

Ocena wyników interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z rozszczepami całkowitymi podniebienia. Część 1.

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

Bogna Racka-Pilszak¹ **ABDEF**
Anna Wojtaszek-Słomińska² **ABDEF**
Agata Zdun-Ryżewska³ **ABDEF**
Mikołaj Majkowicz⁴ **ABDE**
Agnieszka Banaszkiewicz⁵ **ABDEF**
Krzysztof Basiński⁶ **C**

Wkład autorów: **A** Plan badań **B** Zbieranie danych **C** Analiza statystyczna **D** Interpretacja danych
E Redagowanie pracy **F** Wyszukiwanie piśmiennictwa

Authors' Contribution: **A** Study design **B** Data Collection **C** Statistical Analysis **D** Data Interpretation
E Manuscript Preparation **F** Literature Search

^{1,2} Zakład Ortodoncji, Gdańsk Uniwersytet Medyczny

Department of Orthodontics, Medical University of Gdańsk

^{3,6} Zakład Badań nad Jakością Życia, Gdańsk Uniwersytet Medyczny

Department of Quality of Life Research, Medical University of Gdańsk

⁴ Wydział Nauk o Zdrowiu, Akademia Pomorska w Słupsku

Department of Health Sciences, Pomeranian University in Słupsk

⁵ Katedra Logopedii, Wydział Filologiczny, Uniwersytet Gdańskim

Department of Logopaedics, Faculty of Languages, University of Gdańsk

Streszczenie

Rozszczepy podniebienia to najczęściej występująca wada wrodzona w obrębie twarzowej części czaszki. Współistniejące zniekształcenia twarzy są po zoperowaniu nie tylko widoczne, a także słyszalne – dzieci urodzone z rozszczepem należą do grupy ryzyka wystąpienia wad mowy. Z tego powodu

Abstract

Cleft palate is the most common congenital defect within the facial skeleton. Coexisting facial deformations are not only visible, but also audible after surgery – children born with cleft lip and palate belong to the risk group for occurrence of speech-language disorders. Due to this fact, they may face

¹ Dr n. med., specjalista ortodonta / DDS, PhD, specialist in orthodontics

² Dr hab. n. med., specjalista ortodonta / DDS, PhD, Associate Professor, specialist in orthodontics

³ Dr n. med., w trakcie specjalizacji z psychologii klinicznej / MD, PhD, postgraduate student in clinical psychology

⁴ Prof., specjalista psycholog społeczny / Professor, specialist in social psychology

⁵ Dr n. hum., neurologopeda / PhD, speech-language pathologist [SLP]

⁶ Mgr, psycholog / MSc, psychologist

Dane do korespondencji/Correspondence address:

Agnieszka Banaszkiewicz

Poradnia Ortodoncji UCS GUMed

Al. Zwycięstwa 42c

80-210 Gdańsk

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

mogą się spotkać z niewłaściwymi reakcjami otoczenia, co może skutkować złym samopoczuciem psychicznym. Większość badanych (ok. 67 proc.) doświadczała przyrościa ze strony otoczenia oraz widzi wpływ rozszczepu na obniżenie poczucia pewności siebie. Prawie 56 proc. badanej grupy dostrzega wpływ tej wady wrodzonej na umiejętność nawiązywania relacji społecznych, a 33 proc. – na wyniki osiągane w szkole. **Cel.** Głównym celem badań była ocena skuteczności leczenia pacjentów z rozszczepami całkowitymi oraz przydatności używanych narzędzi badawczych (ankieta, wskaźnik GOSLON). **Materiał i metody.** Materiał badawczy stanowiła grupa 45 osób z rozszczepami całkowitymi jednostronnymi i obustronnymi, u których ukończono wielospecjalistyczne leczenie. Średni wiek badanych wynosił 22 lata. Badania przeprowadzono w Poradni Ortodoncji Uniwersyteckiego Centrum Stomatologicznego Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego. Metody badawcze obejmowały ocenę zmian w zgryzie przed i po leczeniu z wykorzystaniem wskaźnika GOSLON, ankietę wypełnianą przez pacjentów oraz specjalistyczne badanie logopedyczne. **Wyniki.** Największy odsetek zadowolonych pacjentów odnotowano wśród osób leczonych ortodontycznie (ok. 90 proc.), co pokryło się ze stwierdzoną poprawą warunków zgryzowych po leczeniu. Wygląd poszczególnych obszarów twarzy oceniono w większości jako dobry lub bardzo dobry. Zauważono również, że pacjent im bardziej zadowolony z terapii logopedycznej, tym bardziej zadowolony z jakości mowy. **Wnioski.** Badanie końcowych wyników interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z rozszczepami ma duże znaczenie kliniczne dla wypracowania kolejnych i oceniania aktualnie stosowanych standardów postępowania terapeutycznego. (Racka-Pilszak B, Wojtaszek-Słomińska A, Zdun-Ryżewska A, Majkowicz M, Banaszkiewicz A, Basiński K. Ocena wyników interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z rozszczepami całkowitymi podniebienia. Część 1. Forum Ortod 2018; 14: 270-83).

Nadesłano: 13.11.2018

Przyjęto do druku: 20.12.2018

Słowa kluczowe: rozszczep podniebienia, leczenie ortodontyczne, wskaźnik GOSLON, leczenie logopedyczne, satysfakcja z wyników leczenia

Wstęp

Zaburzenia morfologiczno-czynnościowe u pacjentów z rozszczepami powodują zmiany w budowie miękkich i twardych tkanek twarzy, nieprawidłowości zgryzowe oraz zaburzenia czynnościowe, w tym – w wielu przypadkach – poważne zaburzenia wymowy (1). Wielkość tych zaburzeń w obrębie twarzowej części czaszki wymaga pracy wysoko specjalistycznego zespołu terapeutycznego (2, 3). Zakres pierwotnego zaburzenia morfologicznego, czas i technika

inappropriate responses of people around, which may cause poor mental condition. Majority of subjects (ca. 67 percent) experienced unpleasant feelings caused by people around them and noticed contribution of the cleft to lowered self-confidence. Almost 56 percent of the studied group notices influence of this congenital defect on ability to establish social relationships, and 33 percent – on results achieved at school. **Aim.** The main aim of the study was to evaluate efficacy of treatment in patients with cleft lip and palate as well as usefulness of applied research tools (questionnaire, GOSLON score). **Material and methods.** Study material included a group of 45 subjects with unilateral and bilateral cleft lip and palate, who completed multidisciplinary treatment. Mean age of the subjects was 22 years. The study was conducted at the Outpatient Orthodontic Clinic of the University Dentistry Centre of the Medical University of Gdańsk. Research methods included evaluation of the occlusal abnormalities before and after treatment using GOSLON score, questionnaire completed by the patient, and specialist speech-language examination. **Results.** The highest percentage of satisfied patients was observed among subjects, who underwent orthodontic treatment (ca. 90 percent), which corresponded with established improvement in occlusal conditions after treatment. Appearance of the respective facial areas was mainly defined as good or very good. It was also noticed that the more the patient was satisfied with speech-language therapy, the more he/she was satisfied with speech quality. **Conclusions.** Evaluation of final outcomes of the multidisciplinary treatment in patients with cleft lip and palate constitutes high clinical significance in order to make further development and to evaluate currently used therapeutic management standards. (Racka-Pilszak B, Wojtaszek-Słomińska A, Zdun-Ryżewska A, Majkowicz M, Banaszkiewicz A, Basiński K. Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1. Orthod Forum 2018; 14: 270-83).

Received: 13.11.2018

Accepted: 20.12.2018

Key words: cleft palate, orthodontic treatment, GOSLON score, speech-language therapy, satisfaction with treatment outcome

Introduction

Morphological and functional disorders in patients with clefts cause structural changes in soft and hard tissues of the face, malocclusions, and functional disorders, which include severe speech-language disorders occurring in many cases (1). Intensity of these disorders within the facial skeleton requires effort of highly specialized therapeutic team (2, 3). Final treatment outcome includes scope of the primary morphological disorder, time and technique of

przeprowadzanych zabiegów chirurgicznych, terapia ortodontyczna i logopedyczna oraz indywidualny, wrodzony potencjał wzrostowy składają się na ostateczny wynik leczenia (4). Jego ocena powinna być dokonywana dopiero po zakończonym wzroście oraz zawierać nie tylko analizę warunków zgryzowych, zmian w morfologii twarzowej części czaszki, ale również samoocenę pacjenta z zakresu efektów wielospecjalistycznego leczenia, gdyż wymienione wyżej zniekształcenia mogą wpływać niekorzystnie na rozwój psychiczny i społeczny pacjenta.

