



Technische Universität München

TUM School of Medicine and Health

**Einfluss der Nasoalveolar-Molding-Therapie auf die Belastung
der Eltern von Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten im
internationalen Vergleich zweier Behandlungszentren**

Maximilian Roth

Vollständiger Abdruck der von der TUM School of Medicine and Health der
Technischen Universität München zur Erlangung des
akademischen Grades eines

Doktors der Medizin

genehmigten Dissertation.

Vorsitz: apl. Prof. Dr. Ute Reuning

Prüfende der Dissertation:

1. apl. Prof. Dr. Dr. Denys J. Loeffelbein

2. Priv.-Doz. Dr. Dr. Lucas M. Ritschl

Die Dissertation wurde am 24.11.2023 bei der Technischen Universität München eingereicht
und durch die TUM School of Medicine and Health am 08.05.2024 angenommen.

Abkürzungsverzeichnis

Δ	Differenz
a	Jahr
ACPA	<i>American Cleft Palate Craniofacial Association</i>
bzgl.	bezüglich
bzw.	beziehungsweise
d	Tag(e)
d.h.	das heißt
EUROCAT	European network of population-based registries for the epidemiological surveillance of congenital anomalies
ff.	folgende
G-BA	Gemeinsamer Bundesausschuss
ggf.	gegebenenfalls
ggü.	gegenüber
i.d.R.	in der Regel
ICBDSR	International Clearinghouse for Birth Defects Surveillance and Research
ICC	Intra-Class Correlation
ICD-10-GM	International Statistical Classification of Diseases and Related Health Problems - version 10 - German Modification
IGeL	Individuelle Gesundheitsleistung
konv.	konventionell
min	Minute(n)
MW	Mittelwert
n	Anzahl
NAM	nasoalveolar molding (therapy)
Nr.	Nummer
o.g.	oben genannt
OR	odds ratio
PMMA	Polymethylmethacrylat
SD	Standarddeviation
SF	Standardfehler
sog.	sogenannt
SSW	Schwangerschaftswoche
Std	Stunde(n)
TCDD	2,3,7,8-Tetrachlordibenzodioxin
u.a.	unter anderem
u.g.	unten genannt
U1	Neugeborenen-Erstuntersuchung
U2	Untersuchung vom 3. bis 10. Lebensjahr
v.a.	vor allem
vs.	versus



Inhaltsverzeichnis

1.	Einleitung	5
1.1.	Lippen-Kiefer-Gaumenspalten - Übersicht.....	6
1.2.	Einteilung und Ontogenese.....	7
1.2.1.	LAHSHAL-Kodierung nach Kriens.....	8
1.2.2.	Erweiterung der Kodierung für Vomer und äußere Nase	9
1.2.3.	Erweiterung der Kodierung anhand des Schweregrades unterteilt in Ausprägungsgrad und Verlaufsform.....	10
1.2.4.	Kodierungsbeispiele	10
1.3.	Anatomie und resultierende Pathophysiologie.....	11
1.3.1.	Lippe und Nase.....	11
1.3.2.	Alveolarkamm (Kiefer)	14
1.3.3.	Hart- und Weichgaumen.....	14
1.4.	Ätiologie und Pathogenese	15
1.5.	Epidemiologie.....	16
1.6.	Allgemeine Pathophysiologie	20
1.7.	Diagnostik	21
1.7.1.	Pränatal	22
1.7.2.	Postnatal.....	22
1.8.	Allgemeiner Behandlungsablauf	23
1.9.	(konventionelle) Gaumenplattentherapie	26
1.10.	Nasoalveoläres Molding.....	27
1.10.1.	Aufbau der NAM-Apparatur	28
1.10.2.	Behandlungsablauf.....	29
1.10.3.	Limitationen	33
1.11.	Operative Therapie des 1. Lebensjahres	34
1.11.1.	Lippenspaltplastik	35
1.11.2.	Rekonstruktion des Nasenbodens.....	40
1.11.3.	Gaumenspaltplastik	41
1.11.4.	Kieferspaltplastiken.....	42
1.11.5.	Rhinoplastik	43
2.	Ziele	44
3.	Material & Methodik	45
3.1.	Studiendesign	45
3.2.	Studienkollektive	45
3.2.1.	Untersuchung der subjektiven elterlichen Belastung durch konventionelle vs. NAM-Therapie....	45
3.2.2.	Untersuchung der internationalen Unterschiede in der elterlichen Stresswahrnehmung unter NAM-Therapie	46
3.3.	Fragebogen.....	46
3.3.1.	Validierung des Fragebogens.....	47
3.4.	Datenanalyse	48
3.4.1.	Software.....	49
3.5.	Identifikation von Fehlern, Umfang des korrigierenden Eingreifens.....	49
4.	Ergebnisse	50
4.1.	Untersuchung der subjektiven elterlichen Belastung durch konventionelle vs. NAM-Therapie	50
4.1.1.	Datenbank	50
4.1.2.	Interrater-Reliabilitätsprüfung	51
4.1.3.	Spaltart	53
4.1.4.	Konventionelle vs. NAM-Therapie	55
4.1.5.	Geschlechtsspezifische Unterschiede	58



4.1.6.	NAM-spezifische Untersuchung	60
4.1.7.	Zusammenfassung der Ergebnisse dieser Studie	62
4.2.	Untersuchung der internationalen Unterschiede in der elterlichen Stresswahrnehmung unter NAM-Therapie.....	63
4.2.1.	Datenbank	63
4.2.2.	Interrater-Reliabilitätsprüfung	63
4.2.3.	Interkulturelle Differenzen	64
4.2.4.	Geschlechtsspezifische Unterschiede	70
4.2.5.	Zusammenfassung der Ergebnisse dieser internationalen Vergleichsstudie	73
5.	Diskussion.....	74
5.1.	Überblick	74
5.2.	Material und Methodik.....	76
5.3.	Ergebnisse	78
5.3.1.	Datenbanken	78
5.3.2.	Pränatale Informationen	79
5.3.3.	Ernährung	79
5.3.4.	Soziales Umfeld.....	80
5.3.5.	Ängste und Sorgen, Mühen und Probleme.....	81
5.3.6.	Therapiezufriedenheit und Zusammenfassung	83
6.	Ausblick.....	84
7.	Verzeichnisse	85
7.1.	Literaturverzeichnis	85
7.2.	Abbildungsverzeichnis	92
7.3.	Tabellenverzeichnis	94
8.	Danksagung	95
9.	Anhänge.....	97
•	Anhang 1. Fragebogen	98
•	Anhang 2. Ethikvotum Klinikum rechts der Isar 92/15	101
•	Anhang 3. Ethikvotum Chang Gung Memorial Hospital IRB 104-2216B	102



1. Einleitung

Lippen-Kiefer-Gaumenspalten gehören weltweit zu den häufigsten angeborenen Fehlbildungen, welche offensichtlich die Ästhetik der Betroffenen, viel wichtiger aber von Geburt an bereits entscheidende physiologische Grundfunktionen wie Atmung, Nahrungsaufnahme, Hören und damit den Spracherwerb, sowie die allgemeine kognitive Entwicklung abhängig von deren Ausprägungsgrad wesentlich negativ beeinflussen können. Die Notwendigkeit der chirurgischen Therapie dieser Fehlbildungen ist unumstritten und in ihrer Umsetzung im Laufe der Zeit weitgehend gleichgeblieben. Insbesondere große, bzw. ausgeprägte Spaltdeformitäten führen die Chirurgen jedoch oft ans Limit des Gewebemanagements und resultieren in nur bedingt befriedigenden postoperativen Resultaten. Sekundäre Korrekturen werden deshalb häufig notwendig, wobei bei steigender Operationshäufigkeit des einzelnen Patienten von zunehmender Narbenbildung und damit höherer Operationskomplexität ausgegangen werden kann. Folglich besteht seit Beginn der operativen Spaltbehandlung der Bedarf einer begleitenden konservativen prä- bzw. perioperativen Therapie. Ein nicht unerheblicher Mosaikstein auf diesem Weg wurde in Form des präoperativen *Nasoalveolären Moldings* aus der klassischen Gaumenplattentherapie heraus entwickelt.

Weiter stellt die Behandlung von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten nicht nur die Behandler, sondern auch die jungen, noch unselbstständigen Patienten und ebenso deren Eltern vor besondere Herausforderungen: Auf der einen Seite stehen diejenigen der medizinischen Behandlung selbst, auf der anderen Seite die organisatorischen und infrastrukturellen, welche den Behandlungserfolg kritisch beeinflussen können. Aufgrund der Unfähigkeit der erkrankten Säuglinge, eigenverantwortliche Entscheidungen zu treffen und sich selbst zu versorgen, sind deren Eltern hier besonders gefordert, denn sie müssen sich fortan nicht mehr nur um die eigenen, sondern auch um die krankheitsbedingt stark gesteigerten Bedürfnisse ihres Kindes kümmern. Hinzu kommt soziokultureller Druck von außen. Ohne die Compliance der Eltern sind der medizinischen Behandlung jedoch deutliche Grenzen gesetzt oder der Langzeit-Erfolg einer bereits erfolgten Behandlung wird riskiert.

Unter der Annahme der elterlichen Leistungsfähigkeit als limitiertes Gut sollte konsequenterweise die Beanspruchung durch medizinische Behandlungen so gering wie möglich gehalten werden. Dem gegenüber steht die bestmögliche medizinische Versorgung des Kindes, welche wiederum die Eltern zusätzlich beansprucht.

In diesem Konflikt stellt sich also die Frage des elterlichen Beanspruchungsgrades im Rahmen der Stresswahrnehmung durch zwei in unserer Klinik etablierte präoperative



Behandlungsmethoden mit unterschiedlichem Anspruch an die elterliche Mitarbeit. Unabhängig vom Behandlungserfolg des Kindes wird weiter die Frage gestellt, ob eine der beiden Behandlungsmethoden Vorteile bei der Stressbewältigung im Sinne des Copings und damit unabhängig vom direkten Kindwohl auch für die Eltern einen positiven therapeutischen Nebeneffekt bieten kann.

Setzt man die elterliche Compliance als essenziell für den Behandlungserfolg der präoperativen Spalttherapie und insbesondere des *Nasoalveolären Moldings* voraus, so mag sich dem Betrachter außerdem die Frage stellen, ob darüber hinaus soziokulturelle und infrastrukturelle Unterschiede eine Rolle spielen.

Diese Fragestellungen sollen im Rahmen der präsentierten Arbeit näher beleuchtet werden.

Entscheidend für die Einschätzung sowohl des Behandlungsbedarfs und -umfangs als auch der elterlichen Belastung ist vorerst aber ein grundlegendes Verständnis für die Fehlbildung, deren resultierende Pathophysiologie und ihre Konsequenzen für die Entwicklung ebenso wie für den Alltag der Patienten und ihrer Eltern.

Darüber hinaus sollen auch die operativen Schwierigkeiten und deren teils schwer quantifizierbare intraoperative Hürden verdeutlicht werden, welche substanziellen Einfluss auf das postoperative Ergebnis nehmen können.

Folgend werden zunächst die medizinischen Behandlungsgrundlagen, sowie die beiden etablierten Behandlungsstrategien dargestellt. Die Darstellungen erheben hierbei keinen Anspruch auf Vollständigkeit, sondern dienen wie oben genannt primär dem Grundverständnis der Erkrankung und Therapie als Voraussetzung für das Verständnis der elterlichen Belastung.

1.1. Lippen-Kiefer-Gaumenspalten - Übersicht

Der Formenkreis der Lippen-Kiefer-Gaumenspalten stellt nach angeborenen Herzvitien die häufigste Form angeborener Fehlbildungen dar mit in der Literatur variierenden Inzidenzen von etwa 1 auf 400-900 Geburten pro Jahr¹⁻⁵.

Diese zeigen weltweit ein Nord-Süd-Gefälle mit tendenziell höheren Inzidenzen in skandinavischen Ländern, einer spürbaren Abnahme beispielsweise im Bereich des südlichen Mittelmeerraums und den geringsten Inzidenzen in Afrika. Ebenso ergeben sich Hinweise auf ethnische Unterschiede, wobei Kaukasier hier im oberen Mittelfeld liegen und Subsahara-Afrikaner die geringsten Inzidenzen aufweisen.⁴

Bevölkerungsgruppen, die chronisch hypobar-hypoxischen Bedingungen ausgesetzt sind (d.h. in großen Höhenlagen leben) weisen erhöhte Inzidenzen auf. Schädliche Angewohnheiten wie Rauchen und Alkoholkonsum gelten ebenso wie organische Lösungsmittel, teratogene Substanzen, bestimmte Medikamentengruppen, sowie Mangelernährung als Risikofaktoren.



Daneben werden aber auch zunehmend an der Spaltbildung verantwortliche Gene identifiziert. In knapp 1/3 der LKGS, bzw. knapp 50% der isolierten Gaumenspalten liegen eine syndromale Assoziation vor.⁶ Folglich lässt sich ein multifaktorielles Geschehen aus hereditären und (umwelt-)expositionellen Ursachen ableiten.^{7,8}

Lippen-(±Kiefer±Gaumen-)Spalten treten in etwa $\frac{3}{4}$ der Fälle einseitig auf, wobei die linke Seite etwa doppelt so häufig betroffen ist im Vergleich zur rechten. Jungen sind von diesen Formen etwa 1,5- bis 2-mal so häufig betroffen wie Mädchen. Bezogen auf isolierte Gaumenspalten jedoch verkehrt sich dieses Verhältnis, sodass Mädchen von diesen etwa 1,7-mal so häufig betroffen sind wie Jungen.⁹

Während das wichtigste Mittel zur Erkennung orofazialer Spalten unverändert die klinische Untersuchung ist, welche sich in Deutschland in den Neugeborenen-Screeninguntersuchungen verfestigt hat, können sie zunehmend bereits in utero durch nicht invasive sonographische Untersuchungsmethoden pränatal erkannt werden¹⁰.

Die schwerwiegende Pathophysiologie der orofazialen Spaltdeformitäten, die neben offensichtlichen ästhetischen Problemen, insb. Probleme bei Ernährung, Wachstum-, Hör-, Sprach-, sowie intellektueller Entwicklung einschließt, zwingt Eltern und Behandler von Geburt an zu intensiven interdisziplinären Therapiemaßnahmen. Diese kulminieren bereits innerhalb des ersten Lebensjahres in essenziellen chirurgischen Eingriffen und können sich in Form weiterer operativer Korrekturen über das gesamte Kindes- und Jugendalter der Patienten verteilen. *Nasoalveoläres Molding* kann dabei einen Bestandteil zur Abmilderung chirurgischer Korrekturen noch vor der ersten Operation bilden.

Die folgenden Abschnitte sollen die beschriebene Übersicht weiter vertiefen.

1.2. Einteilung und Ontogenese

Entsprechend der Ausprägung und Pathophysiologie werden im Wesentlichen folgende Spaltformen unterschieden:

- Lippenspalten und Lippen-Kieferspalten (ein- oder beidseitig),
- Isolierte Gaumenspalten (mediane Weich-, sowie ein- oder beidseitige Hartgaumenspalten),
- Kombinierte Lippen-Kiefer-Gaumenspalten (ein- oder beidseitig).

Darüber hinaus kann es zum deutlich selteneren Auftreten größerer Gesichtsspalten kommen, auf deren Darstellung der Übersicht und des Verständnisses halber jedoch verzichtet wird.

Entsprechend der ontogenetischen Vereinigung der Gesichtswülste (Abbildung 1), bzw. deren Unterbleiben, kommt es an deren Grenzen zu typischen Spaltformen: Am Weichgaumen resultieren ausschließlich mediane Spaltformen, im Bereich des Hartgaumens kann die



Verschmelzung mit dem medianen Nasenfortsatz außerdem ein- oder beidseitig unterbleiben, sodass sich hier ein- oder beidseitige Hartgaumenspalten ergeben können. Der maxilläre Alveolarkamm resultiert aus der Vereinigung der beiden Oberkieferwülste (mit den Zahnanlagen der Eckzähne bis Molaren), sowie des medianen Nasenfortsatzes, welcher die Prämaxilla (mit den Schneidezahnanlagen) bildet. Unterbleibt eine Verschmelzung in diesem Bereich, können folglich ein- oder beidseitige Spaltbildungen zwischen zweitem *Inzisivus* und *Caninus* resultieren. Dasselbe gilt für Spaltbildungen der Lippe, welche analog zum Kieferkamm fusionieren. Als entscheidend für die Ausprägung der Spalte werden bezüglich exogener Faktoren Dauer sowie Zeitpunkt deren Einwirkung angesehen. Lippe und Kiefer fusionieren etwa in der fünften bis sechsten Schwangerschaftswoche, der Gaumen im Zeitraum zwischen siebter und zehnter Schwangerschaftswoche. Die Fusion kann vereinfacht vorgestellt werden wie ein Reißverschluss, welcher sich im Bereich der Lippe und des Kiefers von kranial nach kaudal schließt, bzw. palatinal von anterior nach posterior, wodurch die unterschiedlichen Ausprägungsgrade dieser Spalten leicht nachvollzogen werden können.^{8,11,12}

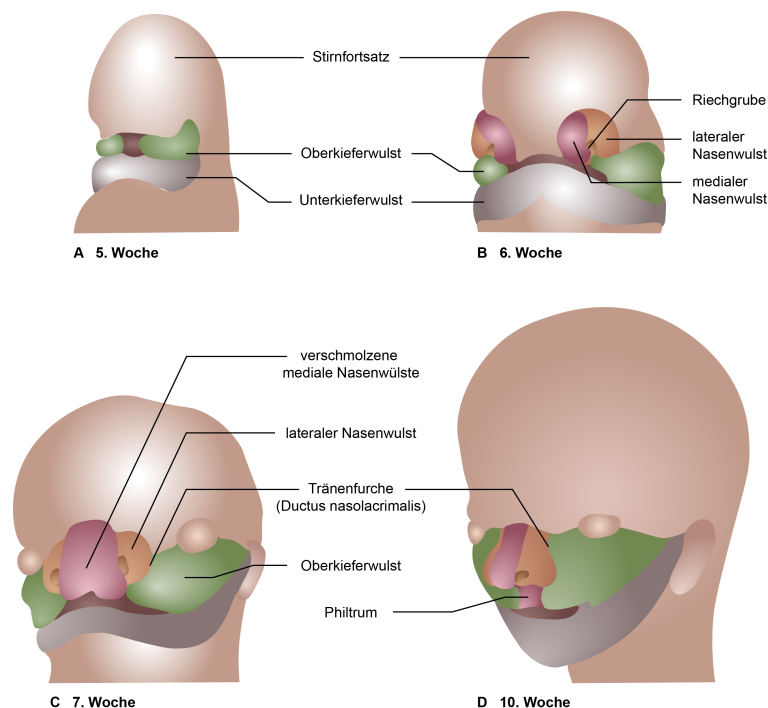


Abbildung 1. Faziale Ontogenese (basiert auf 11).

1.2.1. LAHSHAL-Kodierung nach Kriens

Aufgrund der Diversität der Spaltformen entwickelte sich im Laufe der letzten mehr als 150 Jahre allmählich eine eindeutige Systematik zur Klassifikation der im Einzelfall vorliegenden Deformität¹³. Grundlage der aktuell anerkannten Kodierung ist hierbei die amerikanischen LAHS-Klassifikation für Lippen-Kiefer-Gaumenspalten nach *Kernahan et Stark*¹⁴, bei der die



Fehlbildung durch Angabe der betroffenen anatomischen Abschnitte in Form von Einzelbuchstaben wie folgt charakterisiert werden:

Bei Vorliegen einer Spalte im betreffenden Abschnitt wird der entsprechende Buchstabe angegeben, andernfalls wird ein „-“ eingefügt.

L	<i>lip</i>	(Ober-)Lippe
A	<i>alveolus</i>	Alveolarkamm
H	<i>hard palate</i>	Hartgaumen
S	<i>soft palate</i>	Weichgaumen
-		keine Fehlbildung

Tabelle 1. LAHS-Kodierungslegende.

Hierbei wird die betroffene Seite jedoch primär außer Acht gelassen, bzw. muss gesondert genannt werden, sodass zur seiteneindeutigen Differenzierung diese Klassifikation durch Kriens 1987 entsprechend des LAHSHAL-Schemas ergänzt wurde¹⁵. Dabei repräsentiert jeder Buchstabe nun nicht mehr nur einen betroffenen anatomischen Abschnitt, sondern auch dessen Seite, woraus sich ein 5-stelliger Buchstaben-Code ergibt, analog zum frontal vor dem Untersucher stehenden Patienten:

rechts		median			links	
L	A	H	S	H	A	L

Nicht betroffene Abschnitte werden weiterhin mit „-“ versehen.

Diese Klassifikation wurde 2003 vom *Interdisziplinären Arbeitskreis Lippen-Kiefer-Gaumenspalten / Kraniofaziale Anomalien* der *Deutschen Gesellschaften für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie, Kieferorthopädie, Phoniatrie und Pädaudiologie, sowie HNO-Heilkunde, Kopf- und Halschirurgie* als Grundlage für die Minimaldokumentation von Lippen-Kiefer-Gaumen-Segel-Fehlbildungen bestimmt¹³ und hat weitergehend Bestand in der *ICD-10-GM Version 2022* in Form der Verschlüsselungen Q35-Q37.

1.2.2. Erweiterung der Kodierung für Vomer und äußere Nase

Neben den bereits genannten Abschnitten von Oberlippe, Alveolarkamm, Hart- und Weichgaumen sind von Spaltbildungen jedoch auch direkt angrenzende Bereich betroffen, sodass die LAHSHAL-Kodierung um analoge Codes für Vomer (V) und äußere Nase (N) entsprechend folgendem Schema ergänzt werden kann¹³:

rechts		median			links	
N	-	-	V	-	-	N

Hierbei wird die Erweiterung i.d.R. in der Zeile oberhalb des LAHSHAL-Codes eingetragen.

Gemäß *ICD-10-GM Version 2022* kann die Verschlüsselung in diesem Fall durch Q30.2 ergänzt werden¹⁶.



1.2.3. Erweiterung der Kodierung anhand des Schweregrades unterteilt in Ausprägungsgrad und Verlaufsform

Um unterschiedlichen bisher unbeachtet gelassenen Schweregraden Rechnung zu tragen und diese eindeutig benennen zu können wurde eine numerische Kodierung ergänzt bestehend aus zwei Indexziffern, welche dem jeweiligen Buchstaben angehängt werden¹³:

1. Ziffer (x): Ausprägungsgrad			2. Ziffer (y): Verlaufsform	
1	Mikroform	funktionell wichtige Schicht erhalten (Knochen / Muskel / Knorpel)	1	vollständig subkutaner / submuköser Verlauf
2	Subtotale Form	teilweise Fehlbildung der funktionellen Schicht	2	teilweise offener Verlauf
3	Totale Form	vollständige Fehlbildung der funktionellen Schicht, Ausbleiben der physiologischen Funktion	3	vollständig offener Verlauf

Tabelle 2. Erweiterung der LAHSHAL-Kodierung anhand des Schweregrades.

Es ergibt sich zusammenfassend also folgende Kodierungsmöglichkeit:

N	-	-	V	-	-	N
L _{xy}	A _{xy}	H _{xy}	S _{xy}	H _{xy}	A _{xy}	L _{xy}

1.2.4. Kodierungsbeispiele

Der Übersicht halber ohne Einbezug von äußerer Nase und Vomer:

- L₃₃ A₃₃ H₃₃ S₃₃ H₃₃ A₃₃ L₃₃ bezeichnet eine beidseitige vollständige Lippen-Kiefer-Gaumenspalte, d.h. alle funktionellen Schichten sind vollständig gespalten und verlaufen vollständig offen.
- - - - - A₃₂ L₃₃ bezeichnet eine linksseitige Lippen-Kieferspalte, wobei die Lippe funktionell und morphologisch vollständig betroffen, der Alveolarkamm funktionell vollständig gespalten, jedoch partiell noch durch Gingiva verbunden ist.
- - - H₂₁ S₃₃ H₂₁ - - bezeichnet eine vollständige Weichgaumenspalte in Kombination mit einer beidseitigen funktionell inkompletten Hartgaumenspalte mit in letzterem Bereich allerdings vollständig submukösem Verlauf.

1.3. Anatomie und resultierende Pathophysiologie

Im Folgenden werden die von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten im Wesentlichen betroffenen Organe des Mittelgesichts in ihren anatomischen Grundlagen dargestellt und anschließend mit deren pathophysiologischem Korrelat einer Fehlbildung dieses Bereichs verknüpft.

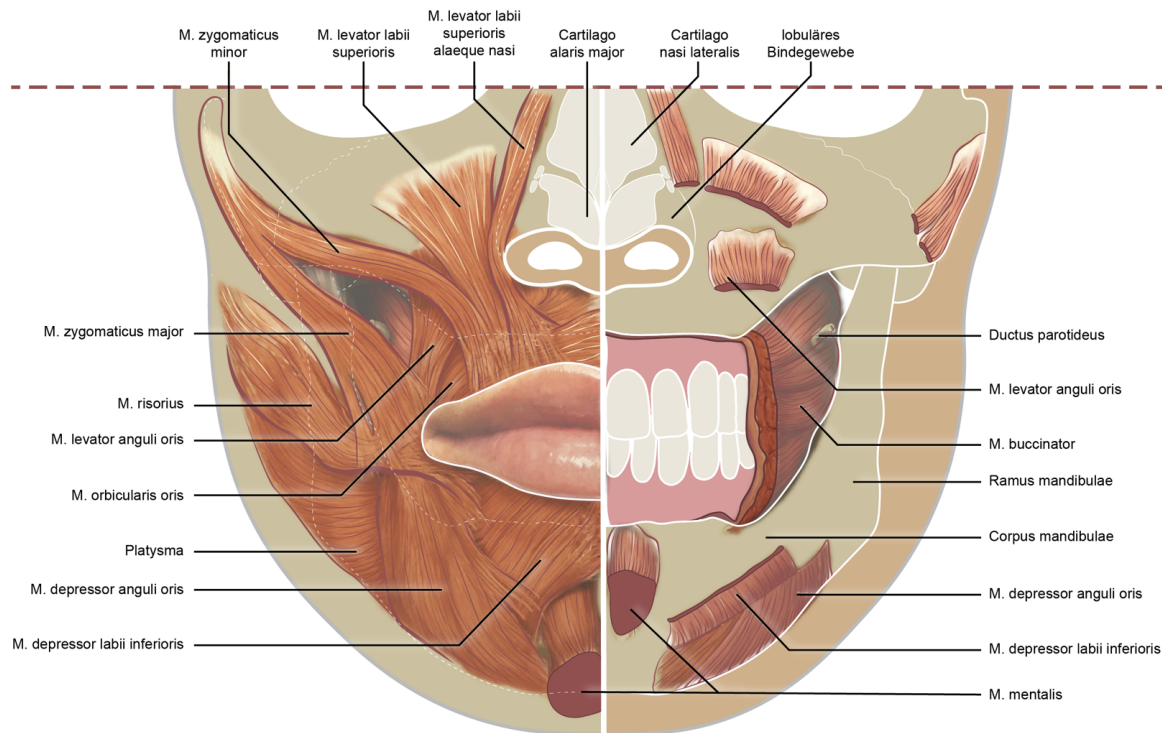


Abbildung 2. Schema der perioralen Muskulatur (basiert auf ¹⁷).

