće je zahvaljujući tome što su stražnji faringealni zid i bočne strane farinksa jako pokretni. Naime, u stvaranju velofaringealne pregrade sudjeluje meko nepce svojim pokretima gore i unatrag, a farinks svojim pokretima unaprijed i bočnim približavanjem prema mekom nepcu. S jedne strane meko nepce se isteže i odiže ususret stražnjem faringealnom zidu, a s druge strane zidovi farinksa se skupljaju i približavaju mekom nepcu. Opisani sustav mišića gradi mekonepčanu pregradu i regulira oralni smjer zračne struje. Čistoća oralnih glasova bez nazalnog prizvuka ovisi o mogućnosti stvaranja potpune velofaringealne okluzije (Vladislavljević 1968).

Blaži i sur. (2010) navodi da je pojava nazalnosti moguća neovisno o orofacijalnim rascjepima, odnosno da nazalnost mogu uzrokovati i druge kongenitalne anomalije. Prema priručniku iz fonijatrije nepotpunu velofaringealnu okluziju i hiperrinofoniju mogu uzrokovati razni morfološki i funkcijski poremećaji mekoga nepca. Kratko nepce nakon operacije rascjepa, kongenitalno kratko nepce ili submukozno rascijepljeno nepce najčešće uzrokuju hiperrinofoniju. Isto tako, nepce normalne dužine, ali slabije kontrakcije (stanja nakon oštećenja periferne ili centralne inervacije) ne može se dovoljno približiti stražnjoj ždrijelnoj stjenici. Takva je pojava vrlo rijetka, no ponekad normalno dugačko nepce, s normalnom sposobnošću kontrakcije, ne može dosegnuti stražnju stjenku jer je mezofarinks vrlo prostran i dubok (<http://www.foni.mef.hr/Prirucnik/Fonijatrija.htm>, pristupljeno: 2.8.2018.).

Hiperrinofonija se može očitovati i nakon tonziloadenotomije. „Tonziloadenotomija se definira kao kirurška ekscizija (uklanjanje) palatinalnih i nazofaringealne tonzile i najčešće je primjenjivana kirurška procedura u dječjoj populaciji“ (Đanić 2017; str. 25).

Položaj, veličina i oblik adenoidnih vegetacija na stražnjem faringealnom zidu također imaju utjecaj na kvalitetu izgovora, a posebno kod slučajeva kratkog nepca ili dubokog farinksa. U tim slučajevima adenoide stvaraju neku vrstu prirodne faringoplastike. Stoga, uklanjanje adenoida ponekad može dovesti do jake nazalnosti u govoru jer se uklanja dio pregrade i proširuje nazofaringealni otvor. Isto tako, uklanjanje krajnika kod djece koja imaju nazaliziran govor (zbog kongenitalno kratkog nepca ili dubokog farinksa) može dovesti do pojačane nazalnosti iz tri razloga (Vladislavljević, 1968) :

1. dolazi do proširenja bočnog dijela velofaringealnog otvora što omogućava lakši prolazak zračne struje kroz nos.

2. meko nepce oslonjeno je na krajnike kao na potporne zidove, a uklanjanjem krajnika hipotoničnost i hipofunkcionalnost nepca dolazi do izražaja što je izraženo u brzom govoru pri izgovoru konsonanata (okluziva, frikativa, afrikata)

3. kod djece koja imaju urednu anatomske funkcionalnu građu velofaringealne pregrade nakon odstranjenja krajnika može doći do smanjenja napetosti govornog aparata što se odražava na artikulaciji i pojačanoj nazalnosti.

Kod nekih pacijenata nakon tonziloadenotomije dolazi do toga da osoba „štedi“ nepce pri govoru i ne kontrahira ga što može dovesti do stvaranja navike takvog govorenja u kojemu je prisutna nazalnost. Vuletić (1987) iznosi opis nekoliko vrsta nazalnosti. Rhinolalia aperta ili otvorena nazalnost je oblik nazalnosti koji nastaje kada je prolaz zračnoj struji kroz nosnu šupljinu otvoren. Meko nepce ne stvara pregradu iz bilo kojeg od prethodno navedenih razloga te struja pri govoru ulazi i u usnu i u nosnu šupljinu što čini govor nazalnim. Rhinolalia clausa posterior ili stražnja zatvorena nazalnost nastaje zbog opstrukcije u nazofarinksu (povećane adenoidne vegetacije) jer zračna struja nema protok prema nosnoj šupljini. Rhinolalia clausa media je oblik nazalnosti kada postoji opstrukcija u srednjem dijelu nosne šupljine čime nosna šupljina biva podijeljena na dva dijela. Pri tome zračna struja ne prolazi kroz nosnu šupljinu, ali ulazi u njezin stražnji dio čime se stvara dodatna rezonantna šupljina i pojačava se nazalnost. Rhinolalia clausa anterior ili prednja zatvorena nazalnost nastaje opstrukcijom u prednjem dijelu nosne šupljine. Kod zatvorenih nazalnosti dijete diše na usta što dovodi do opuštanja mišića artikulatora, a posljedično i mekog nepca. Moguće je učvršćivanje takvih loših govornih navika koje dovode do nazalnog govora (Blaži i sur. 2010). „Hiporinofonija (*Hyporhinophonia*) je poremećaj kod kojeg nedostaje nazalna komponenta pri izgovoru nazala, tj. onih glasova kod kojih je ona potrebna (M, N, NJ). Oni gube svoja obilježja i poprimaju obilježja svojih oralnih parova (B, D, LJ)“ (Dembitz, 2018; str. 2). Nastaje zbog različitih stanja koji uzrokuju opstrukciju nosnih šupljina i epifarinksa kao što su: infektivni rinitis ili obična upala sluznice nosa, nosna polipoza, tumori nosa i epifarinksa. Zbog smanjene nosne rezonancije koja zahvaća samo nazale pojavljuje se nepoželjan kompenzacijski mehanizam zaustavljanja kontrakcije nepca tijekom produkcije drugih glasova čime inicijalna hiporinofonija pokreće mehanizme hiperrinofonije, što rezultira tzv. miješanom nazalnošću (*Rhinophonia mixta*). Nadalje, moguća je pojava i tzv. habitualne hiporinofonije, rijetkog poremećaja kod kojeg dolazi do snažne kontrakcije nepca kod svih glasova pa tako i nazala što rezultira hiporinofonijom(<http://www.foni.mef.hr/Prirucnik/Fonijatrija.htm>, pristupljeno: 2.8.2018.).

1.8.2. Poremećaji glasa

Poremećaj glasa podrazumijeva promijene u visini, jačini ili kvaliteti glasa nastale zbog organskog i/ili funkcionalnog problema na razini larinksa (Henningsson i sur., 2008). Poremećaje glasa potrebno je razlikovati od poremećaja rezonancije. Dok poremećaji glasa nastaju na laringealnoj razini, poremećaji rezonancije svrstavamo u supralaringealne poremećaje. Dembitz (2013) navodi kako orofacijalni rascjepi nisu izravno povezani s patologijom glasa. Nadalje ističe kako djeca s rascjepom nepca pripadaju rizičnoj skupini za različite promjene u usnoj i nosnoj šupljini koje za posljedicu mogu imati promjene u glasu. Smatra se da promuklost kod populacije osoba s rascjepom nastaje zbog smanjene napetosti u rezonantnim prostorima zbog koje dolazi do hiperkinetičke kompenzacije na nivou larinksa. Glas djece s rascjepom obično se opisuje kao slabašan, šuman i promijenjene visine (Dembitz 2013).

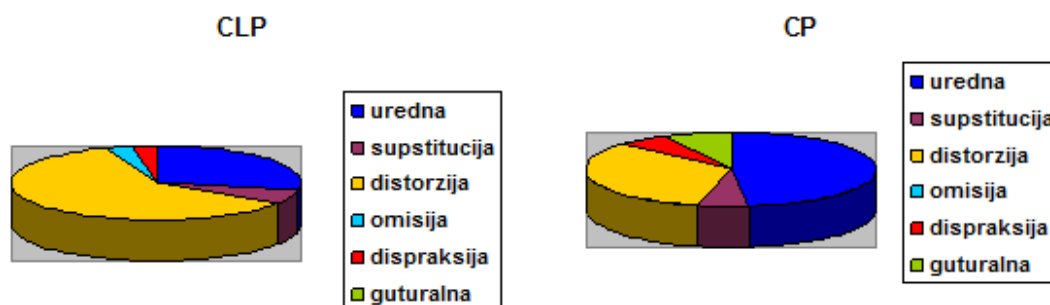
1.8.3. Artikulacijski poremećaji

Najuočljivije artikulacijske greške u govoru djece s rascjepom prisutne su prilikom proizvodnje konsonanata. Preduvjet za ispravnu artikulaciju konsonanata je stvaranje visokog intraoralnog tlaka koje se postiže formiranjem velofaringealne pregrade i usmjeravanjem zračne struje na usta (Zorić i sur. 2014).

Okluzivi /p/,/t/,/k/,/b/,/d/ i /g/ koje još zovemo i praskavci nastaju kada zračna struja nailazi na zapreku koja se pod pritiskom otvara. Prije palatoplastike nije moguće ostvariti okluziju zbog povezanosti s nosnom šupljinom. Frikativi /f/,/h/,/s/,/š/,/z/ i /ž/ nastaju prolaskom zračne struje kroz tjesnace uglavnom u prednjem dijelu usne šupljine pri čemu nastaju karakteristični šumovi. Afrikate /c/,/č/,/ć/,/đ/,/dž/ kombinacija su okluziva i frikativa što znači da se najprije stvara pregrada kao kod okluziva, a nakon probijanja zračna struja prolazi kroz tjesnac kao kod frikativa.

U djece rođene s rascjepom nepca zbog prolaska zraka kroz nos teško se postiže adekvatan tlak zraka u usnoj šupljini na ispravnom mjestu artikulacije glasova, posebice konsonanata. Poznato je da i nakon palatoplastike nije odmah moguća čista artikulacija konsonanata zbog velofaringealne insuficijencije. Neka djeca razviju kompenzacijske mehanizme tražeći drugačije načine artikulacije i pokušavajući artikulirati na drugim mjestima gdje postižu dovoljan tlak, najčešće premještajući mjesto artikulacije u stražnji dio usne šupljine (Zorić i sur. 2014). Tako se javljaju atipične greške artikulacije koje su vrlo rijetke kod djece koja nisu imala rascjep, a to su supstitucije glasova /t/ i /d/ stražnjim okluzivima /k/ i /g/ (Dembitz 2010). U istraživanju Dembitz i Bagatin (1994) ispitano je jesu li specifične greške govora nakon palatoplastike uzrokovane isključivo velofaringealnom insuficijencijom ili su one

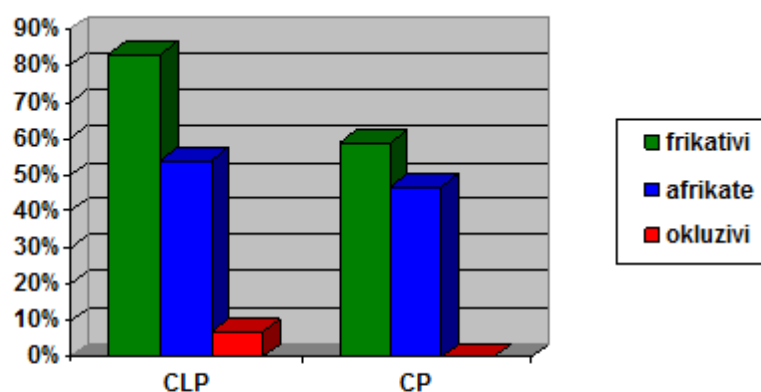
rezultat poremećenih aerodinamičkih odnosa u artikulacijskim šupljinama. Ispitanici su bili djeca (N=130) u dobi od 2,5 do 6,5 godina s rascjepom usne i nepca ili izoliranim rascjepom nepca. Istraživanje je pokazalo da djeca kod koje je učinjena faringoplastika (kirurški postupak nadogradnje stražnjeg zida farinksa s ciljem omogućavanja potpune okluzije mekog nepca i farinksa) uglavnom nisu razvila bolji govor. Međutim, ispitivanje aerodinamičkih odnosa pokazalo je snižene vrijednosti u svim ispitivanim grupama. Rezultati upućuju na zaključak da problemi u govoru nakon palatoplastike nastaju iz poremećenih aerodinamičkih odnosa artikulatora, a ne samo iz velofaringealne insuficijencije. Najčešće artikulacijske greške kod djece s rascjepom prikazane su na slikama. Dobiveni rezultati u skladu su s istraživanjima vezanim uz engleski jezik (Wyatt i sur., 1996).



