

Systematisches Review zur Ermittlung wissenschaftlicher Evidenzen der Dysphagie bei LKGS-Fehlbildungen

Miriam Meinusch & Sandra Neumann

Pädagogik und Therapie bei Sprech- und Sprachstörungen
Universität zu Köln

1 Einleitung

Schlucken zählt zu den häufigsten Bewegungen, die der Mensch tagtäglich durchführt, und ist wesentlicher Bestandteil der menschlichen Nahrungsaufnahme. Nach Bartolome und Neumann (2006) beläuft sich die Anzahl der Schluckakte auf 580 bis 2000 pro Tag. Der Schluckvorgang stellt einen hochkomplexen Vorgang dar, der zeitlich und motorisch exakt koordiniert ist und woran etwa 50 orofaziale Muskelpaare beteiligt sind.

Schluckstörungen organischer Ursache können per definitionem zu den orofazialen Dysfunktionen gezählt werden, da hier kongenitale, erworbene oder habituell bedingte Veränderungen orofazialer Strukturen zu einer Funktionsbeeinträchtigung im Sinne eines Muskelungleichgewichts führen. Schluckstörungen im Kontext von orofazialen Dysfunktionen sind meist durch pathologisches Zungenpressen (Tongue thrust/TT) gekennzeichnet, wobei die Zunge beim Schlucken oder bei der Artikulation addental bzw. interdental vorverlagert ist (Bigenzahn, 2002; Garliner, 1989). Garliner (1989) unterscheidet in Abhängigkeit von der Zungenlage zwischen anteriorem, bilateralem und totalem Schluckmuster. Bigenzahn (2002) fasst diese Formen als „infantiles Schluckmuster“ zusammen, welches als pathologisch zu betrachten ist, wenn es nach dem vierten Lebensjahr beibehalten wird. Das infantile Schluckmuster ist häufig durch offenstehende Lippen und Zahnreihen infolge der hypotonen Wangenmuskulatur sowie durch Hyperaktivität des M. mentalis

gekennzeichnet. Die extraorale Muskulatur (M. orbicularis oris, M. mentalis, M. buccinator) wirkt oftmals kompensatorisch, um den Bolustransport zu ermöglichen (Struck & Mols, 2002).

Menschen mit Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Fehlbildungen (LKGSF) sind einer Vielzahl von Einschränkungen im orofazialen Bereich ausgesetzt, die ihren Ursprung in veränderten anatomisch-funktionellen Bedingungen haben (Meinus, 2010; Neumann, 2010; Peterson-Falzone, Hardin-Jones & Karnell, 2010). Kinder mit LKGS-Fehlbildung sind in ihrer oralen Organisation beeinträchtigt, da sie schon von der 7.–12. Embryonalwoche an durch die Fehlbildung der Lippe, des Kiefers sowie des harten und weichen Gaumens unter einer orofazialen Dysbalance leiden, welche sich durch späte Gaumen- bzw. Gaumen-Segel-Operationen (G/GS-OP > 1;6) und Auslassung einer frühen orofazialen Stimulation noch verstärken kann. Die eingeschränkte Funktion und Sensibilität der Lippen, der Zunge und des velopharyngalen Sphinkters sind hierbei besonders hervorzuheben (Codoni, 2004; Peterson-Falzone et al., 2010).

Die im orofazialen Gesamtsystem erfassten Organe wie Mund, Nase und Ohren unterliegen bei einer LKGS-Fehlbildung nicht einer isolierten Störung, sondern aufgrund ihres vernetzten Zusammenwirkens einer Mehrzahl von sich gegenseitig aufrechterhaltenden Beeinträchtigungen (Neumann, 2010). Die Autorin stellt die Hypothese auf, dass das betroffene Kind seine Mundhöhle als das in diesem Alter entscheidende Organ zur Erfassung der Umwelt und zum Sammeln wichtiger perzeptiver Erfahrungen nur eingeschränkt nutzen kann, da parallel zur oralen Organisation die notwendigen Primäroperationen stattfinden.

Bei einer Lippenspalte ist häufig kein Mundschluss möglich, was das Umschließen des Saugers bzw. der Brustwarze beeinträchtigt und dazu führen kann, dass bei der Nahrungsaufnahme zusätzlich Luft geschluckt wird. Der Schluckakt ist bei einer unoperierten Gaumen-Segel-Fehlbildung insofern beeinträchtigt, als durch die Zunge Nahrung in den Nasopharynx gepresst wird und eine Aspiration nicht ausgeschlossen werden kann.

Wohlleben (2004) erkennt bei Kindern mit totalen, ein- oder doppelseitigen Fehlbildungen einen fehlenden oder ungenügenden Lippenschluss beim Saugen und ein automatisches Regulieren des Flüssigkeitsstroms durch reaktives Zurückziehen des Zungenrückens nach hinten oben, was eine deutliche Tonuserhöhung in der hinteren Zunge bei gleichzeitigem schlaffen Absinken des vorderen und mittleren Zungendrittels auslöst. „Prinzipiell ist damit ein Patient mit einer LKG-Spalte als ein Risikopatient hinsichtlich des Spracherwerbs und des Schluckens anzusehen“ (Henkel, Dieckmann, Dieckmann & Gundlach, 2002, S. 317; Scherer & D’Antonio, 1995).

Die internationale Fachliteratur stellt einen Zusammenhang von LKGS-Fehlbildungen und Schluckstörungen her, wobei die Anführung von wissenschaftlichen Evidenzen jedoch meist ausbleibt. Im vorliegenden systematischen Review soll daher aufgezeigt werden, welche Evidenzen aus Studien zur Dysphagie bei LKGS-Fehlbildung herausgestellt werden können und wie diese für den sprachtherapeutischen Kontext zu bewerten sind.

2 Fragestellung

Als leitende Fragestellung des Projektes konnte die Prävalenz und das spezifische Erscheinungsbild der Dysphagie bei Menschen mit LKGSF aufgeworfen werden.

Das systematische Review verfolgt daher das Ziel, die Prävalenz und Symptomatologie der Dysphagie bei verschiedenen LKGS-Fehlbildungen in verschiedenen Altersgruppen zu erarbeiten, um evidenzbasierte Ziele in der sprachtherapeutischen Diagnostik und Therapie ableiten zu können.

3 Methodik

Es wurde eine systematische Literaturrecherche in internationalen Online-Datenbanken (MEDLINE, EMBASE, PSYINDEX, AMED, PsycInfo, SciSearch, SocialSciSearch, Cochrane Central, Verlagsdatenbanken von Hogrefe, Karger, Krause & Pachernegg, Thieme) für Publikationen ab 1965 durchgeführt. Als Suchitems wurden die Begriffe „cleft palate“, „cleft lip“, „swallowing“, „deglutition“ und „dysphagia“ in verschiedenen Korrelationen verwendet (s. Tab. 1). Zusätzlich wurde eine Handsuche im Cleft Palate-Craniofacial Journal von 1965 bis Ausgabe 3/2010 sowie in Referenzlisten identifizierter Publikationen ausgeführt.