1.3.1. Lippe und Nase

Muskulatur. (Abbildung 2) Der mimischen Muskulatur, welche direkt die Haut des Gesichts inseriert und so kontrolliert, kommt eine zentrale Bedeutung des menschlichen Erscheinungsbildes zu. Neben Grundfunktionen für Atmung, Nahrungsaufnahme, bzw. höheren Funktionen wie Sprechen, trägt sie insbesondere essenziell zur nonverbalen Kommunikation bei, sodass bereits minimale Defekte vom Rezipienten bemerkt werden. Abhängig von der Unterteilung werden rund 21 verschiedene, grundsätzlich paarige mimische Muskeln unterschieden, von denen rund die Hälfte für die periorale Motorik verantwortlich ist. Im Bereich der Oberlippe kommt der Ringmuskulatur des *M. orbicularis oris* eine entscheidende Funktion beim Lippenschluss zu. Dieser vereinigt sich median und läuft tief seitlich in die *Mm. buccinatores* aus. Er besteht aus einer *Pars marginalis*, sowie einer *Pars labialis*, welche die Lippen bildet. Der Großteil der perioralen Muskulatur vereint sich in den Lippenkommissuren in den sog. *Modioli*, sodass diese in alle Richtungen bewegt werden

können. Der *M. depressor septi nasi* entspringt dem *M. orbicularis oris* und inseriert im Nasenseptum, bzw. der *Columella*.^{11,17}

Pathophysiologie. Pathophysiologisch resultiert aus diesen Gegebenheiten im Falle einer einseitigen Lippenspalte durch die Nichtverschmelzung des *M. orbicularis oris* eine Fehlinsertion seiner einzelnen Teile median im Bereich der *Columella*, sowie ipsilateral im Bereich der Nasenflügelbasis. Hieraus wiederum ergibt sich die kontraktorisch verstärkte Abflachung der Nase mit Deviation der *Columella* zur Gegenseite. Die ipsilaterale Naseneingang flacht sich quer-oval ab, der kontralaterale verschmälert sich entsprechend. Die physiologische Muskelbalance bedingt das regelrechte Gesichtswachstum wesentlich (Abbildung 3). Gegensätzlich dazu wird im Spaltfall durch dieses muskuläre Ungleichgewicht insb. bei fortwährenden Muskelkontraktionen auch das knöcherne Wachstum negativ beeinflusst, sodass es ohne geeignete Gegenmaßnahmen (wie z.B. Lippentaping) zu einer Verbreiterung der Spalte kommen kann. Im Falle einer beidseitigen Spaltbildung zeigt sich der prämaxilläre Bereich muskelfrei, die beiden Anteile des *M. orbicularis oris* inserieren nun beidseits an den Nasenflügelbasen. Gleichzeitig fehlt der *Prämaxilla* die anteriore funktionelle Begrenzung, sodass sie meist weit protrudiert steht. Die *Columella* ist dabei meist hypo- bis aplastisch ausgebildet und die Lippenhaut geht direkt in die Nasenspitze über. Folglich zeigt sich die Nase in diesen Fällen stark verbreitert und die Nasenspitze sich in der Regel durch den seitlichen Zug über die Nasenflügel retrudiert, also insgesamt abgeflacht, bzw. in ihrer Projektion reduziert. Naseneingänge sind meist nicht mehr differenzierbar.

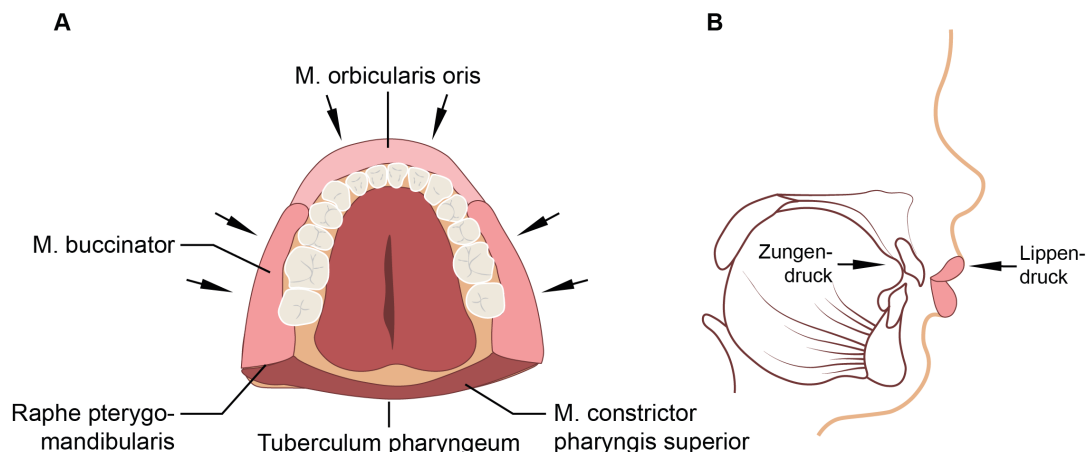


Abbildung 3. Muskuläre Balance zwischen fazialer und Zungenmuskulatur (basiert auf ¹⁸). **A** Die faziale Muskulatur bildet einen Ring, der komprimierend auf Kiefer und Zahnbögen wirkt. **B** Die Zunge wirkt von innen expandierend auf Kiefer und Zahnbögen. Wachstum und bignathe Kongruenz der Zahnbögen werden u.a. durch das Gleichgewicht dieser Muskelkräfte bedingt.

Knorpelstrukturen der Nase. (Abbildung 4) Das kartilaginäre Nasenskelett besteht im Wesentlichen aus 3 symmetrisch paarig angelegten Einzelknorpeln, sowie dem unpaarigen medianen knorpeligen Septum. Der *Cartilago nasi lateralis* bildet dabei den Nasenabhang, die Formgebung betreffend wichtigste Funktion kommt jedoch dem großen Flügelknorpel zu (*Cartilago alaris major*): dieser gibt mit seinem seitlichen Schenkel (*Crus laterale*) die Form des eigentlichen Nasenflügels sowie des seitlichen Naseneingangsbereichs vor. Anterior am Übergang zum inneren Schenkel (*Crus mediale*) doppelt er sich mit der Gegenseite und definiert so die Nasenspitze. Die beiden inneren Schenkel lagern sich beidseits schließlich medial an den *Cartilago septi nasi* an und geben hiermit die Form des medialen Naseneingangsbereichs vor. In der lateralen Verlängerung der großen Flügelknorpel lagern sich akzessorische kleinere Flügelknorpel (*Cartilagine alares minores*) ohne wesentliche formgebende Funktion an.

Pathophysiologie. Die Pathophysiologie ergibt sich aus dem muskulär bereits beschriebenen Mechanismus. Hinzu kommt eine im Spaltbereich zumeist hypoplastische Knorpelausbildung, welche im Rahmen der Rekonstruktion zu Instabilitäten führen, die durch zusätzliche Stützstrukturen verstärkt werden müssen oder andernfalls in Asymmetrien bzw. bei forcierter Inspiration in einem Kollaps des Naseneingangs resultieren können und somit therapeutische Relevanz besitzen.

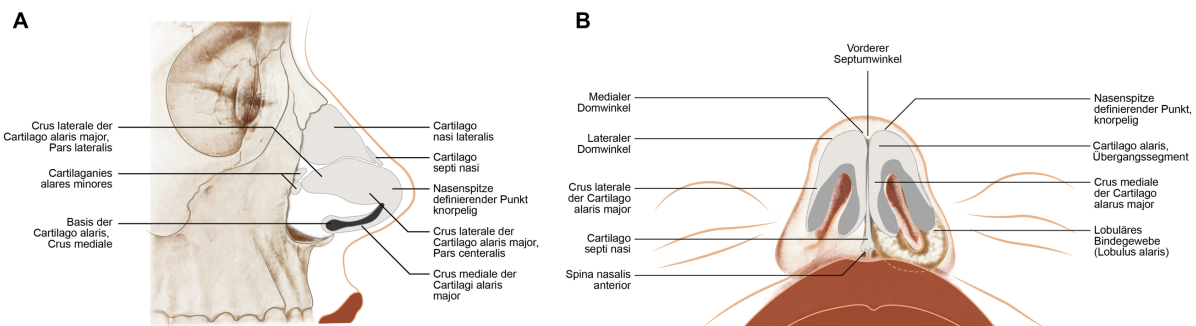


Abbildung 4. kartilaginäres Nasenskelett von lateral (A) und basal (B) (basiert auf 17).

Haut und Schleimhaut. Im Grenzbereich der Lippe zeigt sich eine mehr oder weniger scharfe Trennung von pigmentierter äußerer Haut mit typischem, mehrschichtig verhornendem Plattenepithel, vereinfacht dem sog. Lippenweiß oder auch *Pars cutanea*, und dem Lippenrot (engl. *vermilion*), welches auch als *Pars intermedia* im extraoralen Anteil bezeichnet wird und sich als nicht pigmentiertes, dünn verhornendes Epithel darstellt. Parallel an der Grenze der *Pars cutanea* und *Pars intermedia* bildet sich typischerweise die sog. *white roll* von etwa 2 mm Höhe aus. Die *Pars intermedia* geht teils unscharf im Bereich der *wet line* in die nicht verhornende *Pars mucosa* nach intraoral und damit in die eigentliche Mundschleimhaut über. Die Farbe des Lippenrots lässt sich auf die hohe Kapillardichte in Verbindung mit dünnem



Epithel zurückführen, sodass die Blutfarbe die des Lippenrots bestimmt und die Lippen bei hypoxischen Bedingungen entsprechend zyanotisch wirken können.^{11,17}

Pathophysiologie. Im Spaltbereich zeigen sich alle Anteile stark verkürzt und ziehen bogenförmig nach nasal. Durch mangelnde Befeuchtung ist die *wet line* oft nur schlecht abgrenzbar.

1.3.2. Alveolarkamm (Kiefer)

Ossäre Strukturen. Der Alveolarkamm des Oberkiefers besteht ontogenetisch im Wesentlichen aus drei Teilen, welche miteinander fusionieren: den beiden Seitensegmenten, sowie antero-median der *Prämaxilla*. Der Alveolarkamm trägt die Zahnanlagen, wobei die *Inzisivi* innerhalb der *Prämaxilla* liegen, alle anderen Zähne in den Seitensegmenten. Nach kranial werden die beiden Naseneingänge gebildet, median schließt sich das kartilaginäre Nasenseptum an.^{11,17}

Pathophysiologie. Aufgrund des genannten dreiteiligen Aufbaus treten Spaltbildungen in diesem Bereich paramedian einseitig oder beidseitig auf. Mediane Gesichtsspalten, welche durch mangelnde Fusion der beiden medialen Nasenwülste entstehen können, sind eine absolute Rarität und können an dieser Stelle vernachlässigt werden. Durch paramediane alveoläre Spaltbildung kommt es insb. zu Problemen beim Zahndurchbruch, oftmals sind Zähne fehl oder nicht angelegt. Bei beidseitigen Kieferspalten ist die *Prämaxilla* lediglich über das weiche Nasenseptum mit dem Mittelgesicht verbunden, was einerseits die Stabilität einschränkt und andererseits bedeutet, dass auch die Perfusion nur über die septale Schleimhaut erfolgt. Letzteres birgt operativ trophische Risiken insbesondere bei beidseitiger primärer Vomerplastik.

1.3.3. Hart- und Weichgaumen

Ossäre Strukturen des Hartgaumens. Palatinal fusionieren die beiden Seitensegmente anterior mit der *Prämaxilla* v-förmig, bzw. etwa ab Höhe der Prämolaren nach posterior median miteinander, sowie nach kranial mit dem *Vomer*, sodass einerseits die Mundhöhle vom Nasopharynx und andererseits die beiden Nasenhöhlen voneinander getrennt werden.¹¹

Pathophysiologie. Durch Spaltbildungen im Bereich des Hartgaumens fehlt insbesondere die Trennung von Mundhöhle und Nasopharynx, wodurch sich Probleme bei der Ernährung (nasaler Ausfluss und Speisereste in den Nasengängen) sowie beim Sprechen ergeben (*Rhinophonia aperta*). Durch einseitige Spaltbildung kann außerdem das Nasenseptum zur Gegenseite abweichen, sodass der dortige Nasengang verengt ist und zu Ventilationsproblemen führen kann. Bei beidseitigen Spalten besteht darüber hinaus einerseits das Risiko der Traumatisierung des Septums, andererseits wird die bei der Atmung über die



Nase einströmende Luft nicht mehr laminarisiert, was zu Empfindungsstörungen in Form scheinbarer Nasenatmungsbehinderungen führen kann.

Muskulatur des Weichgaumens. (Abbildung 5) Die Weichgaumenmuskulatur besteht aus fünf Muskelpaaren, welche zusammen mehrere Muskelschlingen bilden, die zentral gemeinsam die *Aponeurosis palatina* bilden. Sie sind für das Spannen des Weichgaumens verantwortlich und dichten dadurch den Nasopharynx beim Schlucken und Sprechen ab. Weiterhin ist insb. der *M. tensor veli palatini* auch für das Aufspannen der *Tuba auditiva* und damit für die Belüftung des Mittelohres verantwortlich.¹¹

Pathophysiologie. Unterbleibt die Vereinigung dieser Weichgaumenschlingen kommt es neben oben bereits genannten offensichtlichen Schluck- und Sprechproblemen sehr häufig zu Tubenbelüftungsstörungen, welche in chronische Otitiden und Schalleitungsstörungen münden können.

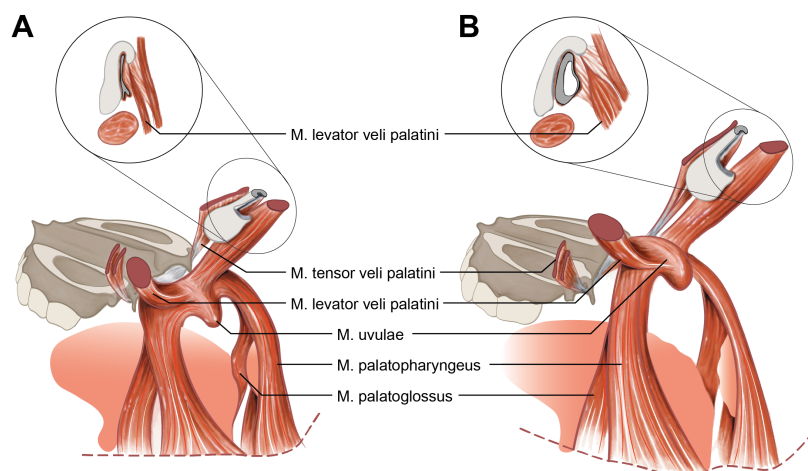


Abbildung 5. Muskulatur des Weichgaumens (basiert auf ¹⁹). **A** velare Muskelschlingen entspannt, wobei sich im Querschnitt der Kollaps der *Tuba eustachii* zeigt. **B** velare Muskelschlingen kontrahiert, woraus die Öffnung der Tube resultiert.

1.4. Ätiologie und Pathogenese

Pathogenetisch wird der Formenkreis der orofazialen Spaltbildungen zusammenfassend auf mangelnde Fusion der einzelnen Segmente während der Ontogenese zurückgeführt⁷, wobei für die chirurgische Therapie unerheblich ist, ob es entwicklungsbedingt zu einer mangelnden primären Verschmelzung oder einem sekundären Auseinanderweichen bzw. Wieder-Aufreißen der Segmente kommt¹². Der Zeitpunkt und die Dauer einer Schädigung während der Embryonal- und Fetalperiode bestimmen dabei wesentlich die Art und den Ort der Schädigung, wobei die Fusion der Lippe und des Kiefers in die späte Embryonalperiode (etwa 5. - 6. SSW), die des Gaumens in die frühe Fetalperiode (etwa 7.-10. SSW) fallen⁸.



Ätiologisch wird allgemein ein multifaktorielles Geschehen aus endogenen und exogenen Faktoren angenommen^{7,8}. Neben der Identifikation immer mehr beteiligter Gene⁷ und damit einer individuellen wie auch ethnischen hereditären Genese wurden multiple exogene Risikofaktoren identifiziert: Maternaler Tabakkonsum während der Schwangerschaft erhöht das Risiko für orofaziale Spaltbildungen (OR ca. 1,2 für Gaumenspalten und ca. 1,3 für LK(GS))^{8,20}, intensiver Konsum von mehr als 25 Zigaretten täglich sogar erheblich (OR 1,8 für ein- bzw. sogar 4,2 für beidseitige LK(GS))^{8,21}. Auch Alkoholkonsum während der Schwangerschaft gilt allgemein als Risikofaktor, wobei dessen genaue Rolle bisher unklar bleibt^{8,22,23}. Folsäure und Multivitamin-Präparate scheinen das Risiko orofazialer Spaltbildungen zu reduzieren^{8,24}, sodass im Umkehrschluss Mangelernährung als Risikofaktor angesehen wird⁸. Organische Lösungsmittel und landwirtschaftliche Chemikalien werden ebenso als Risikofaktoren vermutet^{8,25,26}. Ähnliches gilt für Medikamenteneinnahme während der Schwangerschaft (insb. Antikonvulsiva wie Benzodiazepine, Phenytoin, Phenobarbital^{8,27-29} und Corticosteroide³⁰). Unter anderem durch erhöhte Cortisolspiegel wird auch Stress als Risikofaktor vermutet⁸. Teratogene Substanzen, wie beispielsweise das Dioxin TCDD, welches in *Agent orange* (einem im Rahmen des Vietnam-Krieges eingesetzten Entlaubungsmittels) enthalten ist, erhöhen das Risiko für Spaltdeformitäten erheblich.³¹ Obschon eine gering erhöhte natürliche Strahlenexposition während der Schwangerschaft keinen negativen Einfluss auf die Entstehung von Spaltdeformitäten zu haben scheint³², muss teratogene Strahlung per se als ein solcher Risikofaktor angenommen und eine unnötige Exposition entsprechend vermieden werden. Darüber hinaus scheinen maternale Infektionen beispielsweise mit Influenza das Risiko für Spaltbildungen zu erhöhen³³. Epidemiologische Studien mit erhöhter orofazialer Spalt-Inzidenz aus Bolivien und Tibet lassen außerdem vermuten, dass chronisch hypobare Hypoxie das Risiko deren Auftretens erhöht^{6,34}.

1.5. Epidemiologie

Zur besseren Vergleichbarkeit werden im Folgenden die in ihren Bezugsgrößen variierenden Einzelangaben bzgl. der Inzidenz ggf. umgerechnet auf Fälle / 1.000 Geburten angegeben. Weiterhin zu beachten sind die in der internationalen Literatur oftmals inkohärent berichteten Angaben für Lebendgeburten bzw. Geburten (inkl. Totgeburten und induzierten Aborten).

Weltweit. Entsprechend eines systematischen Reviews von *Panamonta et al.* betrug die weltweite Inzidenz aller verschiedenen Formen von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten zwischen 1950 und 2015 umgerechnet 1,47/1.000 Lebengeburt⁴. Hierbei berichten die Autoren bezogen auf Lebendgeburten geographische Variationen in Asien, Nord-Amerika und Europa



von 1,57 bis 1,55/1.000, in Ozeanien von 1,33/1.000, in Süd-Amerika von 0,99/1.000 und in Afrika von lediglich 0,57/1.000.

Europa. Trotz des Fehlens eines flächendeckenden Zentralregisters existiert in Europa ein auf freiwilliger Teilnahme basierendes Melderegister für Geburtsfehlbildungen in Form des *European network of population-based registries for the epidemiological surveillance of congenital anomalies (EUROCAT)*, welches zweimal jährlich die Inzidenzen einer weiten Anzahl von Geburtsfehlbildungen publiziert. Für die Gruppe der orofazialen Spalten, welche in diesem Register aus L(KG)-Spalten und Gaumenspalten definiert wird, wird europaweit zwischen 2010 und 2019 eine Gesamtinzidenz von 1,45/1.000 Geburten, für L(KG) 0,87/1.000 Geburten, bzw. für isolierte Gaumenspalten 0,59/1.000 Geburten angegeben.³⁵

Die Meldungen erfolgen jedoch insbesondere in Bezug auf orofaziale Spaltbildungen scheinbar inkonsistent und in Anbetracht der Lücken eher stichprobenartig. Tendenzen zum in der Literatur beschriebenen Nord-Süd-Gefälle⁶ können anhand dieser Daten allenfalls ansatzweise nachvollzogen werden (siehe Tabelle 3 ff.).

orofaziale Spalten	Geburten gesamt			Lebend-geburten			Tot-geburten			Schwangerschaftsabbruch		
		CI			CI			CI		CI		
Belgien	1,40	1,26	1,54	1,29	1,16	1,43	0,01	0,00	0,03	0,10	0,06	0,14
Bulgarien	2,05	1,50	2,73	1,65	1,16	2,27	0,22	0,07	0,52	0,18	0,05	0,46
Dänemark	1,78	1,42	2,21	1,57	1,23	1,97	0,02	0,00	0,12	0,19	0,09	0,37
Deutschland	1,98	1,78	2,20	1,78	1,58	1,99	0,02	0,00	0,05	0,19	0,13	0,27
Frankreich	1,53	1,44	1,63	1,19	1,11	1,28	0,02	0,01	0,04	0,32	0,28	0,36
Großbritannien	1,64	1,59	1,69	1,44	1,40	1,49	0,03	0,02	0,04	0,17	0,15	0,18
Irland	1,39	1,24	1,55	1,35	1,20	1,51	0,02	0,01	0,05	0,02	0,01	0,05
Italien	1,09	1,02	1,16	0,99	0,93	1,06	0,01	0,00	0,01	0,09	0,07	0,11
Kroatien	1,83	1,48	2,24	1,75	1,41	2,15	0,02	0,00	0,11	0,06	0,01	0,17
Malta	1,66	1,30	2,09	1,66	1,30	2,09	0,00	0,02	0,09	0,00	0,02	0,09
Niederlande	1,99	1,78	2,22	1,71	1,51	1,92	0,05	0,02	0,10	0,23	0,16	0,32
Norwegen	1,66	1,55	1,77	1,48	1,38	1,59	0,02	0,01	0,03	0,16	0,13	0,20
Österreich	1,31	1,09	1,56	1,17	0,96	1,40	0,02	0,00	0,08	0,12	0,06	0,22
Polen	1,07	1,04	1,11	1,07	1,04	1,10	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00
Portugal	0,65	0,53	0,79	0,57	0,46	0,70	0,01	0,00	0,05	0,07	0,03	0,12
Schweiz	1,64	1,38	1,94	1,29	1,06	1,56	0,01	0,00	0,07	0,34	0,23	0,49
Spanien	0,90	0,83	0,98	0,80	0,73	0,87	0,01	0,00	0,02	0,09	0,07	0,12
Ukraine	1,47	1,33	1,63	1,26	1,13	1,40	0,06	0,04	0,10	0,15	0,11	0,20

Tabelle 3. Europäische Inzidenzen für orofaziale Spalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT.³⁵ Inzidenzen in Fälle/1.000.



Lippen ±Kiefer ±Gaumen- Spalten	Geburten gesamt			Lebend- geburten			Tot- geburten			Schwanger- schafts- abbruch		
		CI			CI			CI		CI		
Belgien	0,93	0,82	1,05	0,85	0,74	0,96	0,01	0,00	0,03	0,07	0,05	0,11
Bulgarien	1,34	0,90	1,91	1,02	0,65	1,54	0,18	0,05	0,46	0,13	0,03	0,39
Dänemark	1,24	0,94	1,61	1,07	0,80	1,41	0,02	0,00	0,12	0,15	0,06	0,31
Deutschland	1,34	1,17	1,52	1,17	1,02	1,35	0,01	0,00	0,04	0,15	0,10	0,22
Frankreich	0,86	0,80	0,94	0,68	0,62	0,75	0,01	0,01	0,03	0,17	0,14	0,20
Großbritannien	0,97	0,93	1,01	0,83	0,80	0,87	0,02	0,02	0,03	0,11	0,10	0,13
Irland	0,74	0,63	0,86	0,71	0,61	0,83	0,01	0,00	0,04	0,02	0,01	0,05
Italien	0,66	0,61	0,72	0,58	0,53	0,63	0,01	0,00	0,01	0,08	0,06	0,10
Kroatien	0,99	0,74	1,31	0,93	0,69	1,24	0,02	0,00	0,11	0,04	0,00	0,14
Malta	0,76	0,52	1,07	0,76	0,52	1,07	0,00	0,02	0,09	0,00	0,02	0,09
Niederlande	1,32	1,15	1,51	1,10	0,95	1,28	0,03	0,01	0,06	0,19	0,13	0,28
Norwegen	1,04	0,96	1,13	0,91	0,83	0,99	0,01	0,00	0,02	0,12	0,09	0,15
Österreich	0,72	0,56	0,91	0,64	0,49	0,82	0,01	0,00	0,06	0,07	0,03	0,15
Polen	0,61	0,59	0,64	0,61	0,59	0,64	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00
Portugal	0,30	0,22	0,40	0,27	0,19	0,36	0,00	0,00	0,02	0,03	0,01	0,07
Schweiz	0,92	0,73	1,15	0,70	0,53	0,90	0,00	0,01	0,05	0,23	0,14	0,35
Spanien	0,42	0,39	0,46	0,38	0,34	0,41	0,00	0,00	0,01	0,04	0,03	0,06
Ukraine	0,95	0,83	1,07	0,74	0,64	0,85	0,06	0,04	0,10	0,15	0,11	0,20

Tabelle 4. Europäische Inzidenzen für Lippen±Kiefer±Gaumenspalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT.³⁵
Inzidenzen in Fälle/1.000.

Gaumen- spalten	Geburten gesamt			Lebend- geburten			Tot- geburten			Schwanger- schafts- abbruch		
		CI			CI			CI		CI		
Belgien	0,47	0,39	0,56	0,45	0,37	0,53	0,00	0,00	0,02	0,02	0,01	0,05
Bulgarien	0,71	0,41	1,16	0,62	0,34	1,05	0,05	0,00	0,25	0,05	0,00	0,25
Dänemark	0,54	0,35	0,79	0,49	0,31	0,74	0,00	0,02	0,08	0,04	0,00	0,16
Deutschland	0,65	0,53	0,78	0,60	0,49	0,73	0,01	0,00	0,03	0,04	0,02	0,08
Frankreich	0,67	0,61	0,73	0,51	0,46	0,57	0,01	0,00	0,02	0,15	0,12	0,18
Großbritannien	0,67	0,64	0,70	0,61	0,58	0,64	0,01	0,00	0,01	0,06	0,05	0,06
Irland	0,64	0,54	0,76	0,64	0,54	0,75	0,00	0,00	0,03	0,00	0,00	0,02
Italien	0,43	0,38	0,47	0,42	0,37	0,46	0,00	0,00	0,01	0,01	0,00	0,02
Kroatien	0,84	0,61	1,13	0,82	0,59	1,11	0,00	0,01	0,08	0,02	0,00	0,11
Malta	0,90	0,64	1,23	0,90	0,64	1,23	0,00	0,02	0,09	0,00	0,02	0,09
Niederlande	0,67	0,54	0,80	0,60	0,49	0,74	0,03	0,01	0,06	0,04	0,01	0,08
Norwegen	0,62	0,56	0,69	0,57	0,51	0,64	0,01	0,00	0,02	0,04	0,03	0,06
Österreich	0,59	0,45	0,76	0,53	0,39	0,69	0,01	0,00	0,06	0,05	0,02	0,12
Polen	0,46	0,44	0,48	0,46	0,44	0,48	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00
Portugal	0,35	0,27	0,46	0,30	0,23	0,40	0,01	0,00	0,05	0,04	0,01	0,08
Schweiz	0,72	0,55	0,93	0,59	0,44	0,78	0,01	0,00	0,07	0,12	0,06	0,22
Spanien	0,40	0,35	0,45	0,38	0,33	0,43	0,00	0,00	0,01	0,02	0,01	0,03
Ukraine	0,53	0,44	0,62	0,52	0,44	0,62	0,00	0,00	0,02	0,00	0,00	0,02

Tabelle 5. Europäische Inzidenzen für isolierte Gaumenspalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT.³⁵
Inzidenzen in Fälle/1.000.

Deutschland. Ein übergreifendes Register für Deutschland fehlt, repräsentativ kann jedoch ein durch das Bundesland Sachsen-Anhalt eigens aufgebautes Fehlbildungsmonitoring gemäß ICBDSR dienen, welches als Mitglied von EUROCAT u.a. auch die Inzidenzen von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten erfasst. Hier wurden für das Jahr 2020 für Lippen-(±Kiefer±Gaumen-)Spalten eine Inzidenz von 1,48/1.000 Geburten (inkl. Aborten), für die Jahre 2008-2019 im Mittel 1,31/1.000 Geburten berichtet. Das Geschlechterverhältnis betrug 2020 1,55 Jungen : 1 Mädchen. Die Seitenverteilung lag im Falle einseitiger Spaltbildungen in den Jahren 2008-2019 bei etwa 1 rechts : 2,2 links, im Jahr 2020 schien dieses Verhältnis verkehrt. Das Verhältnis von einseitigen zu beidseitigen Spalten wurde mit etwa 3:1 berichtet.



Etwa 1/3 der Lippen-(±Kiefer±Gaumen-)Spalten trat mit anderen Fehlbildungen zusammen auf. Die Inzidenz isolierter Gaumenspalten lag 2020 bei 0,49/1.000 Geburten, in den Jahren 2008-2019 bei 0,69/1.000 Geburten, das Geschlechterverhältnis lag 2020 bei etwa 1 Junge : 1,7 Mädchen. In der Summe ergibt sich für alle Ausprägungsformen der Lippen-Kiefer-Gaumenspalten für 2020 folglich eine Inzidenz von etwa 2/1.000 Geburten.⁹

Eine wesentliche Limitation stellt die bezogen auf die gesamte Bundesrepublik Deutschland sehr kleine Stichprobe in Form Sachsen-Anhalts dar (2015 nur etwa 2,4% aller Geburten in Deutschland)³⁶, insbesondere da die Inzidenzen für orofaziale Spalten entsprechend EUROCAT von 2010 bis 2019 hier auch im Vergleich mit anderen deutschsprachigen Regionen deutlich höher ausfallen (siehe Tabelle 3 ff.)³⁵. Es sei hierbei jedoch auf die teilweise deutlich variierenden Jahresinzidenzen hingewiesen, welche ein Indikator für eine inkonsistente Meldung der teilnehmenden Zentren sein und damit zu falsch niedrigen Annahmen führen könnten. Ebenso könnten unterschiedliche Diagnostik, variierende Diagnosekriterien oder Variationen in der Ausbildung der Zuweiser der teilnehmenden Therapiezentren (u.a. Geburtshelfer, Gynäkologen, Pädiater) zu unterdiagnostizierten und damit unterschätzten Fallzahlen führen. Dieser Umstand wäre auch auf weite Bereiche anderer Teile der Welt insbesondere mit schlechterer medizinischer Anbindung anwendbar. Folglich liefen insbesondere unterentwickelte Länder Gefahr falsch niedrig diagnostizierter Inzidenzen. Außerdem berichten nicht alle teilnehmenden Register, bzw. Zentren in den gleichen Kategorien (Beispiel Schweden: LKG ohne Untergruppierung von Gaumenspalten mit Inzidenz von 1,1/1000 innerhalb der Gruppe von Ohr, Gesicht und Hals).