CLP- rascjep nepca i usne
CP – rascjep nepca

Slika 3 Najčešći oblik artikulacijske pogreške

IZVOR: Dembitz (2010)



CLP – rascjep nepca i usne
CP – rascjep nepca

Slika 4 Najčešće distorzirani glasovi IZVOR: Dembitz (2010)

1.8.4. Nazalni šum

Nazalni šum također je jedna karakteristika govora osoba s rascjepom nepca. Nazalni šum kod osoba s rascjepom može varirati od neprimjetnog i uočljivog tek instrumentalnom provjerom (pomoću ogledalca) do jasno čujnog (Wyatt i sur., 1996). Prema Zorić i sur. (2014) to je čujni protok zraka kroz nosnice koji je najizraženiji prilikom tvorbe konsonanata za koje je potreban visok intraoralni tlak. Pojavljuje se kod slabosti velofaringealne valvule.

1.8.5. Facijalne grimase

Facijalne grimase također su karakteristika govora djece s rascjepom nepca. Može se reći da su kao kod mucanja ovo sekundarna obilježja govora. Dijete s rascjepom nepca najvjerojatnije podsvjesno pokušava zaustaviti nazalnu emisiju zračne struje stežući nosnice, podižući gornju usnu ili radeći druge facijalne grimase koje su vizualno ometajuće u komunikaciji (Sell i sur., 1994).

1.8.6. Sluh

Upale uha jedan su od najčešćih zdravstvenih problema u dječjoj populaciji, a posebno kod djece s rascjepom. Istraživanja pokazuju da oko 80% djece s rascjepom ima recidivirajuće upale srednjeg uha. Opetovane upale srednjeg uha mogu dovesti do oštećenja sluha, a djeca s rascjepom rizična su skupina za stjecanje provodnog ili konduktivnog oštećenja sluha (Kovačević, 2008).

Razlog tome je neadekvatna funkcija Eustahijeve tube. Eustahijeva tuba je hrskavično koštana cijev koja povezuje gornji dio ždrijela ili nazofarinks sa srednjim uhom ili bubnjištem (Zorić i sur. 2014). Osnovna funkcija je izjednačavanje tlaka zraka između epifarinksa i srednjeg uha.

Kod novorođenčadi je Eustahijeva tuba položena gotovo horizontalno i dugačka svega 18 mm. Kako dijete raste, tuba se produžuje i zauzima položaj od 45°. Eustahijeva tuba otvara se prosječno svakih desetak sekundi. Za otvaranje su odgovorna dva mišića (*m. tensor veli palatini* i *m. levator veli palatini*) koja su kod djece s rascjepom postavljena na krivom mjestu. Uredna funkcija tih mišića omogućava drenažu, zaštitu i provjetravanje srednjeg uha čime se sprečava razvoj upale srednjeg uha. Kod prehlade dolazi do zadebljanja sluznice stijenke tube i njenog zatvaranja što onemogućava dreniranje sekreta u ždrijelo (Kovačević 2008). Nakupljanje tekućine, učestale gnojne upale uha često vode prema timpanosklerozi,

stanju pri kojem je srednje uho ispunjeno vezivnim tkivom, priraslicama i naposljetku dovodi do provodnog gubitka sluha. Preventivne mjere upala uha i kasnijeg oštećenja sluha kod djece s rascjepom provode se tako što se uz postupak zatvaranja nepca rutinski ugrađuju ventilacijske cjevčice koje sprečavaju nakupljanje tekućine u srednjem uhu (Zorić i sur. 2014). Kovačević (2008) ističe da se kod upala uha s infekcijom javlja povišena tjelesna temperatura, dijete je plačljivo i često dodiruje uho rukom. Međutim, neinfektivne upale prolaze bez ovih simptoma, a jedini simptom je naglušost koju roditelji teže prepoznaju. Stoga, u ranom razdoblju potrebno je timsko praćenje djeteta s rascjepom nepca i češće kontrole. S logopedskog aspekta potrebno je pratiti djetetovo slušanje i razvoj govora (odazivanje na ime, pojava prve riječi, dvočlanog iskaza i sl.). Roditelje treba uputiti kada se kod djeteta očekuje pojava prve riječi i kako stimulirati slušno-jezično-govorni razvoj.

1.9. Liječenje rascjepa

1.9.1. Kirurško liječenje

Prema Knežević (2008) kirurško liječenje potpunih rascjepa počinje već nekoliko dana nakon poroda s ciljem olakšavanja hranjenja djeteta s rascjepom usne i nepca. Najprije se načini tzv. palatinalna odnosno nepčana pločica koja se izradi prema otisku djetetove gornje čeljusti. Beba nosi ovu pločicu kao protezu do prve operacije. Ona omogućava zatvaranje komunikacije između usne i nosne šupljine i olakšava sisanje. Dijete s rascjepom u ranoj dobi treba proći nekoliko operacija. Postoji nekoliko preuvjeta za prvu operaciju. Beba mora imati najmanje tri mjeseca, tjelesnu težinu preko 5000 grama i uredne krvne nalaze. Iako ljudi često misle da se kod rascjepa usne i nepca tijekom operacije ugrađuje neki strani materijal na mjesto rascjepa, a na to može navesti i sam naziv operacije plastika usne i nepca, Knežević (2008) ističe kako se ništa ne ugrađuje jer ne nedostaje tkiva, sve postoji, ali se kod beba s rascjepom nalazi na krivom mjestu. Operacija zatvaranja rascjepa zapravo je reorganizacija postojećih mišića, hrskavica i kostiju. Rascjep usne i mekog nepca zatvara se odmah nekoliko dana nakon poroda. Ako postoji i rascjep tvrdog nepca potrebno je čekati dob od otprilike dvije godine.

Sve operacije izvode se u općoj anesteziji i imaju nekoliko ciljeva. Osnovna svrha operacije je omogućavanje normalnog hranjenja djeteta s rascjepom te stvaranje preuvjeta za uredan razvoj slušanja i govora. Nadalje, kod rascijepljene usne cilj je i dobar estetski izgled usne i nosa. Koriste se metode poput Millardove kirurške tehnike koje zatvaraju vidljive rascjepe usne tako da ožiljak bude na mjestu prirodnog usjeka (filtruma) i na taj način što manje vidljiv.

Operacija zatvaranje nepca ili palatoplastika kompliciranija je i potrebno je spajanje u više slojeva (Knežević 2008). Ponekad su potrebni sekundarni zahvati nepca u koje ubrajamo: zatvaranje fistula nepca (manji otvori koji se ponekad jave nakon palatoplastike) i plastika ždrijela ili faringoplastika. U školskoj dobi počinje i ortodontska terapija koja je dugotrajna i zahtjevna. Prema Knežević (2008) u dobi od 7 do 9 godina radi se osteoplastika ili koštano spajanje rascijepljenih segmenata gornje čeljusti za stvaranje dobrih međučeljusnih odnosa i zubnog niza. Knežević (2008) naglašava kako je neophodan timski rad i individualni pristup svakom djetetu s rascjepom za optimalan rezultat svih postupaka u liječenju.

1.9.2. Logopedska procjena i terapija

Uloga logopeda u procesu liječenja rascjepa nepca iznimno je važna. Kao član multidisciplinarnog tima, logoped savjetuje i prati roditelje i dijete od samog rođenja, čak i prije rođenja ukoliko je to moguće. Temeljitu procjenu moguće je učiniti kada se kod djeteta pojavi povezan govor, odnosno kada dijete počne povezivati nekoliko riječi u rečenicu. Također, procjenu valja provesti prije i poslije sekundarnih operacija nepca (faringoplastika, zatvaranje fistula). Kod većine djece to je oko treće godine života (Kummer, 2014).

Logopedska procjena treba biti sveobuhvatna, stoga logoped ispituje i komunikaciju i jezik i govor. Pod pretpostavkom da dijete s rascjepom nema udruženih teškoća procjena će najveći naglasak imati na govoru.

Razlikujemo subjektivnu i objektivnu, odnosno instrumentalnu procjenu. Za valjanost i pouzdanost rezultata u praksi se najčešće kombiniraju subjektivne i objektivne metode.

Različiti klinički centri procjenjuju različite parametre govora i njihove rezultate često ne možemo uspoređivati.

Postoji nekoliko protokola za procjenu, ali nijedan nije u potpunosti prihvaćen. Jedan od raširenijih i prihvaćenijih protokola koji se koristi za procjenu govora osoba s rascjepom nepca zasigurno je Henningssonov protokol, univerzalni sustav koji mjeri pet osnovnih karakteristika govora osoba s rascjepom nepca: Hipernazalnost, hiponazalnost, nazalnu emisiju i/ili turbulenciju, pogrešan izgovor konsonanata i poremećaj glasa (Sinko i sur., 2017).

Još jedan element procjene svakako je provjerapokretljivosti i strukture govornog aparata vizualnim pregledom i palpacijom. Logoped ispituje pokretljivost mekog nepca za vrijeme govora, disanja, gutanja i provociranog refleksa povraćanja. Prema Blaži (2015) kod neke djece s hiperrinofonijom i nepotpunom velofaringealnom okluzijom funkcija mekog nepca očuvana je kod provociranja povraćanja i gutanja, ali u govoru ne obavlja svoju ulogu. Ovakva klinička slika upućuje na postojanje lezije u središnjem živčanom sustavu (SŽS).

Provjera pokretljivosti mekog nepca u svim njegovim funkcijama važna je jer nas upućuje na daljnje postupke u liječenju i terapiji. Kod lezija u SŽS-u logopedska terapija neće imati puno učinka. Ukoliko je funkcija mekog nepca narušena u svim funkcijama to nas upućuje da je potrebno kirurško liječenje (faringoplastika) nakon kojeg logopedska terapija daje pozitivne rezultate. U procjeni govora razlikujemo subjektivnu i objektivnu, odnosno instrumentalnu procjenu.

1.10. Subjektivna procjena

Subjektivna procjena nazalnosti u govoru metoda je koja predstavlja zlatni standard za logopede. Instrumentalna procjena ne može zamijeniti subjektivnu, ali je važna za evaluaciju napretka u terapiji jer omogućava mjerenje suptilnih pomaka (Sinko i sur., 2017).

Za procjenu je potreban dobro osmišljen materijal za prikupljanje govornog uzorka. Govorni uzorak na temelju kojeg se procjenjuje nazalnost u govoru, razumljivost i drugi parametri treba sadržavati uzorak ponavljanja izoliranih riječi i rečenica kao i uzorak spontanog govora. Materijal za prikupljanje govornog uzorka trebao bi sadržavati riječi i rečenice zasićene napetim konsonantima (okluzivi, frikativi, afrikate). Ove glasove nalazimo u gotovo svim jezicima što nam onda omogućava uspoređivanje rezultata ispitivanja nazalnosti sa stranim istraživanjima (Henningsson i sur., 2008).

Prema Henningssonu i sur. (2008) idealan izbor izoliranih riječi su kratke riječi koje sadrže po jedan ciljani konsonant i jedan vokal. Primjerice u engleskom jeziku to bi bile riječi *tea* /ti/ i *dad* /dæd/. Riječi i rečenice ne bi trebale sadržavati nazalne glasove (m, n, ŋ). Rečenice bi trebale ispitati sve glasove u nekom jeziku, osim nazala.

Isti autori navode kako za ispitivanje hiponazalnosti koristimo kratke rečenice radije nego izolirane riječi koje sadrže nazale.

Govorni uzorak se snimi audiosnimačem i logoped kod preslušavanja vrednuje govor prema navedenim parametrima najčešće na ljestvici od 1-3. Za parametar hipernazalnosti, 1 označava blagu prisutnost nazalnosti, 2 umjerenu, a 3 tešku nazalnost. Isto tako na drugim parametrima kao što je razumljivost govora gdje 1 označava govor koji je blago nerazumljiv do 3 što označava nerazumljiv govor (Henningsson i sur., 2008).