W Polsce od 2000 roku pacjenci z różnymi typami rozszczepów są objęci interdyscyplinarnym leczeniem finansowanym przez instytucje państowe. W ramach Programu ortodontycznej opieki nad dziećmi z wrodzonymi wadami części twarzowej czaszki leczenie dzieci z rozszczepem wargi i/lub podniebienia jest realizowane w akredytowanych ośrodkach medycznych. Według założeń tego programu leczenie ortodontyczne pacjentów z rozszczepami jest możliwe tylko u tych osób, u których rozpoznano co najmniej trzeci stopień wskaźnika GOSLON.

Grupa specjalistów biorąca udział w terapii pacjentów ustala indywidualne programy postępowania leczniczego. Przybliżony schemat terapii pacjentów z jednostronnymi rozszczepami podniebienia (UCLP, Unilateral Cleft of Lip and Palate) i pacjentów z obustronnymi rozszczepami podniebienia (BCLP, Bilateral Cleft of Lip and Palate) w gdańskim ośrodku przedstawiono w tabeli 1.

Cel

Celem pracy była ocena interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z UCLP oraz z BCLP leczonych w Poradni Orthodontycznej Uniwersyteckiego Centrum Stomatologicznego Gdańskiego Uniwersytetu Medycznego, co pozwoli na lepsze planowanie i prowadzenie terapii w przyszłości w tym i podobnych ośrodkach, a także oszacowanie przydatności używanych narzędzi badawczych (ankieta, wskaźnik GOSLON).

Materiał i metody

Materiał badany stanowiła grupa 45 pacjentów z wadą rozszczepową (21 mężczyzn i 24 kobiety), bez towarzyszących wad rozwojowych. W celu wyodrębnienia grupy badanej przeanalizowano dokumentację 78 pacjentów z rozszczepem kończących leczenie ortodontyczne w Poradni Orthodontycznej UCS GUMed w latach 2014–2017. Do opisywanych badań zakwalifikowano 67 osób. Kryteriami doboru były:

- odmiana kaukaska
- obecność rozszczepu jednostronnego (UCLP) lub obustronnego (BCLP)
- brak wad rozwojowych towarzyszących rozszczepom

performed surgical procedures, orthodontic treatment and speech-language therapy as well as individual, congenital growth potential (4). Its evaluation should be performed only after completion of the growth and it should include not only analysis of the occlusal conditions, and changes in morphology of the facial skeleton, but also it should include patient self-assessment in terms of multidisciplinary treatment outcome, because aforementioned deformities may adversely influence mental and social development of the patient.

In Poland, the patients with various types of clefts have been included in the interdisciplinary treatment financed by the state institutions since 2000. Within the programme of orthodontic care for children with congenital defects in the facial skeleton, treatment of children with cleft lip and/or palate is conducted in accredited medical centres. According to assumptions of this programme, orthodontic treatment of patients with clefts is possible only in these persons, who were diagnosed with at least third degree in GOSLON score.

Group of specialists participating in therapy of patients prepares the individual programmes of therapeutic management. Proposed treatment plan for patients with unilateral cleft lip and palate (UCLP) and patients with bilateral cleft lip and palate (BCLP) in Gdańsk centre is presented in the table 1.

Aim

The aim of this paper was to evaluate interdisciplinary treatment of patients with UCLP and with BCLP treated at the Outpatient Orthodontic Clinic of the University Dentistry Centre of the Medical University of Gdańsk, which will enable to perform better planning and managing the treatment in the future not only at this centre, but also at similar ones, as well as to estimate usefulness of applied research tools (questionnaire, GOSLON score).

Material and methods

Studied material included the group of 45 patients with cleft defect (21 males and 24 females), without accompanying developmental defects. In order to select the studied group, documentation of 78 patients with cleft, who were completing the orthodontic treatment at the Outpatient Orthodontic Clinic of the University Dentistry Centre of the Medical University of Gdańsk within the period of 2014–2017 was analysed. 67 subjects were qualified for described evaluations. Selection criteria were as follows:

- Caucasian race
- presence of the unilateral cleft lip and palate (UCLP) or the bilateral cleft lip and palate (BCLP)
- lack of developmental malformations accompanying cleft

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

- obecność pełnej dokumentacji medycznej przed i po leczeniu ortodontycznym (w tym modele gipsowe wykonywane przed i po leczeniu)
- leczenie pacjentów (ortodontyczne i chirurgiczne) odbywało się w jednym ośrodku GUMed.

Po przeanalizowaniu zebranego materiału do dalszego postępowania zaakceptowano 45 pacjentów. Żaden z badanych nie miał przeprowadzonego leczenia ortognatycznego, choć cztery osoby z 5 stopniem wskaźnika GOSLON były kwalifikowane do zespołowego leczenia ortodontyczno-chirurgicznego. Ci pacjenci nie wyrażili zgody na leczenie ortognatyczne. U wszystkich badanych przeprowadzono zabiegi chirurgiczne zgodne z przedstawionym schematem w tabeli nr 1.

W skład badanej grupy weszło 21 mężczyzn i 24 kobiety, średni wiek pacjentów w momencie rozpoczęcia właściwego leczenia ortodontycznego wynosił 11 lat, a w czasie zakończenia leczenia – 22 lata. Były to osoby z dwoma typami rozszczepów UCLP oraz BCLP. Charakterystykę badanej grupy przedstawia 2.

Zastosowano metody: analizę dokumentacji medycznej, ocenę zmian zgryzu według wskaźnika GOSLON, zaadoptowaną ankietę oraz ocenę mowy.

Na badania uzyskano zgodę Komisji Bioetycznej GUMed nr NKEBN 541/2012.

Ortodontyczna ocena wyników leczenia pacjentów z rozszczepami podniebienia

Do oceny wyników interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z rozszczepami podniebienia zastosowano wskaźnik GOSLON, który jest klinicznym narzędziem umożliwiającym ocenę stopnia zaburzenia zgryzu oraz potrzeb leczniczych pacjentów z rozszczepami podniebienia. Wyróżnia się pięć stopni wskaźnika GOSLON:

1. stopień – zgryz w granicach normy, pojedynczy ząb w zgryzie krzyżowym, niewielki tyłozgryz;
2. stopień – tyłozgryzy całkowite, zgryzy krzyżowe częściowe boczne;
3. stopień – zgryz krzyżowy częściowy przedni i zgryzy krzyżowe częściowe boczne jedno- lub obustronne;
4. stopień – przodozgryzy rzekome i całkowite, zgryzy krzyżowe boczne, zgryzy otwarte przy prawidłowym ustawieniu baz apikalnych szczęki i żuchwy;
5. stopień – przodozgryzy rzekome i całkowite, zgryzy krzyżowe boczne, zgryzy otwarte przy znacznym zaburzeniu w ustawieniu baz apikalnych szczęki i żuchwy (5, 6, 7).

Badanie wyników leczenia ortodontycznego obejmowało ocenę modeli diagnostycznych badanej grupy pacjentów przed i po leczeniu. Analizy dokonywało dwukrotnie dwóch ortodontów niezależnie od siebie. Zastosowanie wskaźnika GOSLON do porównań stanu sprzed rozpoczęcia leczenia i po jego zakończeniu pozwala na dość precyzyjne ukazanie w sposób obiektywny skuteczności leczenia ortodontycznego (5, 6, 7) (Ryc.1).

- presence of complete medical record before and after orthodontic treatment (including plaster casts made before and after treatment)
- (orthodontic and surgical) treatment of patients took place in one centre of the Medical University of Gdańsk.