Taiwan. In Taiwan lag die Inzidenzrate für alle Ausprägungsformen von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten zwischen 1994 und 2013 im Mittel bei 1,48/1.000 Lebendgeburten. Die Autoren ermittelten hierbei außerdem einen im zeitlichen Verlauf relativen Rückgang der Lippen±Kiefer±Gaumenspalten, jedoch nicht der isolierten Gaumenspalten.³⁷ Die allgemeine Inzidenz ist damit in etwa mit der in Deutschland vergleichbar.

Geschlechterverteilung. Die Wahrscheinlichkeit des Auftretens verschiedener Spaltformen variiert auch geschlechtsabhängig: Innerhalb der weißen Bevölkerung wird für Lippen-Kiefer-(±Gaumen-)Spalten eine Geschlechterverteilung von etwa 2 Jungen : 1 Mädchen angegeben^{8,9,34}.

Syndromales Auftreten. Entsprechend des *WHO Registry Meeting on Craniofacial Anomalies* 2001 wird ein syndromales Auftreten von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten weltweit auf etwa 30% geschätzt, woraus im Umkehrschluss gefolgert wird, dass 70% nicht-syndromal auftreten. Dabei zeigen isolierte Gaumenspalten mit bis zu 50% eine deutliche höhere



Assoziation zu anderen kongenitalen Fehlbildungen als Lippen-Kiefer-(±Gaumen-)Spalten, bei denen dies in lediglich 5-10% der Fälle vorzuliegen scheint.⁶

Nord-Süd-Gefälle. Gemäß WHO besteht wenigstens innerhalb Europas ein Nord-Süd-Gefälle mit höheren Inzidenzen in nördlichen Ländern, weltweit scheint es lokale Abweichungen dieser Beobachtung wie z.B. in Japan (niedrige Prävalenz von Lippen-Kiefer-(±Gaumen-)Spalten), China (niedrige Prävalenz von isolierten Gaumenspalten) und Nairobi (hohe Prävalenz von Lippen-Kiefer-(±Gaumen-)Spalten) zu geben.^{6,34}

1.6. Allgemeine Pathophysiologie

Aus den oben bereits beschriebenen anatomischen und speziellen pathophysiologischen Grundlagen (1.3) lassen sich offensichtliche und weniger offensichtliche Probleme ableiten:

Ästhetik. Insb. von außen erkennbare Spaltbildungen im Bereich von Lippe und Nase weichen offensichtlich vom gewohnten Bild ab, fallen dem Betrachter im omnipräsenten Gesicht sofort auf und lassen sich kaum verstecken, sodass sie die ästhetische Erscheinung eines Menschen in besonderem Maße einschränken können.

Ernährung. Lippenspalten führen zu einem insuffizientem Lippenschluss, welche durch Spaltbildungen im Bereich des Nasenbodens und des Gaumens weiter verstärkt werden, sodass den Kindern reguläres Saugen, also die Erzeugung von Unterdruck durch den nasalen Bypass nahezu unmöglich wird. Entsprechend kommt es zu Ernährungsproblemen, welche einige Kinder durch kauendes Melken der Brust oder Verwendung spezieller Sauger (z.B. *Haberman-Feeder*) wenigstens partiell kompensieren können. Im Falle beidseitiger Lippen-Kiefer±Gaumenspalten mit mobiler *Prämaxilla* oder sehr breiter Gaumenspalten wird jedoch auch diese Kompensationsmethode mangels Widerlager stark kompromittiert. Weiterhin kommt es bei fehlender Trennung von Mundhöhle und Nasopharynx immer wieder zum Übertritt von Nahrung in die Nase, welche verborkend wirken und bei mangelnder Hygiene, bzw. Hygienefähigkeit einen Nährboden für Erreger mit entsprechendem Infektionsrisiko darstellen können. In der Summe kann es ohne Intervention also zu Gedeihstörungen des betroffenen Kindes kommen.

Wachstum. Einerseits durch fehlerhaften Muskelzug (fehlende orale Ringmuskulatur), andererseits durch mangelndes Widerlager (Einlagerung der Zunge in die Gaumenspalte statt an den Gaumen) kommt es zur Entstehung muskulärer Dysbalancen (Abbildung 3), welche im Falle einseitiger Spalten zu asymmetrischem Wachstum, ohne Intervention in jedem Fall aber zu einer weiteren Verbreiterung der Spalte führen.

Muskuläre Habits. Bei persistierender Spalte wird insb. das viszerale Schluckmuster beibehalten, bei dem sich die Zunge zwischen die Kiefer und nicht wie beim somatischen



Schlucken dem Gaumen anlagert, was die Gefahr fehlerhafter Wachstumsmuster und weiterer orthodontischer Probleme erhöht.

Hören. Bei Vorliegen einer mindestens muskulären Weichgaumenspalte besteht wie unter 1.3.3 bereits beschrieben das Risiko einer mangelnden Tubenbelüftung, welche in insuffizientem Abfluss und Druckausgleich des Mittelohrs resultieren. Die entstehende Schalleitungsstörung in Verbindung mit der Gefahr ascendierender Otitiden führt zu verminderter Hörfähigkeit. Mangelnde akustische Reizweiterleitung führt wiederum zu einer ausbleibenden Reifung (etwa 12 Monate andauernde Myelinisierung des Hörnerven), sowie Bahnung (bis etwa zum 8. Lebensjahr andauernde Synaptogenese) und be- oder verhindert damit gar die Sprachentwicklung³⁸.

Lautbildung und Artikulation. Durch die dysfunktionale Motorik bei Lippen-Kiefer-Gaumenspalten wird natürlich die Artikulation im Lippenbereich erschwert, vor allem aber kommt auch hier dem Weichgaumen eine tragende Rolle bei der Abdichtung des Oropharynx zum Nasopharynx zu. Bleibt diese aus, resultiert eine für Gaumenspalten typische *Rhinophonia aperta*, ein offenes Näseln³⁹.

Sprachentwicklung. Innerhalb der ersten 3 Lebensjahre findet die wesentliche Hör-Bahnung statt, also die Ausbildung von Synapsen, wozu kontinuierliche akustische Reize notwendig sind. Werden diese durch eine Schalleitungsstörung nur insuffizient weitergeleitet, bilden sich entsprechend weniger kortikale Synapsen, die auch später nicht mehr kompensiert werden können. Besonders kritisch scheint für kongenitale Hörstörungen der 6. Lebensmonat zu sein, bis zu dem schwerwiegende Hörstörungen beseitigt sein sollten, um eine unbeeinträchtigte Sprachentwicklung zu gewährleisten. Ab diesem Zeitpunkt gewinnt für den Spracherwerb die reziproke Wahrnehmung der Lautproduktion zunehmend an Bedeutung ohne die das Kind in der Lallphase verweilt.³⁸

Intellektuelle Entwicklung. Hörbeeinträchtigungen bedingen keine kognitive Leistungseinschränkung, jedoch können sie die kognitive Entwicklung dahingehend benachteiligen, dass eine eingeschränkte Kommunikationsfähigkeit und stärkere Ermüdungstendenz aufgrund anstrengender Kompensationsmethoden das Lernverhalten negativ beeinflussen.³⁸

1.7. Diagnostik

Im Laufe der Jahrzehnte hat sich das wesentliche diagnostische Werkzeug für die Diagnose von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten in Form der klinischen Untersuchung (mit Inspektion, Palpation und Funktionsprüfung) praktisch nicht geändert, jedoch haben sich postnatal Methoden der Früherkennung in Form von Screeninguntersuchungen etabliert. Darüber hinaus wurde es in den letzten Jahrzehnten möglich durch weiterentwickelte nicht invasive



Verfahren wie die Sonografie bereits pränatal einen relevanten Anteil orofazialer Spaltbildungen zu diagnostizieren.

1.7.1. Pränatal

Grundsätzlich sollten pränatale Untersuchungsmethoden zur Diagnose konventionell gut beherrschbarer Formstörungen wie Lippen-Kiefer-Gaumenspalten non-invasiv bleiben, sodass sich insbesondere zum pränatalen Screening die Sonografie bewährt hat. Invasive Verfahren wie die Amniozentese sollten aufgrund des einhergehenden Komplikationsrisikos Sonderfragestellungen wie der Erkennung schwerwiegenderer Syndrome vorbehalten bleiben.

Sonografie. Beginnend in den 1980ern und der flächendeckenden Einführung zu Beginn des 21. Jahrhunderts folgend können bereits vor Geburt viele orofaziale Spaltbildungen intrauterin sonographisch identifiziert, die Eltern über die Fehlbildung informiert sowie auf die einhergehenden Probleme und deren Lösungsansätze eingestimmt werden. Entsprechend eines systematischen Reviews von *Maarse et al.* aus 2010 wurden jedoch sehr große Varianzen der Vorhersagegenauigkeit berichtet, wobei im Allgemeinen Lippenspalten am zuverlässigsten, isolierte Gaumenspalten jedoch kaum erkannt wurden. Insbesondere die Sensitivität zweidimensionaler Abdomen-Sonografie bei Niedrig-Risiko-Gruppen schwangerer Frauen (sowohl pro- als auch retrospektive Kohortenstudien) lag bezogen auf alle Spaltarten bei 0-73%, bezogen auf Lippen±Kiefer±Gaumenspalten bei 9-100% und schließlich für isolierte Gaumenspalten bei lediglich mehr 0-22%. Innerhalb Hoch-Risiko-Gruppen schwangerer Frauen war die Sensitivität tendenziell höher und erst die dreidimensionale Sonografie zeigte grundsätzlich zufriedenstellende Sensitivitäten nahe 100% bezogen auf Lippen±Kiefer±Gaumenspalten auch wenn Gaumenspalten weiterhin nicht suffizient erkannt wurden.⁴⁰

Die ständig verbesserten Ultraschallgeräte in Verbindung mit deren größerer Verbreitung und der steigenden Lernkurve der sie bedienenden Untersucher lassen auf eine künftig immer bessere Validität hoffen, auch wenn die Praxis oben beschriebene Erfahrungen weiterhin bestätigt.

1.7.2. Postnatal

Klinische Untersuchung. Nach Geburt bietet sich zur Erkennung orofazialer Spalten offensichtlich die klinische Untersuchung an, bei der sich bereits inspektorisch sehr valide eine präzise Diagnose treffen lässt.

Screening. In Deutschland wurden vom *Gemeinsamen Bundesausschuss (G-BA)* Gesundheitsuntersuchungen für Kinder und Jugendliche (U1-U9, J1) in der *Richtlinie über die*



Früherkennung von Krankheiten bei Kindern festgelegt^{41,42}, deren Teilnahme für Eltern prinzipiell freiwillig ist (Ausnahmen mit verpflichtender Teilnahme: Baden-Württemberg, Bayern und Hessen). Hierbei wird in der *Neugeborenen-Erstuntersuchung* (U1) unmittelbar nach der Geburt orientierend und insbesondere in der *Untersuchung vom 3. bis 10. Lebensstag* (U2) durch den Pädiater auch auf das Vorliegen orofazialer Fehlbildungen hin untersucht.⁴² Durch dieses flächendeckende Untersuchungsangebot kann angenommen werden, dass binnen der ersten Lebensstage der Großteil aller orofazialen Spalten erkannt und einer Behandlung zugeführt wird. Es muss davon ausgegangen werden, dass ein vergleichbares Screening global nicht zuverlässig angeboten werden kann und entsprechend auch epidemiologische Daten global mit Vorsicht zu betrachten sind.

Diaphanoskopie. Obschon die Diagnose der klinischen Erfahrung nach in den meisten Fällen unkompliziert gelingt, können sich vor allem submuköse Gaumenspalten auch der klinischen Untersuchung entziehen. Im Zweifelsfall kann hierbei die Diaphanoskopie zur Hilfe gezogen werden, bei der i.d.R. in kurzer Maskennarkose mithilfe einer Kaltlichtquelle, welche endoskopisch über die Nase eingeführt wird, die Gaumenmuskulatur besser beurteilt werden kann, um eine funktionell relevante submuköse Gaumenspalte ausschließen zu können.

Chirurgische Exploration. In einzelnen Fällen muss nach Ausschöpfen aller Alternativen und persistierendem dringendem Verdacht auf das Vorliegen einer funktionell relevanten submukösen Gaumenspalte auch eine chirurgische Exploration durchgeführt werden, bei der von oral über einen medianen mukosalen Zugang die Gaumenmuskulatur aufgesucht und auf deren Fusion hin geprüft werden kann.

1.8. Allgemeiner Behandlungsablauf

Die Diagnostik und Therapie von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten erfordert enge interdisziplinäre Zusammenarbeit aus...

- **Gynäkolog*innen**, welche bereits pränatal orofaziale Spalten sonographisch diagnostizieren können, bzw. spätestens geburtshilflich die Neugeborenen-Untersuchung durchführen,
- **Pädiater*innen**, die einerseits im Rahmen der U2 für die Früherkennung zuständig sind und andererseits auch die weitere kindliche Entwicklung überwachen,
- **Mund-Kiefer-Gesichtschirurg*innen**, die für die Beratung der Eltern, die erste nicht-operative Therapie durch Gaumenplatten oder Nasoalveoläres Molding (NAM) und mindestens die frühe operative Therapie verantwortlich sind,



- **Kieferorthopäd*innen und Zahntechniker*innen**, die bereits früh in die Gaumenplatten oder NAM-Therapie eingebunden sind und auch später die Dentition überwachen, sowie ggf. im Verlauf frühfunktionell therapieren können,
- **Hals-Nasen-Ohrenärzt*innen, Pädaudiolog*innen** und **Phoniater*innen**, welche bereits das Neugeborenen-Hörscreening durchführen, ggf. nötige Versorgungsungen mit Kinderhörgeräten initiieren und natürlich schon früh die operative Therapie von Mittelohrbelüftungsstörungen übernehmen,
- **Still- und Ernährungsberater*innen**, welche die Eltern auf die besonderen Bedürfnisse ihres betroffenen Kindes schulen,
- **Logopäd*innen**, die gemeinsam mit Phoniater*innen die Sprachentwicklung begleiten,
- **Anästhesist*innen**, die unverzichtbar für eine suffiziente operative Versorgung der Patienten sind,
- ggf. **Plastische Chirurg*innen**, welche ergänzend zu Hals-Nasen-Ohrenärzt*innen und Mund-Kiefer-Gesichtschirurg*innen an der Therapie der Spätfolgen der Spalttherapie erforderlich werden können.

Die Vielfalt dieser Fachdisziplinen verdeutlicht die Komplexität der Behandlung und legt eine Versorgung in spezialisierten Zentren nahe, in denen kurze Kommunikationswege etabliert sind und auch Komplikationen beherrscht werden können.

Das folgende Diagramm (Abbildung 6) gibt eine Übersicht über die zeitliche Abfolge eines Behandlungsablaufes und zeigt übliche Konsultationsintervalle mit besonderem Augenmerk auf den präoperativen organisatorischen Unterschieden zwischen konventioneller Gaumenplattentherapie und *Nasoalveolärem Molding* (in diesem Fall gemäß des Behandlungsablaufes der Klinik und Poliklinik für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie des Universitätsklinikums Regensburg).

Die engmaschige Anbindung und hohe organisatorische, wie auch zugrundeliegende infrastrukturelle Komplexität der Behandlung veranschaulichen sehr deutlich die Belastung, welche auf den Schutzbefohlenen der jungen Patienten lastet und lässt deren Konsequenzen für Psyche, Familie, Beruf und Freizeit erahnen.

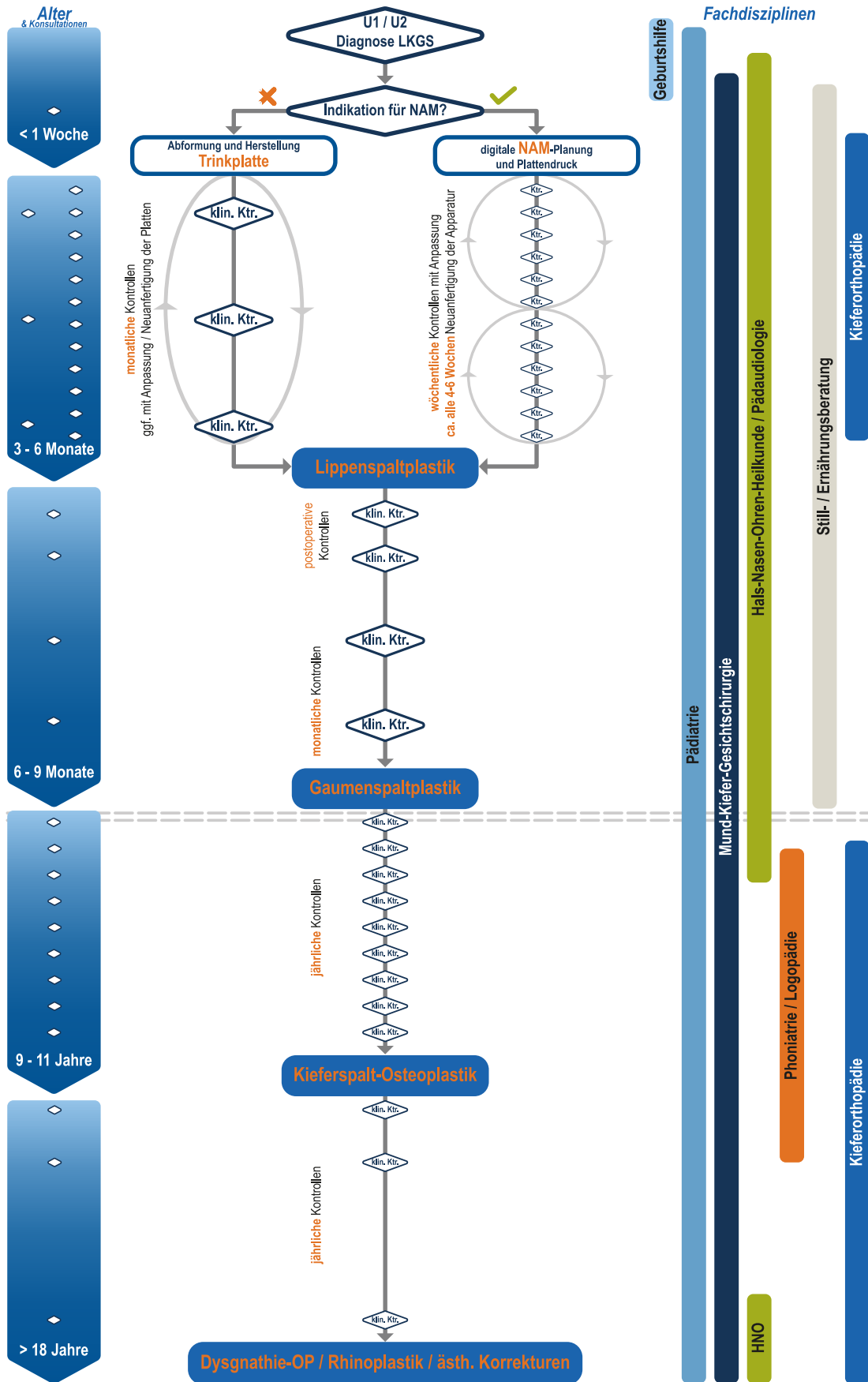


Abbildung 6. Zeitliches und organisatorisches Behandlungsschema. Ablauf entsprechend der Klinik und Poliklinik für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie des Universitätsklinikums Regensburg.



1.9. (konventionelle) Gaumenplattentherapie

Hintergrund und Wirkweise. Die inzwischen präoperativ wenigstens im deutschen Raum verbreitetste Maßnahme zur Unterstützung des betroffenen Kindes ist die Eingliederung einer herausnehmbaren Gaumenplatte (engl. *feeding plate*, Abbildung 7), welche ursprünglich durch *Hotz et al.* zur Überbrückung der alveolären, sowie (Hart-)Gaumenspalte eingeführt wurde⁴³. Je nach Gestaltung der im eigentlichen Sinn rein passiven Akrylplatte kann diese mit kleineren Modifikationen den Charakter einer aktiven orthopädischen Apparatur annehmen, wobei durch Antragen, bzw. Radieren von Kunststoff oder sogar durch aktive Gelenke aktive Kräfte auf die Kiefersegmente übertragen werden können^{43,44}. Trotz Bemühungen des Nachweises luftdichter Obstruktionsmöglichkeit zwischen Mund- und Nasenhöhle zur Ermöglichung eines Vakuums beim Saugen⁴⁵ ist aufgrund der Plattendimension, welche i.d.R. nur bis zur gedachten A-Linie, also dem Übergang von Hart- zu Weichgaumen reicht, die Herstellung eines suffizienten Vakuums kaum vorstellbar. Dennoch unterstützen die Überbrückung der Spalte in Verbindung mit dem Einsatz von Spezialsaugern (z.B. *Haberman-Feeder*) die Ernährung deutlich, indem das Kind zum Melken, also dem Ausdrücken des Saugers befähigt wird⁴³⁻⁴⁵. Durch den Einsatz dieser Gaumenplatten wird erfahrungsgemäß ein nasaler Ausfluss nicht vollständig verhindert, aber meist deutlich bis auf ein für das Kind unmerkliches Maß reduziert. Ein wesentlicher Nebeneffekt des Einsatzes dieser Platten ist im orthopädischen Sinne jedoch das Verhindern der Einlagerung der Zunge in den Spaltbereich, wodurch die muskuläre Dysbalance und damit deren spaltverbreiternder Wachstumseinfluss reduziert werden können.

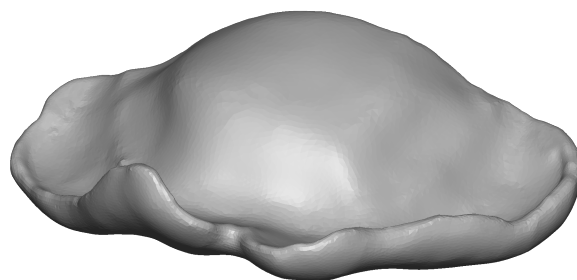


Abbildung 7. konventionelle Gaumenplatte.

Behandlungsablauf. Nach Diagnose der (Lippen-)Kiefer-Gaumenspalte und Erstkonsultation des Mund-Kiefer-Gesichtschirurgen erfolgt innerhalb der ersten Lebensstage die Abformung, Herstellung und Eingliederung der Gaumenplatte. Beim Vorliegen einer Lippenspalte können



die Lippenstümpfe unabhängig von der Gaumenplattentherapie optional mit Lippentapes angenähert werden. Der Verlauf wird i.d.R. monatlich reevaluiert insb. in Hinblick auf das Auftreten möglicher Druckstellen, die suffiziente Abdeckung der Spalte, sowie das allgemeine Wachstum und die Ernährungsfähigkeit des Kindes. Die Gaumenplatte wird bei Bedarf in diesen Sitzungen angepasst oder neu angefertigt. Nach Erreichen der elektiven Narkosefähigkeit wird die operative Therapie in Form der Lippen-spaltplastik eingeleitet (i.d.R. 3. – 6. Lebensmonat). Im Falle einer simultanen Vomer-Kipplappenplastik, welche funktionell den Hartgaumen zum Nasopharynx bereits abdeckt, kann auf eine Platte oftmals ganz verzichtet werden, andernfalls wird die Gaumenplattentherapie fortgesetzt mit weiterhin monatlichen Reevaluationen und endet spätestens mit dem vollständigen Weichgaumenverschluss (i.d.R. 6. – 9. Lebensmonat, spätestens abgeschlossenes 1. Lebensjahr). Eine Übersicht über den gesamten Behandlungsablauf bietet Abbildung 6.

1.10. Nasoalveoläres Molding

Hintergrund. Präoperative Maßnahmen zur Wachstumssteuerung im Sinne orthopädischer bzw. orthodontischer Apparaturen sowohl konservativer^{44,46}, als auch invasiverer Art (intraossäres Einbringen von Pins zur Ausrichtung der Kiefersegmente)⁴⁷ wurden zahlreich versucht mit teils umstrittenen Resultaten^{7,48}. All diese Techniken zielten im Wesentlichen jedoch nur auf die Ausformung des Alveolarbogens ab. Die Nasendeformität wurde hierbei allenfalls indirekt adressiert, stellt jedoch ästhetisch, funktionell und operativ ein erhebliches Problem dar, insbesondere da befürchtet werden muss, dass sich frühe chirurgische Korrekturen aufgrund unvermeidlicher Vernarbungen negativ auf das Wachstum⁴⁹ und damit auf Symmetrie und Ästhetik auswirken. Weiter werden hierdurch späte Revisionen relevant erschwert, sodass bei Patienten mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten allgemein erst nach Abschluss des Gesichtswachstums im jungen Erwachsenenalter zur Septorhinoplastik geraten wird⁵⁰. *Matsuo et al.* hatten bereits in den frühen 1980ern auf dem Fachgebiet der Hals-Nasen-Ohrenheilkunde die nicht-operative Korrektur kongenitaler Ohrdeformitäten untersucht und begründeten diese mit der Plastizität des neonatalen Knorpels, welche sie wiederum auf die konnatal hohen Östrogen- und daraus resultierenden hohen Hyaluronsäure-Spiegel zurückführten⁵¹. Entsprechend übertrugen sie ihre Studien 1988 mithilfe weicher Naseneingangs-Retainer in Form von Silikonschläuchen auch auf Nasendeformitäten bei Lippen-Kiefer-Gaumenspalten⁵². Basierend auf diesen Arbeiten⁴⁸ entwickelten *Grayson et al.* die Technik des *Nasoalveolären Moldings*, die sie erstmals 1993 in Grundzügen darstellten⁵³ und ab 1999 entsprechend benannten⁵⁴⁻⁵⁶.

Ziele. *Grayson et al.* formulierten als Hauptziele der NAM-Therapie in erster Linie die Reduktion der Spaltausprägung und damit die Erleichterung der folgenden operativen



Therapie. Hierzu soll das *Nasoalveoläre Molding* die Lippensegmente annähern, die Columella aufrichten und ggf. verlängern, die lateralen Flügelknorpel symmetrisch angleichen, das *inner lining* (also die Nasenschleimhaut) dehnen, im Falle beidseitiger Spalten die Nasenbasis, sowie die Nasenspitze verschmälern, die Nasenprojektion verbessern und darüber hinaus auch die alveolären Segmente annähern, denen das darüber liegende Weichgewebe folgen kann.⁴⁸

Vereinfacht zusammengefasst sollen also...

- die Spaltbreite reduziert,
- die Nase aufgerichtet,
- in ihrer Projektion verlängert und
- symmetrisiert werden.

Im Gegensatz zur konventionellen Gaumenplatte nach *Hotz et al.* und deren primär passiv auf den Alveolarkamm und Hartgaumen, bzw. in späteren Abwandlungen semiaktiv wirkender orthopädischer Funktion, adressiert das *Nasoalveoläre Molding* zusätzlich explizit das bis dahin nicht direkt beeinflusste Nasenwachstum.

1.10.1. Aufbau der NAM-Apparatur

Körper. Analog zur konventionellen Gaumenplatte nach *Hotz et al.* (Abbildung 7) besteht auch die NAM-Apparatur (Abbildung 8) aus dem eigentlichen Körper, einer Akrylplatte (i.d.R. aus dentaltechnischem PMMA), welche die alveolären und Hartgaumen-Segmente überspannt, jedoch nicht vollständig körperlich fasst. Stattdessen werden abhängig von der intendierten Wachstumsrichtung in einzelnen Bereichen Druckareale (durch Radierung des Gipsmodells bzw. durch nachträgliches Antragen zusätzlichen Kunststoffes) und in anderen Freiräume (durch Ausblocken des Gipsmodells oder nachträgliches Radieren von Kunststoff) geschaffen. Bei jeder klinischen Kontrolle werden auch diese Areale reevaluiert und ggf. weiter modifiziert.