Tabelle 1

Verwendete Suchitems für die Datenbankrecherche in MEDLINE

Search strategy: MEDLINE (25.05.2010)
1. cleft lip
2. cleft palate
3. 1 OR 2
4. deglutition
5. swallowing
6. dysphagia
7. 4 OR 5 OR 6
8. 3 AND 7

Eingeschlossen wurden deutsch- und englischsprachige Primärstudien, die den Schluckakt bei Menschen mit unterschiedlichen LKGS-Fehlbildungen untersuchten. Hinsichtlich des Studiendesigns und des Alters der Probanden wurden keine Einschränkungen vorgenommen.

Die identifizierten Studien wurden bezüglich folgender Parameter analysiert: Evidenzlevel (Phillips, Ball, Sackett, Badenoch, Straus, Haynes & Dawes, 2009), Risk of Bias (Greenhalgh, 2010; Higgins & Green, 2009), Probandencharakteristika (Anzahl, Alter, LKGS-Fehlbildungsart) sowie Diagnostikverfahren und Studienresultate. Als Grundlage für den Aufbau des Reviews diente das Prisma-Statement (Liberati, Altman, Tetzlaff, Mulrow, Gøtzsche, Ionnadis & Clarke, 2009).

4 Ergebnisse

4.1 Studienauswahl

Bei der systematischen Literaturrecherche zur Dysphagie bei LKGS-Fehlbildungen konnten insgesamt 242 Studien identifiziert werden. Davon wurden 216 Studien ausgeschlossen, da diese explizit chirurgische Maßnahmen bzw. syndromale Auswirkungen in Bezug zu einer LKGSF zum Inhalt hatten. Nach Durchsicht der verbliebenen 26 Volltexte wurden 16 weitere Studien ausgeschlossen, da diese die Effektivität einer sekundären chirurgischen Maßnahme auf den Schluckakt untersuchten, was nicht den Einschlusskriterien entsprach. Letztendlich konnten 10 Studien in das Review eingeschlossen werden (s. Abb. 1).

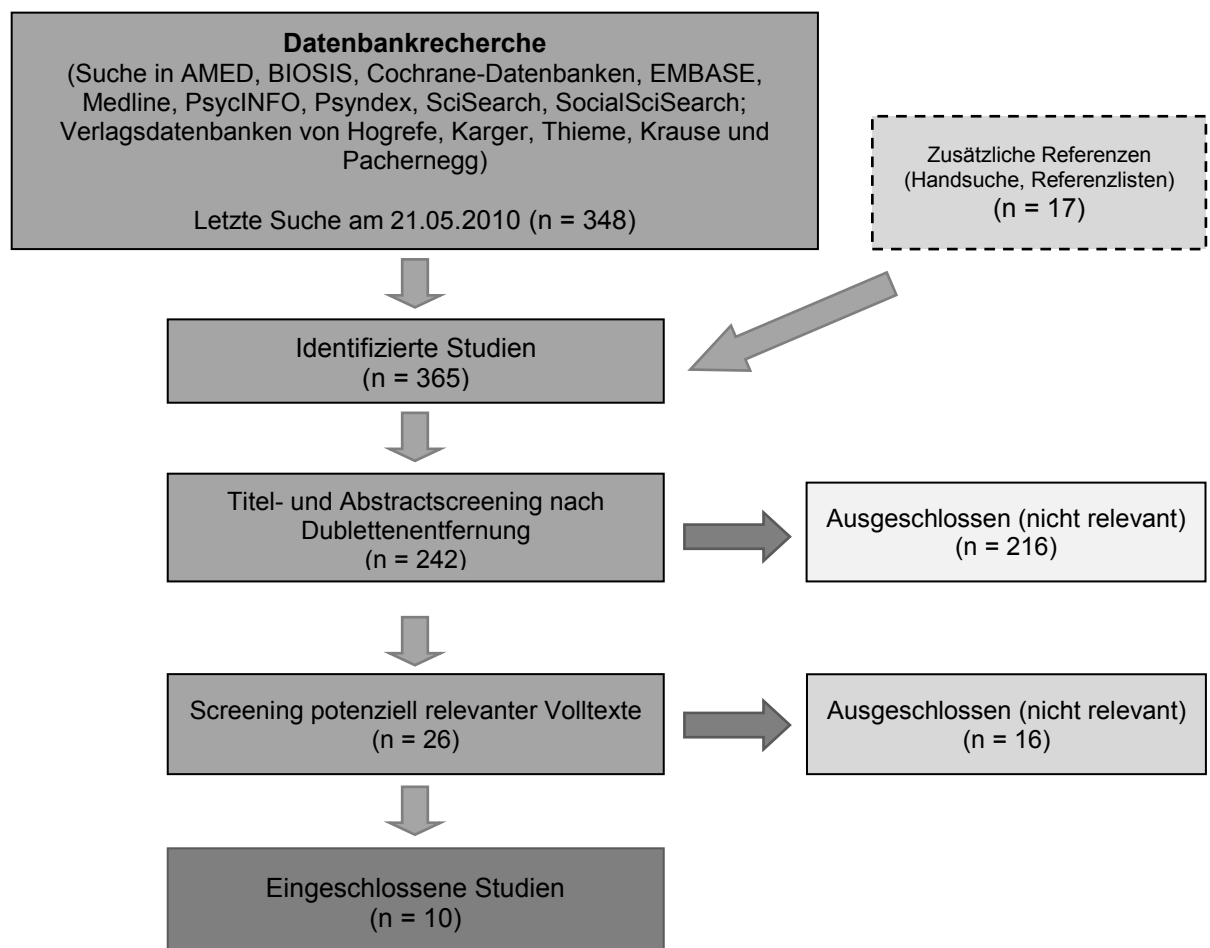


Abbildung 1. Flow-Chart der Studienauswahl.

4.2 Studiencharakteristika

Die eingeschlossenen Studien waren bezüglich ihrer Eigenschaften sehr heterogen. Drei Studien stammten aus Deutschland (n=3; Henkel et al., 2002; Müßig & Pröschel, 1993; Opitz, Hochmuth, Rabe & Subklew, 1997), während jeweils zwei Studien in den USA (n=2; Flowers & Morris, 1973; Shelton, Brooks & Youngstrom, 1966), Japan (n=2; Nagaoka & Tanne, 2007; Sakuda, Lowe, Hiraki & Sugimura, 1988) und in Chile (n=2; Caravajal et al., 1992; Ravera et al., 2000) entstanden sind. Eine Studie war polnischer Herkunft (n=1; Pruszewicz, Obrebowski, Stachowski & Kaczmarek, 1971). Der Publikationszeitraum der Studien reichte von 1966 bis 2007, wobei über die Hälfte aller Studien (n=5) aus den vergangenen 20 Jahren stammt. Das Studiendesign betreffend waren nur prospektive Studien zu finden, darunter fünf Fallkontrollstudien (Evidenzlevel IIIb) sowie vier Fallserien ohne Kontrolle (Evidenzlevel IV). Nur die Studie von Henkel et al. (2002) wies Eigenschaften einer Kohortenstudie auf und kann somit dem am höchsten erreichten Evidenzlevel Ib (Phillips et al., 2009) zugeordnet werden.