Iako je procjena nazalnosti moguća samo slušanjem, postoji nekoliko niskotehnoloških pomagala koja pomažu procjeni, a to su dentalno ogledalo i slamka.

Logoped će koristiti dentalno ogledalo tako što će ga staviti ispod djetetovih nosnica dok dijete izgovara pojedine nenazalne glasove. Ako se ogledalce zamagli to indicira na nazalnu emisiju. Problem pri korištenju ogledalca je taj što je ogledalo potrebno staviti ispod nosnica točno u trenutku izgovora pojedinih glasova i maknuti ih odmah nakon izgovora, inače se ne

može tvrditi da je zamagljenost produkt nazalne emisije u govoru, a ne disanja na nos(Kummer, 2014).



Slika 5 Upotreba dentalnog ogledala za procjenu nazalnosti

IZVOR: Kummer (2014)

Slamka je jedan vrlo jednostavan, jeftin, dostupan i koristan proizvod koji može poslužiti kao pomagalo u procjeni nazalnosti. Jedan kraj slamke stavi se u djetetovu nosnicu, a drugi kraj blizu uha procjenjivača. Dijete ponavlja slogove, riječi i rečenice bez nazalnih glasova za logopedom. Prema Kummer (2014) čak i najmanja prisutnost hipernazalnosti ili nazalne emisije može biti detektirana preko slamke. Slamka pojačava zvuk slično kao stetoskop. Ako se posumnja na prisutnost hiponazalnosti ili nekakve opstrukcije gornjih dišnih puteva dijete treba ispitati tako da ponavlja slogove, riječi i rečenice zasićene nazalima. Prigušen zvuk upućuje na prisutnost hiponazalnosti.



Slika 6 Upotreba slamke za procjenu nazalnosti

IZVOR: Kummer (2014)

1.11. Instrumentalna procjena

Instrumentalna procjena donosi vrijedne informacije koje nadopunjuju subjektivnu procjenu. Postoje dvije osnovne kategorije instrumentalnih postupaka:

1. one koje daju indirektne, ali objektivne informacije (nazometrija i aerodinamička instrumentacija) i
2. one koje daju direktne, ali subjektivne informacije (videofluoroskopija i nazofaringoskopija)(Kummer, 2014).

1.11.1. Nazometrija

Prema Bonneti (2014) nazometrija je indirektna metoda procjene funkcije velofaringalnog mehanizma koji omogućava kvantificiranje subjektivne kliničke prosudbe poremećaja nazalnosti. Prednosti nazometrije nad ostalim objektivnim metodama procjene velofaringalne

funkcije su neinvazivnost i ekonomičnost uprimjeni kao i mogućnost potvrđivanja percipiranog odstupanja u nazalnoj emisiji uz značajnu sigurnostu najrazličitijim kliničkim uvjetima. U nazometriji postavljena su dva mikrofona, jedan ispod nosa, a drugi ispod usta gdje jedan prikuplja podatke o nazalnoj, a drugi o oralnoj emisiji akustičke energije. Nazometar omogućava računanje omjera nazalne energije i ukupne razine zvučnog tlaka (nazalna + oralna) kao postotak nazalnosti i daje grafički prikaz rezultata.

1.11.2. Aerodinamičko mjerenje

Aerodinamičko mjerenje je postupak mjerenja mehaničkih svojstava zračne struje i zvučnog tlaka koji uključuje korištenje oralnih i nosnih katetera koji su spojeni s tlačnim pretvornikom, cijevi i pneumotahografom. Služi logopedima za objektivno mjerenje intraoralnog tlaka i razine nazalne emisije. S tim podacima moguće je izračunati veličinu velofaringealnog otvora. Također, prema smanjenoj nazalnoj emisiji može se potvrditi postojanje opstrukcije u gornjim dišnim putevima(Kummer, 2014).

1.11.3. Videofluoroskopija

Prema Kummer (2014) videofluoroskopija je modificirana pretraga barijevom kašom koja se izvodi u suradnji sa logopedom. Provodi se za procjenu velofaringealne pokretljivosti i za identifikaciju strukturalnih nedostataka u velofaringealnom zatvaranju. Ove informacije korisne su za planiranje kirurškog liječenja.

1.11.4. Nazofaringoskopija

Nazofaringoskopija koju još zovemo i nazoendoskopija i videoendoskopija omogućava direktnu opservaciju velofaringealne porte tijekom govora. Kummer (2014) ističe kako ova metoda daje preciznije informacije o velofaringealnoj insuficijenciji od videofluoroskopije jer omogućava pregled struktura iz ptičje perspektive. Može detektirati i najmanje otvore tijekom govora. Omogućava pregled adenoida i njihov utjecaj (pozitivan ili negativan) na velofaringealnu funkciju. Nadalje, izvrsna je metoda za provjeru uspješnosti operacije zatvaranja velofaringealnog otvora.

1.11.5. See-scape

See-scape je jednostavan mehanizam namijenjen otkrivanju nazalne emisije zraka tijekom govora uz mogućnost objektivnog mjerenja i pružanja vizualnog pokazatelja stupnja nazalnosti kod osobe s rascjepom. Koristan je i u dijagnostici i u rehabilitaciji jer nam daje informacije o pritisku zračne struje što može uputiti na velofaringealnu insuficijenciju i u konačnici na hipernazalnost. Sastoji se od dva nosna nastavka, savitljive cijevi i čvrste plastične cijevi s označenim mjerama u kojoj se nalazi plovak. Čvrsta plastična cijev zatvorena je čepom koji sprečava izlazak zraka iz cijevi. U postupku mjerenja promatra se podizanje plovka u plastičnoj cijevi koji se podiže ukoliko je zrak prošao kroz nos i ušao u nosne nastavke. Nazalnost se ispituje razini fonema, riječi i rečenice (Blaži, 2015).

1.12. Logopedska terapija

Prema Blaži (2015) uloga logopeda kod djece rođene s orofacijalnim rascjepom uključuje praćenje razvoja djeteta, savjetovanje roditelja i pružanje informacija ostalim stručnjacima multidisciplinarnog tima o govorno-jezičnom razvoju djece s rascjepom te pružanje preporuke o najučinkovitijem obliku logopedske terapije. Logopedska terapija orofacijalnih rascjepa uključuje ranu logopedsku intervenciju. Logoped prati dijete od samog rođenja, a ponekad savjetuje roditelje i prije djetetova rođenja. Ranu intervenciju možemo podijeliti na tri etape (1. od rođenja do kirurškog zahvata; 2. Od kirurškog zahvata do 30. mjeseca djetetova života i 3. od 30. mjeseca djetetova života) (Blaži, 2015). Dakle, etape rane intervencije podijeljene su prema kirurškom zahvatu, razlikuju se u ciljevima i obliku pristupa (direktna terapija ili indirektna terapija. U prvoj etapi koja se odnosi na vrijeme od rođenja do kirurškog zahvata roditelj, partner u terapiji, ima važnu ulogu. Logopedska terapija u ovoj fazi je indirektna. Logoped educira roditelje o tijeku govorno-jezičnog razvoja djeteta i daje upute kako ga poticati. U ovoj fazi terapija je usmjerena na poticanje vokalizacije i brbljanja kroz geste i vokalnu imitaciju. Budući da djeca s rascjepom pripadaju rizičnoj skupini za razvoj upala srednjeg uha važno je nadzirati stanje sluha. Druga etapa obuhvaća razdoblje od kirurškog zahvata do 30. mjeseca djetetova života. Terapija je još uvijek indirektna što znači da se logoped usmjerava na rad s roditeljima. Nakon kirurškog zahvata zatvaranja nepca logopedska terapija usmjerena je na proširivanje djetetovog glasovnog repertoara s naglaskom na povećanje korištenja okluziva i frikativa. Vezano uz poticanje produkcije okluziva i frikativa važno je nadzirati i pojavu kompenzacijskih pogrešaka. Također, nastavlja se nadziranje sluha kao i prije palatoplastike. Roditelje se savjetuje za rad kod kuće prema naturalističkim metodama rada. Prema Blaži (2015) naturalističke metode su one metode koje za postizanje funkcionalnog govora koriste svakodnevne interakcije. Hibridni modeli su model učenja modifikacijom okoline (*Enhanced Mileu Training-EMT*) i metode ciljane stimulacije (*Focused Stimulation-FS*). Model učenja modifikacijom okoline je model intervencije koji primjenjuje prirodne principe ponašanja kako bi se potaknula i podržala rutinska upotreba jezika funkcionalna u raznim svakodnevnim situacijama. Organizira se djetetova okolina kako bi se potaknulo zahtijevanje. Važna je prilagodba jezika djetetovim razvojnim mogućnostima komuniciranja. Kod metode ciljane stimulacije kao i kod modela učenja modifikacijom okoline potiče se jezik kroz smislene komunikacijske interakcije u svakodnevici. Važno je pratiti vodstvo djeteta, modelirati i proširivati iskaze i pružati brzu interakciju (biti odgovorljiv). Treća etapa intervencije odnosi se na razdoblje nakon 30. mjeseca djetetova života. U ovoj fazi dijete se najčešće uključuje u direktnu logopedsku terapiju, a roditelj ostaje važan partner u terapiji.

Prema ASHA-i (American Speech-Language-Hearing Association), pristupi tretmanu govornih poremećaja kod rascjepa ovise o tome jesu li artikulacijske teškoće posljedica strukturalnih nedostataka ili su naučene. Na artikulacijske poremećaje koji imaju strukturalni nedostatak u pozadini, primjerice pojava fistule, logopedska terapija neće donijeti poboljšanje jer je potrebno prvo kirurški zatvoriti fistulu, dok kod naučenih ili kompenzacijskih artikulacijskih grešaka očekujemo pozitivno djelovanje logopedske terapije.

Sukladno tome, prema ASHA-i, ciljevi direktne logopedske terapije bili bi

- 1.) Korekcija mjesta izgovora konsonanata i vraćanje artikulacije prema naprijed
- 2.) Povećati oralnu protočnost zračne struje

ASHA donosi konkretne strategije u logopedskoj terapiji za orofacijalne rascjepe. Pa tako navode tehniku postavljanja ili pozicioniranja fonema počevši od bilabijala pa prema alveolarima, zatim uvođenje produljenog izgovora glasa /h/ na početku iskaza u svrhu razbijanja glotalnog izgovora prednjih konsonanata i u svrhu laganog usmjeravanja zračne struje na usta uz otvoren glotis, poučavanje auditivnoj diskriminaciji ciljnog glasa od njegove pogrešne kompenzatorne realizacije u svrhu učenja samopraćenja i samokontrole i omogućavanje vizualnih tragova poput:

- crteža usne šupljine ili plastičnog modela usne šupljine za vizualizaciju pravilnog mjesta artikulacije
- korištenja ogledala
- korištenja laganih materijala i predmeta (pero, papir) za demonstraciju usmjerenosti protoka zračne struje

Nadalje, ASHA navodi još neke tehnike kao što je omogućavanje verbalnih tragova, odnosno verbalnih uputa o pravilnom mjestu i načinu artikulacije koristeći djetetu razumljiv jezik i omogućavanje taktilnih tragova poput:

- logoped djetetovu nadlanicu stavi blizu svojih usta tako da dijete osvijesti oralni prolazak zračne struje nakon izgovora oralnih konsonanata
- logoped prisloni djetetovu ruku na usta dok izgovara bilabijalne okluzive za osvješćivanje bilabijalne okluzije i oralnog prolaska zračne struje
- logoped stisne/zatvori prstima nos za pokazivanje osjeta oralnog pritiska i sprječavanja bježanja zračne struje kroz nos pri tvorbi oralnih konsonanata

2. PROBLEM ISTRAŽIVANJA

Budući da orofacijalne rascjepe ubrajamo među najčešće prirođene malformacije važno je istraživati o ovoj temi. Govor je važan za djetetov psihosocijalni razvoj kao i obrazovni napredak. Svaki roditelj želi da se njihovo dijete može slobodno i bez srama izraziti govorom, ostvariti svoj puni potencijal i da se osjeća prihvaćeno u svojoj okolini bez obzira na to što je rođeno s rascjepom. Istraživanja o posljedicama koje rascjep ima na govor najčešće izdvajaju procjenu nazalnosti, artikulacije i razumljivosti govora što su i područja koja su najviše narušena u slučaju prisutnosti rascjepa. Strana istraživanja pokazuju da je narušena razumljivost govora prisutna kod 40% djece rođene s rascjepom nepca u dobi od 5 godina. Hipernazalnost je također primjetna kod 31% petogodišnjaka s rascjepom (Sell i sur., 2017). Stupanj narušenosti razumljivosti govora i stupanj hipernazalnosti u stranim istraživanjima varira. U dobi od 5 godina navodi se blaga do umjerena hipernazalnost i blago do umjereno narušena razumljivost govora (Nyberg i sur. 2014).