Retentions-Pin. Aufgrund dieser intendierten anatomisch unzureichenden Passform werden zusätzlich im Spaltbereich ein, bzw. bei beidseitigen Spalten je ein Retentionspin aus Kunststoff zugefügt, welche leicht kaudal abgewinkelt im Spaltbereich nach extraoral geführt werden, um möglichst wenig mit der Oberlippe zu interferieren. Hierüber kann die Apparatur mittels kleiner Gummiringe und anhängender Pflasterstreifen extraoral an den Wangen des Kindes fixiert werden, wodurch insbesondere bei doppelseitigen Lippen-Kiefer-Gaumenspalten die auf die Prämaxilla bezogene retrudierende Wirkung der Apparatur verstärkt wird.

Nasenpelotte. Als entscheidendes Merkmal der NAM-Therapie wird im Spaltbereich noch je eine nierenförmige Nasenpelotte installiert, welche mittels eines federharten orthodontischen Drahtes mit der Acrylplatte verbunden wird. Die Pelotte wird möglichst columella-nah mit ihrem



distalen (Nieren-)Pol in die Nasenöffnung eingebracht, um das Wachstum der Nase gezielt beeinflussen zu können. Eine columella-ferne, d.h. lateralere Positionierung führt neben der direkten Vektoränderung insb. zu einer Erhöhung des Einbezugs elastischer, resilienter Weichgewebe, die wiederum die Wirkung der Pelotte auf die Columella reduzieren. Über den Draht kann die exakte Pelottenposition justiert und im Rahmen der Kontrollen korrigiert werden, um einen möglichst konstanten und ausreichend hohen Wachstumsstimulus ohne die Provokation von Druckulzerationen zu gewährleisten.

Lippentaping. Obschon dies kein direktes Element der NAM-Apparatur darstellt, wird in aller Regel zur Unterstützung der Therapie ein Taping der Oberlippe durchgeführt, über das die eigentliche Ringfunktion des M. orbicularis oris nachgeahmt und die o.g. muskuläre Dysbalance (Abschnitt 1.3.1) weiter reduziert werden.

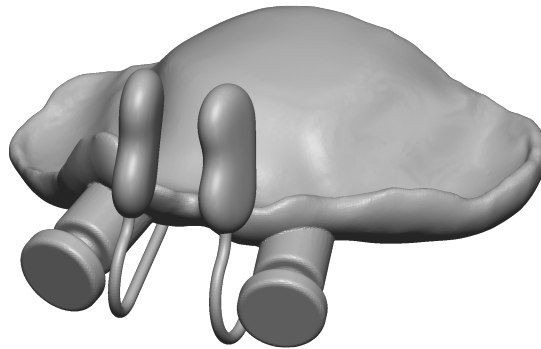


Abbildung 8. NAM-Apparatur mit Retentionspins und Nasenpelotten.

1.10.2. Behandlungsablauf

Zusammenfassung. Nach Diagnose der Lippen-Kiefer-Gaumenspalte und Erstkonsultation des Mund-Kiefer-Gesichtschirurgen mit Indikationsstellung der NAM-Therapie erfolgt innerhalb der ersten Lebensstage die Abformung, Herstellung und Eingliederung der Erstapparatur, bei der zunächst noch auf die Nasenpelotten verzichtet wird, und es wird mit dem Lippentaping begonnen. Im Rahmen der sich anschließenden wöchentlichen klinischen Kontrollen werden Wachstum und Therapiefortschritt evaluiert und es werden i.d.R. bereits innerhalb der ersten Lebenswochen die Nasenpelotten hinzugefügt, um die frühe Plastizität des Nasenknorpels möglichst gut zu nutzen. Weiter werden entsprechend der alveolären Positionskorrekturen und des Wachstums zunehmend auch Korrekturen im Bereich des Plattenkörpers vorgenommen. Nach Erreichen einer befriedigenden präoperativen Situation (oder Therapiestillstandes), sowie der anästhesiologisch unbedenklichen Operationsfähigkeit des Kindes wird die primäre Lippenspaloplastik angeschlossen, mit der die eigentliche NAM-Therapie beendet ist. Die Apparatur kann postoperativ ggf. durch unkompliziertes Umarbeiten



in Form einer konventionellen Gaumenplatte weitergenutzt werden bis zum suffizienten Gaumenspaltverschluss. Auf die Nasenpelotten und Retentionspins kann ab diesem Zeitpunkt verzichtet werden.

Gegenüberstellung konventionellen und digitalen Workflows. Folgend sollen am Beispiel der Klinik und Poliklinik für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie des Universitätsklinikums Regensburg ein Behandlungsablauf im Detail und dabei die Unterschiede zwischen konventioneller und digitaler Arbeitsweise dargestellt werden (bei den Zeitangaben handelt es sich um empirische Schätzungen): Bei Erstvorstellung erfolgt nach ausführlicher Aufklärung der Eltern konventionell zunächst eine Abformung zur Herstellung eines Gipsmodelles, auf dem durch den Zahntechniker im Streuverfahren zunächst der Plattenkörper hergestellt wird (Dauer ca. 2 h). In der Folge werden zweizeitig am selben oder Folgetag die Position der Retentionspins am Kind bestimmt und diese durch den Zahntechniker hinzugefügt (Dauer ca. 1 h). Davon abweichend werden im Falle der digitalen Planung Oberkiefer sowie Lippenpalte und Nase auch extraoral gescannt und die digitale Planung eingeleitet. Hierbei können Retentionspins und Einschubslots für die Haltedrähte der Nasenpelotten anhand der Scans bereits digital eingearbeitet, gedruckt und schließlich durch den Zahntechniker nachbearbeitet werden (Dauer ca. 1 – 2d). In beiden Fällen wird die Platte schließlich eingegliedert, es erfolgen das Lippentaping und die intensive Instruktion der Eltern. Im Rahmen der ersten wöchentlichen Kontrollen werden vor allem das Handling und die Compliance der Eltern, bzw. des Kindes geprüft, vertiefende Instruktionen sowie erste Anpassungen des Plattenkörpers vorgenommen und nach wenigen Wochen können bei ausreichendem nasalem Platzangebot (meist ab der 3. Lebenswoche) die Nasenpelotten eingepasst werden. Konventionell erfordert dies nach Anzeichnen der gewünschten Position am Patienten durch den Techniker das Einschleifen eines Retentionskanals, in das der Draht eingepasst, angebogen und an den schließlich eine Nasenpelotte im Streuverfahren modelliert und diese letztlich poliert wird (Dauer ca. 1,5 – 2 h). Bei der digitalen Planung kann ein anhand der Scans bereits vorgebogener Draht mit aufsteckbarer gedruckter Nasenpelotte in den vorhandenen Fixierungsslot des Plattenkörpers eingesteckt, am Patienten feinjustiert und schließlich durch den Zahntechniker mit lichthärtendem Kunststoff endgültig fixiert werden (Dauer ca. 45 min). Die entstehende Apparatur wird bei beiden Methoden erneut eingegliedert und die Eltern entsprechend zur selbstständigen Ein- und Ausgliederung angeleitet. In den weiteren wöchentlichen Kontrollen werden kleinere Anpassungen am Plattenkörper mittels lichthärtendem Kunststoff, bzw. Radierungen, sowie Reaktivierungen der Nasenpelotten durch Nachbiegen des Verbindungsdrahtes durchgeführt (Dauer jeweils ca. 15 – 30 min). Nach 4 – 6 Wochen entwachsen die Patienten in der Regel ihren Apparaturen, sodass diese neu angefertigt werden müssen. Bei gutem Behandlungsfortschritt kann die Behandlungsdauer etwas ausgedehnt werden, bei andauerndem Behandlungsstillstand trotz guter Compliance



wird zumeist der anästhesiologisch frühestmögliche Operationszeitpunkt angestrebt. Die engmaschige NAM-Therapie endet mit der Lippenspaltplastik (i.d.R. 3. – 6. Lebensmonat). Der weitere Verlauf unterscheidet sich nicht mehr von der oben bereits geschilderten konventionellen Gaumenplattentherapie. Falls noch nötig kann die letzte NAM-Apparatur nach erfolgter Lippenspaltplastik zur Gaumenplatte umgearbeitet werden. Eine Übersicht vermittelt das folgende Ablaufdiagramm (Abbildung 9). Durch die Anwendung des digitalen Workflows reduziert sich gemäß obiger Schilderung v.a. die Dauer der einzelnen Sitzungen, was die Compliance der Kinder erfahrungsgemäß weniger einschränkt, somit Eltern und Behandler innerhalb der Behandlung entlastet und den Eltern mehr Zeit außerhalb der Klinik schenkt. Bisher als nachteilig erachtet werden muss jedoch der digitale Planungsaufwand, welcher oftmals noch vom Behandler selbst durchgeführt wird und mangels kommerziell erhältlicher spezifischer Softwarelösungen bisher kaum zu automatisieren ist. Andererseits schafft die Verlagerung weg von der Behandlungssitzung organisatorische Freiheiten.

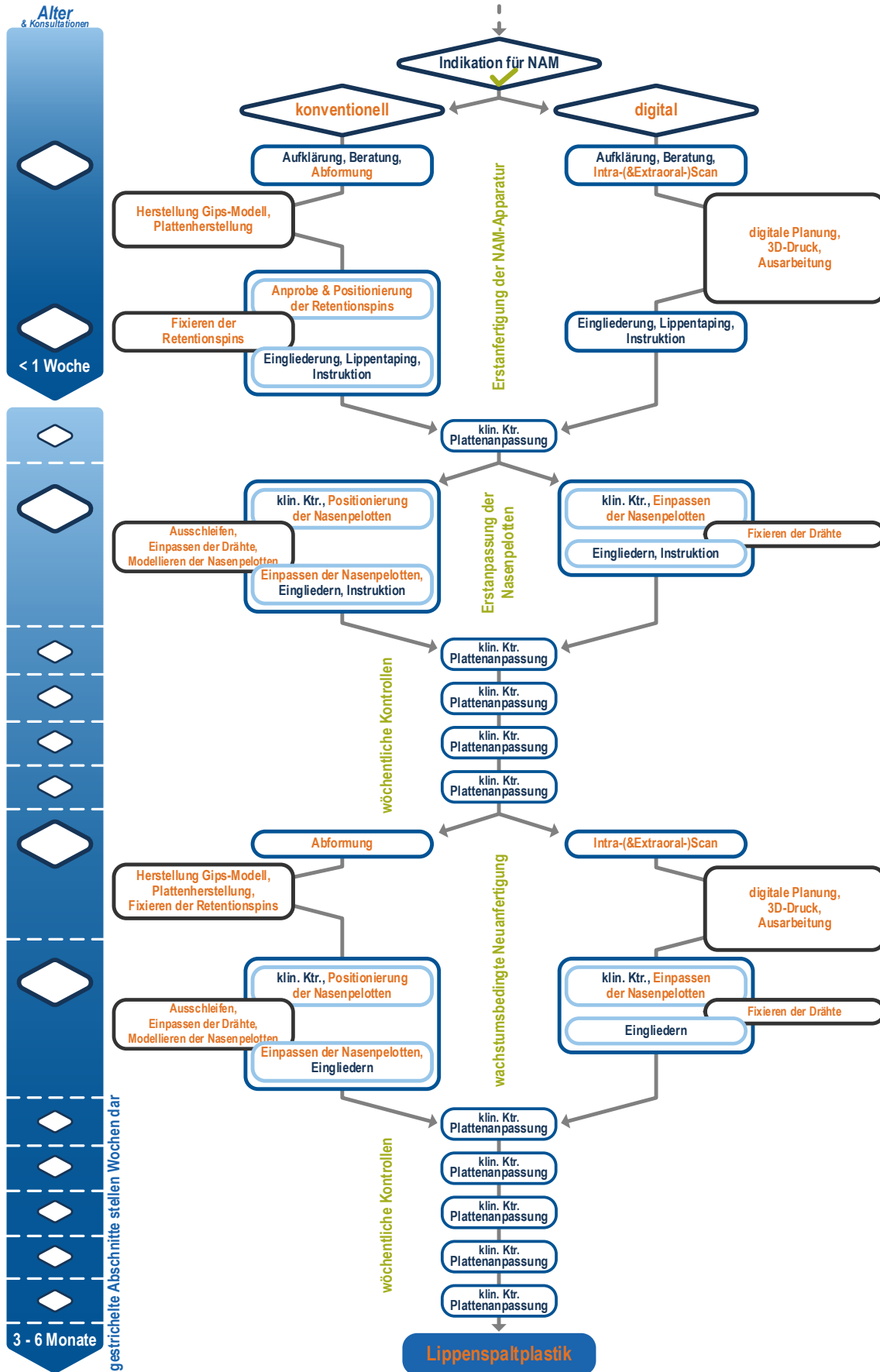


Abbildung 9. Ablaufdiagramm NAM-Therapie inkl. Gegenüberstellung konventioneller und digitaler Fertigungsverfahren. Man beachte die nicht lineare Zeitleiste, bei der die gestrichelten Abschnitte je eine Woche darstellen.



1.10.3. Limitationen

Aus dem geschilderten aufwändigen und hochfrequenten Ablauf geht die wesentliche Therapielimitation hervor: Eine nicht ausreichende Compliance führt entweder zum vorzeitigen Abbruch der NAM-Therapie oder zu ihrer insuffizienten Durchführung.

Durch die enge Einbindung der Eltern in die Therapie, bei der sie selbstständig die tägliche Reinigung und Wiedereingliederung vornehmen, sowie mit ihrem Kind zu wöchentlichen Kontrollen erscheinen müssen, ergeben sich einerseits Probleme bei mangelnden handwerklichen Fähigkeiten, die meist jedoch durch intensive Anleitung suffizient überwunden werden können. Andererseits muss die Therapieintention und deren strukturierter Ablauf von den Eltern auch mental richtig erfasst werden, was aber in aller Regel mit strukturierter und geduldiger Aufklärung sehr gut erreicht werden kann. Meist sind es logistische Probleme, die die größte elterliche Complianceeinschränkung darstellen, da aufgrund des großen Einzugsgebietes (siehe Abbildung 10) lange, kostenrelevante Anfahrten mit entsprechend hohem Zeitbedarf (bis zu 2,5h je Wegstrecke) keine Seltenheit sind. Da die Kosten der NAM-Therapie in Deutschland bis dato nicht flächendeckend von den gesetzlichen Krankenkassen übernommen werden, kommen trotz eigenständiger Kostenreduktion der behandelnden Zentren oftmals immerhin hohe Fahrtkostenanteile auf die Eltern der Patienten zu, was eine erhebliche Belastung darstellen kann. Hinzu kommen womöglich Verdienstauffälle, falls regelmäßig beide Eltern der Therapie beiwohnen wollen oder müssen.

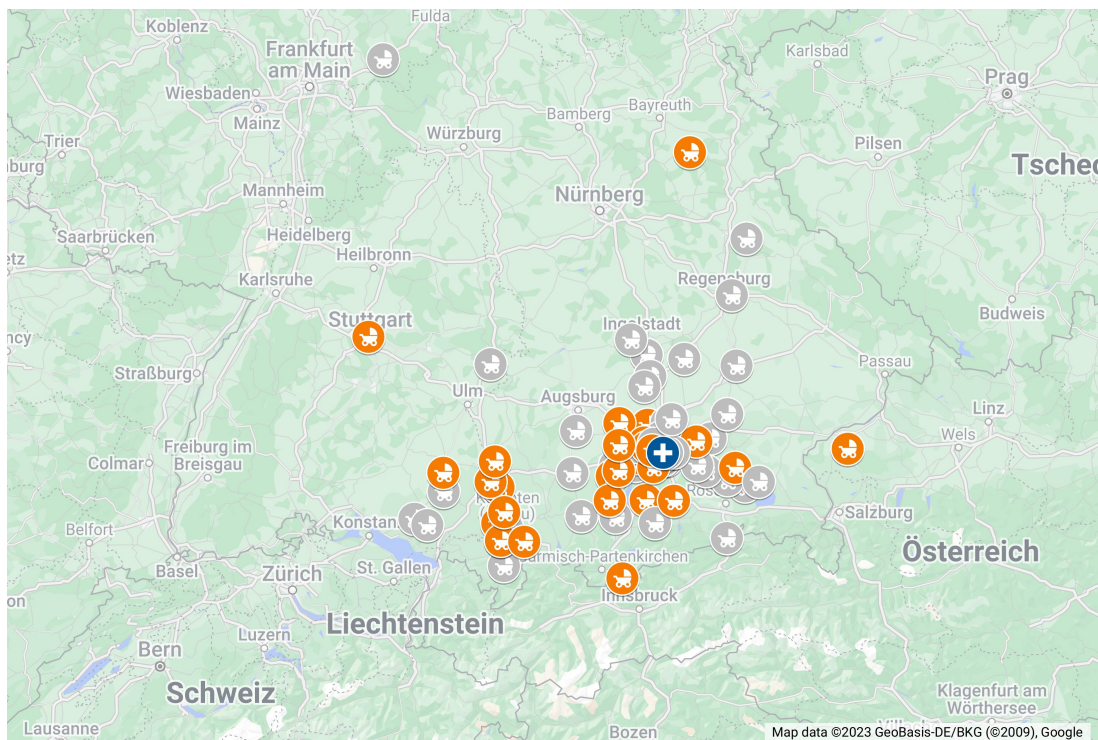


Abbildung 10. Einzugsgebiet LKG-Patienten der Klinik und Poliklinik für Mund-Kiefer-Gesichtschirurgie des Klinikums rechts der Isar der Technischen Universität München 2010-2014. + Klinik, + Patientenwohnort NAM-Patienten, • Patientenwohnort konventionell behandelter LKG-Patienten.



Auf kindlicher Seite bietet die Apparatur vor allem mit steigendem Alter und zunehmender Mobilität der Säuglinge oftmals Complianceprobleme: Obwohl die anfängliche Intoleranz der kleinen Patienten meist schon binnen der ersten Woche weicht und sie sich sehr schnell an die Apparatur gewöhnen, kommt es durch die extraoralen Angriffspunkte mit steigendem Alter bei einigen Kindern immer wieder zur selbstständigen Entfernung der Apparatur, sodass sie durch die Eltern häufiger wiedereingegliedert werden muss oder die tägliche Therapiezeit relevant sinkt. Darüber hinaus kann eine zu forcierte Druckapplikation zu Druckulzerationen führen, die zwar leicht zu behandeln und korrigieren sind, aber die kindliche Compliance weiter einschränken können.

Letztlich muss auch das Behandlersteam über den Willen, die (zeitlichen, personellen und infrastrukturellen) Möglichkeiten und die Ausbildung verfügen, um diese aufwändige interdisziplinäre Therapiemodalität anzuwenden. Eine effektive Behandlung kann aus unserer Erfahrung nur innerhalb spezialisierter Sprechstunden realisiert werden, bei denen mehrere Patientenbehandlungen mit den entsprechenden Arbeitsschritten parallel durchgeführt, Dentaltechniker sinnvoll eingebunden, bzw. diesen effektives Arbeiten ermöglicht und so auch technisch bedingte Wartezeiten (z.B. für das Aushärten von Kunststoffen) genutzt werden können.

Zusammenfassend muss eine ehrliche und offene Kommunikation mit der fortwährenden Option zum Abbruch des *Nasoalveolären Moldings* gewährleistet sein, um beiderseitig Frustrationen vorzubeugen und dem Kindeswohl zu dienen. Dies bedeutet allerdings unserer Erfahrung nach ebenso, dass im Falle beispielsweise sprachlich bedingter Kommunikationsbarrieren und folglich fragwürdigem elterlichen Therapieverständnis von dieser Therapiemodalität eher Abstand genommen werden sollte.

1.11. Operative Therapie des 1. Lebensjahres

Zum Verständnis relevanter Vorteile der unumstritten aufwändigen NAM-Therapie ist es nötig wenigstens grundlegend die folgenden operativen Techniken und deren mögliche Probleme zu verstehen. Entsprechend sollen die beiden für die Rekonstruktion von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten elementaren operativen Schritte kurz dargestellt werden. Auf eine Diskussion unterschiedlicher Methoden wird der Übersicht halber bewusst verzichtet.

Das Grundproblem aller plastisch-rekonstruktiven Verfahren ist die mangelnde Fähigkeit zur *creatio ex nihilo*, d.h. konkret patienteneigenes Gewebe aus dem Nichts zu erschaffen. So bedarf es immer gewisser Kompromisse, um beispielsweise Gewebedefizite in der Breite durch Längenopferung auszugleichen (siehe *Z-Plastik*) oder extreme Gewebedefizite durch Transplantationen aufzufüllen. Im Falle autologer Transplantate entstehen dadurch Entnahmedefekte, die infolgedessen plastisch rekonstruiert werden müssen, sodass das



Gewebsdefizit im Patienten bis zu einem an allen Orten verträglichen Maß verteilt wird. Analoge Schlussfolgerungen sind auch im Bereich der Lippen-Kiefer-Gaumenspalten möglich: Eine breite Spalte kann nur dadurch verschlossen werden, dass von beiden Seiten Gewebe mobilisiert und dabei gedehnt wird. Übersteigt die Dehnung ein (kurzfristig) kompensierbares Maß, wird dies zu funktionell und ästhetisch nachteiligen Wundheilungsstörungen, Dehiszenzen oder gar einem vollständigen Aufreißen der Operationswunde führen. Insbesondere Kinder verfügen hierbei jedoch über den Vorteil der Möglichkeit zu mittel- bis langfristigem Wachstumsausgleich lokaler Dehnungen. Andererseits führen Narben zu Wachstumshemmnissen, welche das langfristige Ergebnis wiederum beeinträchtigen können. Da es sich bei Lippen-Kiefer-Gaumenspalten nicht um aplastische Störungen (also keinen Organmangel), sondern lediglich um Fusionsprobleme während der Entwicklung mit wachstumsbedingt allenfalls hypoplastischer Komponente handelt, müssen die vorhandenen Strukturen zudem glücklicherweise nur verlagert werden. Gleichzeitig ergibt sich hieraus allerdings das Problem, dass die komplexen fazialen Strukturen und Einzelorgane (insb. die Muskulatur) funktionell korrekt rekonstruiert werden müssen und nicht lediglich weichgewebig gedeckt werden können (wie beispielsweise bei chronischen Ulzera).

Zusammenfassend wird also eine schmale Spaltdeformität operativ in der Regel deutlich einfacher zu versorgen sein als eine gleichartige breitere. Ziel jeder Rekonstruktion ist die suffiziente ästhetische und funktionelle Wiederherstellung des Gewebes.

1.11.1. Lippenspaltplastik

Ziele und Probleme. Ziel der Lippenspaltplastik ist an erster Stelle die Herstellung der physiologischen Funktionen, wie sie unter 1.3.1 bereits beschrieben wurden. Somit müssen alle Gewebsschichten für sich rekonstruiert werden, so dass eine bloße Vereinigung des oberflächlichen Schlauches von Schleimhaut und Haut nicht genügt und der Rekonstruktion des M. orbicularis oris besondere Aufmerksamkeit zu schenken ist. Erschwerend kommt hinzu, dass resultierende Volumenmängel, bzw. lokale Gewebedefizite trotz hergestelltem Muskelring mittelfristig zu inkompetentem Lippenschluss in Form sog. Pfeifenlochdeformitäten führen können. Als zweite Maxime ist also auch der Ästhetik Rechnung zu tragen, wobei neben erwähnten Problemen auch die Schnittführung und folgende Narbenbildung zu berücksichtigen sind. Daraus resultieren wiederum sekundäre Wachstumsveränderungen, sodass auf besonders schonendes Gewebsmanagement zu achten ist. Neben der Lippe selbst müssen weiterhin benachbarte Strukturen wie Naseneingang und Vestibulum rekonstruiert werden, was im Umkehrschluss ebenso Veränderungen der Nachbarregionen bedingt.

Operationstechniken für einseitige Lippenspalten. Dementsprechend ist es nicht verwunderlich, dass sich im Laufe der letzten Jahrhunderte zahllose nach ihren Erstbeschreibern benannte Operationstechniken entwickelt haben, die nach steigender



Komplexität grob in Techniken mit gerader, wellenförmiger und geometrischer Schnitfführung eingeteilt werden können¹⁸. Historisch bekannte Techniken mit gerader Schnitfführung sind beispielsweise die nach *Veau*⁵⁷ oder *Blair*⁵⁸, bei denen vereinfacht lediglich die Lippenstümpfe gerade ausgeschnitten und mittig vereint werden, aufgrund der starken Schrumpfungstendenz gerader Narben jedoch inzwischen allenfalls noch bei Mikroformen von Lippenspalten Anwendung finden. Bei der vor allem im deutschsprachigen Raum verbreiteten wellenförmigen Schnitfführung nach *Pfeifer* (Abbildung 11) wird zur Nutzung der Elastizität der Haut im Bereich der Inzision die Schnitfführung wellenförmig künstlich verlängert, wodurch größere Längenausgleiche möglich werden und die spätere Narbe günstig und unauffällig im Bereich der Philtrumkante verläuft^{59,60}. Die resultierende gerade Narbe kann jedoch zu einer Verkürzung der Lippenhöhe und folglich zu einer gewebsdefizitären Pfeifenlochdeformität im Bereich des Lippenrots führen, die sich in der Regel aber im Laufe des Wachstums bis zur Adoleszenz spontan ausgleicht^{61,62}. Daneben existieren komplexere geometrische Schnitfführungen, bei denen der Höhenausgleich immer durch Variationen und Kombinationen von v- oder w-förmigen Einlagerungs-, bzw. z-förmigen Austauschplastiken erreicht wird und ergänzend teilweise die Nasenbasis und der Nasenflügel involviert werden. Hierzu gehören u.a. die Techniken nach *LeMesurier*⁶³ (Abbildung 12), *Tennison*⁶⁴ mit Modifikation nach *Randall*⁶⁵ (Abbildung 13), *Millard*⁶⁶ (Abbildung 14), *Noordhoff*⁶⁷ (Abbildung 15) und *Fisher*⁶⁸ (Abbildung 16). Durch die Unterbrechung der Narbe und damit die Vermeidung einer einzelnen geraden Narbe wird eine sekundäre Verkürzung der Lippenhöhe vermieden, sodass frühzeitig ein hohes Maß an Symmetrie erlangt wird⁶¹. Ein Nachteil dieser Methoden bleibt der die ästhetischen Untereinheiten kreuzende und damit potentiell auffälligere Narbenverlauf. Unabhängig des Schnittverlaufs im Bereich der Haut ist allen Techniken das Lösen der fehlinsertierten Muskelstümpfe des M. orbicularis oris und deren Vereinigung zu einem funktionellen Ringmuskel gemein.

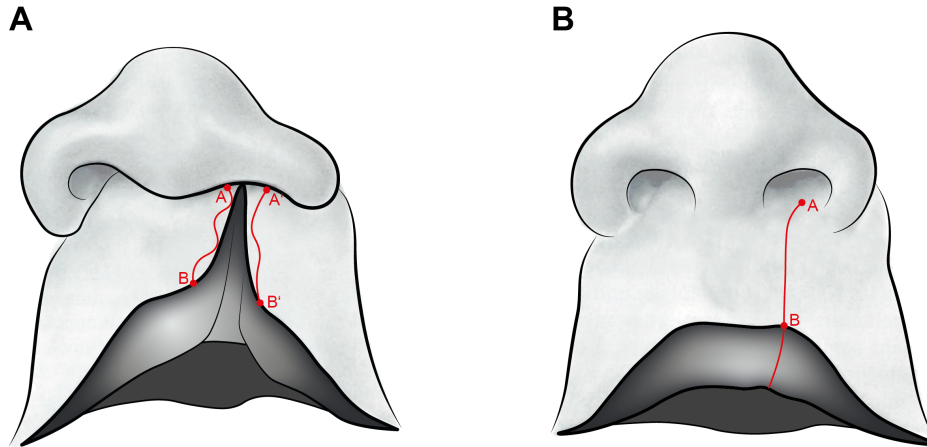


Abbildung 11. Wellenförmige Schnittführung nach Pfeifer (basiert auf ⁶²). A Schnittführung. B Nahtverlauf.

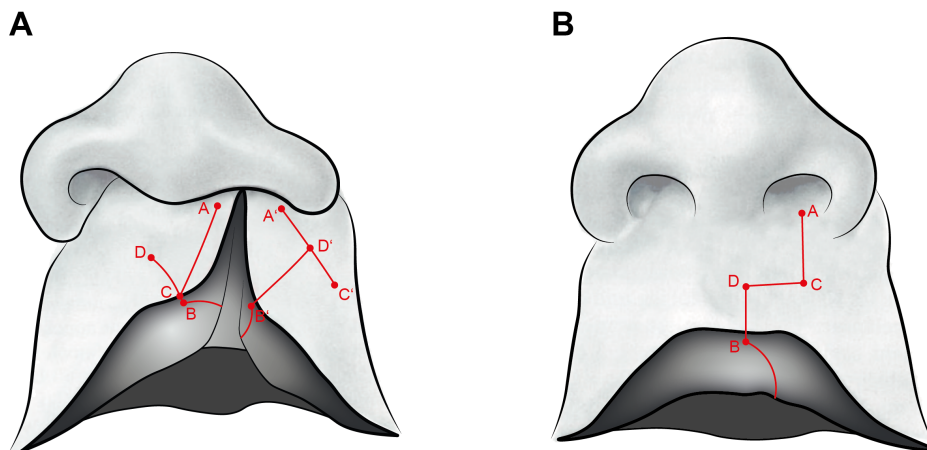


Abbildung 12. Geometrische Schnittführung nach LeMesurier (basiert auf ⁶³). A Schnittführung. B Nahtverlauf.