After analysis of gathered material, 45 patients were approved for further management. None of the subjects underwent orthognathic treatment; although, four persons with the 5th degree in GOSLON score were qualified for orthodontic and surgical treatment performed by the team of specialists. These patients did not provide their consents for orthognathic treatment. All subjects underwent surgical procedures in accordance with the plan presented in the table 1.

Studied group included 21 males and 24 females, mean age of the patients at the beginning of suitable orthodontic treatment was 11 years, and at completion of treatment – 22 years. These persons suffered from two types of clefts, UCLP and BCLP. Characteristics of this group are presented in the table 2.

The following methods were used: analysis of medical record, evaluation of malocclusion in accordance with GOSLON score, adopted questionnaire and speech-language examination.

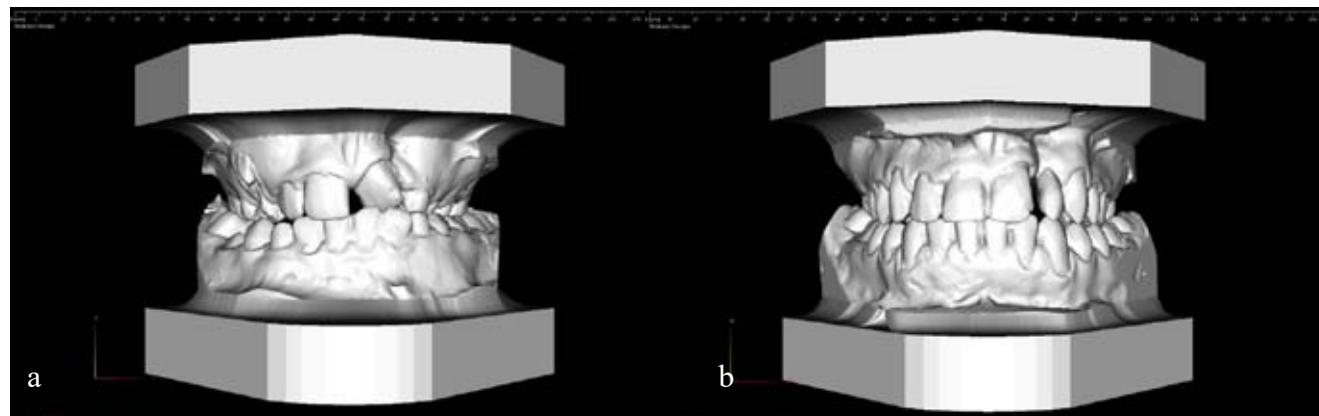
Approval of the Bioethics Committee of the Medical University of Gdańsk No. NKEBN 541/2012 was obtained in order to conduct this study.

Orthodontic evaluation of treatment outcomes in patients with cleft palate

GOSLON score, which is a clinical tool that enables evaluation of the degree of malocclusion and treatment needs in patients with cleft palate, was used for evaluation of the interdisciplinary treatment outcome in patients with cleft palate. There are five degrees in GOSLON score:

1. normal occlusion, single tooth crossbite, mild overbite;
2. complete overbites, partial lateral crossbite;
3. partial anterior crossbite and partial lateral crossbite, unilateral or bilateral;
4. pseudo prognathism and complete underbite, lateral crossbite, open bite with normal position of apical bases of the maxilla and the mandible;
5. pseudo prognathism and complete underbite, lateral crossbite, open bite with severe disturbance in position of apical bases of the maxilla and the mandible (5, 6, 7).

Evaluation of the orthodontic treatment results included evaluation of diagnostic models of the studied patient group before and after treatment. The analysis was performed by two independent orthodontists. Use of GOSLON score for comparison of the condition from before treatment and after treatment completion enables to demonstrate the efficacy of orthodontic treatment quite precisely and in an objective manner (5, 6, 7) (Fig.1).



Rycina 1. Przykładowe modele pacjenta z rozszczepem całkowitym jednostronnym, na których dokonywano analizy wskaźnika GOSLON; a) przed leczeniem, wskaźnik GOSLON 4; b) po leczeniu, wskaźnik GOSLON 2.

Figure 1. Example models of the patient with unilateral cleft lip and palate, where GOSLON score analysis was performed; a) before treatment, GOSLON score 4; b) after treatment, GOSLON score 2.

Kwestionariusz dla pacjentów do oceny wyników leczenia
Questionnaire Survey of Attitudes and Concerns of Patients with Cleft Lip and Palate został stworzony przez Joe H. Noar i M. Orth (8), aby od pacjentów z UCLP zebrać opinie na temat oceny leczenia, wyglądu twarzy i jakości mowy, a także aspektów społecznych i emocjonalnych oraz postrzeganego sukcesu specjalistów zaangażowanych w leczenie. Kwestionariusz zamieszczony w artykule został poddany procedurze tłumaczenia na język polski według przyjętych norm.

Badanie logopedyczne

Ankiętę dotyczącą satysfakcji z terapii logopedycznej wypełniło 45 pacjentów, którzy stanowią główną grupę badawczą. Badaniem mowy przeprowadzonym przez logopedę i zarejestrowanym kamerą video objęto 17 osób spośród tej grupy. Celem badania było określenie jakości wymowy oraz odniesienie subiektywnej oceny pacjenta do oceny specjalisty. Badanie zgodnie z zaleceniami The Eurocleft Project 1996–2000 obejmowało ocenę zrozumiałości (intelligibility), nosowania (nasality) i artykulacji (articulation) (9). W tym celu zastosowano wywiad, analizę mowy spontanicznej i ukierunkowanej. Zastosowano kryterium badania ortofoniczne i wzrokowe oraz wybrane testy, m.in. próby Gutzmanna i Czermaka (10). Oprócz opisu nieprawidłowości artykulacyjnych zastosowano pięciostopniową skalę zrozumiałości mowy odpowiadającą skali CAPS-1 (11): 1 – mowa poprawna, zrozumiała; 2 – mowa nieznacznie odbiegająca od normy, ale zrozumiała; 3 – mowa odbiegająca od normy, ale w większości zrozumiała; 4 – mowa niezrozumiała dla obcych; 5 – mowa niezrozumiała.

Questionnaire for the patients to evaluate treatment outcomes

Questionnaire Survey of Attitudes and Concerns of Patients with Cleft Lip and Palate was developed by Joe H. Noar and M. Orth (8) in order to collect opinions from the patients with UCLP regarding evaluation of treatment, facial appearance and speech quality, as well as social and emotional aspects, and perceived success of specialists involved in treatment. Questionnaire used in the article was translated into Polish language according to adopted standards.

Speech-language pathology examination

Questionnaire regarding satisfaction with speech-language therapy was completed by 45 patients, who constitute the primary studied group. 17 subjects from this group underwent speech-language examination conducted by the speech-language pathologist and recorded with a video-camera. Purpose of this examination was to determine articulation quality and comparison of the subjective evaluation made by the patient with evaluation performed by a specialist. Examination performed in accordance with The Eurocleft Project 1996–2000 guidelines included intelligibility, nasality and articulation (9). For this purpose, an interview and an analysis of spontaneous and directed speech were used. Orthophonic and visual study criteria were used as well as selected tests, i.a., Gutzmann test and Czermak's test (10). Despite description of articulation abnormalities, five-degree scale of speech intelligibility corresponding to CAPS-1 (11) was used: 1 – normal speech, comprehensible; 2 – insignificantly abnormal speech, but comprehensible; 3 – abnormal speech, but comprehensible in majority; 4 – speech incomprehensible for strangers; 5 – incomprehensible speech.

Metody statystyczne

Obliczenia statystyczne uzyskanych danych zostały wykonane przy użyciu programu STATISTICA 12 (StatSoft Inc.). Wskaźniki satysfakcji z leczenia i wpływu rozszczepu na różne aspekty życia zostały przedstawione w postaci wartości procentowych. Do zbadania istotności różnic pomiędzy wskaźnikami GOSLON przed i po terapii wykorzystano test Wilcoxona dla par obserwacji (Wilcoxon signed-rank test).