Die Gesamtpopulation der untersuchten Probanden mit LKGSF umfasste 400 Teilnehmer, mit überwiegendem Anteil der einseitigen LKGS-Fehlbildung. Insgesamt wurde ein sehr breites Spektrum an Fehlbildungsarten untersucht, wobei fast alle Probanden Fehlbildungen des Gaumens aufwiesen. In den Kontrollgruppen waren zusammenfassend 245 Personen zu finden (s. Abb. 2), davon 197 allein bei Henkel et al. (2002).

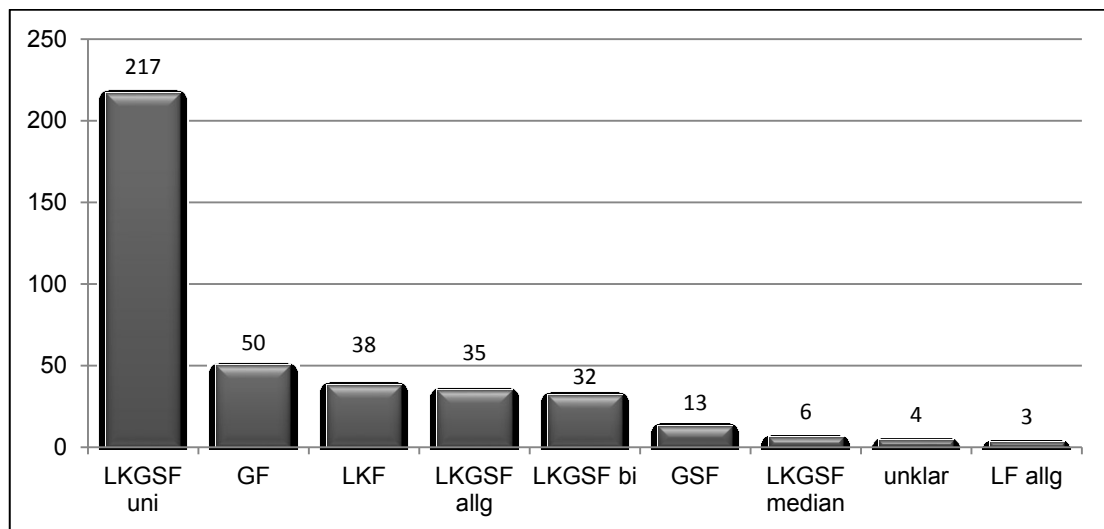
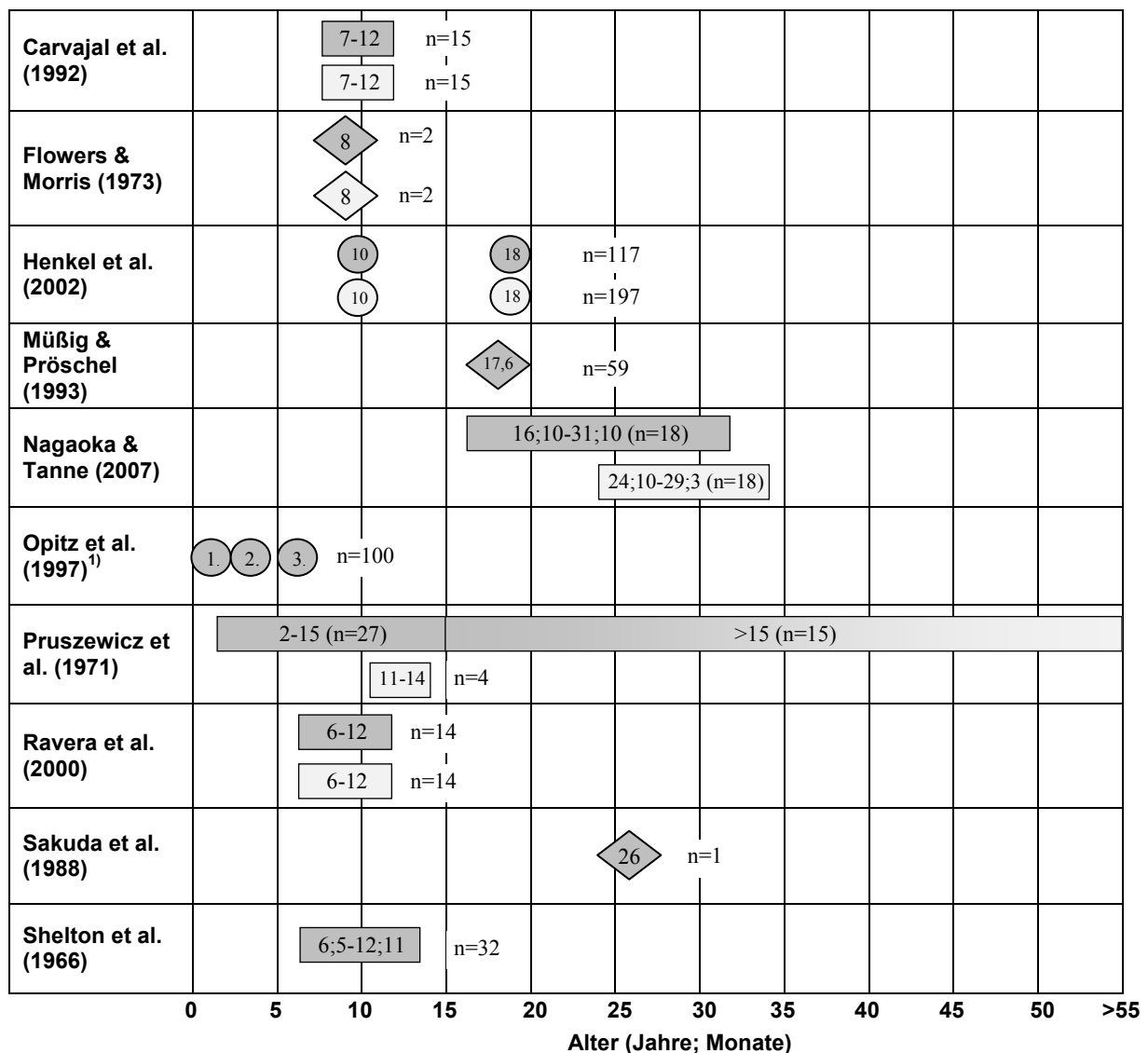


Abbildung 2. Anzahl der Probanden je nach Fehlbildungsart.