2.1. CILJ ISTRAŽIVANJA

Cilj ovog istraživanja je putem subjektivne procjene više procjenjivača istražiti koliko je nazalan i koliko je razumljiv govor šestero predškolske djece s rascjepom nepca nakon urađene palatoplastike.

2.2. HIPOTEZE ISTRAŽIVANJA

H1: Govor djece s rascjepom bit će nazalniji pri proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji izoliranih riječi.

H2: Govor djece s rascjepom nepca bit će manje razumljiv pri proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji izoliranih riječi.

H3: Govor djece s rascjepom tvrdog i mekog nepca bit će nazalniji od govora djece s rascjepom samo mekog nepca.

H4: Govor djece koja su uključena u neki oblik logopedске terapije bit će razumljiviji od govora djeteta koje nije uključeno u logopedsku terapiju.

3. METODE ISTRAŽIVANJA

3.1. UZORAK ISPITANIKA

U istraživanju je sudjelovalo šestero djece s rascjepom nepca, tri dječaka i tri djevojčice (Tablica 2). Prosječna kronološka dob ispitanika je 5;07 godina. Uzorak ispitanika prikupljen je u logopedskom kabinetu Kliničkog Bolničkog Centra Zagrebnakon što su roditelji dali suglasnost za sudjelovanje u ispitivanju. Od šestero djece rođene s rascjepom, dvoje je rođeno samo s rascjepom mekog nepca, a četvero je rođeno s rascjepom i mekog i tvrdog nepca. Pet od šest ispitanika uključeno je u neki oblik logopedske terapije (izravni ili neizravni). Jedno dijete nije nikada bilo uključeno u terapiju, ali povremeno dolazi na logopedsko savjetovanje o poticanju govorno-jezičnog razvoja kod logopeda u navedenom Kliničkom bolničkom centru. Operacija zatvaranja mekog nepca učinjena je prosječno u dobi od 8 mjeseci, dok je za kirurško zatvaranje tvrdog nepca prosječna dob 20 mjeseci.

Tabela 2 Podaci o ispitanicima

DIJETE	SPOL	KD (kronološka dob u trenutku ispitivanja u mjesecima)	VRSTA RASCJEPA	DOB U KOJOJ JE UČINJENA PALATOPL ASTIKA (mj)	VRSTA LOGOPEDS KE TERAPIJE	TRAJANJE TERAPIJE (u mjesecima do trenutka procjene)
N.M.	M	78	Rascjep mekog i tvrdog nepca	6 meko nepce 20 tvrdo nepce	Rana intervencija i savjetovanje	70
C.V.	Ž	77	Rascjep mekog nepca	10	Rana intervencija i Direktna terapija	63 12
K.K.	M	58	Rascjep mekog i tvrdog nepca	8 meko nepce 22 tvrdo nepce	Nije uključen u terapiju. Povremeno savjetovanje	0

L.K.	Ž	51	Rascjep mekog nepca	8	Rana intervencija	42
M.M.	M	68	Rascjep mekog i tvrdog nepca	9 meko nepce 25 tvrdo nepce	Rana intervencija i Direktna terapija	51 12
M.D.	Ž	80	Rascjep mekog i tvrdog nepca	14 meko i tvrdo nepce	Direktna terapija	54

3.2. MJERNI INSTRUMENTI

U svrhu subjektivne procjene djece predškolskog uzrasta koja su imala rascjep nepca, sastavljen je materijal za prikupljanje govornog uzorka. Materijal se sastoji od 10 riječi i 30 kratkih rečenica. Sukladno metodologiji stranih istraživanja (Henningsson i sur., 2008) materijal sadrži izolirane riječi i rečenice zasićene konsonantima (okluzivi, frikativi, afrikate) za čiju je tvorbu neophodno oralno usmjeravanje zračne struje i stvaranje velikog intraoralnog tlaka. Odabrane izolirane riječi po vrsti riječi pripadaju imenicama. Sve imenice bliske su i poznate djeci predškolske dobi (tata, dida, koka i sl.). Rečenice su kratke (3-4 riječi) i jednostavne kako bi ih djeca mogla ponoviti. Sadrže sve konsonante fonološkog sustava hrvatskog jezika. Prema tome, materijal sadrži i nekoliko riječi i rečenica koje su zasićene nazalima (mama, medo) kako bi se isključilo postojanje hiponazalnosti ili mješovite nazalnosti u govoru. U ovom istraživanju isključena je procjena hiponazalnosti i mješovite nazalnosti. Za procjenu su odabrane samo one riječi i rečenice koje ne sadrže nazale.

3.3. POSTUPAK PRIKUPLJANJA GOVORNOG UZORKA

Budući da su ispitanici ovog istraživanja djeca predškolske dobi neophodno je bilo roditelje informirati o ciljevima i postupcima istraživanja te zatražiti njihovu suglasnost. Pri tome je naglašeno kako su svi podaci o djeci zaštićeni, anonimni i da se koriste isključivo u istraživačke svrhe. Nakon prikupljenih dozvola za uključivanje djeteta u ispitivanje, pristupilo se provedbi ispitivanja. Govorni uzorak snimljen je digitalnim audiosnimačem (Zoom H1) u logopedskom kabinetu na početku ili na kraju logopedske terapije ili dolaska na logopedsko savjetovanje. Snimanje je trajalo prosječno 10 minuta uključujući i uvodni spontani razgovor s djetetom, roditeljem i stvaranje ugodne i opušteno atmosfere. Djeci je dana uputa da trebaju ponavljati kratke riječi i rečenice za logopedom kako i inače vježbaju kada dođu na terapiju. Uređaj je tijekom snimanja položen na stol na udaljenosti od 30-ak cm od ispitanikovih usta. Snimke su potom obrađene u računalnom programu Praat gdje su izrezane na pojedine riječi i rečenice.

3.4. PROCJENA GOVORA

Za provedbu istraživanja sastavljen je upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora. Upitnik je izrađen pomoću programa za online izradu anketa i upitnika *Google obrasci* koji omogućava jednostavno i brzo kreiranje različitih upitnika, ali i analizu podataka koji se prikupe putem interneta. Upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora sastoji se od početne stranice na kojoj su kratko izneseni osnovni ciljevi istraživanja u svrhu informiranja studenata procjenjivača. Nadalje, prva stranica sadrži kratku uputu za studente procjenjivače i pitanja za prikupljanje osnovnih informacija o procjenjivaču (ime i prezime, godina studiranja, spol).

Procjenjivači su studenti diplomskog studija logopedije koji su stekli potrebna znanja kroz preddiplomski studij i dodatna znanja kroz izborni kolegij Kraniofacijalne govorne teškoće na kojemu se detaljnije govorilo o rascjepima i posljedicama koje ima na govor.

Odabrano je ukupno šest procjenjivača, studenata 2. godine diplomskog studija logopedije. Procjena je provedena na Edukacijsko-rehabilitacijskom fakultetu u Laboratoriju za slušnu i govornu akustiku. Laboratorij je opremljen suvremenom računalnom opremom i programima za snimanje i obradu zvuka (Adobe Audition), mjernim mikrofonom i instrumentima kao i specijaliziranim računalnim programima za akustičku analizu glasa i govora (Praat, Multi speech i dr.) (<https://www.erf.unizg.hr/hr/o-nama/ustroj/zavod/lsga>, pristupljeno: 16.10.2018.). Studentima procjenjivačima najprije su dani upitnici i uputa o tijeku procjene. Šest studenata procjenjivača bili su podijeljeni u dvije grupe po troje zbog malog prostora i ograničenog broja slušalica u gluhoj komori. Svaka grupa procjenjivača slušala je i

procjenjivala govor troje djece s rascjepom. Dob i spol jedine su informacije o djeci koje su bile poznate procjenjivačima. Procjenjivači su bili opremljeni slušalicama, a preslušavanje i procjena provedena je u gluhoj komori, laboratorijskoj prostoriji potpuno izoliranoj od buke. Svaka riječ i rečenica dva puta je slušana nakon čega su studenti procijenili najprije nazalnost, a zatim i razumljivost zacrnjivanjem odgovora prema ponuđenoj ljestvici brojeva od jedan do pet pri čemu jedan označava najveću nazalnost i nerazumljiv govor, a broj pet razumljiv izgovor bez nazalnosti. Za svaku grupu procjena je trajala 15 minuta.

3.5. METODE OBRADE PODATAKA

U ovom prikazu niza slučajeva svi prikupljeni podaci opisno su prikazani. Najprije su iz upitnika za procjenu nazalnosti i razumljivosti govora prikupljeni odgovori svih procjenjivača i zabilježeni u Excelovu tablicu. Za svako dijete izračunata je prosječna vrijednost nazalnosti u govoru kao i prosječna vrijednost razumljivosti u govoru (Tablica 3). Detaljniji rezultati subjektivne procjene, odnosno prosječne ocjene nazalnosti i razumljivosti svake procjenjivane riječi i rečenice, prikazani su grafički (Grafikon 1-Grafikon 6) i objašnjeni u sklopu prikaza niza slučajeva.

4. REZULTATI ISTRAŽIVANJA

Tabela 3 Prikaz prosječnih vrijednosti ocjena nazalnosti i razumljivosti riječi i rečenica

	NAZALNOST	RAZUMLJIVOST
N.M.	3,41	4,08
C.V.	3,08	3,67
K.K.	2,92	2,41
L.K.	3,75	3,09
M.M.	3,42	3,58
M.D.	2,33	2,08

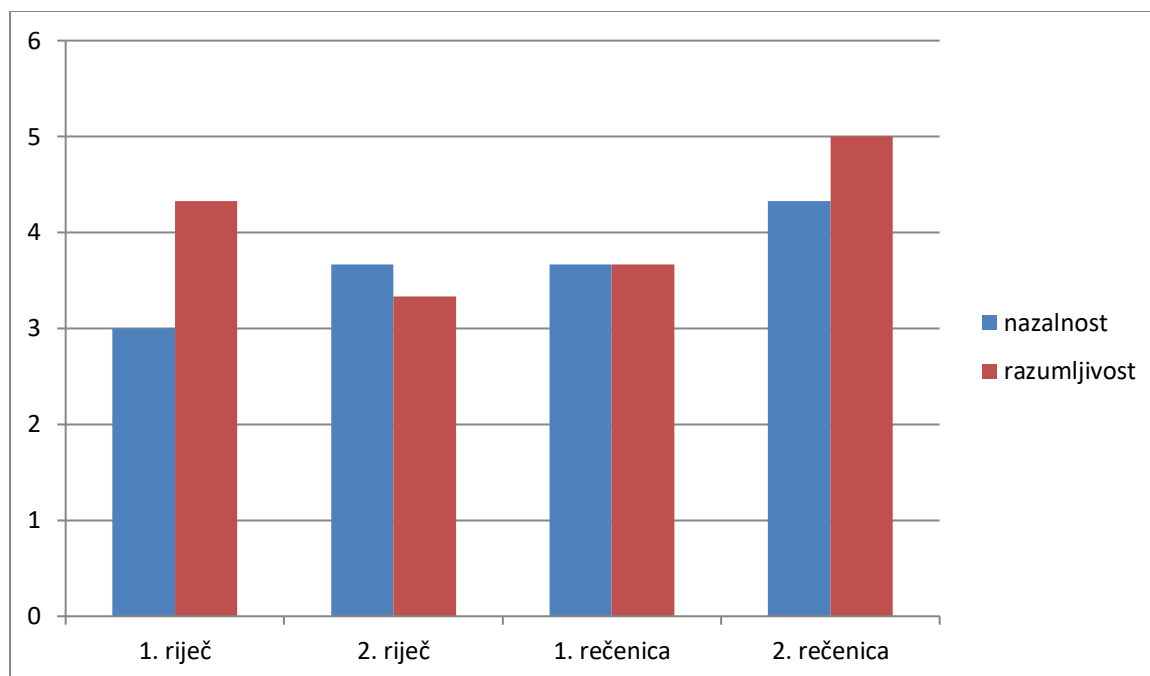
4.1. Prvi ispitanik

Inicijali: N.M.