Wyniki

Orthodontyczna ocena zgryzu

Analiza początkowych modeli gipsowych badanych pacjentów z UCLP wykazała, że 3. stopień wskaźnika GOSLON miało 13 pacjentów, 4. stopień stwierdzono u 11 badanych, a 5. stopień odnotowano u 5 osób. Badając efekty leczenia ortodontycznego na modelach gipsowych wykonanych po terapii, u 18 pacjentów stwierdzono 1. stopień wskaźnika GOSLON; u 7 badanych – 2. stopień, u jednego – 3. stopień, a u 3 osób rozpoznało 4. stopień.

U pacjentów z BCLP przed leczeniem ortodontycznym 3. stopień wskaźnika GOSLON stwierdzono u 8 osób; 4. stopień – u 5 badanych; 5. stopień wskaźnika GOSLON – u 3 pacjentów. Badając skutki terapii ortodontycznej po zakończonym leczeniu, u 11 pacjentów stwierdzono 1. stopień GOSLON, a u 5 osób – 2. stopień.

Po ukończonym leczeniu ortodontycznym u żadnego pacjenta (z UCLP i BCLP) nie stwierdzono wady zgryzu na poziomie 5. stopnia wskaźnika GOSLON. Analiza efektów leczenia ortodontycznego na podstawie wskaźnika GOSLON przed i po leczeniu wykazywała statystycznie istotną poprawę warunków zgryzowych u wszystkich badanych (Tab. 3).

Ocena wyglądu i wyników terapii chirurgicznej i ortodontycznej

Nie wszyscy ankietowani odpowiedzieli na 100 proc. zadanych pytań, zatem N oznaczające liczbę pacjentów, którzy odpowiedzieli na poszczególne pytania ankietowe, nie zawsze wynosi 45 (tyle osób brało udział w badaniu). Jest to wyraźnie widoczne w odpowiedzi na pytanie dotyczące oceny uzupełnień protetycznych, w którym tylko 23 osoby wyraziły swoją opinię. Prawdopodobnie dlatego, że tylko taka grupa badanych miała jakiekolwiek uzupełnienia protetyczne.

Zdaniem ankietowanych ocena wyglądu poszczególnych obszarów twarzy w jest w większości dobra lub bardzo dobra. Najwięcej odpowiedzi negatywnych dotyczyło wyglądu nosa (29,5 proc. badanych), warg (18,2 proc.) oraz profilu (15,5 proc.) (Tab. 4).

Odpowiedzi dotyczące oceny wyników leczenia w poszczególnych dziedzinach interdyscyplinarnej terapii wykazały, że największy odsetek zadowolonych pacjentów był z leczenia ortodontycznego (88,9 proc.). W odniesieniu do leczenia chirurgicznego w zakresie nosa i wargi górnej odsetek zadowolonych pacjentów wahał się w granicach 65,9–70,5 proc. (Tab. 4).

Statistical methods

Statistical calculations of gathered data were performed with use of STATISTICA 12 software (StatSoft Inc.). Patient satisfaction indicators and effect of cleft on various aspects of life were presented in form of percent values. In order to study statistically significant differences between GOSLON scores before and after therapy, Wilcoxon signed-rank test was used.

Results

Orthodontic evaluation of occlusion

Analysis of baseline plaster casts of the subjects with UCLP demonstrated that 3^o GOSLON score occurred in 13 patients, 4^o was established in 11 subjects, and 5^o was recorded in 5 persons. Evaluating effects of orthodontic treatment on plaster casts prepared after treatment, 1^o GOSLON score was established in 18 patients; 2^o in 7 subjects, 3^o in one patient, and 4^o in 3 persons.

In patients with BCLP, before orthodontic treatment, 3^o GOSLON score was established in 8 persons; 4^o – in 5 subjects; 5^o GOSLON score – in 3 patients. During evaluation of effects of orthodontic treatment after completed treatment, 1^o GOSLON score was established in 11 patients, and 2^o in 5 persons.

After completed orthodontic treatment, no patient (with UCLP and BCLP) revealed malocclusions at the level of 5^o GOSLON score. Analysis of the orthodontic treatment effects based on GOSLON score established before and after treatment, revealed statistically significant improvement of occlusal conditions in all subjects (Tab. 3).

Evaluation of appearance and surgical and orthodontic therapy outcome

Not all respondents answered 100 percent of asked questions, so N, which means number of patients, who responded to the respective questions in the questionnaire, is not always 45 (this is number of people participated in a questionnaire survey). It is clearly noticeable in answers to questions regarding evaluation of the prosthetic restorations, where only 23 people expressed their opinion. It is probably because only such group of subjects had any prosthetic restoration.

In the opinion of the responders, appearance of the respective areas of the face is rated as good or very good in majority. The highest number of negative responses referred to the appearance of the nose (29.5 percent of subjects), of the lips (18.2 percent), and the facial profile (15.5 percent) (Tab. 4).

Responses related to evaluation of treatment outcome in the respective areas of the multidisciplinary treatment demonstrated that the highest percentage of patients was satisfied with the orthodontic treatment (88.9 percent). In reference to surgical treatment of the nose and the upper lip, percentage of satisfied patients ranged from 65.9 to 70.5 percent. (Tab. 4).

Tabela 1. Schemat leczenia pacjentów z rozszczepami zgodnie z „Programem ortodontycznej opieki nad dziećmi z wrodzonymi wadami części twarzowej czaszki” prowadzonym w gdańskim ośrodku**Table 1. Treatment plan for the patients with clefts in accordance with the “Programme of orthodontic care for children with congenital defects in the facial skeleton” managed at the centre in Gdańsk**

Wiek Age	Leczenie chirurgiczne <i>Surgical treatment</i>		Leczenie ortodontyczne <i>Orthodontic treatment</i>	Leczenie logopedyczne <i>Speech-language therapy</i>
	UCLP	BCLP		
do 6 miesiąca życia <i>up to the 6th month of age</i>	-----	-----	Stosowanie płyt McNeila w uzasadnionych przypadkach <i>Using McNeil plates in justified cases</i>	Pomoc w karmieniu, masaż logopedyczny, rozwijanie zachowań komunikacyjnych <i>Assistance in feeding, therapeutic speech massage, development of communication behaviour</i>
6 miesięcy <i>6 months</i>	Całkowita plastyka wargi (Randall – Tennison) <i>Complete cleft lip repair (Randall – Tennison)</i>	Jednostronna plastyka wargi (Randall – Tennison) <i>Unilateral cleft lip repair (Randall – Tennison)</i>	Monitoring rozwoju zgryzu <i>Monitoring of the development of occlusion</i>	Nauka prawidłowego jedzenia, picia, oddychania. Wspomaganie i wywoływanie zachowań komunikacyjnych verbalnych i niewerbalnych <i>Learning correct eating, drinking, and breathing.</i> <i>Supporting and inducing verbal and non-verbal communication behaviour</i>
9 miesięcy <i>9 months</i>	-----	Drugi etap plastyki wargi <i>The second stage of lip repair</i>	Monitoring rozwoju zgryzu <i>Monitoring of the development of occlusion</i>	
12 - 18 miesiące <i>12 - 18 months</i>	Plastyka podniebienia (Wardill – Kilner) <i>Cleft palate repair (Wardill – Kilner)</i>		Monitoring rozwoju zgryzu <i>Monitoring of the development of occlusion</i>	Wspomaganie i kształtowanie rozwoju mowy. Wyciszanie zachowań verbalnych niepożądanych. Usprawnianie narządów mownych <i>Supporting and shaping the speech development.</i> <i>Eliminating undesirable verbal behaviour. Improvement of the speech organs.</i>
do 3 lat <i>up to 3 years</i>				
3 - 6 lat <i>3 - 6 years</i>	Ewentualne korekty <i>Potential corrections</i>		Interceptywne leczenie w uzebieniu mlecznym <i>Interceptywne treatment in deciduous teeth</i>	Czuwanie nad prawidłowym rozwojem psychomotorycznym w zakresie komunikacji językowej <i>Supervision over normal psychomotor development in terms of language communication</i>