Die eingeschlossenen Studien untersuchten meist mehrere Fehlbildungsarten, wobei nur Henkel et al. (2002) und Pruszewicz et al. (1971) eine differenzierte Auswertung diesbezüglich vornahmen. Die übrigen Studien mit mehreren eingeschlossenen Fehlbildungsarten fassten diese für die Ergebnisanalyse zu einer Gruppe zusammen. Drei Studien untersuchten ausschließlich Probanden mit einseitiger LKGSF (Ravera et al., 2000; Sakuda et al., 1988) bzw. mit isolierter Gaumensegel-Fehlbildung (Flowers & Morris, 1973).

Die schwerpunktmäßig untersuchte Altersgruppe waren Kinder zwischen 2 und 12 Jahren (n=280, s. Abb. 3). In den verbliebenen Studien wurden gemischte Altersgruppen bestehend aus Jugendlichen und Erwachsenen (Müßig & Pröschel, 1993; Nagaoka & Tanne, 2007) oder Kindern und Erwachsenen (Henkel et al., 2002) eingeschlossen, während Sakuda et al. (1988) nur eine erwachsene Person untersuchten.



¹⁾ 1. 2;6-3;0; 2. 3;6-4;0; 3. 7;0-8;0

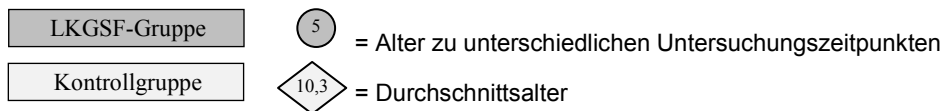


Abbildung 3. Altersverteilung der Probanden innerhalb der Studien.

4.3 Outcome Measurement

Zur Analyse des Schluckvorgangs wurden je nach Untersuchungsschwerpunkt unterschiedliche Diagnostikverfahren angewendet. So ermittelten Henkel et al. (2002) die Schluckmuster mit der Payne-Technik nach Garliner (1989), während Opitz et al. (1997) anhand nicht näher genannter logopädischer Befunde die Zungenposition während des




Schluckens untersuchten. Die Muskelaktivität verschiedener am Schluckakt beteiligter Muskeln wurde in vier Studien durch eine elektromyographische Untersuchung erfasst (Carvajal et al., 1992; Nagaoka & Tanne, 2007; Pruszewicz et al., 1971; Ravera et al., 2000). In drei weiteren Studien stand die Analyse von Bewegungsabläufen während des Schluckens bei Probanden mit und ohne LKGSF im Fokus und wurde mit Hilfe von Röntgenfilmen (Cineradiographie) umgesetzt (Flowers & Morris, 1973; Sakuda et al., 1988; Shelton et al., 1966), während Müßig und Pröschel (1993) zu diesem Zweck die Nasopharyngoskopie verwendeten.

4.4 Risk of Bias in eingeschlossenen Studien

Für die Beschreibung der Testgruppen, das verwendete Diagnostikverfahren, Vollständigkeit der Ergebnisdaten (Incomplete Outcome Data) sowie die berichteten Endpunkte (Selective Outcome Reporting) war das Bias-Risiko überwiegend gering. Ungewisses Bias-Risiko wurde in allen Studien für die Verblindung der Ergebnisdaten angenommen, wobei diese Kategorie bei bildgebenden Verfahren nur schwer umzusetzen ist. Hohes Bias-Risiko wurde für die Vergleichbarkeit der Studiengruppen aufgrund quantitativer Unterschiede der Gruppengrößen bzw. der Verteilung der LKGS-Fehlbildungsarten angenommen. Ein- und Ausschlusskriterien wurden in fast allen Studien nicht genannt, was zu hohem Bias-Risiko führte. Insgesamt überwog geringes Bias-Risiko gegenüber ungewissem Bias-Risiko, während hohes Verzerrungspotential am seltensten auftrat (s. Tab. 2).

Tabelle 2

Risk of Bias innerhalb der einzelnen Studien

	Beschreibung der Testgruppen	Vergleichbarkeit der Testgruppen	Ein- und Ausschlusskriterien	Diagnostikverfahren	Durchführung der Diagnostik	Verblindung der Ergebnisdaten	Vollständigkeit der Ergebnisdaten	Endpunkte
Carvajal et al. (1992)	✓	✗	✗	✓	✓	?	✓	✓
Flowers & Morris (1973)	✓	✗	✗	✓	?	?	✓	✓
Henkel et al. (2002)	✓	✗	✗	✓	?	?	✓	✓
Müßig & Pröschel (1993)	✓	✗	?	✓	?	?	✓	✓
Nagaoka & Tanne (2007)	?	?	✗	✓	✓	?	✓	✓
Opitz et al. (1997)	✓	✗	✗	?	?	?	✓	?
Pruszewicz et al. (1971)	?	✗	✗	✓	?	?	✗	✗
Ravera et al. (2000)	✓	✓	✗	?	?	?	✓	✓
Sakuda et al. (1988)	✓	✗	✗	✓	✓	?	✓	✓
Shelton et al. (1966)	✓	✗	✗	✓	?	?	?	?
 geringes Bias-Risiko,  ungewisses Bias-Risiko,  hohes Bias-Risiko								

Die Betrachtung der methodologischen Qualität der einzelnen Studien zeigte, dass sieben Studien mindestens 50 % geringes Verzerrungspotential aufwiesen, während dieses bei Shelton et al. (1966), Pruszewicz et al. (1971) und Opitz et al. (1997) wesentlich geringer auftrat. Alle Studien zeigten in mindestens einer Kategorie ungewisses Bias-Risiko, welches bei Shelton et al. (1966) und Opitz et al. (1997) mit 50 % den größten Anteil gegenüber den anderen Forschungsarbeiten ausmachte.

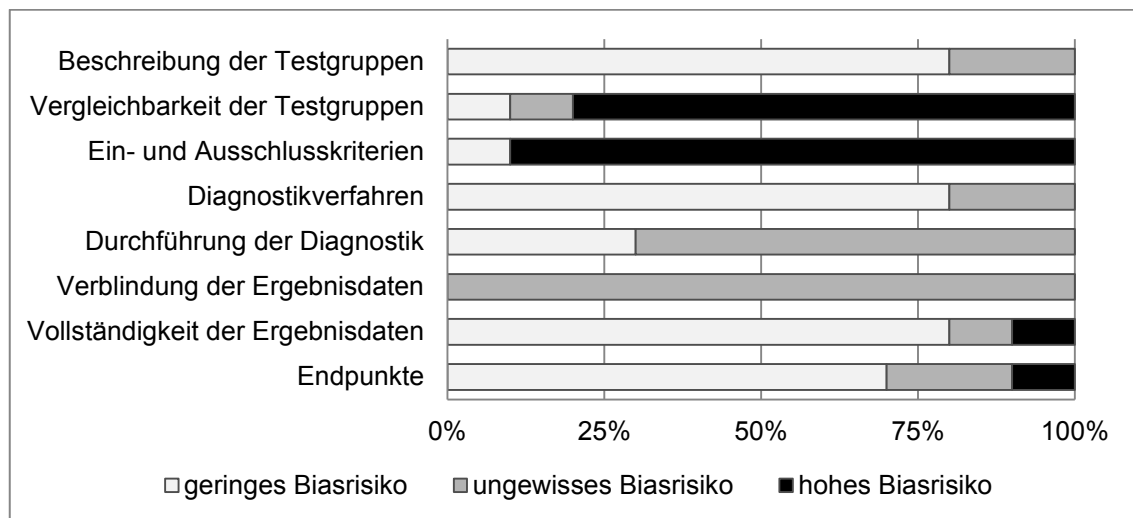


Abbildung 4. Prozentuale Verteilung der einzelnen Bias-Kriterien.