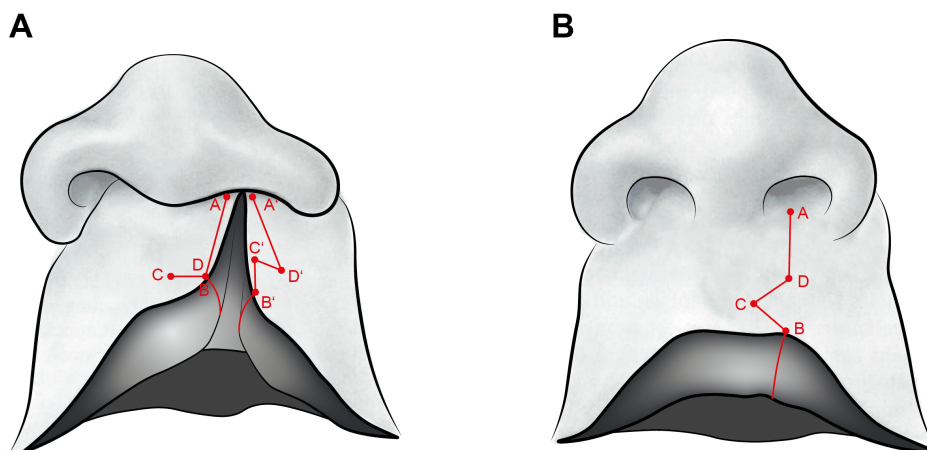


Abbildung 13. Geometrische Schnittführung nach Tennison mit Modifikation nach Randall (basiert auf ⁶⁵). A Schnittführung. B Nahtverlauf.

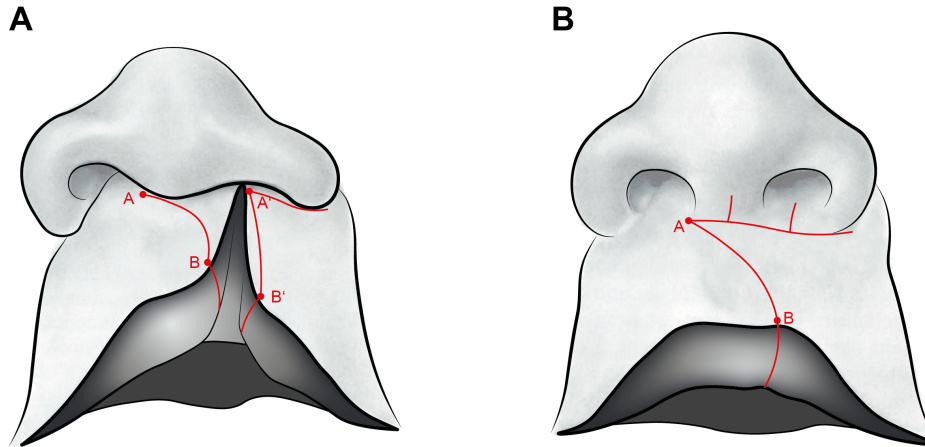


Abbildung 14. Geometrische Schnittführung nach *Millard*, als sog. *Rotation-Advancement* bezeichnet (basiert auf ⁶⁶).
A Schnittführung. B Nahtverlauf.

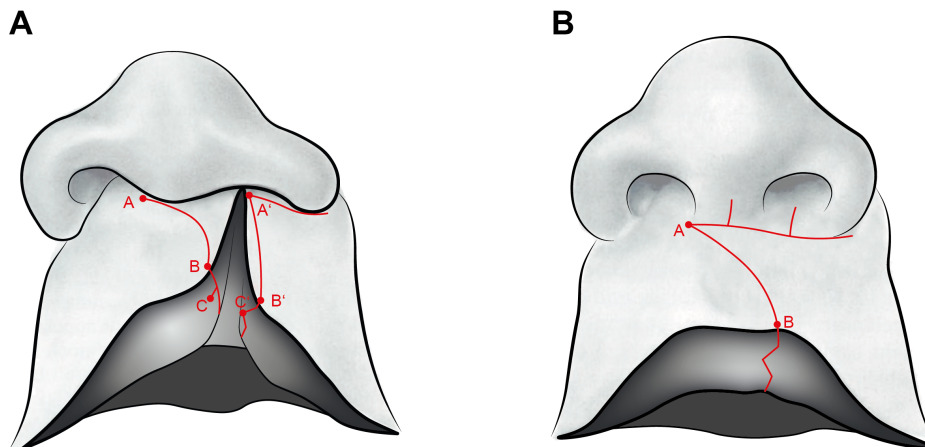


Abbildung 15. Geometrische Schnittführung nach *Noordhoff* (basiert auf ⁶⁷). A Schnittführung. B Nahtverlauf. Man beachte hierbei das Dreieck im Bereich des Lippenrots, welches als *Noordhoff-Dreieck* bezeichnet wird und in diverse anderen Techniken integriert werden kann (in diesem Fall *Millard* modifiziert nach *Noordhoff*).

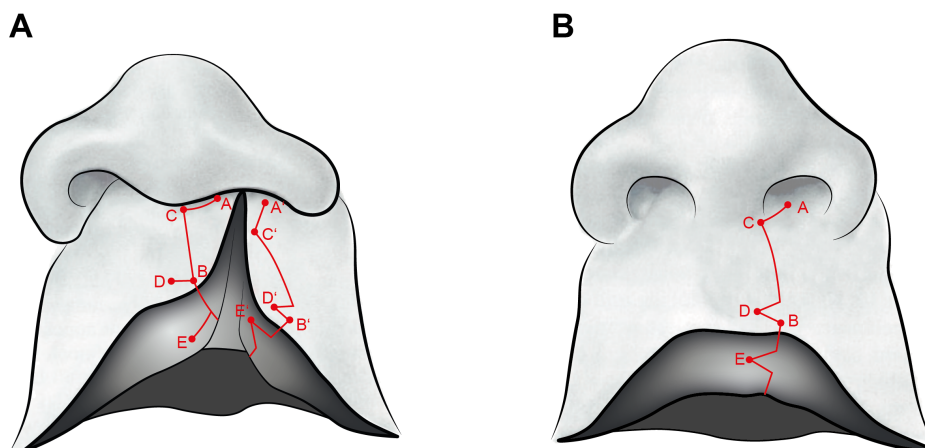


Abbildung 16. Geometrische Schnittführung nach *Fisher* (basiert auf ⁶⁸). A Schnittführung. B Nahtverlauf.

Operationstechniken für beidseitige Lippenspalten. Im Gegensatz zu einseitigen Lippenspalten zeigt sich bei beidseitigen Lippenspalten das mediane *Prolabium* muskelfrei und hypoplastisch. Anders als bei den Operationstechniken einseitiger Lippenspalten hat sich hier die gerade Schnittführung nach *Veau*^{57,60} mit Modifikation nach *Cronin*⁶⁹ bzw. nach *Millard*⁷⁰ (Abbildung 17) bewährt, bei denen das Lippenrot vollständig aus den beiden lateralen Segmenten hergestellt und zusammen mit den Muskelstümpfen des *M. orbicularis oris* vereinigt wird. Problematisch stellt sich hierbei insbesondere die häufig weit protrudierende *Prämaxilla* dar, die besonders bei Vorliegen breiter Spalten die Gewebespannung auf die rekonstruierte Oberlippe weiter erhöht.

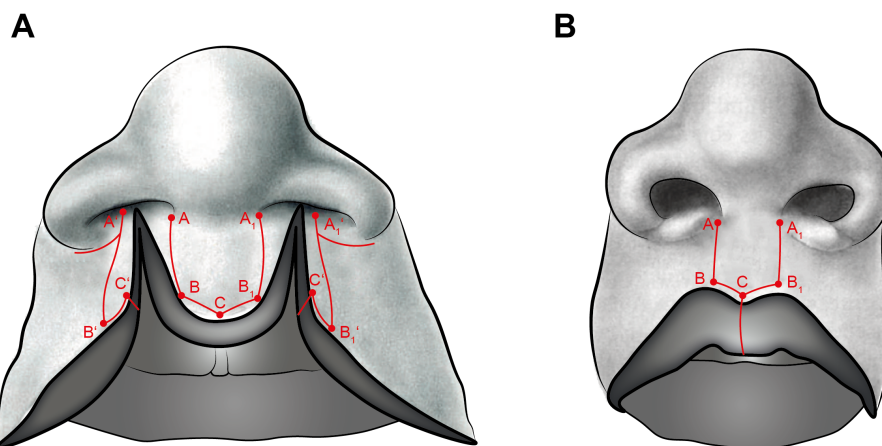


Abbildung 17. Gerade Schnittführung bei beidseitiger Lippenspalte nach *Millard* (basiert auf ⁷⁰). A Schnittführung. B Nahtverlauf.

Gemeinsame Besonderheiten. Zur suffizienten Rekonstruktion der betroffenen Gesichtsstrukturen bei Vorliegen einer Lippenspaltd deformität sind nach *Delaire* eine ausreichende Mobilisation und Rekonstruktion der angrenzenden Gewebe des Mittelgesichts notwendig, was abhängig vom Spaltausmaß eine ausgedehnte subperiostale Mobilisierung und partielle periostale Inzision im Bereich des Mittelgesichts bis nahezu angrenzend an die Infraorbitalränder beinhalten kann⁷¹.

Offensichtlich erhöht sich bei allen Lippenrekonstruktionen mit dem Ausmaß der Spaltbreite die Ausdehnung der Mobilisierung zur Vermeidung von Überdehnungen und Dehiszenzen, womit eine gesteigerte Traumatisierung und eine erhöhte Operationskomplexität einhergehen. Im Umkehrschluss resultiert das Bestreben der konservativen präoperativen Spaltannäherung, was beispielsweise durch orthopädische Techniken wie NAM erreicht werden kann.



1.11.2. Rekonstruktion des Nasenbodens

Ziele und Probleme. Neben der ästhetisch im Vordergrund stehenden Rekonstruktion der Lippe ist wie unter 1.3.1 beschrieben physiologisch auch die Rekonstruktion der Nasenschläuche und des Hartgaumens entscheidend für eine regelrechte Atmung, Nahrungsaufnahme und spätere Lautbildung. Im Gegensatz zu Lippe und Weichgaumen genügt aufgrund des Fehlens von Muskeln in diesem Bereich in der Regel sogar eine passive, einschichtige Rekonstruktion zur Trennung von Mund- und Nasenhaupthöhlen bzw. der paarigen Nasenhaupthöhlen voneinander. Beachtung finden muss in diesem Bereich jedoch der Einfluss und das Ausmaß der Lappenpräparationen auf das spätere Kiefer- und Mittelgesichtswachstum^{72,73}, sodass sich zur Rekonstruktion hier simple und wenig invasive Techniken auch in Anbetracht möglicher postoperativer Komplikationen bewährt haben⁷²⁻⁷⁶.

Operationstechniken. Im Rahmen der primären Lippenspaltplastik kann folglich mit einfachen Mitteln häufig bereits eine Rekonstruktion des Nasenbodens erfolgen, wodurch eine weitgehende, weichgewebige Separation oben genannter Höhlen bewerkstelligt werden kann. Zur Rekonstruktion des Nasenbodens kann dabei ein kranial gestielter Septumlappen nach *Pichler* und *Trauner* dienen, bei dem vom Nasenseptum und Vomer subperichondral bzw. subperiostal ein Mukoperiostlappen mit schräger Entlastung im Bereich des posterioren Vomers gebildet und anschließend nach lateral in eine zuvor gebildete subperiostale Tasche am lateralen Spaltsegment geschlagen und fixiert werden kann^{60,77}. Eine weniger gebräuchliche Variante stellt der kaudal gestielte Septumlappen nach *Campbell* dar^{60,78}. Beiden gemein ist die sekundäre Wundheilung im Bereich der Lappenunterseite, welche sich i.d.R. jedoch unkompliziert und schnell vollzieht. Durch die Rekonstruktion des Nasenbodens resultiert funktionell auch eine einschichtige, wenn auch nur nasale Rekonstruktion des Hartgaumens, sodass diese Methode auch als primäre einschichtige Hartgaumenplastik bezeichnet wird. Neben der Verwendung bei einseitigen Spalten können bei beidseitigen Spalten des Hartgaumens ebenso beidseitige Vomerlappen gebildet werden, wobei auf eine ausreichende Restperfusion der septal versorgten Prämaxilla mit entsprechend subtilerer und weniger ausgedehnter Präparation zu achten ist, um trophische Störungen oder gar Nekrosen der Prämaxilla zu vermeiden.

Unbestreitbar stellen also auch im Bereich des Hartgaumens und Nasenbodens breite Spalten eine größere operative Herausforderung für den Chirurgen und letztlich den Patienten dar, sodass auch hier eine präoperative, konservative Annäherung wünschenswert wäre.



1.11.3. Gaumenspaltplastik

Ziele und Probleme. Insbesondere dem Weichgaumen obliegen essenzielle aktive Funktionen bezüglich Schlucken und Ernährung, Abdichtung für Atmung und Lautbildung, sowie Belüftung der Tuben und damit der Hör- und Sprachentwicklung (siehe auch 1.3.3), sodass dessen suffizienter Rekonstruktion funktionell besondere Bedeutung zukommt und entsprechend aufwendig gestaltet wird. Ein besonderes Problem kann die Weichgaumenlänge darstellen, welche aufgrund von Fehlinsertionen und Gewebshypoplasie nach Rekonstruktion zu kurz ausfallen und eine mangelnde Abdichtung von Oro- und Nasopharynx bedingen kann. Teils unvermeidbare partiell insuffiziente Rekonstruktionen können zu aufwendigen logopädischen Anschlusstherapien oder sekundären Operationen führen. Daneben stellt der Verschluss des Hartgaumens den Operateur aufgrund seiner passiven Funktion in der Regel funktionell vor geringere operative Herausforderungen, jedoch sind mögliche Dehiszenzen und Wundheilungsstörungen, bzw. Fisteln aufgrund der festen und kaum dehnbaren Gaumenschleimhaut problematischer in ihrer Therapie.

Da sich die konventionelle Gaumenplattentherapie in ihrem Effekt auf Hart- und Weichgaumen allenfalls minimal von der des *Nasoalveolären Moldings* unterscheidet wird folgend nur eine sehr vereinfachte Zusammenfassung der Hart- und Weichgaumenplastiken dargelegt.

Operationstechnik des Hart- und Weichgaumens am Beispiel der Stiellappenplastik nach Veau. Da beim Vorliegen von Hartgaumenspalten zwangsläufig immer auch der Weichgaumen betroffen ist und sich somit vor allem das Rekonstruktionsausmaß, nicht aber die -art ändert wird folgend das Beispiel der kombinierten Hart- und Weichgaumenplastik durch Stiellappenplastik nach Veau zu deren Veranschaulichung genutzt (Abbildung 18). Kernelement der Weichgaumenplastik ist die Rekonstruktion der Muskelschlingen. Nach äquatorialer Schnittführung im Spaltbereich zwischen oralem und nasalem Schleimhautblatt wird die im Bereich des Hartgaumenhinterrandes fehlinsertierende Muskulatur gelöst und anatoforn sowie funktionell entscheidend zu Muskelschlingen vereinigt.^{79,80} Durch die Vereinigung und Mobilisation wird der rekonstruierte Weichgaumen nach posterior verlängert, um einen suffizienten velopharyngealen Verschluss zu gewährleisten. Das nasale Schleimhautblatt wird kaum gelöst, sodass es zur Vereinigung vor allem lokal gedehnt werden muss. Um einem Einreißen entgegenzuwirken kann der Verschluss mittels medianer Naht noch vor der Separation von nasalem Schleimhautblatt und Velummuskulatur durchgeführt werden. Anschließend muss dann jedoch beidseits paramedian der Naht die scharfe Auftrennung der Muskulatur erfolgen, um diese stumpf weiter von der Schleimhaut lösen und nach posterior verlagern zu können. Ergänzend zu der zuvor bereits beschriebenen primären einschichtigen Hartgaumenplastik in Form eines Vomerlappens zur Rekonstruktion des nasalen Schleimhautblattes (siehe 1.11.2), kann zur Herstellung weiterer mechanischer Stabilität auch das orale Schleimhautblatt rekonstruiert werden. In diesem Beispiel werden



hierfür zwei lange bis maximal knapp hinter das *Foramen incisivum* reichende Mukoperiostlappen gebildet, das palatinale Gefäßnervenbündel befreit und anschließend unter Beachtung der Prinzipien der intravelaren Velumspaltplastik median vereinigt⁵⁷. Die seitlichen Entnahmedefekte werden hierbei der Granulation überlassen.

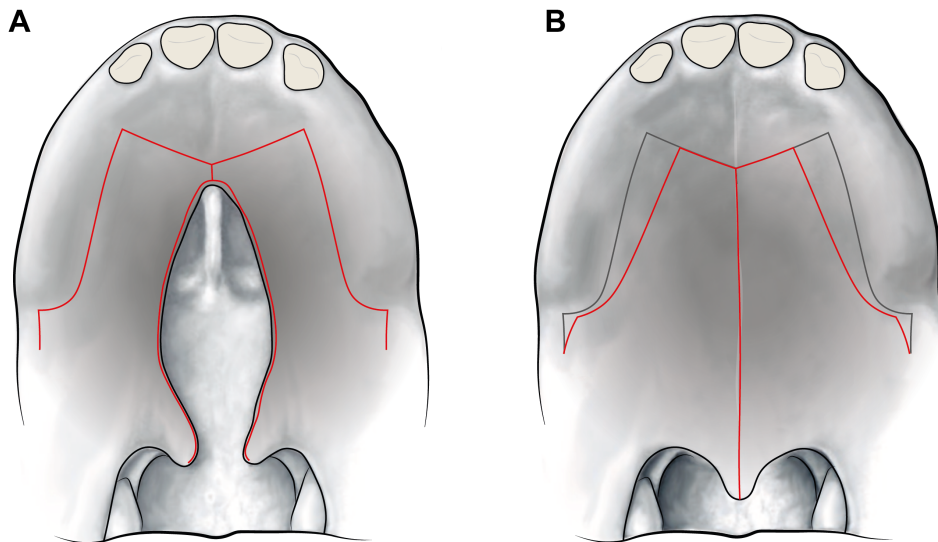


Abbildung 18. Stiellappenplastik nach *Veau* (basiert auf ⁵⁷). **A** Schnittführung, **B** nach Medialisierung und Vereinigung der beiden Lappen.

1.11.4. Kieferspaltplastiken

Ziele und Probleme. Neben den bereits von Beginn an funktionell entscheidenden Rekonstruktionen von Lippe und Gaumen kommt dem Verschluss der Kieferspalte vor allem für die spätere dentale Rehabilitation Bedeutung zu. Aufgrund der erst später einsetzenden Dentition kann auch die Rekonstruktion der Kieferspalte verzögert erfolgen, ohne wesentliche Funktionseinbußen hinnehmen zu müssen. Im Gegenteil führen früher propagierte primäre Kieferspaltosteoplastiken sogar zu einer verstärkten Wachstumsbehinderung des Oberkiefers und damit des Mittelgesichts, sodass auf sie inzwischen üblicherweise verzichtet wird⁷³. Entscheidend wird ein ausreichendes Knochenangebot mit dem Durchbruch und der nötigen kieferorthopädischen Einordnung der spaltangrenzenden Zähne, sodass sekundäre Kieferspaltosteoplastiken üblicherweise erst kurz vor Durchbruch der spaltnahen Eckzähne erfolgen.

Operationstechniken. Primär werden im Rahmen von Lippenspalt- oder Gaumenspaltplastiken bei ausreichender Annäherung der Kieferstümpfe heute typischerweise Gingivoperiostplastiken beispielsweise nach *Latham* durchgeführt, welche die Kieferspalte



lediglich weichgewebig überbrücken, fixieren und in der Folge auf die osteokonduktive Potenz des Periosts bauen^{81,82}. Sekundär kann bei mangelndem Knochenangebot zur kieferorthopädischen Zahneinordnung des bleibenden Eckzahnes später eine sekundäre Kieferspaltosteoplastik erfolgen, bei der zumeist autolog Knochen augmentiert wird.

1.11.5. Rhinoplastik

Ziele und Probleme. Entsprechend der bereits ausführlich unter 1.3.1 beschriebenen Pathophysiologie der Spaltnase stellt die Wiederherstellung dieser ästhetischen Einheit die Operateure vor die größte Herausforderung, da kartilaginäre Strukturen meist hypoplastisch und dysmorph angelegt sind, jedoch anders als die restlichen Weichgewebe gegenüber Neupositionierung und Umformung eine erhöhte Resilienz aufweisen. Gleichzeitig führt eine Traumatisierung des bradytrophen Knorpelgewebes zu starker Narbenbildung und damit zu Wachstumsstörungen, sodass primäre Rhinoplastiken allenfalls minimalinvasiv und sehr beschränkt in Form geschlossener Septorhinoplastiken ausfallen oder gar nicht erst durchgeführt werden. Aufgrund dieser Narbenbildung und Wachstumseinschränkungen erfolgen definitive Septorhinoplastiken erst im jungen Erwachsenenalter nach weitgehendem Wachstumsabschluss⁵⁰. Dies betont die Bedeutung jeder bereits präoperativ möglichen konservativen Optimierung der Nasenform, wie sie beispielsweise durch NAM möglich ist.

Operationstechniken.

Nach *Stellmach* kann im Rahmen der primären Lippen-spaltplastik eine geschlossene primäre Rhinoplastik durchgeführt werden, bei der vorsichtig der Alarknorpel epiperichondral unter der Haut ausgelöst und weiter mit Steppnähten neu positioniert, bzw. die darüber liegende Haut konturiert werden^{60,83}. Seltener wird im Rahmen dieser Operation auch eine geschlossene Septumplastik durchgeführt, bei der dieses an der *Spina nasalis anterior* scharf ausgelöst und anschließend neu ausgerichtet wird.



2. Ziele

Die bisherigen Ausführungen lassen die Hintergründe, konventionellen Therapielimitationen, den Bedarf präoperativer Therapiemodalitäten und deren Möglichkeiten, vor allem aber auch deren Probleme und insbesondere die des Nasoalveolären Moldings erkennen, welche überwiegend in der Belastung für Kind und Eltern, sowie resultierenden Complianceeinschränkungen liegen.

Ziel dieser Arbeit ist es also diese Belastung bzw. die Wahrnehmung derselben durch die Eltern als entscheidenden Faktor für deren Compliance und insbesondere einen möglichen negativen Einfluss der objektiv aufwändigen NAM-Therapie, ebenso wie die möglichen positiven psychologischen Effekte auf die Eltern näher zu untersuchen.

In einem zweiten Schritt sollen außerdem mögliche soziokulturelle und ethnische Unterschiede identifiziert werden durch einen internationalen Vergleich zwischen Behandlungszentren in Deutschland und Taiwan.

Zu diesem Zweck wurden zwei Studien durchgeführt:

Untersuchung der subjektiven elterlichen Belastung durch konventionelle vs. NAM-Therapie – Klinikum rechts der Isar der Technischen Universität München. Im Rahmen dieser ersten Studie sollten unabhängige Störfaktoren identifiziert sowie der Einfluss der NAM-Therapie auf die elterliche Belastungswahrnehmung gegenüber dem des konventionellen Behandlungsverfahrens untersucht werden.

Untersuchung der internationalen Unterschiede in der elterlichen Stresswahrnehmung unter NAM-Therapie – Chang Gung Memorial Hospital & Klinikum rechts der Isar der Technischen Universität München. In dieser Studie sollten explizit interkulturelle Differenzen der Stresswahrnehmung untersucht und identifiziert werden.



3. Material & Methodik

3.1. Studiendesign

Grundlage der präsentierten Arbeit sind Daten zweier retrospektiver Kohortenstudien, bei denen die Patientendatenbanken der kooperierenden Behandlungszentren des *Chang Gung Memorial Hospitals* (Taoyuan, Taiwan), sowie des *Klinikums rechts der Isar der Technischen Universität München* (München, Deutschland) nach im Zeitraum von 2010 bis 2014 geborenen und behandelten Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten durchsucht wurden.

Nach Einholen der positiven Votierung beider Ethikkommissionen (*Klinikum rechts der Isar* – Nr. 92/15; *Chang Gung Memorial Hospital* – IRB 104-2216B) erfolgte die postalische Versendung standardisierter Fragebögen an die Eltern der Patienten in entsprechender Landessprache. Die Rücksendung erfolgte in vorfrankierten Umschlägen auf freiwilliger Basis ohne weitere Einflussnahme. Beide Eltern jedes Kindes wurden durch ein Begleitschreiben gebeten unabhängig voneinander und einzeln zu antworten.

Im Rahmen der ersten Studie sollten im Münchner Behandlungszentrum die allgemeinen Auswirkungen der Spaltdeformitäten betroffener Kinder auf die Stresswahrnehmung ihrer Eltern, die therapieassoziierten Auswirkungen im Vergleich konventioneller Behandlung vs. NAM-Therapie, sowie die speziellen mit der NAM-Therapie assoziierten Probleme untersucht werden.

In der zweiten Studie standen internationale Unterschiede der Stresswahrnehmung der Eltern ausschließlich mittels NAM therapierter Kinder im Vergleich der beiden beteiligten Behandlungszentren im Focus der Untersuchung.

Eine genauere Aufschlüsselung gewähren die folgenden Abschnitte.

3.2. Studienkollektive

Aufgrund o.g. Fragestellungen erfolgte eine Differenzierung der Patientenkollektive.

3.2.1. Untersuchung der subjektiven elterlichen Belastung durch konventionelle vs. NAM-Therapie

Die Patientendatenbank des *Klinikums rechts der Isar* wurde nach Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten durchsucht, die im Zeitraum von 2010 bis 2014 geboren und behandelt wurden. Hierbei wurden komplette und inkomplette, sowie ein- und beidseitige Lippen-Kiefer-Gaumenspalten eingeschlossen, wobei unter „komplett“ in diesem Zusammenhang das Vorliegen einer Lippen-Kiefer-Gaumenspalte und unter „inkomplett“ das Vorliegen einer



Lippen±Kiefer±Gaumenspalte verstanden wurde. Daher wird hierbei absichtlich von den sonst im Deutschen üblichen Begriffen „vollständig“ und „unvollständig“ Abstand genommen. Isolierte Gaumenspalten wurden ausgeschlossen.

Weiter wurde eine Einteilung in Gruppen entsprechend erfolgter Behandlung in „konventionell“ und „NAM“ vorgenommen.

Entsprechend erfolgte der Versand der standardisierten, pseudonymisierten Fragebögen inklusive vorfrankiertem Rückumschlag, wobei die Eltern konventionell therapierter Eltern lediglich den allgemeinen Teil I, diejenigen mittels NAM therapierter Kinder beide Teile des Fragebogens erhielten.

Ausgeschlossen wurden zum Befragungszeitpunkt nicht volljährige Eltern, sowie solche welche der Sprache der zur Verfügung gestellten Fragebögen nicht selbst mächtig waren, da in diesen Fällen die selbstständige Beantwortung und das adäquate Verständnis nicht sichergestellt werden konnten.

Zur Beantwortung der Fragebögen wurde den Eltern vorab ein Zeitraum von 3 Monaten ab Versand der Fragebögen gewährt. Später wiedereintreffende Fragebögen wurden von der Analyse ausgeschlossen.

3.2.2. Untersuchung der internationalen Unterschiede in der elterlichen Stresswahrnehmung unter NAM-Therapie

Analog zu 3.2.1 wurden die Datenbanken beider beteiligter Behandlungszentren durchsucht. Aufgrund der in diesem Zeitraum jedoch landestypisch unterschiedlichen Behandlungen erfolgte der besseren Vergleichbarkeit halber lediglich der Einschluss von Kindern mit kompletten einseitigen Lippen-Kiefer-Gaumenspalten, welche mittels NAM behandelt wurden. Ausgeschlossen wurden entsprechend Eltern von Kindern mit beidseitigen Deformitäten, inkomplette Lippen±Kiefer±Gaumenspalten (gemäß Definition unter 3.2.1), sowie konventionell therapierte Kinder. Die sonstigen Ausschlusskriterien entsprachen den unter 3.2.1 genannten. Versand der Fragebögen, Beantwortung und Rücksendung erfolgten in gleicher Weise.