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

Wiek Age	Leczenie chirurgiczne <i>Surgical treatment</i>		Leczenie ortodontyczne <i>Orthodontic treatment</i>	Leczenie logopedyczne <i>Speech-language therapy</i>
	UCLP	BCLP		
7 - 9 lat 7 - 9 years	Ewentialne korekty <i>Potential corrections</i>		Leczenie zgryzów krzyżowych bocznych i przednich <i>Treatment of lateral and anterior crossbites</i>	Korygowanie zaburzeń artykulacji. Eliminowanie konsekwencji zaburzeń mowy szczególnie w zakresie czytania i pisania <i>Correcting articulation disorders. Eliminating consequences of speech disorders especially within the scope of reading and writing</i>
9 - 11 lat 9 - 11 years	Jednostronne <i>Unilateral</i>	Obustronne <i>Bilateral</i>		
12 - 18 lat 12 - 18 years	Zabiegi korekcyjne <i>Corrective surgical procedures</i>		Typowe leczenie ortodontyczne zgodne z występującymi wadami <i>Typical orthodontic treatment according to present defects</i>	Korygowanie przetrwałych zaburzeń artykulacji <i>Correcting persistent articulation disorders.</i>
18 +	Chirurgia ortognatyczna <i>Orthognathic surgery</i>			

Tabela 2. Charakterystyka badanej grupy**Table 2. Characteristics of the study group**

Płeć (M:K) Gender (M:F)	21:24
Wiek w momencie rozpoczęcia leczenia ($M \pm SD$) (w latach) <i>Age at start of treatment ($M \pm SD$) (in years)</i>	11.42 ± 2.9
Wiek w momencie zakończenia leczenia ($M \pm SD$) <i>Age at completion of treatment ($M \pm SD$)</i>	22.13 ± 4.63
Rozpoznanie <i>Diagnosis</i>	
UCLP	29 (64.4%)
BCL	16 (35.6%)

W części ankiety dotyczącej roli poszczególnych specjalistów w leczeniu interdyscyplinarnym najwyżej zostali ocenieni przez badanych ortodonci (99,3 proc.), chirurdzy (88,7 proc.) i logopedzi (76,2 proc.). Tylko 20 osób spośród 45-osobowej grupy korzystało z pomocy innych specjalistów (Tab. 4).

Ankietowani najwyżej ocenili wyniki leczenia ortodontycznego (90,9 proc.), rezultaty z terapii chirurgicznej i logopedycznej były na nieco niższym poziomie (79,5 proc. i 76,2 proc.) (Tab. 4).

W obszarze społecznym przede wszystkim zauważalne jest zjawisko dokuczania ze strony otoczenia, które dotknęło większość badanych osób. Część z nich miała za sobą bardzo trudne przeżycia i spotykała się z napiętowaniem środowiska (Tab. 4).

In the part of the questionnaire regarding the role of the respective specialists in multidisciplinary treatment, the subjects gave the highest ranks to orthodontists (99.3 percent), surgeons (88.7 percent), and speech-language pathologists (76.2 percent). Only 20 persons out of the group of 45 subjects used assistance of other specialists (Tab. 4).

Respondents gave the highest ranks to orthodontic treatment outcomes (90.9 percent), but results of surgical treatment and speech-language therapy were at slightly lower level (79.5 percent and 76.2 percent) (Tab. 4).

Within the social area, harassment by the people around is mainly noticeable, and it was experienced by majority of subjects. Some of them underwent very difficult situations and they experienced stigmatization by the people around (Tab. 4).

Tabela 3. Zmiany wskaźnika GOSLON po leczeniu ortodontycznym u pacjentów z UCLP i BCPL**Table 3. Changes in GOSLON score after orthodontic treatment in patients with UCLP and BCPL**

Rozpoznanie <i>Diagnosis</i>	GOSLON przed leczeniem <i>/ before treatment</i>		GOSLON po leczeniu <i>/ after treatment</i>		Wynik testu Wilcooxona <i>/ Result of Wilcoxon test</i>
	Mean ± SD	Min-max	Mean ± SD	Min-max	
UCLP	3.72 ± 0.75	3 - 5	1.62 ± 0.98	1 - 4	p < 0.001
BCPL	3.69 ± 0.79	3 - 5	1.31 ± 0.48	1 - 2	p < 0.001
UCLP and BCPL	3.71 ± 0.76	3 - 5	1.51 ± 0.84	1 - 4	p < 0.001

Tabela 4. Wyniki badań ankietowych**Table 4. Results of questionnaire surveys**

Wiek <i>Age</i>	N	Satysfakcja z indywidualnych cech twarzy <i>/ Satisfaction with individual facial features</i>		
		Zadowolony <i>Satisfied</i> (%)	Trudno powiedzieć <i>Difficult to say</i> (%)	Niezadowolony <i>Dissatisfied</i> (%)
Wygląd ogólny twarzy / General appearance of the face	45	55.6	31.1	13.3
Kształt twarzy / Shape of the face	43	79.1	16.3	4.7
Profil / Profile	43	53.3	26.7	15.5
Wargi / Lips	44	54.5	27.3	18.2
Uśmiech / Smile	43	67.4	18.6	14.4
Uszy / Ears	42	95.2	4.8	0.0
Ocza / Eyes	42	97.6	2.4	0.0
Nos / Nose	44	56.8	13.6	29.5
Włosy / Hair	42	95.2	2.4	2.4
Wyglądu uzupełnień protetycznych <i>/ Appearance of the prosthetic restorations</i>	23	73.9	17.4	8.7
Istotność w leczeniu / Importance in treatment				
	N	Istotny <i>Important</i> (%)	Trudno powiedzieć <i>Difficult to say</i> (%)	Nieistotny <i>Unimportant</i> (%)
Chirurgów / by surgeons	44	88.7	6.8	4.5
Ortodontów / by orthodontists	44	93.2	4.5	2.3
Logopedów / by speech-language therapists	42	76.2	11.9	11.9
Inni specjalści / by other specialists	20	25	25	50
Ocena rezultatów / Evaluation of results				
	N	Dobre <i>Good</i> (%)	Trudno powiedzieć <i>Difficult to say</i> (%)	Złe <i>Bad</i> (%)
Chirurgów / by surgeons	44	79.5	15.9	4.5
Ortodontów / by orthodontists	44	90.9	6.8	2.3
Logopedów / by speech-language therapists	42	76.2	14.3	9.5
Inni specjalści / by other specialists	19	42.1	21.1	36.8

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

	N	Satysfakcja z funkcji / Satisfaction with function		
		Zadowolony Satisfied (%)	Trudno powiedzieć Difficult to say (%)	Niezadowolony Dissatisfied (%)
Jakość mowy / Speech quality	45	71.1	13.3	15.6
Funkcjonalność mowy / Speech functionality	43	65.1	25.6	9.3
Słuch / Hearing	42	78.6	9.5	11.9
Żucie / Mastication	43	81.4	18.6	0

	N	Wpływ wady rozszczepowej na / Effect of cleft defect on	
		Tak / Yes (%)	Nie / No (%)
Wyniki w nauce / learning performance	45	33.3	66.7
Zawieranie przyjaźni / establishing friendship	45	55.6	44.4
Relacje partnerskie / partner relationships	45	55.6	44.4
Pewność siebie / self-esteem	45	66.7	33.3
Dokuczanie / harassment	45	66.7	33.3

Tabela 5. Współzależności pomiędzy poszczególnymi wskaźnikami satysfakcji pacjenta związanymi z mową – macierz korelacji (Rho Spearmana)**Table 5. Interrelations between the respective indicators of the patient's satisfaction related to speech – correlation matrix (Spearman's rho)**

Terapia logopedyczna / Speech-language therapy	
Jakość mowy / Speech quality	0.77
Satysfakcja z jakością mowy / Satisfaction with speech quality	0.54

W tabeli tylko istotne korelacje ($p < 0,05$).The table presents only significant correlations ($p < 0.05$).

Wpływ rozszczepu na umiejętność nawiązywania relacji przyjacielskich i partnerskich dostrzega prawie 56 proc. respondentów. Zdecydowana większość badanych twierdzi, że ten defekt miał wpływ na ich pewność siebie (Tab. 4).