Ein hohes Bias-Risiko war bei Pruszewicz et al. (1971) mit 50 % am höchsten, während es in den anderen Studien in ein bzw. zwei Kategorien auftrat. Insgesamt kann bei keiner der Studien eine besonders hohe methodologische Qualität festgestellt werden, allerdings wird deutlich, dass diese vor allem bei Shelton et al. (1966), Pruszewicz et al. (1971) und Opitz et al. (1997) als niedrig einzuschätzen ist (s. Abb. 4).

4.5 Studienergebnisse

Nachfolgend werden die Studienresultate zum Schluckvorgang bei LKGS-Fehlbildung je nach Untersuchungsschwerpunkt und Fehlbildungsart vorgestellt.

4.5.1 Schluckmuster

Henkel et al. (2002) untersuchten die Schluckmuster bei Probanden mit ein- oder beidseitiger LKGSF, Lippen-Kiefer- bzw. isolierter Gaumen-Segel-Fehlbildung zum Untersuchungszeitpunkt von 10 und 18 Jahren. Die Kontrollgruppe bekam sprachtherapeutische und kieferorthopädische Behandlungen, während bei Probanden der LKGSF-Gruppe eine interdisziplinäre Therapie bestehend aus kieferorthopädischen und

-chirurgischen Maßnahmen bis zum Alter von 18 Jahren durchgeführt wurde.

Insgesamt konnte kein statistisch signifikanter Unterschied zwischen den LKGSF-Gruppen und der Normalstichprobe ermittelt werden (s. Abb. 5 und 6). Das physiologische Schluckmuster war in allen Gruppen mit 10 Jahren signifikant seltener als mit 18 Jahren beobachtet worden ($p < .01$). Bei den 18-jährigen mit einseitiger ($n=31$) oder beidseitiger LKGSF ($n=15$) war das physiologische Schluckmuster signifikant seltener als bei Probanden mit Lippen-Kiefer-Fehlbildung ($n=38$) oder Gaumen-Segel-Fehlbildung ($n=33$) ($p < .01$). Das anteriore Schluckmuster charakterisierte sich als der häufigste pathologische Schlucktyp ($p < .05$).

Bezüglich der Prävalenz in Hinblick auf die Fehlbildungsart war der Anteil pathologischer Schluckmuster bei Studienteilnehmern mit beidseitiger LKGSF im Alter von 18 Jahren am höchsten, während die Probanden der anderen LKGSF-Gruppen zu hohen Anteilen keine Auffälligkeiten zeigten. Vor allem Probanden mit Gaumen-Segel- oder Lippen-Kiefer-Fehlbildung waren hinsichtlich der anteiligen physiologischen Schluckmuster der Kontrollgruppe am ähnlichsten.

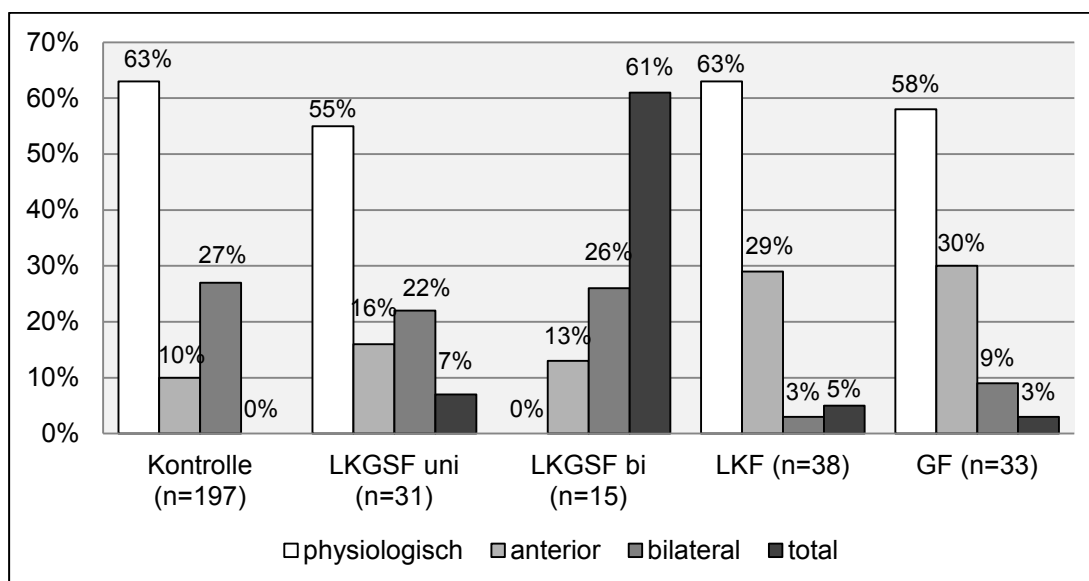


Abbildung 5. Verteilung der Schluckmuster auf die Testgruppen mit 10 Jahren (vgl. Henkel et al., 2002, 316f).

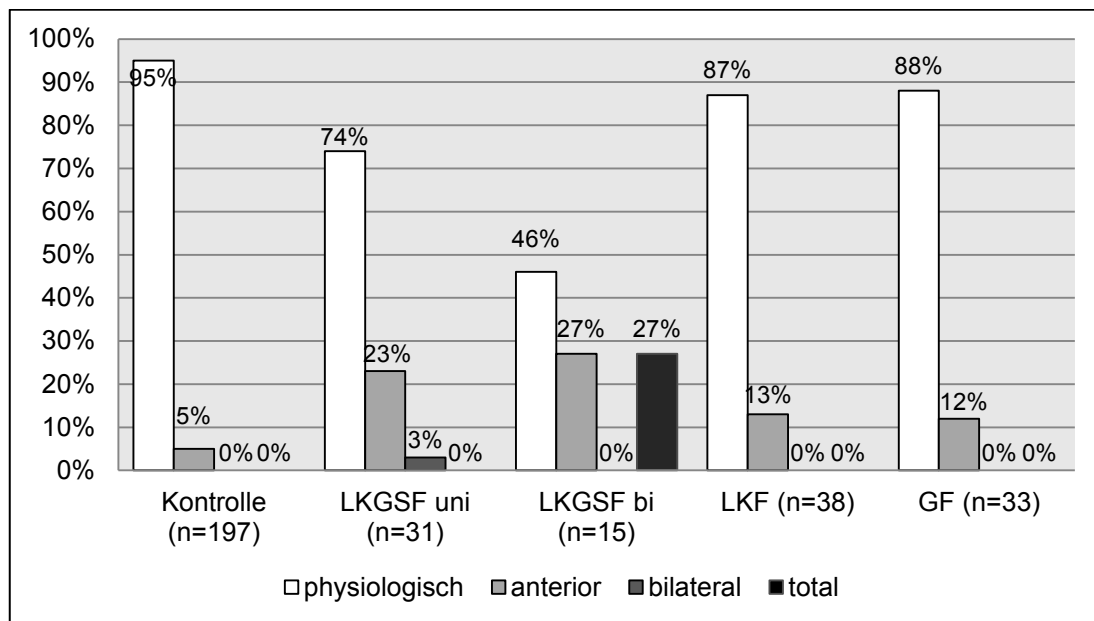


Abbildung 6. Verteilung der Schluckmuster auf die Testgruppen mit 18 Jahren (vgl. Henkel et al., 2002, 316f).