3.3. Fragebogen

In interdisziplinärer Zusammenarbeit einer Gruppe aus Mund-Kiefer-Gesichtschirurgen (*PD Dr. Dr. Denys J. Loeffelbein, Prof. Dr. Dr. Andrea Rau, PD Dr. Dr. Florian D. Grill, PD Dr. Dr. Lucas M. Ritschl, PD Dr. Dr. Thomas Mücke, Prof. Dr. Dr. Klaus-Dietrich Wolff, Maximilian Roth*), eines Psychologen (*Prof. Dr. Peter Herschbach*) und einer Stillberaterin (*Elke Schubert*) des *Klinikums rechts der Isar der Technischen Universität München* wurde auf Basis der Behandlungserfahrungen und häufiger elterlich geäußelter Bedenken ein zweiteiliger



Fragebogen entwickelt (Tabelle 6). Teil I enthält hierbei 15 alle Spaltfehlbildungen betreffenden Items, Teil II wiederum 14 ergänzende NAM-spezifische Items, die insgesamt die Themengebiete pränatale Informationen, Ernährung, soziales Umfeld, Mühen & Probleme, Ängste & Sorgen, Therapiezufriedenheit behandeln (Einteilung siehe Tabelle 6). Jedem Teil wurde zusätzlich noch ein frei zu beantwortendes Kommentarfeld beigelegt, um Eltern die Gelegenheit zu geben, außerhalb der gestellten Fragen Kommentare jeder Art äußern zu können.

Die Beantwortung der einzelnen Items erfolgte anhand einer fünfstufigen Likert-Skala.⁸⁴ Um einseitigen Beantwortungstendenzen entgegenzuwirken, wurden themenbezogen Itempaare mit entgegengesetzter Formulierung gewählt.

Der Fragebogen wurde außerdem durch die Autoren ins Englische und in Zusammenarbeit mit Kollegen des taiwanesischen Behandlungszentrums um *Prof. Dr. Lun-Jou Lo* ins Chinesische (Mandarin) übersetzt.

3.3.1. Validierung des Fragebogens

Objektivität. Zum Erreichen von Objektivität wurden alle befragten Eltern gebeten ihren jeweiligen Fragebogen selbstständig und unabhängig auszufüllen. Durch die Befragung in schriftlicher Form zu durch die Befragten frei wählbarem Zeitpunkt konnte außerdem Unabhängigkeit von einem Interviewer gewährleistet werden. Analyseobjektivität konnte durch den Einsatz von Likert-Skalen, Interpretationsobjektivität durch deren einfache numerische Auswertung erreicht werden.

Inhaltliche Validität. Aufgrund der Formulierung der Items durch in der Behandlung von Spaltpatienten sehr erfahrenen, interdisziplinären Teams und engem Feedback durch betroffene Eltern kann von inhaltlicher Validität ausgegangen werden.

Sprachliche Validität. Diese erfolgte in Form der Validierung durch Muttersprachler beider Teams und mehrfache Korrektur innerhalb letzterer.

Intrarater- & Interrater-Reliabilität. Aus ethischen Aspekten musste zur Vermeidung übermäßiger Belästigung der befragten Eltern auf eine wiederholte Befragung zu mehreren Zeitpunkten verzichtet werden, sodass keine sichere Intrarater-Reliabilität gesichert werden konnte. Aufgrund der Untersuchung subjektiver Wahrnehmungen der Befragten kann Interrater-Reliabilität leider ähnlich komplex erzielt werden. Unter der Annahme vergleichbarer Wahrnehmungen der beiden Eltern desselben Kindes kann jedoch innerhalb der entsprechenden Familie mittels einseitig randomisierter Intraklassen-Korrelation (ICC) auf Interrater-Reliabilität getestet werden. Diese wurde nach *Cicchetti*⁸⁵ interpretiert.



Nr.	Item	Itemgruppe
Teil I - allgemeiner Teil		
1	Als ich erfahren habe, dass mein Kind eine Lippen-Kiefer-Gaumenspalte haben wird, habe ich mir Sorgen um die Zukunft gemacht.	Ängste & Sorgen
2	Ich hatte Angst, dass die Ernährung meines Kindes problematisch werden würde.	Ernährung
3	Ich hatte Angst vor den Reaktionen Anderer.	soziales Umfeld
4	Die Informationen, die ich seitens meiner Ärzte über Lippen-Kiefer-Gaumenspalten vor der Geburt erhalten habe, waren hilfreich und haben mich beruhigt.	pränatale Informationen
5	Nach der Geburt habe ich schnell gelernt, mich auf die speziellen Bedürfnisse meines Kindes bezüglich Ernährung und Pflege einzustellen.	Ernährung
6	In den ersten Tagen nach der Geburt musste ich mich erst an das Aussehen meines Kindes gewöhnen.	Ängste & Sorgen
7	Mein Kind konnte gestillt werden.	Ernährung
8	Die Flaschenernährung war ohne Probleme möglich.	Ernährung
9	Die Ernährung meines Kindes im ersten Lebensjahr war insgesamt problematisch.	Ernährung
10	Die häufigen Arztbesuche während des ersten Lebensjahres meines Kindes stellten für mich eine Belastung dar.	Mühen & Probleme
11	Das erste Lebensjahr meines Kindes habe ich als schwierig empfunden, ich habe mich oft überfordert gefühlt.	Mühen & Probleme
12	Bei der Betreuung meines Kindes wurde ich durch mein soziales Umfeld gut unterstützt.	soziales Umfeld
13	Ich wurde häufig von Fremden auf die Lippen-Kiefer-Gaumenspalte meines Kindes angesprochen.	soziales Umfeld
14	Mit den Reaktionen von Außenstehenden in Bezug auf die Lippen-Kiefer-Gaumenspalte meines Kindes konnte ich gut umgehen.	soziales Umfeld
15	Ich habe vom Austausch mit anderen betroffenen Eltern profitiert.	pränatale Informationen soziales Umfeld
16	<i>freies Anmerkungsfeld</i>	
Teil II - NAM-spezifischer Teil		
17	Vor Beginn der Behandlung hatte ich Bedenken, ob ich es schaffen würde das Einsetzen und das Befestigen der Platte zu erlernen.	Ängste & Sorgen
18	Das häufige Kleben der Tapes und Einsetzen der Platte hat mich viel Zeit gekostet.	Mühen & Probleme
19	Das Einsetzen und Befestigen der Platte war leichter als zunächst von mir erwartet.	Ängste & Sorgen Mühen & Probleme
20	Ich konnte während der dreimonatigen Behandlungszeit selbst Fortschritte bei der Ausformung der Nase erkennen.	Therapiezufriedenheit
21	Ich konnte während der dreimonatigen Behandlungszeit selbst Fortschritte bei der Ausformung der Lippe erkennen.	Therapiezufriedenheit
22	Ich hatte den Eindruck, dass die Platte und die Befestigungstapes mein Kind beim Schlafen oder bei Bewegungen gestört haben.	Mühen & Probleme
23	Unter der Behandlung traten vermehrt Hautirritationen im Gesicht meines Kindes auf.	Mühen & Probleme
24	Mein Kind konnte ohne Platte nicht trinken.	Ernährung
25	Damit mein Kind trinken konnte, musste ich die Platte herausnehmen.	Mühen & Probleme Ernährung
26	Mein(e) Partner(in) und ich haben uns mit dem Einsetzen der Platte abgewechselt.	Mühen & Probleme
27	Ich habe es als aufwendig empfunden zu den wöchentlichen Kontrollterminen zu kommen.	Mühen & Probleme
28	Ich habe mich während der dreimonatigen Behandlungszeit gut betreut gefühlt.	Therapiezufriedenheit
29	Ich hatte das Gefühl, meinem Kind mit der Nasoalveolar Molding Therapie zu helfen.	Therapiezufriedenheit
30	Die Nasoalveolar Molding Therapie hat mich insgesamt überzeugt.	Therapiezufriedenheit
31	<i>freies Anmerkungsfeld</i>	

Tabelle 6. Fragebogen. Antwortmöglichkeiten (Likert Skala): Trifft nicht zu (1), trifft wenig zu (2), trifft mittelmäßig zu (3), trifft ziemlich zu (4), trifft sehr zu (5).

3.4. Datenanalyse

Sämtliche pseudonymisierte Fragebögen wurden zur Archivierung verschlüsselt digitalisiert und anschließend manuell vom Autor dieser Arbeit in eine Excel-Tabelle überführt.

Deskriptive Statistik. Neben typischen deskriptiven Parametern erfolgt die Angabe von Mittelwerten und zugehörigen Standardfehlern.

Signifikanz. Zum Gruppenvergleich erfolgte die Testung auf Signifikanz mittels t-Test für unabhängige Stichproben. Das Signifikanzniveau wurde festgelegt auf $\alpha \leq 0,05$.



Interpretation signifikanter Unterschiede. Gemäß Likert wurden signifikante Unterschiede von >1 Grad der festgelegten Likert-Skala als stark abweichend interpretiert, Unterschiede ≤ 1 Grad wurden als zu vernachlässigend interpretiert⁸⁴.

3.4.1. Software

Für die Erstellung der Datenbanken und partiellen Auswertung wurde *Microsoft® Excel für Mac v.16.68* verwendet. Alle statistischen Angaben und Diagramme beruhen auf Berechnungen mittels *IBM® SPSS® Statistics v.29.0*. Aus ästhetischen Gründen erfolgte die Nachbearbeitung einzelner Diagramme mittels *Adobe® Illustrator® 2020 v24.0* unter strenger Vermeidung inhaltlicher Änderungen.

Die Textverarbeitung erfolgte mittels *Microsoft® Word für Mac v.16.68*.

3.5. Identifikation von Fehlern, Umfang des korrigierenden Eingreifens

Zur Vermeidung von Übertragungsfehlern wurde die digitale Eingabe der Antworten doppelt geprüft. Fehlende Antworten wurden als nicht gegeben gewertet und entsprechend in der Auswertung ausgeschlossen. Dasselbe galt für nicht eindeutig korrigierte Mehrfachantworten. Ansonsten wurden keine Korrekturen vorgenommen.



4. Ergebnisse

4.1. Untersuchung der subjektiven elterlichen Belastung durch konventionelle vs. NAM-Therapie

4.1.1. Datenbank

Insgesamt wurden 119 Patienten in die Studie inkludiert, von denen 68 (57,1%) konventionell und 51 (42,9%) mittels NAM therapiert wurden. Hierunter waren entsprechend der unter 3.2.1 genannten Definition 58 Fälle (48,7%) inkompletter bzw. 61 Fälle (51,3%) kompletter Spalten. Von den 238 versendeten Fragebögen wurden 119 (50,0%) retourniert, wobei die Antwortrate innerhalb der konventionellen Behandlungsgruppe bei 39,7% (n = 54 / 136), innerhalb der mittels NAM therapierten Gruppe bei 63,7% (n = 65 / 102) lag. Bei teilweise nur einzelnen retournierten Fragebögen, bezogen auf einige Patienten, beruhen die Daten auf 66 verschiedenen Patientenfällen (55,5% aller Patientenfälle). Die Zeit zwischen Geburt (entspricht i.d.R. in etwa dem Behandlungsbeginn) und Befragung der Eltern (Tabelle 7) betrug innerhalb der konventionellen Behandlungsgruppe 49,54 ±4,36 Monate, innerhalb der NAM-Gruppe 28,03 ±2,21 Monate, sodass sich die Nachbeobachtungszeiträume statistisch signifikant voneinander unterscheiden ($p < 0,01$).

	inkomplett						Spaltart komplett						Total					
	konv.		NAM		gesamt		konv.		NAM		gesamt		konv.		NAM		gesamt	
	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD	MW	SD
Alter Eltern [a]	39,4	6,3	38,3	6,1	39,0	6,2	37,2	7,0	35,3	7,6	35,7	7,4	38,9	6,5	36,2	7,2	37,4	7,0
Alter Pat. [M]	47,4	32,4	28,3	16,9	41,1	29,5	56,3	31,3	27,9	18,4	34,3	24,7	49,5	32,1	28,0	17,8	37,8	27,4

Tabelle 7. Alterskennzahlen hinsichtlich Spaltart und Therapieform.



Altersverteilung (Tabelle 8). Das durchschnittliche Alter der Eltern zum Befragungszeitpunkt lag unter Müttern bei 35,7 \pm 5,8 Jahren, unter Vätern bei 39,5 \pm 7,8 Jahren. Bei einem durchschnittlichen Nachbeobachtungszeitraum bei Geburt von 3,15 Jahren und unter Annahme des behandelten Erstgeborenen liegt das kalkulierte Durchschnittsalter zum Zeitpunkt der Geburt bei 32,6 Jahren für Mütter, respektive bei 36,4 Jahren für Väter und damit rund 1 Jahr über Bundesdurchschnitt 2021⁸⁶ aber innerhalb einer Standardabweichung des Kollektivs.

Alter [a]	Eltern			Patienten
	Mutter	Vater	Gesamt	
MW	35,7	39,5	37,4	
SD	5,8	7,8	7,0	
n	63	56	119	66

Tabelle 8. Altersverteilung.

Therapieform in Abhängigkeit der Spaltart (Tabelle 9, Zeilen). Aufgrund des Behandlungsregimes des Studienzentrums stellen sich die Anteile der Therapieform innerhalb der verschiedenen Spaltarten im Falle der NAM-Therapie mit 32,8% Antworten durch Eltern von Kindern mit inkompletter Spalte vs. 77,6% Antworten durch Eltern von Kindern mit kompletter Spalte unterschiedlich dar.

Geschlechterverteilung der Eltern (Tabelle 9, Spalten). Durch o.g. teils einzelne Rückläufer resultierte eine geringfügig abweichende Geschlechterverteilung bezogen auf das gesamte untersuchte Elternkollektiv. Insgesamt lag dabei der Anteil maternaler Antworten bei 52,9% (n = 63 / 119), der paternaler bei 47,1% (n = 56 / 119). Innerhalb der verschiedenen Spalt- wie auch Therapiegruppen bestanden jedoch keine relevanten Unterschiede.

	inkomplett						Spaltart komplett						gesamt					
	konv.		NAM		gesamt		konv.		NAM		gesamt		konv.		NAM		gesamt	
	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %	n	Z. %
Mutter	23	69,7%	10	30,3%	33	100%	7	23,3%	23	76,7%	30	100%	30	47,6%	33	52,4%	63	100%
Vater	18	64,3%	10	35,7%	28	100%	6	21,4%	22	78,6%	28	100%	24	42,9%	32	57,1%	56	100%
gesamt	41	67,2%	20	32,8%	61	100%	13	22,4%	45	77,6%	58	100%	54	45,4%	65	54,6%	119	100%

Tabelle 9. Verteilung hinsichtlich Spaltart und Therapieform.

4.1.2. Interrater-Reliabilitätsprüfung

Entsprechend 3.3.1 wurde zur Validierung des Fragebogens im Sinne der Interrater-Reliabilität unter der Annahme ähnlicher Erfahrungen zwischen zwei Eltern desselben Kindes eine einseitig randomisierte Intraklassen-Korrelationsanalyse durchgeführt (Tabelle 10). Gemäß Cicchetti⁸⁵ zeigte sich eine überwiegend gute bis sehr gute Intraklassen-Korrelation als Hinweis auf eine allgemein hohe Interrater-Reliabilität. Ausnahmen hierbei bilden die Items 18, 19 und 28, deren Varianzanalyse sich statistisch nicht signifikant darstellt und deren



Intraklassen-Korrelation somit aufgrund Unzuverlässigkeit nicht adäquat bewertet werden kann. Im Falle des Items 28 erkennt man bei näherer Betrachtung, dass dies in der hier nicht normalverteilten, sondern einseitig stark zustimmenden Bewertung mit nahezu fehlender Varianz begründet ist. Einzig Item 3 zeigt eine signifikant schlechte ICC, wobei in diesem Fall wie später gezeigt ein geschlechtsspezifischer Unterschied ursächlich sein könnte.

Da die getroffene Hilfshypothese mögliche geschlechtsspezifische und interindividuelle Wahrnehmungsunterschiede ignoriert, schließen die vereinzelt durchschnittlichen bis schlechten Ergebnisse eine hohe Validität nicht prinzipiell aus.

Item	Gültig n	Exkl. n	Gesamt n	MW ICC	95%CI Untergrenze ICC	95%CI Obergrenze ICC	p (F- test)	Interpretation des MW ICC*
#1	53	13	66	0,640	0,378	0,792	0,00	gut
#2	53	13	66	0,459	0,066	0,687	0,01	durchschnittlich
#3	53	13	66	0,385	-0,062	0,644	0,04	schlecht
#4	42	24	66	0,808	0,645	0,897	0,00	sehr gut
#5	50	16	66	0,742	0,547	0,853	0,00	gut
#6	52	14	66	0,614	0,329	0,778	0,00	gut
#7	50	16	66	0,952	0,916	0,973	0,00	sehr gut
#8	49	17	66	0,837	0,713	0,908	0,00	sehr gut
#9	52	14	66	0,748	0,562	0,855	0,00	gut
#10	52	14	66	0,768	0,597	0,866	0,00	sehr gut
#11	52	14	66	0,840	0,723	0,908	0,00	sehr gut
#12	52	14	66	0,695	0,471	0,825	0,00	gut
#13	52	14	66	0,518	0,164	0,723	0,00	durchschnittlich
#14	51	15	66	0,604	0,309	0,774	0,00	gut
#15	46	20	66	0,733	0,519	0,852	0,00	gut
#17	30	4	34	0,672	0,317	0,843	0,00	gut
#18	29	5	34	0,176	-0,740	0,611	0,30	unzuverlässig
#19	29	5	34	0,128	-0,841	0,589	0,36	unzuverlässig
#20	29	5	34	0,772	0,519	0,892	0,00	sehr gut
#21	29	5	34	0,887	0,761	0,947	0,00	sehr gut
#22	29	5	34	0,484	-0,089	0,757	0,04	durchschnittlich
#23	30	4	34	0,789	0,561	0,899	0,00	sehr gut
#24	29	5	34	0,964	0,925	0,983	0,00	sehr gut
#25	29	5	34	0,941	0,875	0,972	0,00	sehr gut
#26	29	5	34	0,841	0,664	0,925	0,00	sehr gut
#27	31	3	34	0,722	0,428	0,865	0,00	gut
#28	31	3	34	-0,154	-1,373	0,441	0,65	unzuverlässig
#29	30	4	34	0,605	0,176	0,811	0,01	gut
#30	30	4	34	0,833	0,653	0,920	0,00	sehr gut
Durchschnitt				0,655				gut

Tabelle 10. Einseitig randomisierte Intraklassen-Korrelation der internationalen Vergleichsstudie. * Interpretation gemäß Cicchetti.⁸⁵



4.1.3. Spaltart

Aufgrund der im Rahmen der deskriptiven Statistik unter 4.1.1 dargestellten unterschiedlichen Therapieselektion in Abhängigkeit der Spaltart und daraus resultierenden Heterogenität der Subgruppen ist ein Ausschluss derselben als signifikanter Einflussfaktor im Rahmen der Studienzielsetzung zur Ermittlung der Einflussfaktoren von präoperativer Therapieform und Geschlecht auf die elterliche Wahrnehmung nötig:

Therapieform (Tabelle 11). Die Spaltart scheint innerhalb beider Therapiegruppen die Fähigkeit zum Stillen hochsignifikant und stark zu beeinflussen (Item 7: $\Delta MW \gg 1$), wobei aufgrund der anatomischen Gegebenheiten und der Pathophysiologie im Falle kompletter Spalten, d.h. mit betroffenem Gaumen das Stillen a priori komplexer wird. Somit muss die Spaltform für dieses Item als relevanter Confounder betrachtet werden. Die Effekte innerhalb der Therapiegruppen hingegen stellen sich etwa kongruent dar. Weitere statistisch signifikante, wenn auch deutlich schwächere ($\Delta MW < 1$) Confounding-Effekte zeigen sich innerhalb der NAM-Gruppe in Form schwächer empfundener Belastung der Eltern durch die Therapiefrequenz bei inkompletten Spalten (Item 10: inkomplett $1,95 \pm 0,25$ vs. komplett $2,80 \pm 0,16$; $\Delta MW 0,85$; $p < 0,01$) und vergleichbar auch in der stärkeren Ablehnung des Überwältigt-Fühlens innerhalb des ersten Lebensjahres bei inkompletten Spalten innerhalb der NAM-Gruppe (Item 11: inkomplett $1,80 \pm 0,26$ vs. komplett $2,6 \pm 0,16$; $\Delta MW 0,85$; $p < 0,01$). Beides kann womöglich durch eine stärkere Ausprägung der Fehlbildung bei kompletten Spalten und eine damit einhergehende komplexere Therapie erklärt werden. In der konventionellen Behandlungsgruppe stellt die kleine Probe an Patienten, welche aufgrund einer inkompletten Spalte dennoch mittels Gaumenplatte behandelt werden mussten, möglicherweise einen Grund für eine statistisch nicht aussagekräftige Stichprobe dar. Anders verhält es sich in Bezug auf die Wahrnehmung der Unterstützung durch das soziale Umfeld der Eltern: Hier nehmen Eltern innerhalb der konventionellen Behandlungsgruppe im Falle des Vorliegens einer kompletten Spaltbildung (Item 12: komplett $4,62 \pm 0,18$ vs. inkomplett $3,75 \pm 0,19$; $\Delta MW 0,87$; $p < 0,05$) mehr Unterstützung wahr. Innerhalb der NAM-Gruppe besteht diesbezüglich weder ein signifikanter noch wahrnehmbarer Unterschied ($\Delta MW 0,03$), was möglicherweise als sekundärer Krankheitsgewinn sowohl aufgrund der ausgeprägteren Deformität (komplette vs. inkomplette Spaltarten) als auch durch die nach außen sichtbarere Therapie (extraorale Anteile der NAM-Apparatur) erklärt und in gewisser Weise als positiver Nebeneffekt betrachtet werden kann.



Item	Spaltart	konventionell				NAM			
		MW	Δ MW	SF	p	MW	Δ MW	SF	p
#1	komplett	3,62		,368		4,04		,168	
	inkomplett	3,39	,23	,226	,620	4,35	-,31	,182	,280
#2	komplett	3,00		,340		3,67		,177	
	inkomplett	2,78	,22	,230	,630	3,55	,12	,223	,703
#3	komplett	3,08		,400		3,47		,210	
	inkomplett	3,02	,05	,230	,911	3,25	,22	,270	,553
#4	komplett	4,00		,378		3,43		,229	
	inkomplett	3,70	,30	,229	,574	3,94	-,51	,295	,214
#5	komplett	4,54		,183		4,53		,093	
	inkomplett	4,16	,38	,212	,321	4,42	,11	,159	,547
#6	komplett	2,46		,402		3,04		,231	
	inkomplett	2,43	,04	,237	,939	2,65	,39	,357	,360
#7	komplett	1,64		,279		1,16		,105	
	inkomplett	4,40	-2,76	,205	,000	3,60	-2,44	,343	,000
#8	komplett	3,69		,365		3,84		,198	
	inkomplett	4,44	-,75	,185	,083	4,05	-,21	,294	,566
#9	komplett	1,85		,274		2,22		,193	
	inkomplett	1,88	-,03	,224	,946	1,75	,47	,270	,171
#10	komplett	3,15		,421		2,80		,161	
	inkomplett	2,30	,85	,221	,089	1,95	,85	,246	,006
#11	komplett	2,77		,426		2,62		,178	
	inkomplett	2,03	,74	,244	,145	1,80	,82	,258	,012
#12	komplett	4,62		,180		4,13		,179	
	inkomplett	3,75	,87	,185	,015	4,10	,03	,298	,924
#13	komplett	2,31		,263		2,60		,192	
	inkomplett	2,65	-,34	,195	,364	2,20	,40	,186	,207
#14	komplett	4,54		,144		4,29		,154	
	inkomplett	4,15	,39	,154	,177	4,32	-,03	,203	,922
#15	komplett	2,60		,400		2,98		,237	
	inkomplett	2,64	-,04	,245	,938	3,00	-,02	,324	,954

Tabelle 11. Spaltartabhängige Unterschiede innerhalb der Behandlungsgruppen. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Likert*⁶⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).



4.1.4. Konventionelle vs. NAM-Therapie

Gesamtkollektiv (Tabelle 12, Abbildung 19). Eine erste Analyse hinsichtlich therapiebedingter Wahrnehmungsunterschiede ergab signifikante Unterschiede hinsichtlich der prätherapeutischen Zukunftsangst der Eltern (Item 1), Angst vor schwieriger Ernährung des Kindes (Item 2), sowie der Fähigkeit zum Stillen unter Therapie (Item 7), wobei lediglich letzteres einen deutlich differierenden Effekt aufwies ($\Delta MW > 1$). Zur Eliminierung von Confoundern wurde entsprechend die u.g. Subgruppenanalyse durchgeführt mit relevant anderen Ergebnissen.

Item	Therapie	MW	ΔMW	SF	p
#1	NAM	4,14		,129	
	konventionell	3,44	,69	,192	,003
#2	NAM	3,63		,140	
	konventionell	2,83	,80	,192	,001
#3	NAM	3,40		,167	
	konventionell	3,04	,36	,198	,163
#4	NAM	3,57		,185	
	konventionell	3,76	-,18	,199	,502
#5	NAM	4,50		,080	
	konventionell	4,25	,25	,165	,186
#6	NAM	2,92		,194	
	konventionell	2,43	,49	,203	,086
#7	NAM	1,94		,193	
	konventionell	3,80	-1,87	,234	,000
#8	NAM	3,91		,164	
	konventionell	4,23	-,33	,173	,180
#9	NAM	2,08		,159	
	konventionell	1,87	,21	,181	,387
#10	NAM	2,54		,142	
	konventionell	2,51	,03	,201	,906
#11	NAM	2,37		,153	
	konventionell	2,21	,16	,214	,541
#12	NAM	4,12		,153	
	konventionell	3,96	,16	,155	,465
#13	NAM	2,48		,146	
	konventionell	2,57	-,09	,161	,682
#14	NAM	4,30		,123	
	konventionell	4,25	,05	,123	,770
#15	NAM	2,98		,191	
	konventionell	2,63	,35	,210	,219

Tabelle 12. Therapieabhängige Unterschiede am Gesamtkollektiv. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß Likert⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz ($\Delta MW \geq 1$), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz ($\Delta MW < 1$).

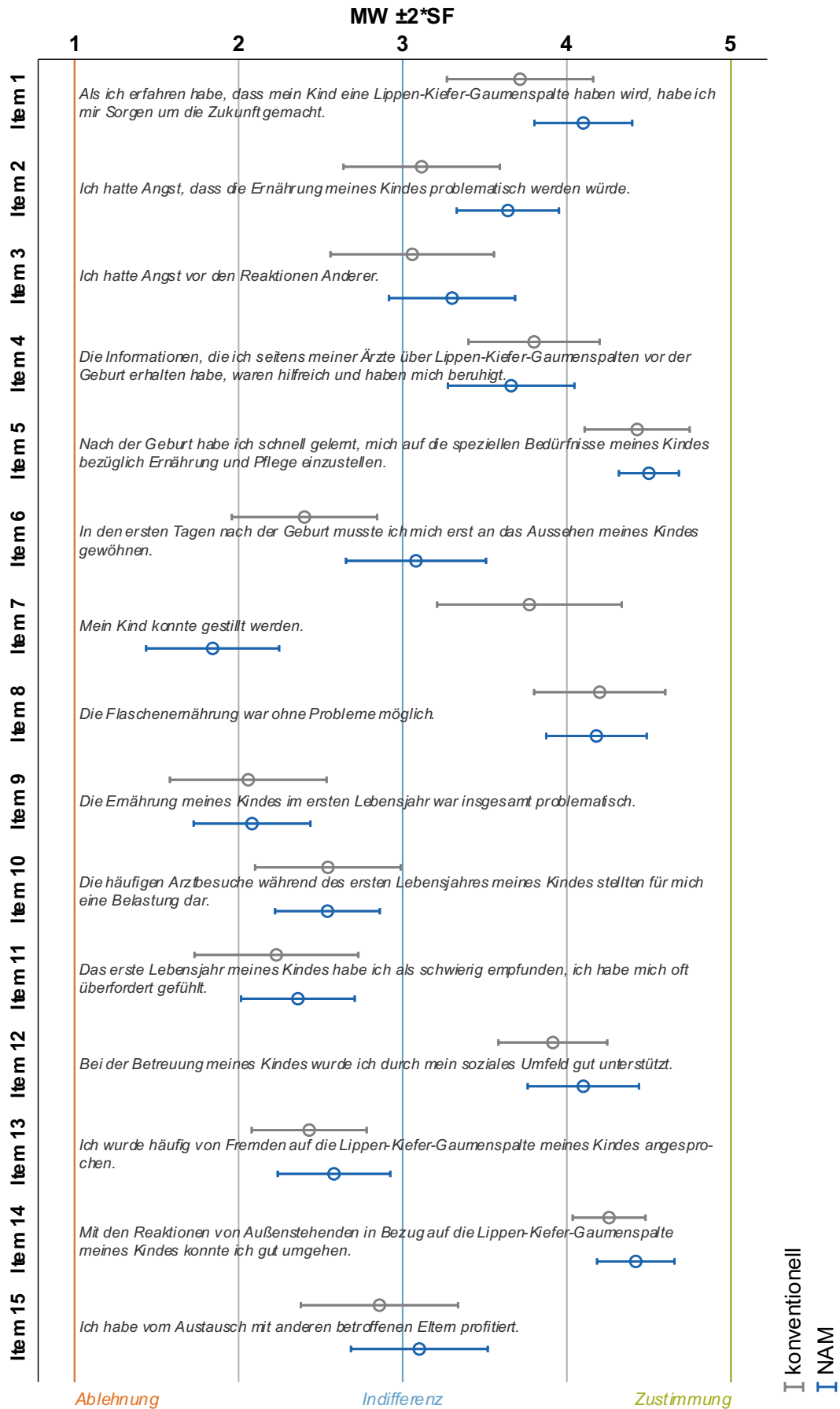


Abbildung 19. Therapieabhängige Unterschiede des Gesamtkollektivs der Items 1-15.