Ocena subiektywna wyników terapii logopedycznej

W badanej grupie 45 osób (100 proc.) ocenili efekty terapii mowy. Większość pacjentów było zadowolonych lub bardzo zadowolonych z wyników leczenia (75,6 proc.), podobnie wysoko ocenili jakość swojej mowy (71,1 proc.), natomiast niezadowolonych z jakością mowy było 7 pacjentów (15,6 proc.) (Tab. 5). Funkcjonalność mowy, czyli skuteczność mowy w różnych sytuacjach, oceniali nieco niżej niż jej jakość.

Effect of cleft on ability to establish friendships and partner relationships is noticed by almost 56 percent of the respondents. Vast majority of the subjects states that this defect influenced their self-esteem (Tab. 4).

Subjective evaluation of speech-language therapy outcomes

In the studied group, 45 subjects (100 percent) evaluated effects of the speech-language therapy. Majority of the patients were satisfied or very satisfied with treatment outcome (75.6 percent), they gave similarly high rank to quality of their speech (71.1 percent), but 7 patients (15.6 percent) were dissatisfied with quality of their speech (Tab. 5). Speech functionality, i.e., efficacy of the speech in various situations, was ranked slightly lower by the patients than its quality.

Participation of the speech-language pathologists in treating patients with clefts was recognized as significant and very significant by 76.2 percent of patients, as insignificant and very insignificant – by 11.9 percent of patients. The patients highly and very highly ranked result of the speech-language pathologist's work in 76.2 percent of cases, low and very low – 9.5 percent, other patients – 11.9 percent – did not have any opinion (Tab. 4).

Statistical calculations demonstrated significant relationship between the level of satisfaction with speech-language therapy and satisfaction with speech quality and functionality, although to a slightly lesser extent (Tab. 5).

Udział logopedów w leczeniu pacjentów z rozszczepami za istotny i bardzo istotny uznało 76,2 proc., za nieistotny i bardzo nieistotny – 11,9 proc. Pacjenci wysoko i bardzo wysoko ocenili rezultat pracy logopedy w 76,2 proc. przypadków, nisko lub bardzo nisko – 9,5 proc., pozostały – 11,9 proc. – nie mieli zdania (Tab. 4).

Obliczenia statystyczne wykazały istotną zależność pomiędzy poziomem satysfakcji z terapii logopedycznej a zadowoleniem z jakości i funkcjonalności mowy, choć w nieco mniejszym stopniu (Tab. 5). Pacjent im bardziej zadowolony z terapii logopedycznej, tym bardziej zadowolony również ze swojej mowy.

Ocena specjalistyczna wyników terapii logopedycznej

Badanie logopedyczne przeprowadzono wśród 17 osób. W ocenie logopedy w tej grupie tylko jedna z nich (5,88 proc.) charakteryzuje się mową poprawną (1° w skali CAPS-1). Aż 16 osób (94,12 proc.) ma wadę wymowy, z czego: 6 osób (35,29 proc.) ma mowę nieznacznie odbiegającą od normy (2° w skali CAPS-1); 4 osoby (23,53 proc.) charakteryzuje mowa odbiegająca od normy, ale w większości zrozumiała (3° w skali CAPS-1); 3 osoby (17,65 proc.) mowę niezrozumiałą dla obcych (4° w skali CAPS-1); a 3 osoby (17,65 proc.) mowę niezrozumiałą bez znanego kontekstu (5° w skali CAPS-1).

Wszystkie osoby, które ocenili jakość swojej mowy jako niezadowalającą (były to 4 osoby – 23,53 proc.) w rzeczywistości mają zaburzenia artykulacji wpływające na obniżenie zrozumiałości mowy, i ich ocena była adekwatna. Pozostali pacjenci ocenili jakość swojej mowy jako zadowalającą lub bardzo zadowalającą (76,47 proc.), ale ocena logopedyczna nie potwierdza tak wysokiej oceny. Oceny logopedy w tej grupie kształtują się następująco: 1 osoba (7,7 proc.) – 1° w skali CAPS-1; 6 osób (46,15 proc.) – 2° w skali CAPS-1; 3 osoby (23,08 proc.) – 3° w skali CAPS-1; 2 osoby (15,37 proc.) – 4° w skali CAPS-1; 1 osoba (7,7 proc.) – 5° w skali CAPS-1. Można uznać, że subiektywna ocena jakości mowy nie odpowiada obiektywnej ocenie logopedycznej.

W badanej grupie stwierdzono następujące zjawiska logopedyczne: nosowanie otwarte o różnym nasileniu, nieraz z turbulencjami nosowym (94 proc.), zaburzenia wymowy licznych głosek pod względem zmiany miejsca i sposobu ich realizacji, szczęki i współpruchy mimiczne.

Badanie czynnościowe narządu żucia wykazało następujące nieprawidłowości z zakresu dysfunkcji: oddychanie przez usta (70,6 proc.), połykanie w sposób infantylny (64,70 proc.), nieprawidłowe ułożenie języka w spoczynku (70,6 proc.). Tylko 4 osoby (23,5 proc.) nie mają w tym zakresie żadnych deficytów i są to osoby, które mają niewielkie zaburzenia artykulacji niewpływające na zrozumiałość mowy (2° w skali CAPS-1).

The more the patient was satisfied with speech-language therapy, the more he/she was satisfied with speech quality.

Specialist evaluation of speech-language therapy outcomes

Speech-language examination was performed in 17 subjects. In the opinion of the speech-language pathologist, only one person in this group (5.88 percent) demonstrates normal speech (1° in CAPS-1). As much as 16 persons (94.12 percent) have speech defect, including: 6 persons (35.29 percent) with slightly abnormal speech (2° in CAPS-1); 4 persons (23.53 percent) with abnormal speech, but in majority comprehensible (3° in CAPS-1); 3 persons (17.65 percent) with speech incomprehensible for strangers (4° in CAPS-1); and 3 persons (17.65 percent) incomprehensible speech without known context (5° in CAPS-1).

All persons, who ranked quality of their speech as unsatisfactory (4 persons – 23.53 percent), actually demonstrated articulation disorders, which cause lowering speech intelligibility, and their rank was adequate. Other patients ranked their speech as satisfactory or very satisfactory (76.47 percent), but evaluation by the speech-language pathologist does not confirm such high rank. Scores for the speech in this group are the following: 1 person (7.7 percent) – 1° in CAPS-1; 6 persons (46.15 percent) – 2° in CAPS-1; 3 persons (23.08 percent) – 3° in CAPS-1; 2 persons (15.37 percent) – 4° in CAPS-1; 1 person (7.7 percent) – 5° in CAPS-1. It can be considered that the subjective evaluation of the speech quality does not correspond with objective evaluation by the speech-language pathologist.

In the studied group, the following speech phenomena were established: open nasality with various intensity, sometimes with nasal turbulences (94 percent), disturbed articulation of numerous speech sounds in terms of change in place and manner of their execution, lockjaw, and mimic synkineses.

Functional examination of the masticatory system revealed the following abnormalities within the scope of dysfunctions: mouth breathing (70.6 percent), infantile swallowing (64.70 percent), and abnormal resting tongue position (70.6 percent). Only 4 persons (23.5 percent) do not have any deficits in this area and they are persons, who demonstrate mild articulation disorders, which do not affect speech intelligibility (2° in CAPS-1).

Discussion

Cleft lip and/or cleft palate is the most common developmental defect of the facial skeleton. Its incidence worldwide is 1–7/1000 liveborn infants (12). In Poland, incidence of clefts is 1.7/1000 liveborn infants (13).

Evaluation of treatment outcomes is an important element in development of new, more effective therapeutic standards.

Dyskusja

Rozszczep wargi i/lub podniebienia jest najczęściej występującą wadą rozwojową twarzowej części czaszki. Częstość jej występowania na świecie wynosi 1–7/1000 żywo urodzonych noworodków (12). W Polsce częstość występowania rozszczepów wynosi 1,7/1000 żywo urodzonych dzieci (13).

Badanie wyników leczenia jest ważnym elementem w opracowywaniu nowych, bardziej skutecznych standardów terapeutycznych. Szczególnie w przypadku pacjentów z rozszczepami podniebienia, którzy wymagają wieloletniego i interdyscyplinarnego leczenia, opracowanie schematów powinno być dobrze przygotowywane i uzasadnione. Badania porównujące wyniki leczenia w różnych ośrodkach wykazały, że tam, gdzie terapia była prowadzone zgodnie z ustalonymi procedurami, wyniki i skuteczność leczenia były lepsze (13).