Opitz et al. (1997) untersuchten die Zungenposition bei 100 Kindern mit einseitiger LKGSF im Alter von 2;6–3;0, 3;6–4;0 sowie 7;0–8;0. Zum ersten Untersuchungszeitpunkt zeigten 70 Kinder eine noch entwicklungsnormale interdental Zungenlage beim Schlucken, was mit zunehmendem Alter physiologisch abbaute. Im Alter von 7 bis 8 Jahren lag die Zunge nur noch bei 20 Kindern interdental. Zusätzlich konnte ein Zusammenhang von funktionellen und gebismorphologischen Auffälligkeiten im Sinne von Okklusionsstörungen festgestellt werden.

4.5.2 Muskelaktivität beim Schluckakt

Carvajal et al. (1992) fanden bei Kindern im Alter von 7 bis 10 Jahren mit einseitiger (n=5) und beidseitiger LKGSF (n=2) mit inkomplettem Lippenschluss hohe Aktivitätswerte des M. orbicularis oris superior während des Schluckens, während die verbliebenen Probanden (n=8) ähnlich niedrige Werte wie die Kontrollgruppe (n=15) erreichten. Der Vergleich der LKGSF-Gruppe mit der Normalstichprobe war signifikant ($p < .05$).

Ravera et al. (2000) stellten für Kinder mit einseitiger LKGSF und inkomplettem Lippenschluss (n=14) ebenfalls signifikant höhere Aktivitätswerte des M. orbicularis oris superior beim Schlucken ($p < .01$) und in Ruhe ($p < .05$) gegenüber der Kontrollgruppe (n=14) fest. Pruszewicz et al. (1971) ermittelten geringere Aktivitätswerte des M. orbicularis oris für Probanden mit ein- und beidseitiger LKGSF (n=20). Gleiches konnten sie jedoch auch für Probanden mit Lippen-Fehlbildung (n=3), isolierter Segel-Fehlbildung (n=17) und submuköser Gaumen-Fehlbildung (n=2) eruieren. Die Autoren stellten in der gesamten LKGSF-Gruppe höhere muskuläre Aktivitätswerte der Gaumen- und Rachen-sphinktermuskulatur während des Schluckens als bei der Artikulation fest, was sich in der Kontrollgruppe (n=4) umgekehrt verhielt.

Bei der EMG-Analyse der Zungenbeinmuskulatur durch Nagaoka und Tanne (2007) zeigte sich, dass in der LKGSF-Gruppe (n=18) der Zungenbeinsenker (M. thyrohyoideus) signifikant höhere Aktivitätswerte und eine längere Aktivitätsdauer als in der Kontrollgruppe (n=18) aufwies. Dies war sowohl mit als auch ohne künstlich herbeigeführte nasale Abdichtung, welche einen velopharyngalen Abschluss beim Schlucken simulieren sollte, der Fall. Der Zungenbeinheber (M. mylohyoideus) sowie der M. geniohyoideus, der das Zungenbein während des Schluckens nach vorn zieht, zeigten ohne nasale Obstruktion niedrigere, jedoch statistisch nicht signifikante Aktivitätswerte, als die Kontrollgruppe (n=18). Mit nasaler Obstruktion glichen die Werte beider Muskeln jenen der Kontrollgruppe, während die Aktivitätsdauer dieser Muskeln in der Kontrollgruppe mit nasaler Obstruktion signifikant länger war. Insgesamt war die orale Phase in der LKGSF-Gruppe kürzer, während die pharyngale Phase länger andauerte als in der Kontrollgruppe.

4.5.3 Pathologische Bewegungsabläufe während des Schluckakts

Die eingeschlossenen Studien, welche die Bewegungsabläufe des Schluckens bei Probanden mit und ohne LKGS-Fehlbildung untersuchten, machten in der Auswertung nur deskriptive Angaben, welche im Folgenden zusammengefasst sind.

Durch die Analyse der Bewegungsabläufe mit Hilfe des bildgebenden Verfahrens der Cineradiographie bei Shelton et al. (1966) konnten drei abweichende Schluckmuster bei Kindern mit LKGSF oder isolierten Fehlbildungen des Gaumens (n=32) beobachtet werden, welche sich hauptsächlich in der Zungenbewegung unterschieden. In der Auswertung wurde jedoch keine quantitative Zuteilung der Schluckmuster auf die Testpersonen vorgenommen. Ein beobachtetes Schluckmuster wurde als „free fall“ (freier Fall) des Bolus in den Ösophagus während der oralen Phase beschrieben, während andere Bewegungsabläufe normal verliefen. Eine weitere Form der pathologischen Schluckbewegung war charakterisiert durch den Kontakt der Zunge mit dem vorderen Gaumen vor dem „free fall“ und anschließendem Kontakt vom hinteren Zungenteil mit dem Gaumen. Ein drittes beobachtetes Muster war gekennzeichnet durch fehlenden Zungen-Gaumen-Kontakt nach dem „free fall“. Bei 18 der untersuchten LKGSF-Subjekte wurde der beschriebene „free fall“ des Bolus beobachtet, während die übrigen 14 Probanden mit LKGS-Fehlbildung keine Auffälligkeiten während des Schluckaktes zeigten.

Mit dem gleichen Verfahren wie Shelton et al. (1966) konnten Flowers und Morris (1973) bei zwei 8-jährigen Kindern mit isolierter Gaumen-Segel-Fehlbildung einen teilweisen velopharyngalen Abschluss beim Schlucken feststellen. Außerdem wurde bei einem Kind während des Schluckens eine höhere Velumposition festgestellt. Eines der Kinder zeigte eine velopharyngale Inkompetenz während der Artikulation. Beide Probanden zeigten im Vergleich zur Kontrollgruppe (n=2) umfangreichere Bewegungen der hinteren Pharynxwand, was als Kompensationsmechanismus aufgrund des eingeschränkten velopharyngalen Abschlus-

ses gedeutet wurde. Bezugnehmend auf Shelton et al. (1966) konnte bei keinem der Probanden ein „free fall“ des Bolus beobachtet werden.