In Abhängigkeit der Spaltart (Tabelle 13, Abbildung 20). Im Falle inkompletter Spalten gaben Eltern, deren Kinder mittels NAM therapiert wurden, an prätherapeutisch signifikant besorgter zu sein als Eltern, deren Kinder konventionell therapiert wurden (Item 1: NAM 4,35 \pm 0,18 vs. konventionell 3,39 \pm 0,23; Δ MW 0,96; $p < 0,01$). Dies kann möglicherweise selbst innerhalb der Subgruppe der Spaltart durch einen Selektionsbias erklärt werden (bei ausgeprägter Spaltform besteht eher die Tendenz die aufwendigere Therapie, d.h. NAM zu favorisieren als bei milderer Spaltausprägung). Ansonsten ergaben sich im Vergleich der beiden Therapiegruppen keine signifikanten Unterschiede, sodass die oben für das Gesamtkollektiv angenommenen signifikanten Unterschiede der Items 1, 2 und 7 mit genannter Ausnahme entkräftet werden und vielmehr die Spaltart als die Therapieform im Sinne eines Confounders Ausschlag zu geben scheint (Abbildung 20). Dies steht in Übereinstimmung mit 4.1.3.

Item	Therapie	inkomplette Spalten				komplette Spalten			
		MW	Δ MW	SF	p	MW	Δ MW	SF	p
#1	NAM	4,35		,182		4,04		,168	
	konventionell	3,39	,96	,226	,008	3,62	,43	,368	,303
#2	NAM	3,55		,223		3,67		,177	
	konventionell	2,78	,77	,230	,040	3,00	,67	,340	,098
#3	NAM	3,25		,270		3,47		,210	
	konventionell	3,02	,23	,230	,555	3,08	,39	,400	,399
#4	NAM	3,94		,295		3,43		,229	
	konventionell	3,70	,23	,229	,559	4,00	-,58	,378	,293
#5	NAM	4,42		,159		4,53		,093	
	konventionell	4,16	,26	,212	,416	4,54	-,01	,183	,980
#6	NAM	2,65		,357		3,04		,231	
	konventionell	2,43	,23	,237	,603	2,46	,58	,402	,231
#7	NAM	3,60		,343		1,16		,105	
	konventionell	4,40	-,80	,205	,054	1,64	-,47	,279	,136
#8	NAM	4,05		,294		3,84		,198	
	konventionell	4,44	-,39	,185	,269	3,69	,15	,365	,718
#9	NAM	1,75		,270		2,22		,193	
	konventionell	1,88	-,13	,224	,737	1,85	,38	,274	,338
#10	NAM	1,95		,246		2,80		,161	
	konventionell	2,30	-,35	,221	,333	3,15	-,35	,421	,444
#11	NAM	1,80		,258		2,62		,178	
	konventionell	2,03	-,23	,244	,567	2,77	-,15	,426	,754
#12	NAM	4,10		,298		4,13		,179	
	konventionell	3,75	,35	,185	,326	4,62	-,48	,180	,171
#13	NAM	2,20		,186		2,60		,192	
	konventionell	2,65	-,45	,195	,147	2,31	,29	,263	,450
#14	NAM	4,32		,203		4,29		,154	
	konventionell	4,15	,17	,154	,533	4,54	-,25	,144	,407
#15	NAM	3,00		,324		2,98		,237	
	konventionell	2,64	,36	,245	,394	2,60	,38	,400	,477

Tabelle 13. Therapieabhängige Unterschiede innerhalb der Spaltarten. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Liker*⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).

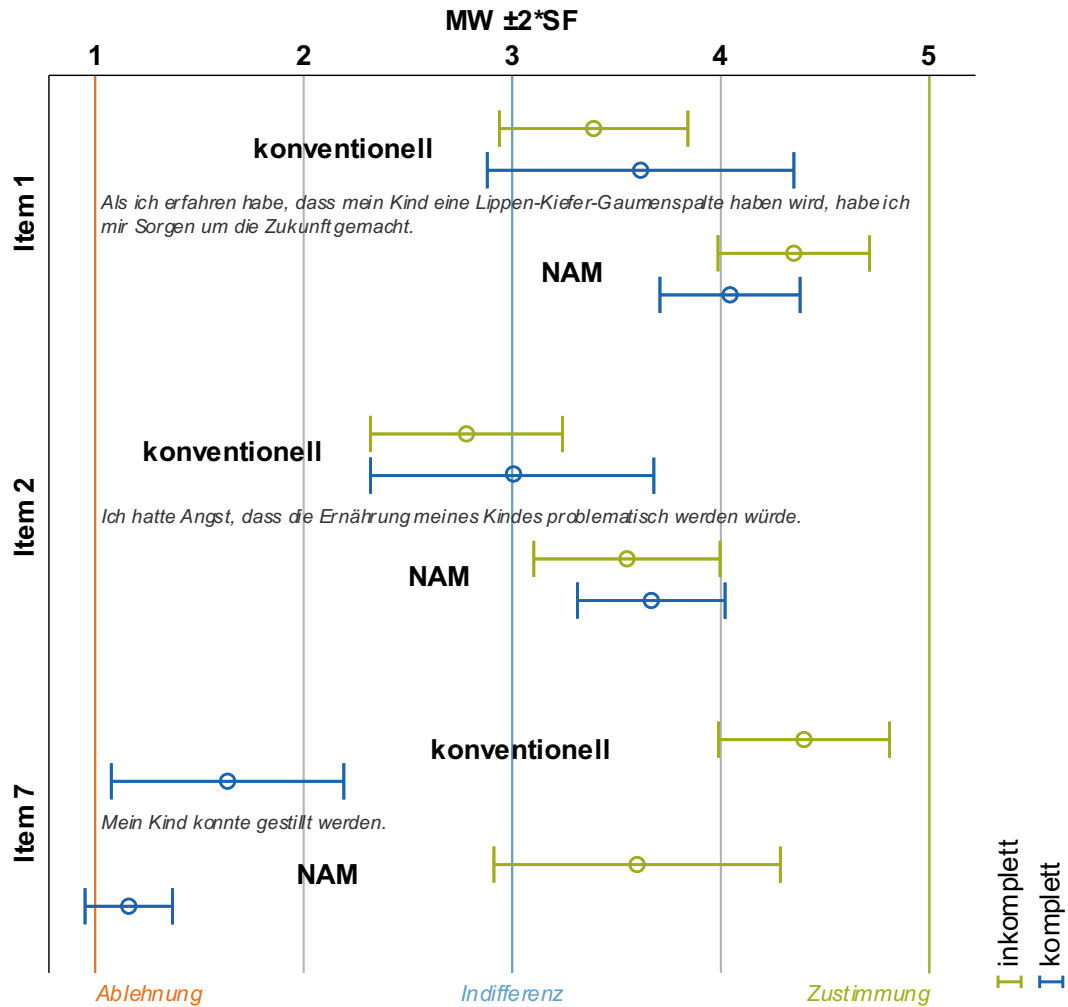


Abbildung 20. Therapieabhängige Unterschiede innerhalb der Spaltarten.

4.1.5. Geschlechtsspezifische Unterschiede

Mütter äußerten sich signifikant stärker, wenn auch insgesamt nur leicht vor Reaktionen Außenstehender zu fürchten als Väter, welche tendenziellangaben eher furchtlos zu sein (Item 3: Mütter $3,56 \pm 0,16$ vs. Väter $2,88$; $\Delta 0,68$; $p < 0,01$). Ansonsten konnten keine statistisch signifikanten geschlechterspezifischen Unterschiede in der Belastungswahrnehmung gefunden werden (siehe Tabelle 14).



Item	Geschlecht	MW	Δ MW	SF	p
#1	Vater	3,68		,169	
	Mutter	3,95	-,27	,159	,241
#2	Vater	3,11		,176	
	Mutter	3,41	-,31	,166	,209
#3	Vater	2,88		,199	
	Mutter	3,56	-,68	,156	,008
#4	Vater	3,65		,205	
	Mutter	3,66	-,01	,181	,958
#5	Vater	4,39		,107	
	Mutter	4,39	,00	,133	,979
#6	Vater	2,93		,209	
	Mutter	2,51	,42	,190	,141
#7	Vater	2,83		,252	
	Mutter	2,72	,11	,239	,755
#8	Vater	4,12		,164	
	Mutter	3,98	,13	,174	,585
#9	Vater	1,93		,170	
	Mutter	2,03	-,10	,168	,664
#10	Vater	2,35		,171	
	Mutter	2,68	-,34	,164	,158
#11	Vater	2,25		,188	
	Mutter	2,33	-,08	,175	,759
#12	Vater	3,91		,173	
	Mutter	4,17	-,27	,137	,231
#13	Vater	2,47		,168	
	Mutter	2,56	-,08	,139	,705
#14	Vater	4,24		,132	
	Mutter	4,30	-,06	,117	,731
#15	Vater	2,67		,201	
	Mutter	2,97	-,29	,198	,304
#17	Vater	3,06		,262	
	Mutter	2,82	,25	,277	,522
#18	Vater	2,57		,184	
	Mutter	2,94	-,37	,179	,152
#19	Vater	4,00		,166	
	Mutter	3,72	,28	,207	,297
#20	Vater	4,27		,185	
	Mutter	4,06	,21	,204	,460
#21	Vater	3,97		,212	
	Mutter	3,97	,00	,225	,997
#22	Vater	2,17		,198	
	Mutter	2,36	-,20	,221	,513
#23	Vater	2,74		,207	
	Mutter	3,12	-,38	,208	,201
#24	Vater	2,87		,342	
	Mutter	2,76	,11	,329	,819
#25	Vater	1,77		,274	
	Mutter	2,18	-,42	,309	,323
#26	Vater	3,20		,289	
	Mutter	2,76	,44	,272	,270
#27	Vater	2,44		,246	
	Mutter	2,58	-,14	,261	,701
#28	Vater	4,88		,059	
	Mutter	4,97	-,09	,030	,162
#29	Vater	4,78		,098	
	Mutter	4,81	-,03	,070	,796
#30	Vater	4,69		,105	
	Mutter	4,81	-,13	,095	,379

Tabelle 14. Geschlechtsspezifische Unterschiede am Gesamtkollektiv. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Liker*⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).



4.1.6. NAM-spezifische Untersuchung

Aufgrund des Focus dieser Studie bzgl. Unterschieden der elterlichen Belastung zwischen konventioneller und NAM-Therapie, wird der NAM-spezifische Teil des Untersuchungsbogens vor allem deskriptiv ausgewertet. Einen Überblick der Ergebnisse stellen hierzu Tabelle 15 sowie Abbildung 21 dar.

Während Bedenken der Eltern ggü. der NAM-Therapie zu Therapiebeginn indifferent bewertet wurden (Item 17), schienen der persönliche Aufwand durch Inserieren der Apparatur eine eher untergeordnete Rolle zu spielen (Item 18) und unisono deutlich leichter wahrgenommen worden zu sein als von den Eltern selbst erwartet (Item 19). Die Therapieziele des *Nasoalveolar Moldings* in Form der Korrektur der Nasendeformität wurden von den Eltern sehr deutlich (Item 20) und in Bezug auf die präoperative Annäherung der Lippenspalte immerhin noch deutlich wahrgenommen (Item 21). Eltern sahen die Apparatur eher nicht als Störfaktor für ihr Kind während dessen Schlafes (Item 22). Das Auftreten von Hautirritationen durch die Therapie wurde von den Eltern indifferent bewertet (Item 23). Dasselbe galt auch für die Möglichkeit des Trinkens ohne Apparatur (Item 24), während sie jedoch angaben, dass ein Entfernen der Platte zum Trinken i.d.R. nicht notwendig erschien (Item 25). Eine Tendenz bezüglich der abwechselnden elterlichen Therapieübernahme war nicht erkennbar (Item 26), wohingegen wider Erwarten der Autoren die häufige ärztliche Behandlungsfrequenz von den Eltern als eher gering belastend betrachtet wurde (Item 27). Positiv hervorzuheben sind das Empfinden der sehr guten Betreuung während der Behandlung (Item 28), das Gefühl der Eltern ihren Kindern mit dieser Form der Therapie helfen zu können (Item 29) sowie die sehr starke Überzeugung der Eltern von der Therapie (Item 30).

Item	MW	SF
#17	2,94	0,190
#18	2,76	0,129
#19	3,85	0,134
#20	4,16	0,138
#21	3,97	0,153
#22	2,27	0,149
#23	2,94	0,148
#24	2,81	0,235
#25	1,98	0,208
#26	2,97	0,199
#27	2,51	0,178
#28	4,92	0,033
#29	4,80	0,060
#30	4,75	0,070

Tabelle 15. Mittelwerte der elterlichen Wahrnehmung im Rahmen der NAM-Therapie.

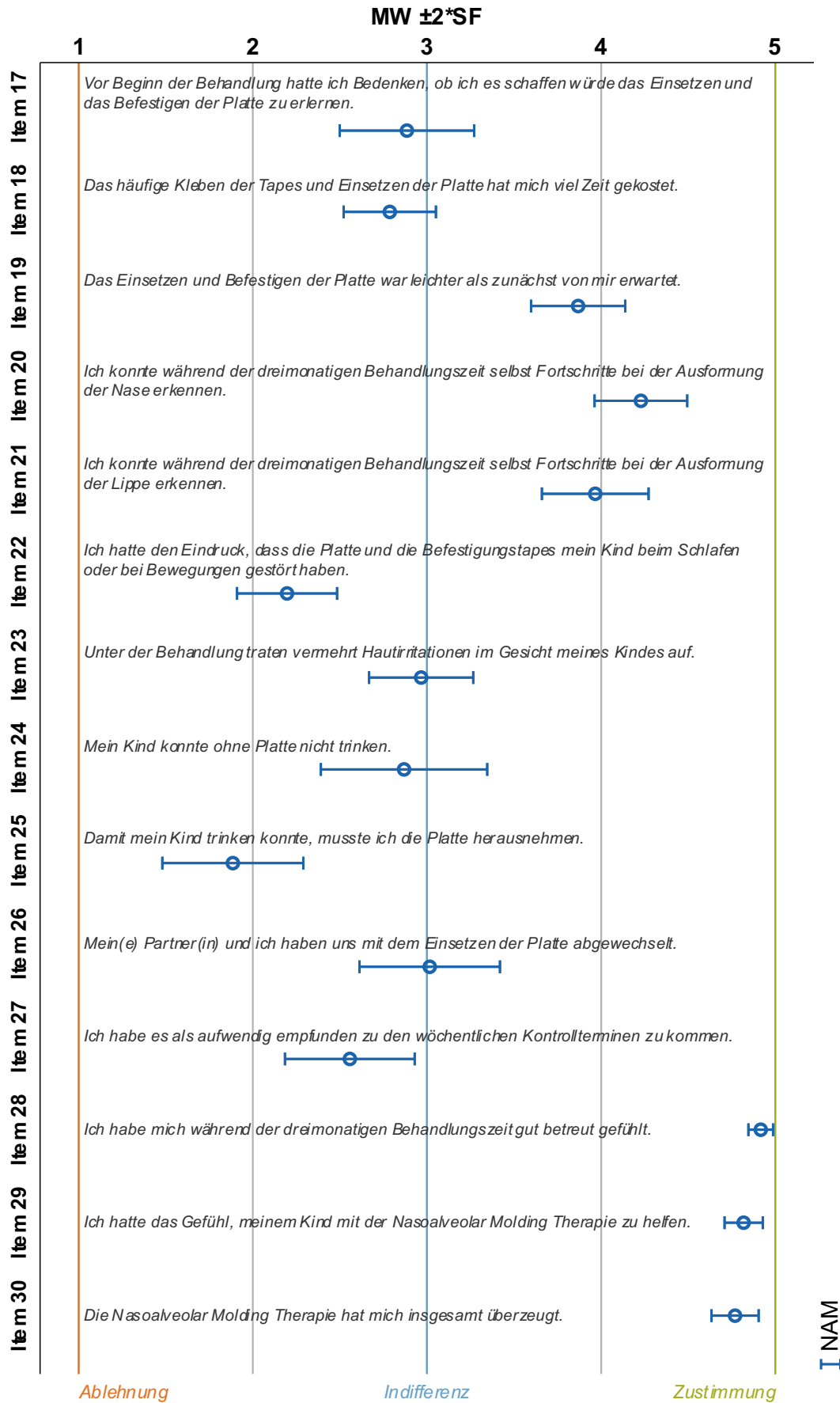


Abbildung 21. Überblick elterlicher Wahrnehmungen im Rahmen der NAM-Therapie.



4.1.7. Zusammenfassung der Ergebnisse dieser Studie

Zum einfacheren Verständnis der Resultate dieses umfangreichen Fragebogens sollen sie abschließend zusammengefasst werden:

Kollektiv. Das Kollektiv der antwortenden Eltern unterschied sich hinsichtlich Verteilung und Alter nicht relevant vom bundestatistischen Mittel. In der Therapieverteilung bestanden aufgrund der Therapierichtlinien des behandelnden Zentrums Unterschiede bezogen auf die Spaltarten innerhalb der Therapiegruppen.

Reliabilität. Die Reliabilität des Fragebogens kann insgesamt als gut bis sehr gut bewertet werden. Innerhalb der Interrater-Reliabilität zwischen Müttern und Vätern erwies sich lediglich Item 3 als wenig reliabel, was auf geschlechtsspezifische Wahrnehmungsgründe zurückgeführt wird.

Spaltart. Die Unterscheidung bzgl. des kompletten Auftretens von Lippen-Kiefer-Gaumenspalten und des inkompletten Auftretens von Lippen±Kiefer±Gaumenspalten bedingen aufgrund der unterschiedlichen Pathophysiologie und nötigen Therapie einen wesentlichen Confounding-Faktor für Stillvermögen und invers für soziale Unterstützung.

Therapieart. Nach Subgruppierung in die genannten Spaltarten bestanden – außer innerhalb der Gruppe der inkompletten Spalten geringfügig verstärkter prätherapeutischer Angstwahrnehmung auf Seiten von Eltern mit Kindern vor NAM-Therapie – keine statistisch signifikanten Unterschiede hinsichtlich der Belastungswahrnehmung zwischen konventioneller und NAM-Behandlungsgruppe.

Geschlecht. Mit Ausnahme geringfügig stärker ausgeprägter mütterlicher Angst vor Reaktionen Außenstehender wurden keine signifikanten Unterschiede zwischen den Elternteilen gefunden.

Fazit. Die Therapieform scheint somit keinen signifikanten Faktor hinsichtlich der elterlichen Belastungswahrnehmung darzustellen, wobei die Therapie des *Nasoalveolar Moldings* die Eltern zusammenfassend subjektiv nur wenig zu belasten, aber ihren Kindern sowie ihnen selbst zu helfen scheint und sie abschließend in sehr hohem Maße überzeugt.



4.2. Untersuchung der internationalen Unterschiede in der elterlichen Stresswahrnehmung unter NAM-Therapie

4.2.1. Datenbank

Gemäß der unter 3.2.2 genannten Kriterien wurden folgende Kennzahlen ermittelt:

Klinikum rechts der Isar – München, Deutschland. Es wurden 18 Patienten mit kompletten einseitigen Lippen-Kiefer-Gaumenspalten identifiziert, an deren Eltern Fragebögen verschickt wurden. Von 36 versendeten Fragebögen wurden 28 beantwortet retourniert, woraus sich eine Antwortrate von 77,8% ergibt.

Chang Gung Memorial Hospital – Taoyuan, Taiwan. Hier erfüllten 99 Patienten die Einschlusskriterien, wobei von 198 versendeten Fragebögen 73 beantwortet und zurückgesandt wurden mit einer Antwortrate von 39,4%.

Geschlechterverteilung zwischen antwortenden Müttern und Vätern, durchschnittliches Alter der Eltern zum Befragungszeitpunkt, sowie zeitlicher Abstand zwischen Operation (entspricht Ende der präoperativen NAM-Therapie) und Befragung waren in beiden Behandlungszentren vergleichbar (siehe Tabelle 16).

Behandlungszentrum	Geschlechterverteilung der Eltern						Alter der Eltern [a]		Zeit zwischen OP und Befragung [d]	
	Mütter		Väter		Gesamt		MW	SD	MW	SD
	n	%	n	%	n	%				
Klinikum rechts der Isar	15	53,6%	13	46,4%	28	100,0%	35,7	7,0	737	551
Chang Gung Memorial Hospital	38	52,8%	34	47,2%	72	100,0%	35,6	6,6	602	687

Tabelle 16. Deskriptive Parameter im internationalen Vergleich.

4.2.2. Interrater-Reliabilitätsprüfung

Die Prüfung auf Interrater-Reliabilität erfolgte analog zu 4.1.2.

Mit Ausnahme der Items 5 und 19, deren Varianzanalyse sich nicht signifikant darstellte, zeigte sich entsprechend Cicchetti⁸⁵ auch hier eine mindestens durchschnittliche, überwiegend jedoch gute bis sehr gute Intraklassen-Korrelation als Hinweis auf eine allgemein hohe Interrater-Reliabilität dieses Fragebogens (Tabelle 17). Die sonstigen Einschränkungen gemäß der Hilfshypothese entsprechen denen unter 4.1.2.



Item	Gültig n	Exkl. n	Gesamt n	MW ICC	95%CI		p (F- test)	Interpretation des MW ICC*
					Untergrenze ICC	Obergrenze ICC		
#1	46	8	54	0,663	0,393	0,813	0,00	gut
#2	46	8	54	0,657	0,383	0,810	0,00	gut
#3	46	8	54	0,425	-0,035	0,681	0,03	durchschnittlich
#4	41	13	54	0,816	0,656	0,901	0,00	sehr gut
#5	44	10	54	0,347	-0,190	0,643	0,08	unzuverlässig
#6	44	10	54	0,652	0,365	0,810	0,00	gut
#7	44	10	54	0,773	0,585	0,876	0,00	sehr gut
#8	44	10	54	0,650	0,361	0,808	0,00	gut
#9	46	8	54	0,560	0,209	0,756	0,00	durchschnittlich
#10	46	8	54	0,727	0,509	0,849	0,00	gut
#11	46	8	54	0,693	0,447	0,830	0,00	gut
#12	46	8	54	0,710	0,478	0,839	0,00	gut
#13	46	8	54	0,757	0,563	0,865	0,00	sehr gut
#14	45	9	54	0,532	0,153	0,742	0,01	durchschnittlich
#15	43	11	54	0,615	0,293	0,791	0,00	gut
#17	45	9	54	0,650	0,367	0,807	0,00	gut
#18	45	9	54	0,623	0,316	0,792	0,00	gut
#19	45	9	54	0,317	-0,238	0,624	0,10	unzuverlässig
#20	45	9	54	0,602	0,279	0,781	0,00	gut
#21	45	9	54	0,779	0,599	0,878	0,00	sehr gut
#22	43	11	54	0,751	0,542	0,865	0,00	sehr gut
#23	43	11	54	0,628	0,317	0,798	0,00	gut
#24	43	11	54	0,804	0,639	0,893	0,00	sehr gut
#25	43	11	54	0,707	0,462	0,841	0,00	gut
#26	43	11	54	0,817	0,664	0,901	0,00	sehr gut
#27	44	10	54	0,730	0,507	0,852	0,00	gut
#28	44	10	54	0,621	0,309	0,793	0,00	gut
#29	44	10	54	0,611	0,290	0,787	0,00	gut
#30	44	10	54	0,697	0,447	0,834	0,00	gut
Durchschnitt				0,652				gut

Tabelle 17. Einseitig randomisierte Intraklassen-Korrelation der internationalen Vergleichsstudie. * Interpretation gemäß Cicchetti.⁸⁵

4.2.3. Interkulturelle Differenzen

Wie oben bereits dargestellt erfolgt zum einfacheren Verständnis dieses umfangreichen Fragebogens die Präsentation der Ergebnisse anhand der teils überlappenden Themenfelder. Alle Resultate können im Detail Tabelle 18 entnommen werden, die Diagramme fassen die wichtigsten bzw. signifikant unterschiedlichen Ergebnisse zusammen.



Item	Behandlungszentrum	MW	Δ MW	SF	p
#1	Chang Gung Memorial Hospital	3,65		,136	
	Klinikum rechts der Isar	4,04	-,38	,221	,146
#2	Chang Gung Memorial Hospital	3,82		,112	
	Klinikum rechts der Isar	3,79	,03	,226	,894
#3	Chang Gung Memorial Hospital	3,33		,148	
	Klinikum rechts der Isar	3,71	-,38	,267	,218
#4	Chang Gung Memorial Hospital	4,28		,080	
	Klinikum rechts der Isar	3,17	1,10	,312	,002
#5	Chang Gung Memorial Hospital	4,12		,089	
	Klinikum rechts der Isar	4,50	-,38	,121	,018
#6	Chang Gung Memorial Hospital	3,59		,148	
	Klinikum rechts der Isar	3,04	,56	,306	,108
#7	Chang Gung Memorial Hospital	2,59		,142	
	Klinikum rechts der Isar	1,14	1,45	,143	,000
#8	Chang Gung Memorial Hospital	3,17		,127	
	Klinikum rechts der Isar	3,93	-,75	,252	,004
#9	Chang Gung Memorial Hospital	3,17		,130	
	Klinikum rechts der Isar	2,14	1,02	,245	,001
#10	Chang Gung Memorial Hospital	2,89		,138	
	Klinikum rechts der Isar	2,68	,21	,193	,406
#11	Chang Gung Memorial Hospital	2,78		,125	
	Klinikum rechts der Isar	2,50	,28	,227	,290
#12	Chang Gung Memorial Hospital	4,01		,085	
	Klinikum rechts der Isar	4,11	-,09	,248	,725
#13	Chang Gung Memorial Hospital	3,50		,103	
	Klinikum rechts der Isar	2,54	,96	,244	,001
#14	Chang Gung Memorial Hospital	3,79		,097	
	Klinikum rechts der Isar	4,46	-,68	,158	,001
#15	Chang Gung Memorial Hospital	4,21		,095	
	Klinikum rechts der Isar	3,19	1,02	,314	,004
#17	Chang Gung Memorial Hospital	3,44		,117	
	Klinikum rechts der Isar	2,93	,51	,295	,115
#18	Chang Gung Memorial Hospital	3,29		,129	
	Klinikum rechts der Isar	2,68	,62	,212	,017
#19	Chang Gung Memorial Hospital	3,41		,113	
	Klinikum rechts der Isar	3,75	-,34	,234	,200
#20	Chang Gung Memorial Hospital	3,96		,102	
	Klinikum rechts der Isar	4,14	-,19	,234	,470
#21	Chang Gung Memorial Hospital	4,19		,091	
	Klinikum rechts der Isar	4,04	,15	,227	,536
#22	Chang Gung Memorial Hospital	2,89		,126	
	Klinikum rechts der Isar	2,14	,75	,210	,004
#23	Chang Gung Memorial Hospital	3,09		,127	
	Klinikum rechts der Isar	3,25	-,16	,239	,564
#24	Chang Gung Memorial Hospital	3,51		,120	
	Klinikum rechts der Isar	3,61	-,10	,318	,772
#25	Chang Gung Memorial Hospital	2,32		,128	
	Klinikum rechts der Isar	1,36	,97	,201	,000
#26	Chang Gung Memorial Hospital	3,28		,143	
	Klinikum rechts der Isar	2,82	,46	,334	,217
#27	Chang Gung Memorial Hospital	2,78		,122	
	Klinikum rechts der Isar	2,79	-,01	,301	,977
#28	Chang Gung Memorial Hospital	3,78		,098	
	Klinikum rechts der Isar	4,89	-1,11	,060	,000
#29	Chang Gung Memorial Hospital	4,43		,077	
	Klinikum rechts der Isar	4,82	-,39	,074	,003
#30	Chang Gung Memorial Hospital	4,39		,082	
	Klinikum rechts der Isar	4,64	-,25	,128	,101

Tabelle 18. Interkulturelle Differenzen. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Likert*⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).