W prezentowanych badaniach oceny wyników leczenia pacjentów z rozszczepami dokonywali sami pacjenci, lekarze ortodonci, psychologowie oraz logopeda. Leczenie ortodontyczne ze względu na różnorodność zaburzeń zgryzowych towarzyszących rozszczepom podniebienia wymaga dodatkowo indywidualnego, szczególnego planu postępowania ortodontycznego. Badanie pacjentów, którzy ukończyli leczenie ortodontyczne wykazało statystycznie istotną poprawę warunków zgryzowych (wskaźnik GOSLON), co jest bardzo satysfakcjonującym rezultatem. U żadnego z badanych nie stwierdzono pogorszenia się zgryzu, a tylko u 3 pacjentów nie odnotowano zmiany wartości wskaźnika GOSLON (Tab. 4).

Ankietowani najwyżej ocenili skuteczność i satysfakcję z leczenia ortodontycznego. Należy jednak podkreślić, że wszyscy z wielospecjalistycznego zespołu uzyskali stosunkowo wysokie oceny. Wyniki te są zbieżne z badaniami, w których użyto podobnych technik pytań ankietowych. Większość pacjentów jest zadowolona z wyników leczenia, wyglądu twarzy oraz mowy (8, 14, 15, 16).

Badani pacjenci ocenili wygląd poszczególnych obszarów swojej twarzy w większości jako dobry lub bardzo dobry. Jednakże procent niezadowolonych z wyglądu nosa (29,5 proc. badanych), warg (18,2 proc.) oraz profilu (15,5 proc.) w omawianej grupie był zdecydowanie mniejszy, niż u ankietowanych przez Noar w 1991 roku (8), gdzie aż 46,4 proc. osób było niezadowolonych z wyglądu nosa, a z warg i profilu – po 35,7 proc. Pacjenci, którzy mają zastrzeżenia do swojego wyglądu, najczęściej wymieniają deformacje porozszczepowe w obrębie warg i nosa (17, 18). Te zniekształcenia są związane z obecnością blizn i asymetrii twarzy, które negatywnie wpływają na jej wygląd (19).

U pacjentów z deformacjami kompleksu ustno-twarzowego często obserwuje się niskie poczucie własnej wartości, a towarzyszący im stres wpływa na rozwój emocjonalny. Stwierdzono również, że osoby z rozszczepem wargi i podniebienia należą do grupy wysokiego ryzyka depresji w wieku dorosłym (20).

Especially in case of patients with cleft palate, who require many years of interdisciplinary treatment, development of management procedures should be well-prepared and justified. Studies comparing treatment outcomes in various centres demonstrated that at the centres, where therapy was conducted in accordance with established procedures, outcomes and efficacy of treatment were better (13).

In presented studies, evaluation of treatment outcomes in patients with clefts were conducted by patients themselves, by orthodontists, by psychologists, and by speech-language pathologists. Due to variety of occlusal disorders accompanying cleft palate, the orthodontic treatment requires additional individual, detailed plan of orthodontic management. Examination of patients, who completed orthodontic treatment, revealed statistically significant improvement in occlusal conditions (GOSLON score), which is very satisfying outcome. No worsening in occlusion was established in any of the subjects, and only in 3 patients, no change in GOSLON score was recorded (Tab. 4).

Respondents gave the highest ranks to efficacy and satisfaction from orthodontic treatment. However, it should be emphasized that all members of the multidisciplinary team achieved relatively high ranks. These results are consistent with the studies, where similar questionnaire techniques were used. Majority of patients is satisfied with treatment outcomes, appearance of the face, and speech (8, 14, 15, 16).

Subjects ranked appearance of the respective areas of their faces as good or very good in majority. However, percentage of subjects dissatisfied with the appearance of the nose (29.5 percent of subjects), of the lips (18.2 percent), and the facial profile (15.5 percent) in the discussed group was significantly lower, than it was in questionnaires conducted by Noar in 1991 (8), where as much as 46.4 percent of subjects were dissatisfied with the appearance of the nose, and percentage of patients dissatisfied with the appearance of the lips, and the facial profile was 35.7 percent each. Patients with objections to their appearance, the most frequently list post-surgical dentofacial deformities in the lips and nose (17, 18). These deformities are associated with presence of cicatrices and facial asymmetry, which make a negative impact on its appearance (19).

In patients with orofacial deformities, low self-esteem is commonly observed and accompanying stress affect emotional development. It was also established that persons with cleft lip and palate belong to the group of high risk of depression occurrence in adulthood (20).

The patients, who observed improvement in their facial appearance after treatment, provide higher ranks to quality of their lives and treatment satisfaction, comparing to other factors analysed in studies (21).

Noticeable facial deformities and usually audible speech defect frequently make a negative impact on their personal life and social functioning (22, 23). Majority of the subjects felt stigmatized and experienced harassment due to their

Pacjenci, którzy po terapii zaobserwowali polepszenie wyglądu swojej twarzy, wyżej oceniają jakość swojego życia i satysfakcję z leczenia, w porównaniu do innych czynników branych pod uwagę w badaniach (21).

Widoczne zniekształcenia na twarzy oraz zwykle słyszalna wada wymowy często wpływają niekorzystnie na ich życie osobiste oraz funkcjonowanie społeczne (22, 23). Większość przebadanych czuła się napiętnowana i doświadczyła prześladowań z powodu swojego wyglądu. Noor i wsp. (16) donoszą, że 75 proc. badanych z powodu rozszczepu było obiektem przykrych uwag. Z opisu rodziców badanej grupy wynika, że już w wieku dwóch lat z dokuczaniem spotykało się aż 32 proc. dzieci, dlatego byłoby wskazane, aby w procesie leczenia uwzględnić wsparcie psychologiczne. Z badań Hunta i współpracowników wynika, że to właśnie dokuczanie (a nie sam fakt rozszczepu) może być determinantą złego psychicznego funkcjonowania osób z tą wadą (23, 24).

W świetle przedstawionych badań satysfakcja pacjentów z terapii logopedycznej, zarówno z pracy logopedy, jak i jakości i funkcjonowania mowy, jest wysoka i od siebie zależna. Obiektywna ocena logopedyczna wymowy i stopnia funkcjonowania narządów mowy przebadanych pacjentów ukazuje jednak odmienny obraz. Pacjenci z rozszczepem podniebienia, mimo starań lekarzy i terapeutów, a także samych pacjentów, ich rodzin i nauczycieli w większości mają poważne wady wymowy, które ograniczają rozumienie ich przez otoczenie.

Cieszy wysoka ocena jakości pracy logopedów, ale obiektywna ocena potwierdziła potrzebę ściślejszej współpracy logopedów z ortodontami w interdyscyplinarnej grupie specjalistów leczących pacjentów rozszczepowych. Rzeczywiście, konsultacja logopedyczna jest dłuższa niż wizyta kontrolna u innego specjalisty, i w związku z tym obecność logopedy w grupie interdyscyplinarnej zajmującej się rozszczepami wymaga innej organizacji (25), ale jest konieczna. Ważne, aby pacjent z rozszczepem mógł skonsultować swój przypadek ze specjalistą logopeda mającym już doświadczenie w pracy z osobami, które odznaczają się tą wadą, ponieważ jeśli logopeda nie ma ani tego doświadczenia, ani dostatecznej wiedzy teoretycznej, to i rezultatów pracy nie ma (9). Regularną terapię logopedyczną może natomiast prowadzić logopeda pracujący w pobliżu zamieszkania pacjenta, realizując zalecenia udzielane w klinice.

Wnioski

Badanie końcowych wyników interdyscyplinarnego leczenia pacjentów z rozszczepami ma duże znaczenie kliniczne dla konstruowania kolejnych i oceniania aktualnie stosowanych standardów postępowania terapeutycznego. Użyty kwestionariusz ankiety oraz wskaźnik GOSLON są dobrymi i prostymi narzędziami badawczymi. Praca całego zespołu interdyscyplinarnego jest istotna w ocenie pacjentów, przydatne byłoby wprowadzenie do niego także opieki psychologicznej.