Spol: m

Kronološka dob: 6,5

Dječak N.M. rođen je s rascjepom mekog i tvrdog nepca. Korekcija mekog nepca učinjena je u dobi od šest mjeseci, a korekcija tvrdog nepca u dobi od dvadeset mjeseci. Dječak je u dobi od osam mjeseci uključen u program rane intervencije i u savjetovanje. Prva pretpostavka da će govor biti nazalniji pri proizvodnji rečenica u ovom slučaju nije potvrđena što je vidljivo na Grafikonu 1. Druga pretpostavka da će govor biti manje razumljiv pri proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji izoliranih riječi također nije potvrđena.



Grafikon 1 N.M. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

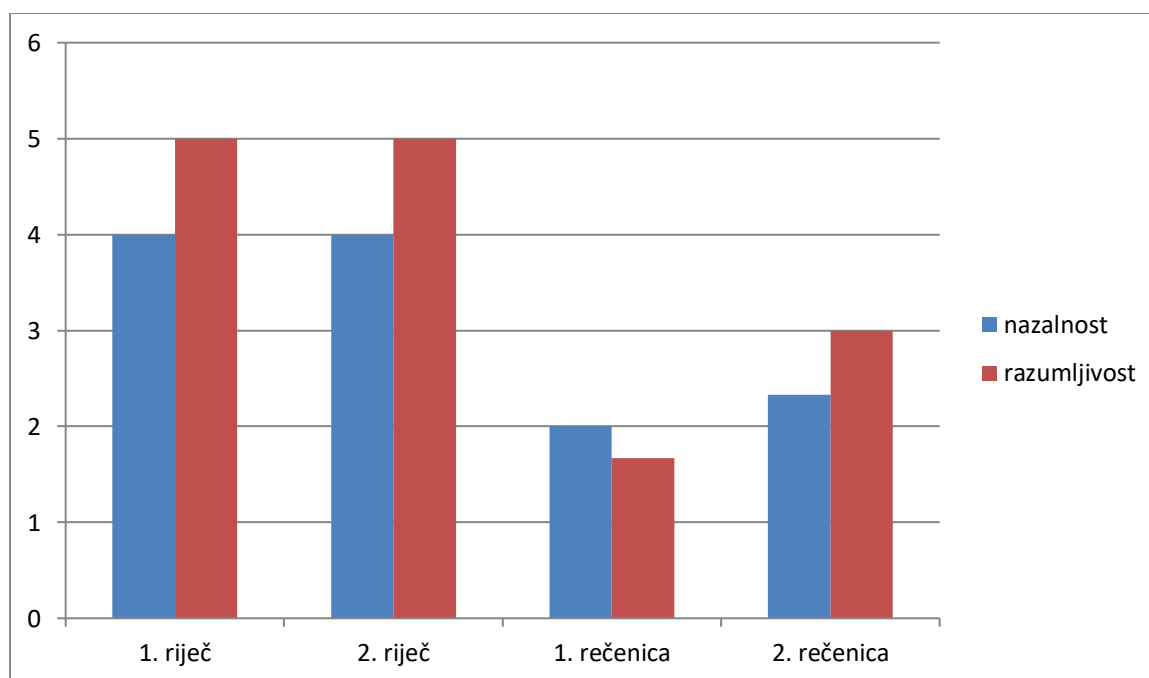
4.2. Drugi ispitanik

Inicijali: C.V.

Spol: ž

Kronološka dob: 6,4

C.V. je djevojčica rođena samo s rascjepom mekog nepca. Operacija mekog nepca učinjena je u dobi od deset mjeseci. C.V. je s 14 mjeseci uključena u program rane intervencije, a budući da je školski obveznik unazad godinu dana pohađa direktnu logopedsku terapiju. Iz rezultata subjektivne procjene prikazanih na Grafikonu 2 vidljivo je kako je govor djevojčice procijenjen nazalnijim u proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji riječi čime je potvrđena prva pretpostavka. Nadalje, druga pretpostavka koja se odnosi na varijablu razumljivost također je potvrđena jer je subjektivna procjena pokazala da je govor manje razumljiv pri proizvodnji rečenica nego izoliranih riječi.



Grafikon 2 C.V. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

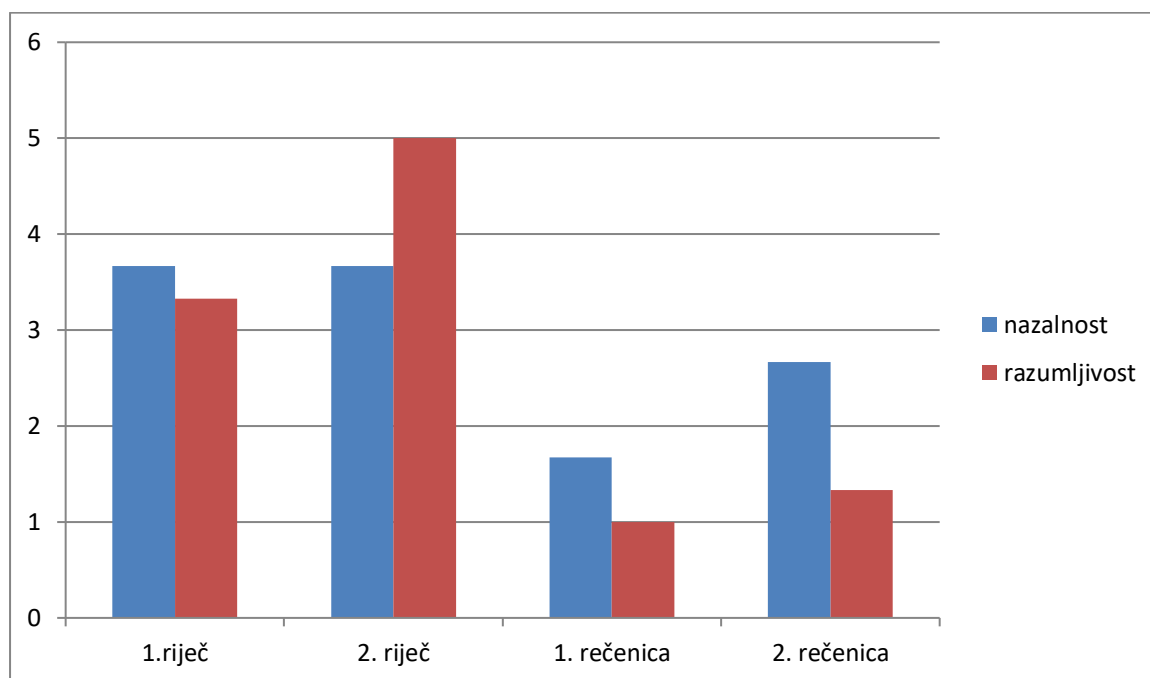
4.3. Treći ispitanik

Inicijali: K.K.

Spol: m

Kronološka dob: 4,8

Dječak K.K. rođen je s rascjepom mekog i tvrdog nepca. Najprije je napravljena korekcija mekog nepca u dobi od osam mjeseci, a u dobi od 22 mjeseca operirano je tvrdo nepce. Dječak nije uključen u terapiju, roditelji zajedno s djetetom povremeno dolaze na savjetovanje. Rezultati subjektivne procjene prikazani u Grafikonu 3 pokazuju kako je kod dječaka govor nazalniji i manje razumljiv u rečenicama nego u izoliranim riječima što potvrđuje prvu i drugu pretpostavku.



Grafikon 3 K.K. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

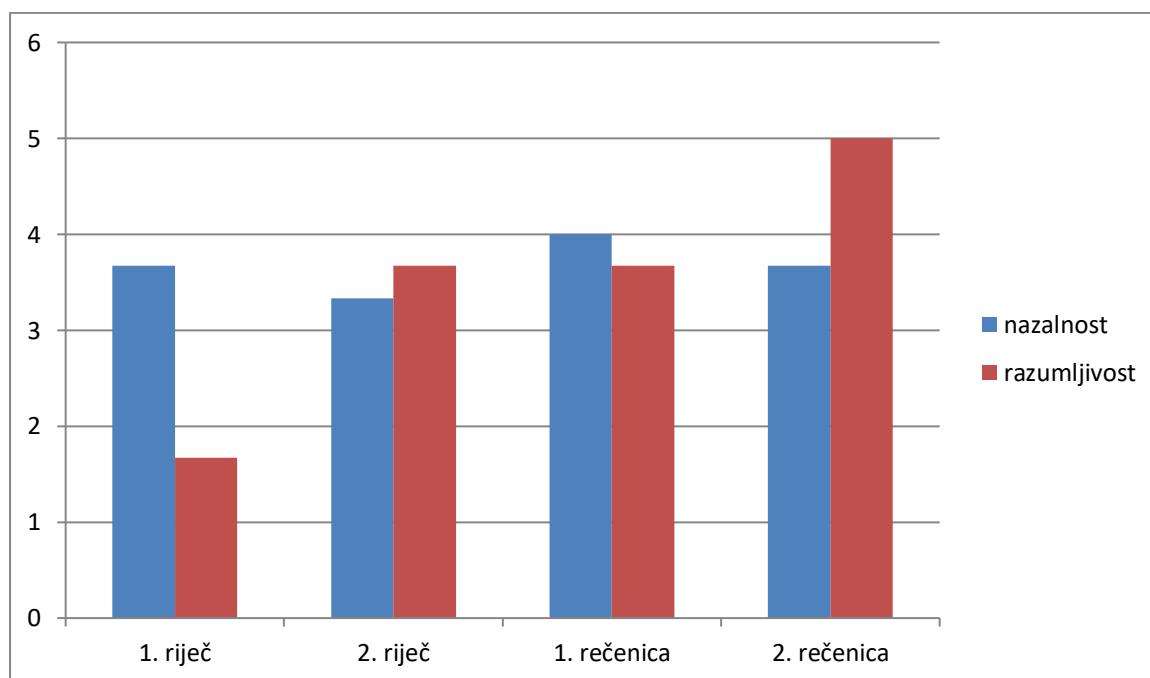
4.4. Četvrti ispitanik

Inicijali: L.K.

Spol: ž

Kronološka dob: 4,2

Djevojčica L.K. rođena je s rascjepom mekog nepca koje je operirano u dobi od osam mjeseci. Nakon kirurške korekcije u dobi od devet mjeseci uključena je u program rane intervencije, što znači da je već tri i pol godine uključena u takav oblik terapije. Rezultati subjektivne procjene prikazani u Grafikonu 4 pokazuju kako je govor ocijenjen višim ocjenama u rečenicama na varijabi nazalnost. Prema tome, u ovom slučaju prva pretpostavka nije potvrđena. Također, iz Grafikona 4 vidljivo je kako je razumljivost govora procijenjena boljom pri izgovoru rečenica nego izoliranih riječi što je neočekivan rezultat. Dakle, druga hipoteza također nije potvrđena u ovom slučaju.