Sakuda et al. (1988) überprüften das Schlucken in einer Einzelfallstudie bei einer Person mit einseitiger LKGSF vor und nach abgeschlossener Primäroperation im Erwachsenenalter. Vor der Operation wurde beobachtet, dass die Zunge während des Schluckens angehoben wurde, um kompensatorisch die Fehlbildung des Gaumens zu verschließen. Außerdem passierte der Bolus teils laterale Anteile der Zunge, statt auf ihr zu liegen, und es wurde auch hier der von Shelton et al. (1966) beschriebene „free fall“ des Bolus gegen Ende der oralen Phase beobachtet. Nach erfolgter Primäroperation wurde der freie Fall zunächst noch beobachtet, wobei 18 Monate nach dem Eingriff ein nahezu normales Schluckmuster festgestellt werden konnte.

Der velopharyngale Abschluss während des Schluckens und der Artikulation wurde von Müßig und Pröschel (1993) bei Erwachsenen mit LKGS-Fehlbildungen (n=59) anhand des Einsatzes einer Nasopharyngoskopie untersucht. Alle Probanden erreichten beim Schlucken einen vollständigen Abschluss, was während der Artikulation des velaren Plosivs /k/ nur 61 % der Studienteilnehmer (n=36) gelang. Ein Vergleich mit einer Normalpopulation wurde nicht angestellt.

5 Diskussion

Zusammenfassend konnten Evidenzen für pathologische Schluckmuster vor allem bei Henkel et al. (2002) für die beidseitige LKGS-Fehlbildung gefunden werden. Die hohen Aktivitätswerte des M. orbicularis oris in der Arbeit von Ravera et al. (2000) bei Probanden mit einseitiger LKGSF deuten ebenfalls auf einen abweichenden Schluckvorgang hin. Zum gleichen Ergebnis kamen Caravajal et al. (1992) bei Studienteilnehmern mit ein- und beidseitiger LKGSF, was auch von Nagaoka und Tanne (2007) nach EMG-Analyse der Zungenbeinmuskulatur bestätigt wurde. Shelton et al. (1966) konnten ebenfalls bei Probanden mit ein- oder

beidseitiger LKGSF einen abweichenden Schluckvorgang beobachten, der durch einen verfrühten „free fall“ des Bolus in den Ösophagus gekennzeichnet war. Gleiches galt für Probanden mit isolierter Gaumen-Segel-Fehlbildung. Flowers und Morris (1973) konnten bei zwei Probanden mit isolierter Gaumen-Segel-Fehlbildung einen teilweisen velopharyngealen Abschluss beim Schlucken feststellen, während Müßig und Pröschel (1993) dies für alle Studienteilnehmer mit ein- oder beidseitiger LKGSF beobachten konnten. Bei Henkel et al. (2002) zeigten sich lediglich bei den 10-jährigen Probanden mit isolierten Gaumen-Segel-Fehlbildungen und Lippen-Kiefer-Fehlbildungen jeweils bei etwa einem Drittel ein pathologisches Schluckmuster in Form eines anterioren Schluckmusters, wohingegen im Alter von 18 Jahren eine ähnliche Verteilung der Schluckmuster wie in der Kontrollgruppe festgestellt wurde.

Es konnten demnach wissenschaftliche Evidenzen für einen gestörten Schluckakt bei Kindern und Erwachsenen mit LKGS-Fehlbildung herausgestellt werden. Aufgrund zu kleiner Stichproben sind jedoch keine repräsentativen Aussagen zur Prävalenz möglich. Bedenklich ist die ermittelte Hypertonie des M. orbicularis oris in Ruhe. Zudem scheint eine verkürzte Oberlippe bei Lippenfehlbildung einen vollständigen Lippenabschluss während des Schluckens zu verhindern. Mögliche Folgen der permanenten Muskelaktivität sind negative Kräfteeinwirkungen auf das Kiefer- und Gesichtsschädelwachstum.

Des Weiteren konnten vor allem bei Kindern mit ein- oder beidseitiger LKGSF pathologische Schluckmuster in Form einer anterioren und interdentalen Zungenposition nachgewiesen werden. Die vorliegenden Ergebnisse verlangen eine systematische sprachtherapeutische Evaluierung des Schluckaktes bei Klienten mit LKGS-Fehlbildung, um Einschränkungen in diesem Bereich aufzudecken und gegebenenfalls therapeutisch anzugehen bzw. vorzubeugen.

Zusammenfassend war die Qualität der Studien zumeist aufgrund zu kleiner und heterogener Stichproben sowie unvollständigen Angaben das Studiendesign betreffend nicht überzeugend. Eine differenzierte Auswertung hinsichtlich unterschiedlicher Fehlbildungsarten war zudem nicht in allen Studien gegeben. Zukünftig müssen weitere Studien mit repräsentativen Stichproben und eindeutigeren Ausschlusskriterien erarbeitet werden, um klare Evidenzen zu erhalten. Hier empfehlen sich EMG-Untersuchungen, um die Muskelaktivität verschiedener am Schluckakt beteiligter Muskeln zu überprüfen. Generell sind prospektive Kohortenstudien mit großen Studienpopulationen zur Beurteilung möglicher Dysphagien bei Menschen mit LKGS-Fehlbildung erforderlich, um exakte Evidenzen ermitteln zu können.

Idealerweise sollten eingeschlossene LKGSF-Probanden die identische Fehlbildungsart aufweisen und nach dem gleichen Konzept chirurgisch behandelt worden sein sowie eine klar eingegrenzte Altersgruppe umschreiben, um eine genaue Vergleichbarkeit anzustreben. Die quantitativ mindestens gleich große Kontrollgruppe sollte einer vergleichbaren Altersgruppe angehören und keinerlei Auffälligkeiten im orofazialen Bereich aufweisen, um einen adäquaten Vergleich zur Normalpopulation herzustellen. Nur so können wirkliche Abweichungen in der LKGSF-Gruppe identifiziert werden. Der Einsatz objektiver Diagnostikverfahren in mehreren Untersuchungsdurchgängen zu unterschiedlichen Zeitpunkten im Sinne einer Kohortenstudie (Higgins & Green, 2009) ist obligat und stärkt die Validität der Studienresultate. Eine differenzierte Auswertung der Ergebnisdaten unter Verwendung statistischer Verfahren ist dringend notwendig, um internationale Vergleiche zu ermöglichen. Zukünftig publizierte Studien müssten zudem alle Forschungsinhalte und -methoden transparent veranschaulichen. Dazu zählen z. B. genaue Angaben zu den Probandeneigenschaften, die das Alter, die Fehlbildungsart sowie die Konzepte erfolgter chirurgischer Maßnahmen beinhalten.