Badanie oceny subiektywnej i obiektywnej pacjentów z wadami wrodzonymi części twarzowej czaszki pozwala

appearance. Noor et al. (16) report that 75 percent of subjects with cleft were targets of unpleasant comments. Description provided by the patients of the studied group reveals that as early as in the age of two, as much as 32 percent of children experienced harassment, therefore, it would be indicated to include psychological support in the treatment process. Studies conducted by Hunt et al. demonstrate that it is harassment (and not the fact of a cleft presence itself) that may constitute a determinant for poor mental condition in persons with this deformity (23, 24).

In the light of presented studies, satisfaction of patients with speech-language therapy, not only due to effort of the speech-language pathologist, but also quality and functioning of speech, is high and interdependent. However, objective speech-language evaluation in terms of articulation and level of functioning of speech organs in studied patients demonstrates a different picture. Majority of patients with cleft palate, despite efforts of the doctors and therapists, as well as patients themselves, their families and teachers manifest serious speech defects, which limits people around them to understand what they are saying.

Highly ranked quality of work of the speech-language pathologists is gratifying, but objective evaluation confirmed that it is necessary to establish closer cooperation between the speech-language pathologists and orthodontists within the multidisciplinary group of specialists treating patients with clefs. In fact, speech-language consultation is longer than control visit at other specialist, therefore, presence of speech-language pathologist within the multidisciplinary group involved in cleft treatment requires different organization (25), but it is necessary. It is important that the patient with cleft could consult his/her case with speech-language pathologist, who is experienced in work with persons suffering from this defect, because if the speech-language pathologist does not have enough experience in this area, and not enough theoretical knowledge, suitable results of work are absent as well (9). Regular speech-language therapy may be conducted by the speech-language pathologist working close to the patient's place of residence, and executing recommendations provided by the clinic.

Conclusions

Evaluation of final outcomes of the multidisciplinary treatment in patients with cleft lip and palate demonstrates high clinical significance in order to make further development and to evaluate currently used therapeutic management standards. Used questionnaire and GOSLON score are good and simple research tools. Effort of the whole interdisciplinary team is crucial for the treatment outcome evaluation made by patients, and it would be also useful to introduce psychological care as well.

Subjective and objective evaluation of patients with congenital defects of the facial skeleton allows assessing treatment outcome in reference to time perspective. It is

Evaluation of interdisciplinary treatment outcomes in patients with cleft lip and palate. Part 1.

ocenić wyniki leczenia w odniesieniu do perspektywy czasowej. Warto śledzić efektywność terapii na przestrzeni lat oraz zwracać uwagę na wiek pacjentów w momencie uzyskiwania zadowalających wyników leczenia.

worth to track treatment efficacy over the years and pay attention to the age of the patients, when satisfactory treatment outcome is achieved.

Piśmiennictwo / References

1. Jones T, Al-Ghatam R, Atack N, Deacon S, Power R, Albery L, Ireland T, Sandy J. A review of outcome measures used in cleft care. *J Orthod* 2014; 41: 128-40.
2. Da Silva Filho OG, Marinho ET, De Cassia Moura Carvalho Lauris R. Influence of palatoplasty on occlusion of patients with isolated cleft palate. *Dental Press J Orthod* 2012; 17: 104-12.
3. Cassell CH, Daniels J, Meyer RE. Timeliness of primary cleft lip/palate surgery. *Cleft Palate Craniofac J* 2009; 6: 588-96.
4. Ysunza A, Pamplona MC, Quiroz J, Yudovich M, Molina F, Gonzalez S, Chavelas K. Maxillary growth in patients with complete cleft lip and palate, operated on around 4 – 6 month of age. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2010; 74: 482-5.
5. Ozawa T, Shaw W, Katsaros C, Kuijpers-Jagtman AM, Hagberg C, Rønning E, Semb G. A new yardstick for rating dental arch relationship in patients with complete bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2011; 48: 167-72.
6. Dunin-Wilczyńska I, Szymańska J, Dobrowolska-Zarzycka M, Sidorowicz Ł, Rodak J. Monitorowanie stanu zdrowia jamy ustnej. Wskaźniki stosowane w ortodoncji. *Zdr Publ* 2011; 2: 196-201.
7. Mars M, Plint DA, Houston WJ, Bergland O, Semb G. The Goslon Yardstick: a new system of assessing dental arch relationships in children with unilateral clefts of the lip and palate. *Cleft Palate J* 1987; 24: 314-22.
8. Noar JH. Questionnaire survey of attitudes and concerns of patients with cleft lip and palate and their parents. *Cleft Palate Craniofac J* 1991; 28: 279-84.
9. Shaw B, Semb G, Nelson P, Brattström V, Mølsted K, Prahl-Andersen B. The Eurocleft Project 1996-2000 IOS Press 2000; 8-9: 26.
10. Pruszewicz A. Foniatria kliniczna PZWL 1992: 250.
11. John A, Sell D, Sweeney T, Harding-Bell A, Williams A. The cleft audit protocol for speech-augmented: A validated and reliable measure for auditing cleft speech. *Cleft Palate Craniofac J* 2006; 43: 272-88.
12. Mossey PA, Little J, Munger RG, Dixon MJ, Shaw WC. Cleft lip and palate. *Lancet* 2009; 374: 1773-85.
13. Szeląg J, Noga L, Orłowska K, Pałka Ł, Paradowska A. Analiza wpływu endo i egzogennych czynników ryzyka w etiologii rozszczepów podniebienia pierwotnego i wtórnego. *Dent Med Probl* 2006; 43: 556-62.
14. Clifford E, Crocker EC, Pope BA. Psychological findings in the adulthood of 98 cleft lip-palate children. *Plast Reconstr Surg* 1972; 50: 234-7.
15. Strauss RP, Broder H, Helms RW. Perceptions of appearance and speech by adolescent patients with cleft lip and palate and by their parents. *Cleft Palate J* 1988; 25: 335-42.
16. Noor SFM, Musa S. Assessment of patients' level of satisfaction with cleft treatment using the cleft evaluation profile. *Cleft Palate Craniofac J* 2007; 44: 292-303.
17. Marcusson A, Paulin G, Ostrup L. Facial appearance in adults who had cleft lip and palate treated in childhood. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg* 2002; 36: 16-23.
18. Sinko K, Jagusch R, Prechtl V, Watzinger F, Hollmann K, Baumann A. Evaluation of aesthetic, functional, and quality-of-life outcome in adult cleft lip and palate patients. *Cleft Palate Craniofac J* 2005; 42: 355-61.
19. Fudalej P, Katsaros C, Bongaarts C, Dudkiewicz Z, Kuijpers-Jagtman AM. Nasolabial aesthetics in children with complete unilateral cleft lip and palate after 1- versus 3-stage treatment protocols. *J Oral Maxillofac Surg* 2009; 67: 1661-6.
20. Richman LC, McCoy TE, Conrad AL, Nopoulos PC. Neuropsychological, behavioral and academic sequelae of cleft: early developmental, school age and adolescent/young adult outcomes. *Cleft Palate Craniofac J* 2012; 49: 387-96.
21. Khattak ZG, Benington PC, Khambay BS, Green L, Walker F, Ayoub AF. An assessment of the quality of care provided to orthognathic surgery patients through a multidisciplinary clinic. *J Craniomaxillofac Surg* 2012; 40: 243-47.
22. Hortis-Dzierzbicka M, Dudkiewicz Z, Stecko E. Psychologiczne aspekty wady rozszczepowej twarzy. Mowa pacjenta z rozszczepem podniebienia WUW 2005; 119-23.
23. Hunt O, Burden D, Hepper P, Stevenson M, Johnston C. Parent reports of the psychosocial functioning of children with cleft lip and/or palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2007; 44: 304-11.
24. Hunt O, Burden D, Hepper P, Stevenson M, Johnston C. Self-reports of psychosocial functioning among children and young adults with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2006; 43: 598-605.
25. Jeffery SLA, Boorman JG. Patient satisfaction with cleft lip and palate services in a regional centre. *Br J Plast Surg* 2001; 54: 189-91.