Grafikon 4 L.K. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

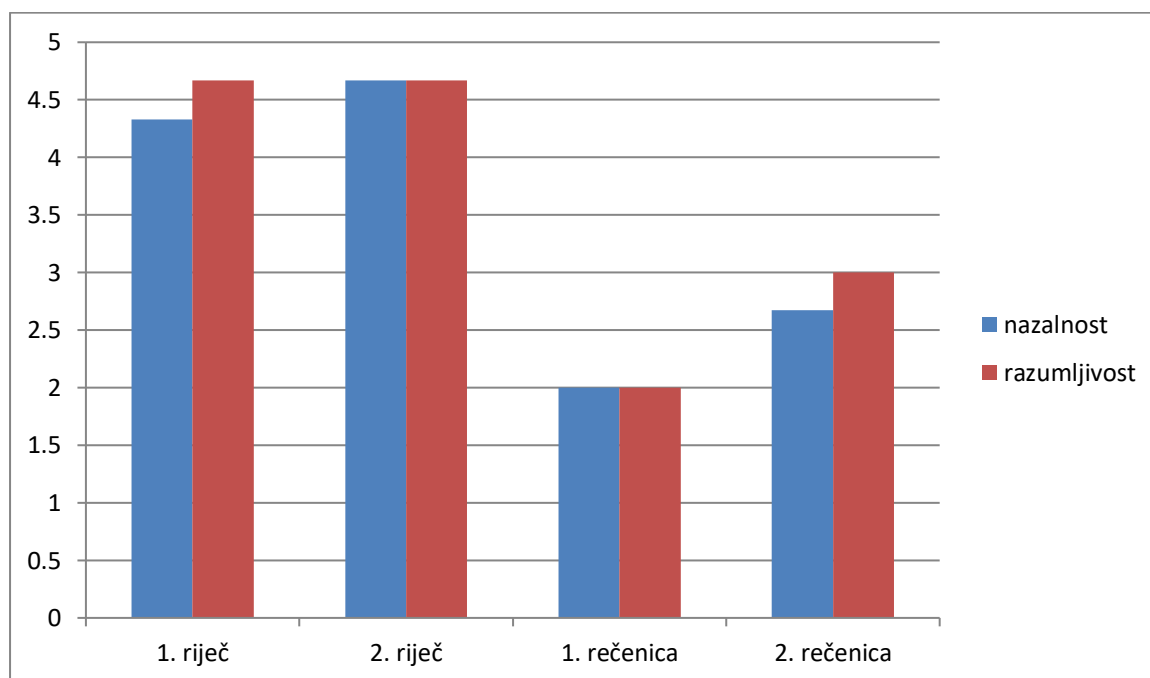
4.5. Peti ispitanik

Inicijali: M.M.

Spol: m

Kronološka dob: 5,6

Dječak M.M. rođen je s rascjepom i tvrdog i mekog nepca. Najprije je korigirano meko nepce u dobi od 9 mjeseci, a tvrdo nepce operirano je u dobi od 25 mjeseci. Dijete je uključeno u program rane intervencije u dobi od 17 mjeseci, a unazad godinu dana pohađa direktnu logopedsku terapiju. Prema rezultatima procjene vidljivima u Grafikonu 5 govor dječaka M.M. procijenjen je više nazalnim i manje razumljivim u rečenicama, nego u riječima čime su potvrđene prva i druga pretpostavka.



Grafikon 5 M.M. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

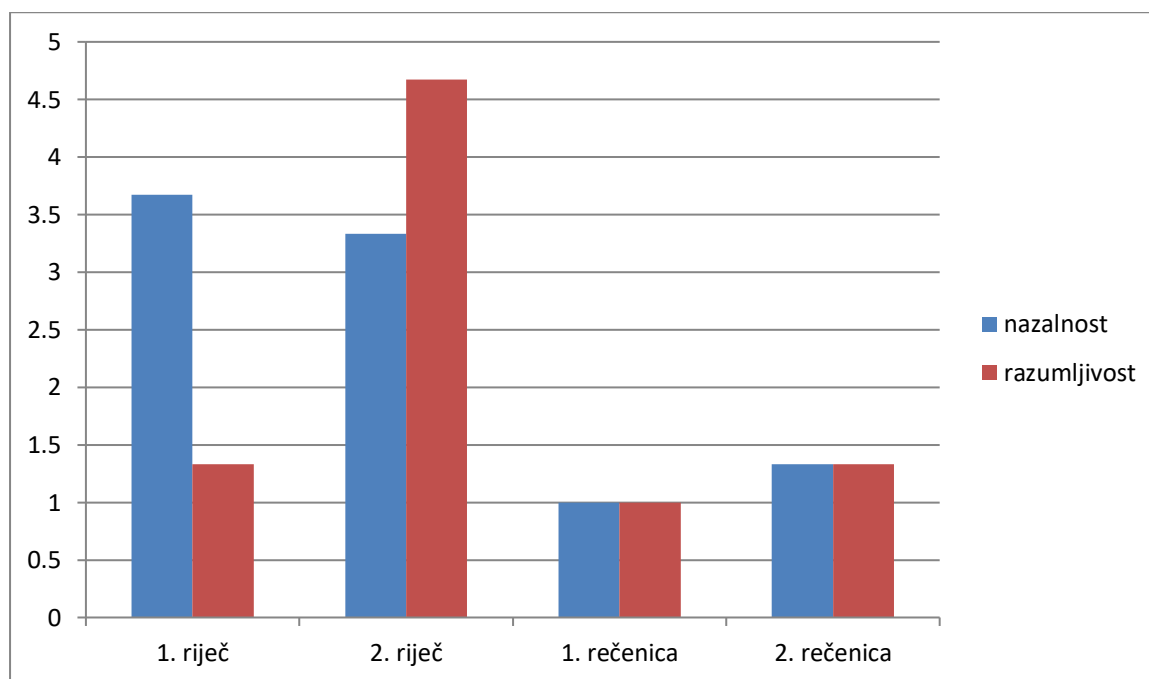
4.6. Šesti ispitanik

Inicijali: M.D.

Spol: ž

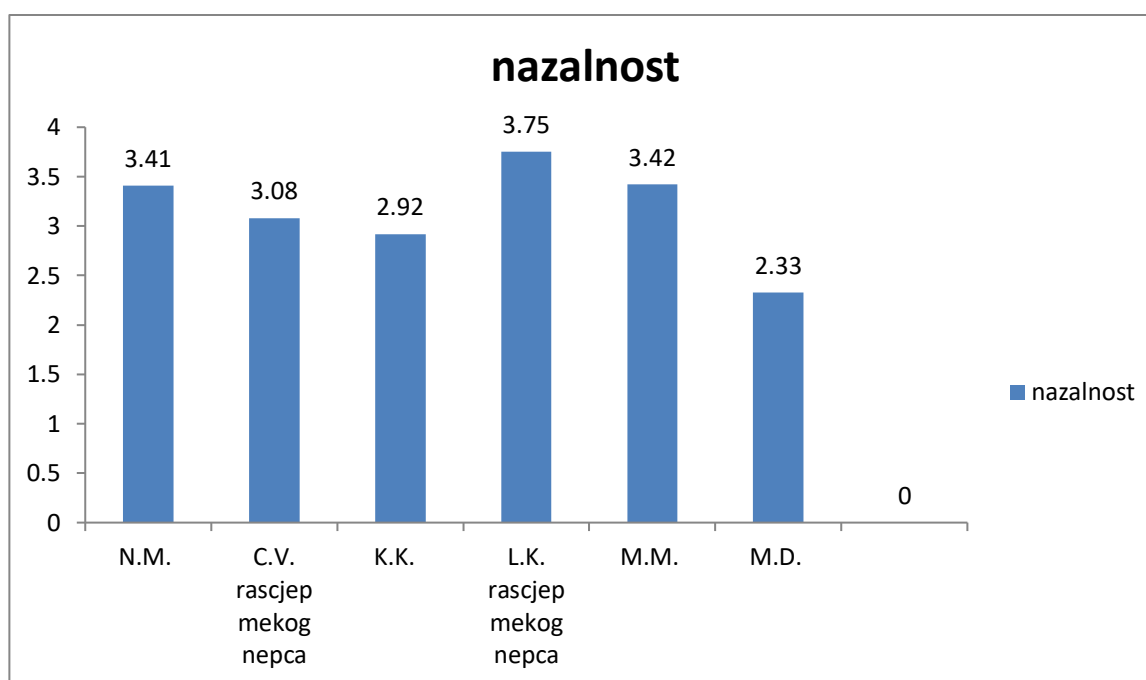
Kronološka dob: 6,6

Djevojčica M.D. rođena je s rascjepom mekog i tvrdog nepca. Kirurška korekcija i mekog i tvrdog nepca učinjena je u dobi od 14 mjeseci. Uključena je u direktnu logopedsku terapiju u dobi od dvije godine. U grafikonu 6 vidljivi su rezultati subjektivne procjene. Iako je i prva riječ na varijabli razumljivost ocijenjena nižim ocjenama iz Grafikona 6 je vidljivo da je izgovor rečenica ipak lošiji od izgovora izoliranih riječi čime se potvrđuje prva pretpostavka. Rezultati subjektivne procjene vidljivi (Grafikon 6) pokazuju znatno lošije ocjene na varijabli nazalnost pri proizvodnji rečenica u odnosu na ocjene izgovora izoliranih riječi čime se potvrđuje prva pretpostavka. Nadalje, izgovor izoliranih riječi ukupno je ocijenjen višim ocjenama u odnosu na izgovor rečenica na varijabli razumljivost čime je potvrđena i druga pretpostavka.



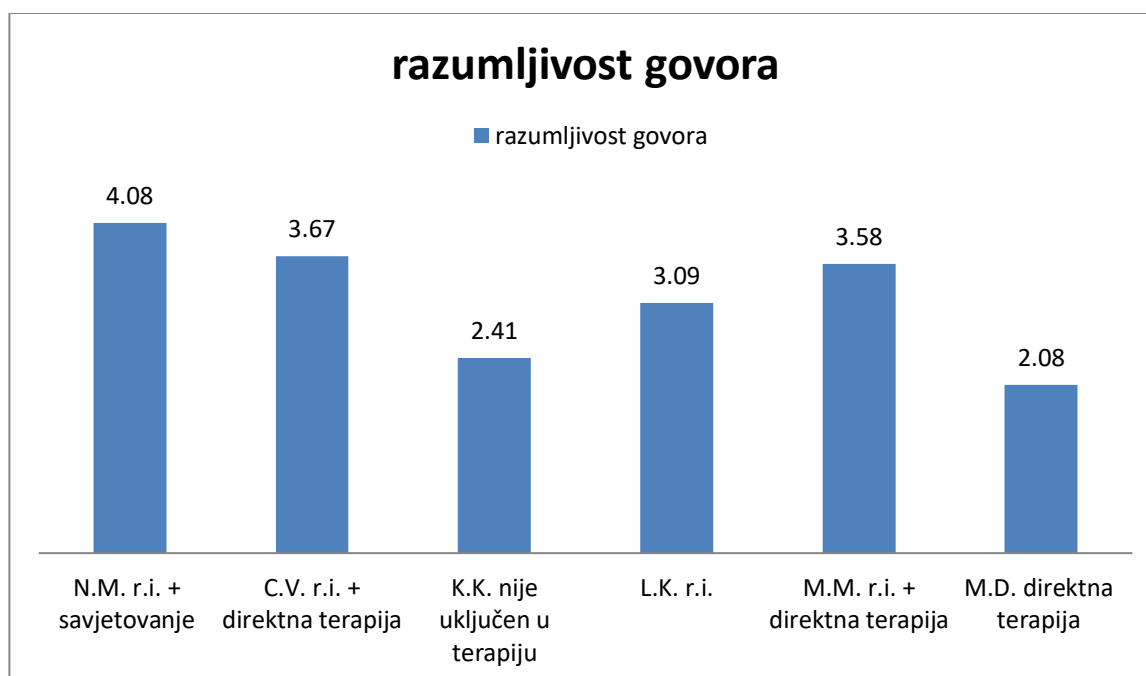
Grafikon 6 M.D. rezultati procjene nazalnosti i razumljivosti govora

Prema hipotezi H3 pretpostavljeno je da će govor djece s rascjepom tvrdog i mekog nepca bitinazalniji od govora djece s rascjepom samo mekog nepca. Prosječna ocjena nazalnosti u govoru (prosječna vrijednost ocjena svih procjenjivača) za svakodijete prikazana je u Grafikonu 7. Dvoje od šestero djece imalo je rascjep samo mekog nepca (C.V. i L.K.) dok su ostala djeca imala rascjep i mekog i tvrdog nepca. Pretpostavljeno je da će najviše ocjene imati djeca s rascjepom samo mekog nepca. Iz Grafikona 7 vidljivo je da djevojčica L.K. ima najvišu prosječnu ocjenu nazalnosti (3,75) što znači i najmanje nazalan govor. Međutim, govor druge djevojčice s rascjepom samo mekog nepca (C.V.) procijenjen je nazalnijim od dvoje djece koja imaju rascjep i mekog i tvrdog nepca. Iz toga slijedi da je treća pretpostavka djelomično potvrđena.