Die durch dieses Review gefunden Evidenzen haben aufgrund qualitativer Unterschiede zumeist nur hinweisenden Charakter hinsichtlich

evidenzbasierter Implikationen für den praktischen Umgang mit Menschen mit LKGS-Fehlbildung. Eine diagnostische Abklärung im sprachtherapeutischen Kontext der in diesem Review betrachteten Dysphagie bei LKGSF sollte obligatorisch sein. Im neuen Diagnostik- und Dokumentationsinventar „LKGSF komplex“ von Neumann (in Vorb.) findet diese bereits Berücksichtigung. Hier können orofaziale Störungen im Schluckbewegungsablauf detailliert diagnostiziert und dokumentiert werden, um eine ideale Therapieplanung zu ermöglichen.

6 Literatur

- Bartolome, G. & Neumann, S. (2006). Physiologie des Schluckvorgangs. In G. Bartolome (Hrsg.), *Schluckstörungen. Diagnostik und Rehabilitation* (15–35). München: Elsevier.
- Bigenzahn, W. (2002). *Orofaziale Dysfunktionen im Kindesalter. Grundlagen, Klinik, Ätiologie, Diagnostik und Therapie*. Stuttgart: Thieme.
- Carvajal, R., Miralles, R., Cauvi, D., Berger, B., Carvajal, A. & Bull, R. (1992). Superior Orbicularis Oris Muscle Activity in Children with and without Cleft Lip and Palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 29(1), 32–36.
- Codoni, S. (2004). Orofaziale Dyskinesien und myofunktionelle Therapie aus ganzheitlicher Sicht. *GZM Praxis und Wissenschaft*, 9(4), 2–8.
- Flowers, C. R. & Morris, H. L. (1973). Oral-pharyngeal Movements During Swallowing and Speech. *Cleft Palate Journal*, 10, 181–191.
- Garliner, D. (1989). *Myofunktionelle Therapie in der Praxis. Gestörtes Schluckverhalten, gestörte Gesichtsmuskulatur und die Folgen. Diagnose, Planung und Durchführung der Behandlung*. Germering: Dinauer.
- Greenhalgh, T. (2010). *How to read a paper. The basics of evidence-based medicine*. London: BMJ Books.
- Henkel, K.-O., Dieckmann, A., Dieckmann, O. & Gundlach, K. K. H. (2002). Primärfunktion „Schlucken“ in Abhängigkeit von der Spaltform nach 18-jähriger interdisziplinärer Therapie. *Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie*, 6(5), 314–318.

- Higgins, J. P. T. & Green, S. (2009). *The Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Interventions*. <http://www.cochrane-handbook.org> (Abruf: 22.11.2010).
- Liberati, A., Altman, D. G., Tetzlaff, J., Mulrow, C., Gøtzsche, P. C., Ionnadis, J. P. A. & Clarke, M., et al. (2009). The PRISMA-Statement for Reporting Systematic Reviews and Meta-Analysis of Studies That Evaluate Health Care Interventions: Explanation and Elaboration. *PLoS Medicine*, 6 (7), 1–28.
- Meinus, M. (2010). *Orofaziale Dysfunktionen bei LKGS-Fehlbildungen. Ein systematisches Review*. Unveröffentlichte Diplomarbeit, Universität zu Köln.
- Müßig, D. & Pröschel, U. (1993). Die Qualität des velopharyngealen Abschlusses in Abhängigkeit von der Gesichtsmorphologie bei LKG-Spalten. *Fortschritte der Kieferorthopädie*, 54 (3), 101–107.
- Nagaoka, K. & Tanne, K. (2007). Activities of Muscles Involved in Swallowing in Patients with cleft Lip and Palate. *Dysphagia*, 22, 140–144.
- Neumann, S. (2010). *Sprachtherapeutische Diagnostik bei Menschen mit Lippen-Kiefer Gaumen-Segel-Fehlbildung: Entwicklung und Evaluation des sprachtherapeutischen Diagnostik- und Dokumentationsinventars "LKGSF komplex" für den deutschsprachigen Raum*. Hamburg: Dr. Kovac.
- Neumann, S. (in Vorb.). *LKGSF komplex – Sprachtherapeutisches Diagnostik- und Dokumentationsinventar für Menschen mit Lippen-, Kiefer-, Gaumen-, Segel-Fehlbildung*. München: Ernst Reinhardt.
- Opitz, C., Hochmuth, M. Rabe, H. & Subklew, D. (1997). Einseitige Lippen-Kiefer-Gaumen-Spalte. Zusammenhänge zwischen gebißmorphologischen und zungenfunktionellen Parametern. *Fortschritte der Kieferorthopädie*, 58 (5), 207–281.
- Peterson-Falzone, S. J., Hardin-Jones, M. A. & Karnell, M. P. (2010). *Cleft palate speech*. Philadelphia: Mosby Elsevier.
- Phillips, B., Ball, C., Sackett, D., Badenoch, D., Straus, S., Haynes, B. & Dawes, M. (2009). *Oxford Centre for Evidence-based Medicine Levels of Evidence*. <http://www.cebm.net/index.aspx?o=1025> (Abruf: 23.11.2010).
- Pruszewicz, A., Obrebowski, A., Stachowski, B. & Kaczmarek, J. (1971). Elektromyographische Untersuchung der Muskeln des Gaumens,

des Rachens und der Lippen während der Phonation und des Schluckens bei Kranken mit Palatoschisis. *HNO*, 19 (3), 77–81.

- Ravera, M. J., Miralles, R. Santander, J., Valenza, S., Villanueva, P. & Zúñiga, C. (2000). Comparative Study Between Children with and without Cleft Lip and Cleft Palate, Part2: Electromyographic Analysis. *Cleft Palate Craniofacial Journal*, 37 (3), 286–291.
- Sakuda, M., Lowe, A., Hiraki, T. & Sugimura, M. (1988). Unoperated Adult Cleft Lip and Palate: Changes in Form and Function after Operation. *Cleft Palate Journal*, 25 (3), 301–307.
- Scherer, N. J. & D'Antonio, L. L. (1995). Parents questionnaire for screening early language development in children with cleft palate. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 32 (1), 7–13.
- Shelton, R. L., Brooks, A. R. & Youngstrom, K. A. (1966). Patterns of Swallow in Cleft Palate Children. *Cleft Palate Journal*, 3, 200–210.
- Struck, V. & Mols, D. (2002). *Atem-Spiele*. Dortmund: Verlag Modernes Lernen.
- Wohlleben, U. (2004). *Die Verständlichkeitsentwicklung von Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Spalten. Eine Längsschnittstudie über spalttypische Charakteristika und deren Veränderung*. Idstein: Schulz-Kirchner.

7 Glossar

allg	=	allgemein (unklare Angaben)
bi	=	bilateral/ beidseitig
GF	=	isolierte Gaumen-Segel-Fehlbildung
LF	=	Lippen-Fehlbildung
LKF	=	Lippen-Kiefer-Fehlbildung
LKGSF	=	Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Fehlbildung
SF	=	isolierte Segel-Fehlbildung
SM	=	Submuköse Gaumen-Segel-Fehlbildung
uni	=	unilateral/ einseitig
VPA	=	velopharyngaler Abschluss

Kontakt

Sandra Neumann

sandra.neumann@uni-koeln.de