Grafikon 7 Prikaz prosječnih ocjena svih procjenjivača za varijablu nazalnost s obzirom na vrstu rascjepa nepca

Prema hipotezi H4 pretpostavljeno je da će govor djece koja su uključena u neki oblik logopedске terapije biti razumljiviji od govora jednog dječaka (K.K.) koji nije bio uključen u logopedsku terapiju. Prosječne ocjene razumljivosti govora dobivene izračunom prosječne vrijednosti ocjena svih procjenjivača prikazane su u Grafikonu 8. Četvero od petero djece koja su bila uključena u neki oblik logopedске terapije ima bolje ocjene na varijabli razumljivost govora od dječaka K.K. koji nije uključen u logopedsku terapiju. Neočekivano, najlošiji rezultat ima najstarija djevojčica M.D. (kronološke dobi 6;06) koja je bila uključena u direktnu logopedsku terapiju od svoje druge godine. Stoga, četvrta pretpostavka djelomično je potvrđena.



Grafikon 8 Prikaz prosječnih ocjena svih procjenjivača za varijablu razumljivost s obzirom na uključenost u terapiju. ¹

5. RASPRAVA

Subjektivna procjena govora kod djece s rascjepom nepca predstavlja zlatni standard. Iako postoje određeni protokoli subjektivne procjene (Henningssonov protokol), nema jedinstvenog i općeprihvaćenog. Oni se razlikuju od zemlje do zemlje i ponekad između različitih kliničkih centara unutar iste zemlje. Zbog neusuglašenosti parametara govora koji se promatraju otežano je uspoređivanje rezultata istraživanja u ovoj populaciji. Postoji potreba za stvaranjem registra oboljelih na razini zemlje te uključivanjem u projekte stvaranja globalnih registara. Hrvatska je dio europske mreže regionalnih registara za praćenje pojave kongenitalnih anomalija EUROCAT, ali prema podacima Barišić (2011) mreža još uvijek ne pokriva sve regije u zemlji. Vrlo je teško doći do podataka iz registara i prikupiti ispitanike koji odgovaraju kriterijima. Proces prikupljanja ispitanika koji odgovaraju kriterijima ovog istraživanja bio je zahtjevan i dugotrajan. Prilikom prikupljanja govornog uzorka problem je predstavljala i nesuradnja kod djece niže kronološke dobi zbog čega je nekoliko kandidata koji odgovaraju kriterijima maknuto iz uzorka.

Najčešće procjenjivani parametri govora kada govorimo o rascjepima su: hipernazalnost, hiponazalnost, nazalna emisija i/ili turbulencije, pogrešan izgovor konsonanata i poremećaj glasa (Sinko i sur., 2017). Drugi autori (Sell i sur., 2017; Nyberg i sur. 2014) uvide i razumljivost govora te opći dojam govora kao varijablu za subjektivnu procjenu. U ovom

¹ R.I. je kratica za ranu intervenciju

ispitivanju govor je procjenjivan kroz dva parametra: nazalnost i razumljivost govora. Zbog ograničenog uzorka govora kojeg su procjenjivači slušali, a koji ne obuhvaća sve glasove fonološkog sustava hrvatskog jezika nije bilo moguće detaljno procijeniti artikulaciju. Također, takav tip procjene zahtijeva puno vremena ako uzmemo u obzir i činjenicu da su procjenjivači studenti koji nemaju dovoljno samostalnog iskustva u procjeni. Isto se odnosi i na parametre hiponazalnost i nazalne emisije u govoru. Zbog nedovoljnog samostalnog kliničkog iskustva u radu s rascjepima ne možemo se osloniti na subjektivnu procjenu studenata kada je riječ o razlikovanju hiponazalnosti od hipernazalnosti i nazalne turbulencije (emisije). Nadalje, budući da su ispitanici djeca predškolske dobi (3 do 6), najmlađi, trogodišnjaci, još uvijek prolaze razvojni proces „brušenja izgovora“ i zato nije moguće tvrditi da je pojedini krivi izgovor konsonanata posljedica rascjepa nepca. Iako, kod djece s rascjepom očekujemo neke specifičnosti u izgovoru pojedinih konsonanata poput supstitucije prednjih okluziva /t/ i /d/ stražnjim /k/ i /g/.

Ovim istraživanjem htjelo se ispitati koliko je govor predškolske djece s rascjepom nepca nazalan i koliko je razumljiv na ljestvici od 1 do 5 gdje oznaka 1 označava najviše nazalan govor i nerazumljiv govor, a oznaka 5 govor bez nazalnosti i potpuno razumljiv govor. Varijabla razumljivost govora odnosi se na mogućnost da slušatelj (procjenjivač) koji ne poznaje dijete slušajući izgovor izoliranih riječi i rečenica prepozna značenje istih.

Prva pretpostavka da će govor djece s rascjepom biti nazalniji pri proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji izoliranih riječi potvrđena je kod četvero od ukupno šest ispitanika. To se može objasniti pojavom motoričke slabosti muskulature artikulatora kod djece s rascjepom nakon palatoplastike i pojavom zamora tijekom produkcije višečlanih iskaza kod djece s rascjepom nepca. Naime, vjerojatno je da najjača usmjerenost na potrebu aktivacije mekog nepca jest na početku govora i ona se relativno može održati u kraćim jedinicama govora, no kada se radi o rečenici kao strukturi koja ima svoje značenje, koju treba upamtiti i zatim sa značenjem reproducirati, ta usmjerenost na zadržavanje napetosti mekog nepca i njegovo podizanje, je znatno manja te se dijeli na usmjerenost na napetost i usmjerenost na sadržaj. Odnosno dijeli se na to kako izgovaramo i što izgovaramo. U tom slučaju, očito je da semantička komponenta nadvlada motoričku.

Druga pretpostavka da će govor djece s rascjepom nepca biti procijenjen manje razumljivim pri proizvodnji rečenica nego pri proizvodnji izoliranih riječi također je potvrđena kod četvero od ukupno šest ispitanika kao i prva pretpostavka. Prema Zorić i sur. (2014) smanjena pokretljivost i slabost mišića artikulatora dovode do nedovoljne okluzivnosti, nedovoljne napetosti i pomaka mjesta artikulacije unatrag što značajno narušava razumljivost

govora. Nadalje, Zorić i sur. (2014) navode kako je za jačanje mišića artikulatora i njihovu bolju pokretljivost potrebno provoditi miofunkcionalne vježbe za koje se preporuča da i roditelji vježbaju s djecom kod kuće, a ne samo na satu logopedске terapije.

Trećapretpostavka da će govor djece s rascjepom tvrdog i mekog nepca biti nazalniji od govora djece s rascjepom samo mekog nepca iz ovih prikaza slučaja djelomično se može potvrditi. Najviše nazalan govor ima dijete s rascjepom i tvrdog i mekog nepca (M.D.), a najmanje nazalan govor ima dijete s rascjepom samo mekog nepca (L.K.) čime se potvrđuje pretpostavka. Iako, govor drugog djeteta od dvoje s rascjepom samo mekog nepca (C.V.) procijenjen je nazalnijim od govora dvoje djece s rascjepom i tvrdog i mekog nepca (N.M. i M.M.). Ovakvi rezultati mogući su zbog velikih individualnih razlika kod djece s orofacijalnim rascjepima. Isto tako, moguće je da kod drugog djeteta s rascjepom samo mekog nepca (C.V.) postoji velofaringealna insuficijencija i potreba za faringoplastikom, dok kod dvoje djece s potpunim rascjepom nepca možda nema takvih posljedica.

Četvrta pretpostavka da će govor djece koja su uključena u neki oblik logopedске terapije biti razumljiviji od govora djeteta koje nije uključeno u logopedsku terapiju djelomično je potvrđena. Najviše ocjene na varijabli razumljivost govora dobila su djeca koja su bila uključena u program rane intervencije i kasnije su praćena ili uključena u direktni oblik terapije. Neočekivano najlošiju razumljivost ima dijete (M.D.) koje je bilo uključeno u direktnu terapiju u dobi od dvije godine. Drugi najlošiji rezultat ima dijete (K.K.) koje nije uključeno u terapiju.

Budući da je ovo istraživanje prikaz niza slučajeva, rezultate procjene kao i dobivene zaključke o početnim pretpostavkama nije moguće generalizirati i treba ih tumačiti pojedinačno i s oprezom.

5.1. OGRANIČENJA ISTRAŽIVANJA

Najveće ograničenje ovog istraživanja je mali uzorak ispitanika kao i velike individualne razlike među ispitanicima zbog čega nije bila moguća provedba neparametrijskih statističkih postupaka. Zbog vrlo malog broja djece u istraživanju rezultate subjektivne procjene moguće je samo opisno i pojedinačno prikazati i tumačiti.

Nadalje, velik nedostatak za istraživanje u obliku prikaza niza slučajeva su nepotpuni anamnestički podaci o ispitanicima. Nedostaju važne informacije o tijeku ranog psihomotoričkog razvoja djece (kronološka dob u kojoj je dijete prohodalo i kada se pojavila prva riječ sa značenjem). Zatim, nedostaju informacije o mogućim artikulacijskim

poremećajima i/ili jezičnim teškoćama. Nadalje, nedostaju podaci o slušnom statusu ispitanika, povijesti pojave upale uha kao i o mogućim kompenzacijskim mehanizmima u govoru, poremećajima glasa, facijalnim grimasama i teškoćama hranjenja.

6. ZAKLJUČAK

Posljedice u govoru nakon orofacijalnih rascjepa vrlo su zanimljiva, ali i zahtjevna tema za istraživanje. Brojni čimbenici otežavaju provedbu ovakvih istraživanja naročito kada se radi o ispitivanju djece predškolske dobi. Kako bi ovakve studije bile kvalitetno provedene potrebno je vrijeme, visok stupanj suradnje kliničkih centara u Hrvatskoj i timova koji se bave liječenjem rascjepa kao i dodatno obrazovanje logopeda o orofacijalnim rascjepima. U Hrvatskoj je općenito vrlo malo logopeda koji se u svojoj kliničkoj praksi zanimaju i posvećuju radu s rascjepima. Subjektivna procjena svakako ostaje zlatni standard u procjeni nazalnosti govora djece s rascjepom jer je najbrža, najjednostavnija, najjeftinija i neinvazivna. Međutim, za subjektivnu procjenu potrebno je istančano uho iskusnog logopeda. S druge strane ne možemo zanemariti korisnost objektivnih, tj. instrumentalnih metoda procjene. One omogućavaju kreiranje širih ljestvica (0-100%) umjesto ljestvice od 1-5 kod subjektivne procjene što povećava preciznost kod svrstavanja ispitanika u neku kategoriju (primjerice blaga, umjerena, teška nazalnost). Također, korisna je u evaluaciji napretka u terapiji jer može zabilježiti pomake koji nisu zamjetni uhu logopeda. Prema stranim istraživanjima najpouzdanije informacije o govoru nakon palatoplastike dobivene su provedbom i subjektivne i objektivne procjene.

Ovo istraživanje u obliku prikaza niza slučajeva otvara prostor za daljnja istraživanja kao što je povezanost ranog uključivanja u logopedsku terapiju i govornih ishoda. Zatim, bilo bi korisno istražiti koja je vrsta logopedске terapije najučinkovitija.

Iako ne možemo generalizirati rezultate subjektivne procjene govora, podaci upućuju na važnost i pozitivan učinak rane intervencije na govorne ishode kod djece s rascjepom nepca što bi trebalo istražiti na većem uzorku. Isto tako, ponovo nas osvještavaju glede velikih individualnih razlika u djece s orofacijalnim rascjepima i njihovim govornim ishodima.

7.LITERATURA

1. ASHA. Approaches to treating cleft-type speech. Preuzeto sa: https://www.asha.org/PRPSpecificTopic.aspx?folderid=8589942918§ion=Treatment#Approaches_to_Treating_Cleft-Type_Speech, pristupljeno: 15.12.2018.
2. Barišić, I. (2011). EUROCAT-epidemiologijsko praćenje prirođenih mana u Europi. *Hrvatski časopis za javno zdravstvo*, 7.
3. Birnbaum, S., Ludwig, K. U., Reutter, H. i sur. (2009). IRF6 gene variants in Central European patients with non-syndromic cleft lip with or without cleft palate. *European journal of oral sciences*, 117(6), 766-769.
4. Blaži, D., Turkalj, M., & Dembitz, A. (2010). Ballovent set u dijagnostici i terapiji nazalnosti i hipernazalnosti kod djece s orofacijalnim rascjepima. *Logopedija*, 2(1), 27-35
5. Blaži, D. (2015). Rana intervencija i logopedska terapija kod rascjepa. Neobjavljeni materijali prezentirani u sklopu kolegija Kraniofacijalne govorne teškoće. Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet, Zagreb
6. Blaži, D. (2015). Hranjenje djeteta s rascjepom. Neobjavljeni materijali prezentirani u sklopu kolegija Kraniofacijalne govorne teškoće. Edukacijsko-rehabilitacijski fakultet, Zagreb
7. Burg, M. L., Chai, Y., Yao, C. A., Magee III, W., & Figueiredo, J. C. (2016). Epidemiology, etiology, and treatment of isolated cleft palate. *Frontiers in physiology*, 7, 67.
8. Cleft Palate Foundation. *Information about Submucous Cleft Palate*. http://www.wales.nhs.uk/sitesplus/documents/863/Submucous_Cleft.pdf Pristupljeno: 1.8.2018.
9. Dembitz, A. (2010). Govor djece s orofacijalnim rascjepom. Mildner, V. i Liker, M. (ur.), *Proizvodnja i percepcija govora : profesoru Damiru Horgi povodom njegovog sedamdesetog rođendana*, Zagreb: Filozofski fakultet Sveučilišta u Zagrebu, Odsjek za fonetiku ; Odjel za fonetiku Hrvatskoga filološkog društva ; FF press.
10. Dembitz, A. (2013). Glas i njegove promjene: determinanta govornog statusa u djece s orofacijalnim rascjepima. Članak prezentiran na simpoziju Interdisciplinarni pristup u liječenju rascjepa usne i nepca. KBC Dubrava, Zagreb.
11. Dembitz, A. (2018). *Dijagnostika i terapija rhinophonia*. Neobjavljen rad. Fonijatrijska jedinica Klinike za bolesti uha, nosa i grla i kirurgiju glave i vrata, KBC Zagreb
12. Danić, D. (2017). *Tonzilektomija vs tonzilotomija kod djece s OSA*. Slavonski Brod, Opća bolnica Dr. Josip Benčević.

13. Henningsson, G., Kuehn, D. P., Sell, D., Sweeney, T., Trost-Cardamone, J. E., & Whitehill, T. L. (2008). Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 45(1), 1-17.
14. Ivšac, J., Blaži, D. i Lulić, S.(2007). Put od hranjenja sondom do peroralne prehrane (logopedski pristup). *Pediatrics Croatica*, 51(1), 11.
15. Kahle, W. i sur. (1990) *Priručni anatomske atlas za studente i liječnike*. Zagreb: Jugoslavenska medicinska naklada.
16. Knežević, P. i sur., (2004). *Liječenje rascjepa usne i/ili nepca*. <https://www.bib.irb.hr/225864> Pristupljeno: 1.8.2018.
17. Knežević, P. (2008). *Kirurško liječenje rascjepa usne i nepca*. Preuzeto s: <http://www.udruga-osmijeh.hr/?id=operacije&langid=hr> Pristupljeno: 7.8.2018.
18. Knežević, P. (2008). *Kako hraniti bebu s rascjepom*. Preuzeto s: <http://www.udruga-osmijeh.hr/?id=hranjenje&langid=hr> Pristupljeno: 8.8.2018.
19. Kovačević, J. (2008). *Problemi sa sluhom kod djece s rascjepom nepca*. Preuzeto s:<http://www.udruga-osmijeh.hr/?id=sluh&langid=hr#vrh>. Pristupljeno: 5.8.2018.
20. Kummer, A. W. (2014). Speech evaluation for patients with cleft palate. *Clinics in plastic surgery*, 41(2), 241-251.
21. Laboratorij za slušnu i govornu akustiku. Preuzeto s: <https://www.erf.unizg.hr/hr/ot-nama/ustroj/zavod/lsga>. Pristupljeno: 16.10.2018.
22. Magdalenić-Meštrović, M., Bagatin, M., & Poje, Z. (2005). Incidencija orofacijalnih rascjepa u Hrvatskoj od godine 1988. do 1998. *Acta stomatologica Croatica*, 39(1), 53-60.
23. Mossey, P. A., & Catilla, E. E. (2003). Global registry and database on craniofacial anomalies: report of a WHO Registry Meeting on Craniofacial Anomalies.
24. Nyberg, J., Peterson, P., & Lohmander, A. (2014). Speech outcomes at age 5 and 10 years in unilateral cleft lip and palate after one-stage palatal repair with minimal incision technique—A longitudinal perspective. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, 78(10), 1662-1670.
25. *Opća enciklopedija Jugoslavenskog leksikografskog zavoda* (1979) Mestici. 3. izd. Zagreb: JLZ Sv. 5. 1979.
26. Pan, Y., Ma, J., Zhang, W. i sur. (2010). IRF6 polymorphisms are associated with nonsyndromic orofacial clefts in a Chinese Han population. *American journal of medical genetics Part A*, 152(10), 2505-2511.

27. Reilly, S., Reid, J., Skeat, J., Cahir, P., Mei, C., & Bunik, M. ABM Klinički protokol 17: Smjernice za dojenje dojenčadi s rascjepom usne, rascjepom nepca ili rascjepom usne i nepca, Izmijenjeno 2013.
28. *Rinologija*. Preuzeto s: http://neuron.mefst.hr/docs/katedre/orl/medicina/Knjiga_ORL-rinologija.pdf. Pristupljeno: 2.10.2018.
29. Romitti, P.A., Lidral A.C., Munger R.G. et al., (1999).. Candidate genes for nonsyndromic cleft lip and palate and maternal cigarette smoking and alcohol consumption: evaluation of genotype-environment interactions from a population-based case-control study of orofacial clefts. *Teratology*, 59:39-50
30. Sell, D., Harding, A., & Grunwell, P. (1994). A screening assessment of cleft palate speech (Great Ormond Street Speech Assessment). *International Journal of Language & Communication Disorders*, 29(1), 1-15.
31. Sell, D., Southby, L., Wren, Y., Wills, A. K., Hall, A., Mahmoud, O., ... & Ness, A. R. (2017). Centre-level variation in speech outcome and interventions, and factors associated with poor speech outcomes in 5-year-old children with non-syndromic unilateral cleft lip and palate: The Cleft Care UK study. Part 4. *Orthodontics & craniofacial research*, 20, 27-39.
32. Shankar, C. (2018). *Classification of cleft lip and palate*. Preuzeto s: <http://classificationofclcp.blogspot.com/> Pristupljeno: 2.10.2018.
33. Sinko, K., Gruber, M., Jagsch, R., Roesner, I., Baumann, A., Wutzl, A., & Denk-Linnert, D. M. (2017). Assessment of nasalance and nasality in patients with a repaired cleft palate. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, 274(7), 2845-2854.
34. Stuppia, L., Capogreco, M., Marzo, G., La Rovere, D., Antonucci, I., Gatta, V., ... & Tetè, S. (2011). Genetics of syndromic and nonsyndromic cleft lip and palate. *Journal of Craniofacial Surgery*, 22(5), 1722-1726.
35. Vladisavljević, S. (1968). Značaj velofaringealne pregrade za kvalitet izgovora. *Defektologija*, 4, 64-73.
36. Vuletić, D. (1987). Govorni poremećaji: Izgovor. Zagreb: Školska knjiga
37. Wallace, G. H., Arellano, J. M., & Gruner, T. M. (2011). Non-syndromic cleft lip and palate: Could stress be a causal factor?. *Women and Birth*, 24(1), 40-46.
38. Weathers, W.M., Wolfstinkel, E.M., & Ridgway, E.B. (2014). Cleft palate. *Seminars in Plastic Surgery*, 26, 164-169.
39. Wyatt, R., Sell, D., Russell, J., Harding, A., Harland, K., & Albery, L. (1996). Cleft palate speech dissected: a review of current knowledge and analysis. *British Journal of Plastic Surgery*, 49(3), 143-149.

40. Zorić, A., Knežević, P. i Aras, I. (2014) *Rascjepi usne i nepca*. Zagreb: Medicinska naklada.

8. PRILOZI

Upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora

Poštovani studenti,

Pred Vama se nalazi upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora kod predškolske djece. Upitnik je izrađen u svrhu provedbe istraživanja za diplomski rad na odsjeku za logopediju Edukacijsko-rehabilitacijskog fakulteta u Zagrebu. Provodimo istraživanje o nazalnosti u govoru kod predškolske djece koja su bila rođena s rascjepom nepca pa je učinjena palatoplastika. U istraživanje su uključena djeca s palatoplastikom kao i kontrolna skupina djece bez rascjepa nepca.

Ovim istraživanjem želimo utvrditi koliki je stupanj nazalnosti u govoru i kolika je razumljivost govora nakon palatoplastike, a s ciljem poboljšanja i unaprjeđenja logopedске terapije.

Vaše sudjelovanje u istraživanju je dobrovoljno i u potpunosti anonimno te od istoga možete odustati u bilo kojem trenutku. Rezultati istraživanja bit će obrađeni na grupnoj razini čime Vaš osobni identitet nije moguće povezati s podacima prikupljenima u istraživanju.

Za ispunjavanje upitnika bit će Vam potrebno oko 10 minuta.

Unaprijed zahvaljujem na uloženom trudu i vremenu te pomoći u prikupljanju podataka!

UPUTA:

Na snimci ćete sada čuti neke izolirane riječi i kasnije rečenice koje izgovaraju djeca s rascjepom nepca i djeca bez rascjepa nepca. Za svaku riječ i rečenicu procijenite najprije stupanj nazalnosti, a onda stupanj razumljivosti govora. Zacrните broj koji označava tvrdnju s kojom se najviše slažete.

Vaš odgovor

Ime i prezime

Vaš odgovor

Fakultet i studijski smjer

Vaš odgovor



Godina studiranja

☐ 1.☐ 2.☐ 3.☐ 4.☐ 5.

Spol

☐ M☐ Ž

C.V. (6,6) 1. riječ

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti

C.V. (6,6) 1. riječ

Nakon slušanja procijenite razumljivost govora na skali od 1-5, gdje 1 označava nerazumljiv govor, a 5 razumljiv govor

	1	2	3	4	5	
nerazumljiv govor	☐	☐	☐	☐	☐	razumljiv govor

C.V. (6,6) 2. riječ

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti



Upitnik za subjektivnu procjenu nazalnosti i razumljivosti govora

N.I. (5,9) 1. riječ

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti

N.I. (5,9) 1. riječ

Nakon slušanja procijenite razumljivost govora na skali od 1-5, gdje 1 označava nerazumljiv govor, a 5 razumljiv govor

	1	2	3	4	5	
nerazumljiv govor	☐	☐	☐	☐	☐	razumljiv govor

N.I. (5,9) 2. riječ

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti

N.I. (5,9) 2. riječ

Nakon slušanja procijenite razumljivost govora na skali od 1-5, gdje 1 označava nerazumljiv govor, a 5 razumljiv govor

	1	2	3	4	5	
nerazumljiv govor	☐	☐	☐	☐	☐	razumljiv govor



N.I. (5,9) 1. rečenica

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti

N.I. (5,9) 1. rečenica

Nakon slušanja procijenite razumljivost govora na skali od 1-5, gdje 1 označava nerazumljiv govor, a 5 razumljiv govor

	1	2	3	4	5	
nerazumljiv govor	☐	☐	☐	☐	☐	razumljiv govor

N.I. (5,9) 2. rečenica

Nakon slušanja procijenite nazalnost na skali od 1- 5, gdje 1 označava najveću nazalnost, a 5 da nema nazalnosti.

	1	2	3	4	5	
najveća nazalnost	☐	☐	☐	☐	☐	nema nazalnosti

N.I. (5,9) 2. rečenica

Nakon slušanja procijenite razumljivost govora na skali od 1-5, gdje 1 označava nerazumljiv govor, a 5 razumljiv govor

	1	2	3	4	5	
nerazumljiv govor	☐	☐	☐	☐	☐	razumljiv govor

PODNEŠI

Google nije izradio niti podržava ovaj sadržaj. Prijava zloupotrebe - Uvjeti pružanja usluge

Google Obrasci