Pränatale Informationen (Items 4 & 15; Abbildung 22). Insgesamt scheinen sich taiwanesische Eltern pränatal besser informiert und unterstützt zu fühlen: Während sich taiwanesische Eltern mit sehr geringer Varianz pränatal bereits gut über die Spaltdeformität ihres Kindes informiert fühlen, äußern sich deutsche Eltern diesbezüglich signifikant schlechter und insgesamt mit größerer Varianz nur knapp im positiven Bereich (Item 4: TWN $4,28 \pm 0,08$ vs. GER $3,17 \pm 0,31$; $\Delta MW 1,10$; $p < 0,01$). Konkordant scheinen taiwanesische Eltern ebenso signifikant stärker und insgesamt sehr vom Austausch mit anderen betroffenen Eltern zu profitieren, während sich deutsche Eltern hier ebenfalls nahezu indifferent äußern (Item 15: TWN $4,21 \pm 0,10$ vs. GER $3,19 \pm 0,31$; $\Delta MW 1,02$; $p < 0,01$).

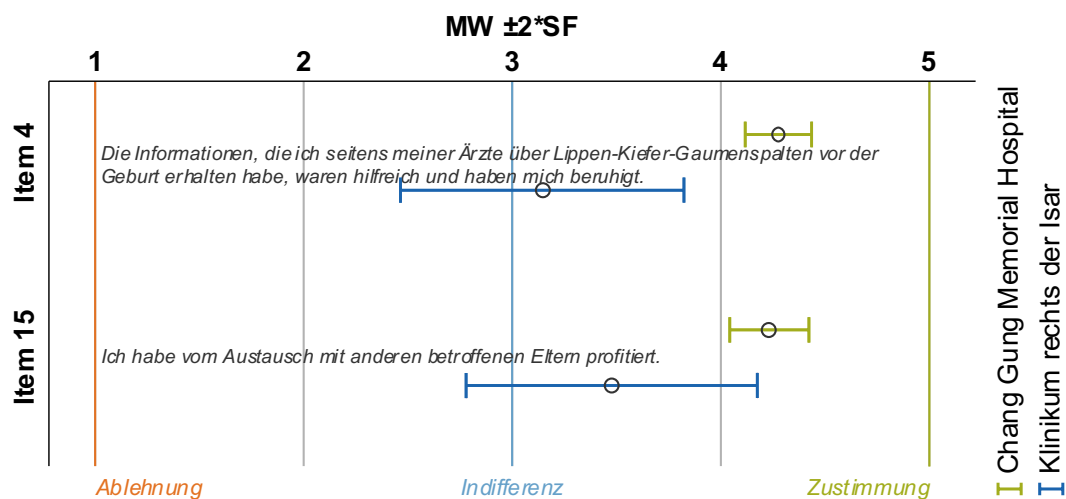


Abbildung 22. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich pränataler Informationen im internationalen Vergleich.

Ernährung (Items 2, 5, 7 - 9, 24, 25; Abbildung 23). Im Gegensatz zur pränatalen Information scheint die Ernährung ihres Kindes deutschen Eltern in ihrer Wahrnehmung leichter zu fallen als taiwanesischen: Während beide Gruppen gleichermaßen moderate Zustimmung hinsichtlich Angst vor möglichen Problemen bei der Ernährung zeigten (Item 2) und beiden gleichermaßen vorkam, ihr Kind könne eher mit als ohne Platte trinken (Item 24), zeigten sich ein statistisch signifikanter Unterschied zugunsten der Wahrnehmung deutscher Eltern sich schneller an die Ernährungs- und Pflegebedürfnisse ihres Kindes anzupassen. Dabei scheint dieser Unterschied bei ebenfalls guter Bewertung der taiwanesischen Eltern zu vernachlässigen zu sein (Item 5: TWN $4,12 \pm 0,09$ vs. GER $4,50 \pm 0,12$; $\Delta MW 0,38$; $p = 0,02$). Trotz dieser positiven Wahrnehmung der Anpassungsfähigkeit äußern sich taiwanesische Eltern indifferent bis eher problematisch bezüglich der allgemeinen Ernährung ihres Kindes, während es deutschen Eltern insgesamt signifikant deutlich unproblematischer erscheint (Item 9: TWN $3,17 \pm 0,13$ vs. GER $2,14 \pm 0,25$; $\Delta MW 1,02$; $p < 0,01$). Der deutlichste Unterscheid



zeigt sich allerdings bezüglich der Fähigkeit des natürlichen Stillens, was deutsche Eltern als äußerst problematisch empfinden, taiwanesischen Eltern lediglich als gering problematisch (Item 7: TWN 2,59 ±0,14 vs. GER 1,14 ±0,14; ΔMW 1,45; $p < 0,01$). Hinsichtlich der Flaschenernährung verkehrt sich dies, sodass taiwanesischen Eltern den Umgang mit dieser indifferent, deutsche Eltern jedoch als eher unproblematisch wahrnehmen, obschon in diesem Bereich der Unterschied eher vernachlässigbar scheint (Item 8: TWN 3,17 ±0,13 vs. GER 3,93 ±0,25; ΔMW 0,75; $p = 0,02$). Auch scheinen deutsche Eltern in ihrer Wahrnehmung die Platte beim Trinken signifikant seltener entfernen zu müssen als taiwanesischen (Item 25 TWN 2,32 ±0,13 vs. GER 1,36 ±0,20; ΔMW 0,97; $p < 0,01$).

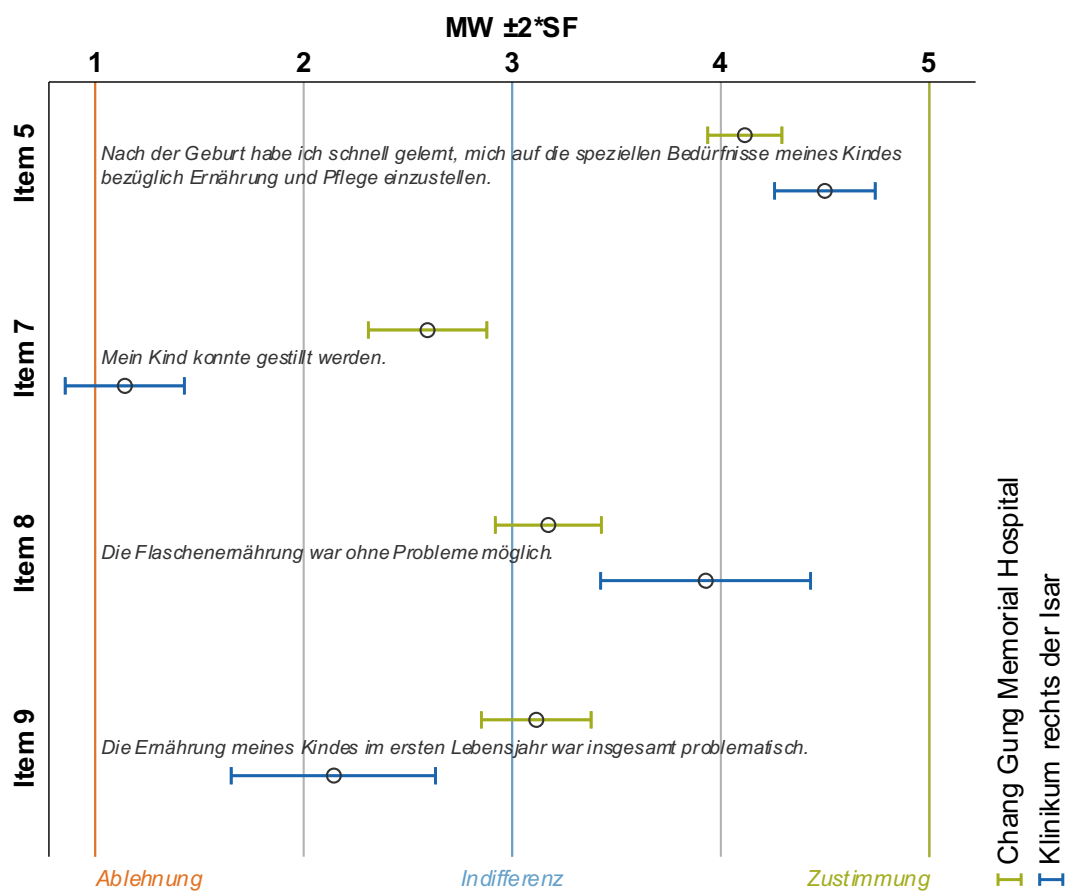


Abbildung 23. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich der Ernährung im internationalen Vergleich.

Soziales Umfeld (Items 3, 12 - 15; Abbildung 24). Trotz leichter Angst vor Reaktionen dritter gegenüber der Fehlbildung ihres Kindes bei deutschen Eltern besteht kein signifikanter Unterschied bei allgemein in beiden Ländern eher vorherrschender Unbeschwertheit diesbezüglich (Item 3: TWN 3,33 vs. GER 3,71; ΔMW 0,38; $p = 0,22$). Eltern beider Nationen sehen sich vergleichbar gut bis sehr gut durch ihr soziales Umfeld unterstützt (Item 12). Signifikante Unterschiede bestehen bei der Wahrnehmung häufiger Fragen Dritter bezüglich



der Fehlbildung: Während taiwanesische Eltern eher bejahen, häufig von Dritten hierauf angesprochen zu werden, verneinen dies deutsche Eltern eher (Item 13: TWN 3,50 \pm 0,10 vs. GER 2,54 \pm 0,24; Δ MW 0,96; $p < 0,01$). Ähnlich, wenn auch weniger ausgeprägt, verhält es sich mit dem Empfinden gut mit Reaktionen Außenstehender umgehen zu können, was deutschen Eltern signifikant besser zu gelingen scheint (Item 14: TWN 3,79 \pm 0,10 vs. GER 4,46 \pm 0,16; Δ MW 0,68; $p < 0,01$). Wie o.g. scheinen taiwanesische Eltern jedoch stärker vom Austausch mit anderen betroffenen Eltern zu profitieren (Item 15).

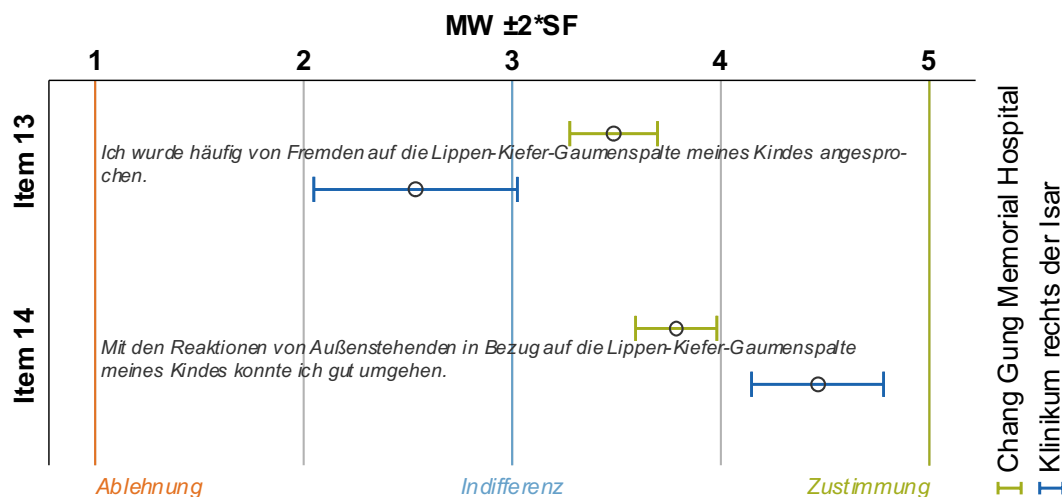


Abbildung 24. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich Reaktionen Außenstehender im internationalen Vergleich.

Mühen & Probleme (10, 11, 18, 19, 22, 23, 25 - 27; Abbildung 25). Trotz dieses großen und heterogenen Feldes scheinen die signifikanten Unterschiede deutlich seltener als man erwarten würde: Erstaunlicherweise scheint die mit der NAM-Therapie verbundene hohe Behandlungsfrequenz in der Wahrnehmung beider Gruppen eher gleichermaßen wenig Belastung darzustellen (Items 10 & 27). Auch scheinen beide Gruppen das erste Lebensjahr ihres Kindes ähnlich eher nicht als schwierig oder überfordernd zu empfinden (Item 11). Beide Gruppen empfanden das Ein- und Ausgliedern der Platte eher einfacher als erwartet (Item 19), wenn auch taiwanesische Eltern das Taping als signifikant geringfügig zeitaufwändiger empfanden, während deutsche Eltern dies eher verneinten (Item 18: TWN 3,29 \pm 0,13 vs. GER 2,68 \pm 0,21; Δ MW 0,62; $p = 0,02$). Innerhalb beider Gruppen empfanden die Eltern die NAM-Apparatur als den Schlaf ihres Kindes eher nicht störend, wenn auch deutsche Eltern ihre Kinder signifikant weniger beeinträchtigt sahen (Item 22: TWN 2,89 \pm 0,13 vs. GER 2,14 \pm 0,21; Δ MW 0,75; $p < 0,01$). Bezüglich auftretender Hautirritationen äußerten sich beide Gruppen gleichermaßen indifferent. Während wie o.g. deutsche Eltern signifikant seltener die Platte zum Füttern entfernen mussten (Item 25), ergab sich zwar keine statistische Signifikanz



bezüglich des Abwechselns beim Wiedereinsetzen der Platte, jedoch die Tendenz dazu, dass sich taiwanesischen Eltern eher abwechseln als deutsche.

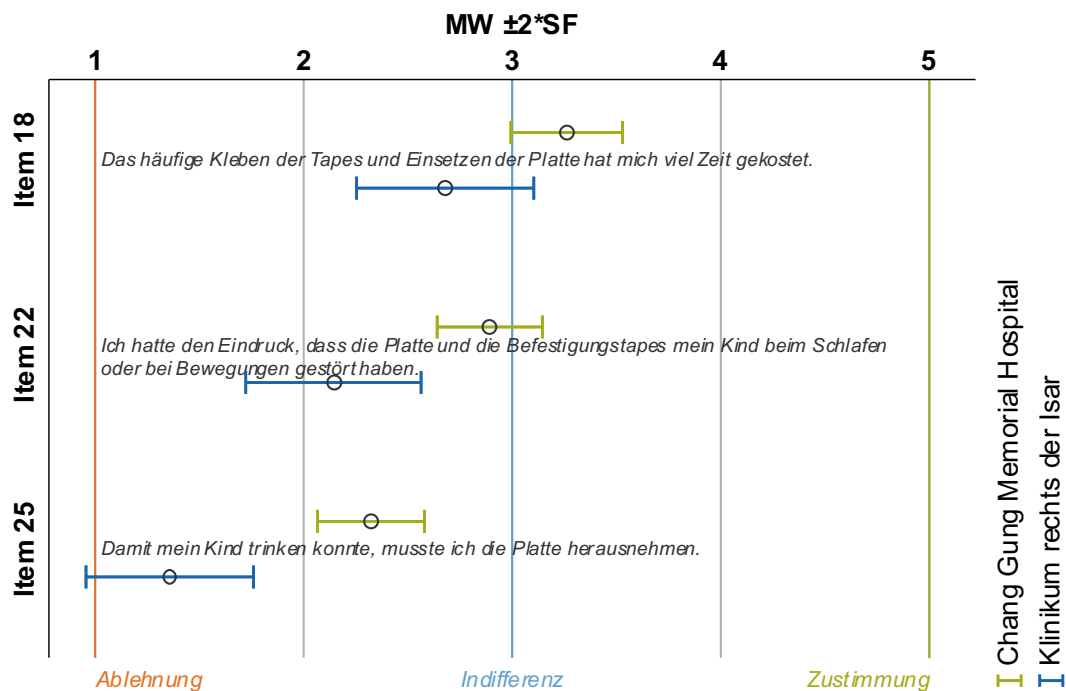


Abbildung 25. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich persönlicher Mühen im internationalen Vergleich.

Ängste & Sorgen (Items 1 - 4, 6, 17, 19). Mit Ausnahme der pränatal erhaltenen Informationen (Item 4) zeigten sich in pränatalen Angstäußerungen bezüglich der Zukunft ihres Kindes, Ernährung und auch Reaktionen Anderer in beiden Gruppen keine relevanten Unterschiede (Items 1 - 3). Beide Gruppen zeigten sich ähnlich indifferent und ohne signifikanten Unterschied bezüglich der Äußerung der postnatalen Gewöhnungsbedürftigkeit an das Aussehen ihres Kindes mit allenfalls gering stärkerer Tendenz bei taiwanesischen Eltern (Item 6). Bezogen auf die NAM-Therapie gab es weder signifikante Unterschiede bei in beiden Fällen eher indifferenten Äußerungen hinsichtlich Sorgen vor dem Einsetzen der Platte prätherapeutisch (Item 17), noch in der o.g. eher erleichternden Wahrnehmung derselben Tätigkeit nach Beginn der Therapie (Item 19).

Therapiezufriedenheit (Items 20, 21, 28 - 30; Abbildung 26). In beiden Gruppen äußerten sich die Eltern gleichermaßen positiv bezüglich der Wahrnehmung von guten Fortschritten in der Ausformung von Nase (Item 20) und Lippe (Item 21). Auch äußerten sich beide vergleichbar sehr überzeugt von der NAM-Therapie (Item 30: TWN 4,39 ± 0,08 vs. GER 4,64 ± 0,13; Δ MW 0,25; $p = 0,10$). In beiden Gruppen zeigten sich die Eltern sehr überzeugt, ihrem Kind mit der Therapie zu helfen, wenn auch die deutschen Eltern statistisch signifikant, in der



Bewertung aber ggf. zu vernachlässigend mehr Zustimmung äußerten als die taiwanesischen (Item 29: TWN 4,43 \pm 0,08 vs. GER 4,82 \pm 0,07; Δ MW 0,39; $p < 0,01$). Trotz auch hier sehr guter Zustimmung fand sich der deutlichste Unterschied in der von deutschen Eltern als deutlich besser empfundenen Betreuung während der Therapie (Item 28: TWN 3,78 \pm 0,78 vs. GER 4,89 \pm 0,06; Δ MW 1,11; $p < 0,01$).

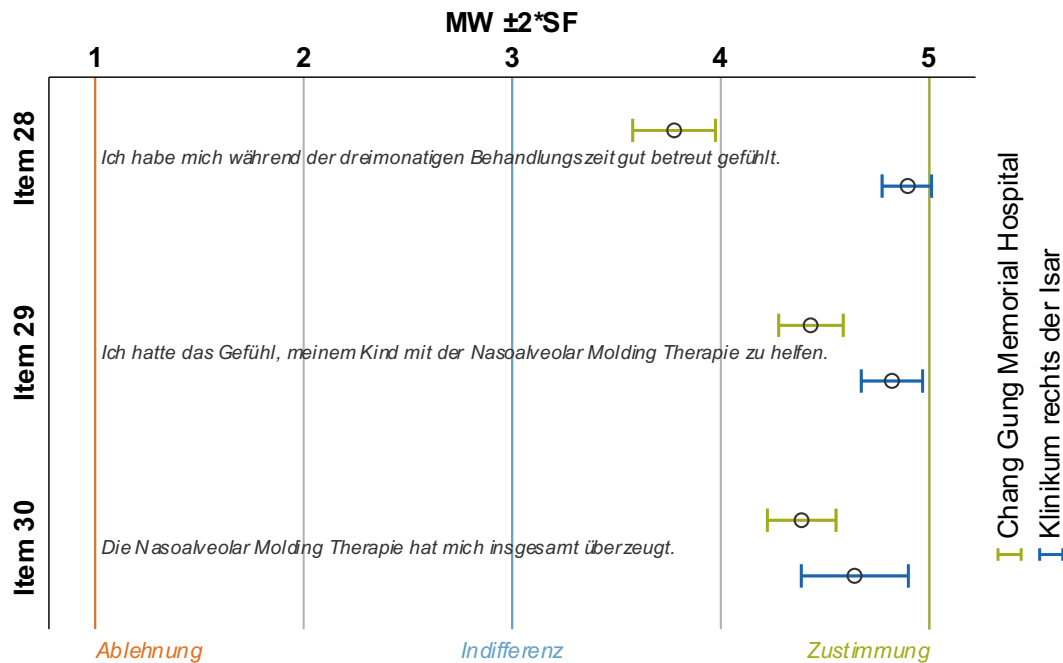


Abbildung 26. Therapiezufriedenheit im internationalen Vergleich.

4.2.4. Geschlechtsspezifische Unterschiede.

In der Analyse des Gesamtkollektivs (Tabelle 19) offenbart sich lediglich ein statistisch signifikanter, wenn auch zu vernachlässigender Unterschied in der Wahrnehmung von Müttern und Vätern bezüglich deren Angst vor Reaktionen Außenstehender derart, dass Mütter geringfügig ängstlicher zu sein scheinen als Väter (Item 3: Mütter 3,70 \pm 0,17 vs. Väter 3,15 \pm 0,19; Δ MW 0,55; $p = 0,04$). In der Subgruppenanalyse (Tabelle 20) der jeweiligen Behandlungszentren zeigt sich lediglich zwischen taiwanesischen Eltern ein unter Vätern statistisch signifikant, wenn auch nur geringfügig besseres Gefühl bezüglich des positiven Umgangs mit Reaktionen Außenstehender (Item 14 - Chang Gung Memorial Hospital: Mütter 3,59 \pm 0,15 vs. Väter 4,00 \pm 0,12; Δ MW 0,41; $p = 0,04$). Zusammenfassend scheinen die geschlechtsspezifischen Unterschiede zu vernachlässigen zu sein.



Item	Geschlecht	MW	Δ MW	SF	p
#1	Mütter	3,87		,157	
	Väter	3,64	,23	,173	,329
#2	Mütter	3,87		,148	
	Väter	3,74	,12	,141	,550
#3	Mütter	3,70		,172	
	Väter	3,15	,55	,192	,036
#4	Mütter	4,02		,135	
	Väter	3,98	,04	,178	,845
#5	Mütter	4,29		,092	
	Väter	4,16	,13	,119	,380
#6	Mütter	3,29		,191	
	Väter	3,60	-,31	,202	,266
#7	Mütter	1,98		,164	
	Väter	2,40	-,42	,197	,105
#8	Mütter	3,33		,164	
	Väter	3,47	-,14	,179	,566
#9	Mütter	2,85		,175	
	Väter	2,91	-,07	,177	,793
#10	Mütter	2,81		,150	
	Väter	2,85	-,04	,172	,862
#11	Mütter	2,74		,157	
	Väter	2,66	,08	,156	,731
#12	Mütter	4,08		,129	
	Väter	4,00	,08	,133	,684
#13	Mütter	3,30		,154	
	Väter	3,15	,15	,155	,487
#14	Mütter	3,87		,135	
	Väter	4,11	-,24	,109	,170
#15	Mütter	3,98		,168	
	Väter	3,89	,09	,168	,710
#17	Mütter	3,27		,171	
	Väter	3,31	-,04	,174	,881
#18	Mütter	3,10		,162	
	Väter	3,13	-,04	,161	,878
#19	Mütter	3,49		,152	
	Väter	3,53	-,04	,148	,840
#20	Mütter	4,06		,136	
	Väter	3,96	,10	,145	,609
#21	Mütter	4,10		,138	
	Väter	4,20	-,10	,117	,574
#22	Mütter	2,69		,160	
	Väter	2,64	,06	,163	,802
#23	Mütter	3,20		,154	
	Väter	3,07	,14	,170	,556
#24	Mütter	3,53		,180	
	Väter	3,55	-,01	,179	,954
#25	Mütter	1,94		,155	
	Väter	2,14	-,20	,177	,404
#26	Mütter	3,02		,205	
	Väter	3,27	-,25	,196	,379
#27	Mütter	2,74		,166	
	Väter	2,82	-,08	,183	,740
#28	Mütter	4,20		,116	
	Väter	4,00	,20	,135	,272
#29	Mütter	4,54		,091	
	Väter	4,56	-,02	,081	,900
#30	Mütter	4,44		,108	
	Väter	4,49	-,05	,088	,729

Tabelle 19. Geschlechtsspezifische Unterschiede des internationalen Gesamtkollektivs. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Likert*⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).



Item	Geschlecht	Chang Gung Memorial Hospital				Klinikum rechts der Isar			
		MW	Δ MW	SF	p	MW	Δ MW	SF	p
#1	Mütter	3,76		,183		4,13		,307	
	Väter	3,53	,23	,204	,396	3,92	,21	,329	,644
#2	Mütter	3,89		,159		3,80		,341	
	Väter	3,74	,16	,160	,483	3,77	,03	,303	,947
#3	Mütter	3,55		,206		4,07		,300	
	Väter	3,09	,46	,208	,118	3,31	,76	,444	,171
#4	Mütter	4,30		,094		3,17		,386	
	Väter	4,25	,05	,135	,774	3,18	-,01	,519	,982
#5	Mütter	4,16		,106		4,60		,163	
	Väter	4,06	,10	,148	,587	4,38	,22	,180	,384
#6	Mütter	3,54		,204		2,67		,398	
	Väter	3,66	-,12	,218	,699	3,46	-,79	,462	,204
#7	Mütter	2,38		,195		1,00		,000	
	Väter	2,84	-,47	,201	,103	1,31	-,31	,308	,337
#8	Mütter	3,11		,159		3,87		,389	
	Väter	3,25	-,14	,206	,587	4,00	-,13	,320	,797
#9	Mütter	3,13		,182		2,13		,363	
	Väter	3,21	-,07	,188	,777	2,15	-,02	,337	,968
#10	Mütter	2,84		,191		2,73		,228	
	Väter	2,94	-,10	,202	,723	2,62	,11	,331	,772
#11	Mütter	2,79		,185		2,60		,306	
	Väter	2,76	,02	,169	,922	2,38	,22	,350	,647
#12	Mütter	4,03		,116		4,20		,355	
	Väter	4,00	,03	,127	,879	4,00	,20	,358	,696
#13	Mütter	3,53		,145		2,73		,371	
	Väter	3,47	,06	,148	,789	2,31	,42	,308	,394
#14	Mütter	3,59		,147		4,53		,215	
	Väter	4,00	-,41	,115	,037	4,38	,15	,241	,649
#15	Mütter	4,19		,139		3,38		,488	
	Väter	4,24	-,05	,131	,782	3,00	,38	,408	,551
#17	Mütter	3,56		,162		2,60		,388	
	Väter	3,31	,24	,171	,305	3,31	-,71	,444	,241
#18	Mütter	3,22		,187		2,80		,312	
	Väter	3,38	-,15	,178	,559	2,54	,26	,291	,549
#19	Mütter	3,42		,161		3,67		,347	
	Väter	3,41	,01	,161	,964	3,85	-,18	,317	,709
#20	Mütter	4,00		,134		4,20		,341	
	Väter	3,91	,09	,158	,652	4,08	,12	,329	,799
#21	Mütter	4,14		,141		4,00		,338	
	Väter	4,25	-,11	,110	,531	4,08	-,08	,309	,870
#22	Mütter	2,85		,180		2,33		,319	
	Väter	2,94	-,08	,179	,747	1,92	,41	,265	,340
#23	Mütter	3,15		,180		3,33		,303	
	Väter	3,03	,11	,182	,656	3,15	,18	,390	,720
#24	Mütter	3,50		,175		3,60		,445	
	Väter	3,52	-,02	,166	,947	3,62	-,02	,474	,981
#25	Mütter	2,15		,164		1,47		,322	
	Väter	2,52	-,37	,196	,154	1,23	,24	,231	,567
#26	Mütter	3,12		,214		2,80		,470	
	Väter	3,45	-,33	,185	,246	2,85	-,05	,492	,947
#27	Mütter	2,69		,168		2,87		,401	
	Väter	2,88	-,19	,178	,442	2,69	,18	,472	,781
#28	Mütter	3,86		,127		5,00		,000	
	Väter	3,69	,17	,152	,384	4,77	,23	,122	,082
#29	Mütter	4,43		,118		4,80		,107	
	Väter	4,44	-,01	,100	,955	4,85	-,05	,104	,761
#30	Mütter	4,34		,129		4,67		,187	
	Väter	4,44	-,09	,100	,569	4,62	,05	,180	,846

Tabelle 20. Geschlechtsspezifische Unterschiede der jeweiligen internationalen Subgruppen. Farbliche Hervorhebung bei $p \leq 0,05$; davon orange bei gemäß *Likert*⁸⁴ erheblicher Mittelwertdifferenz (Δ MW ≥ 1), bzw. grün bei zu vernachlässigender Mittelwertdifferenz (Δ MW < 1).



4.2.5. Zusammenfassung der Ergebnisse dieser internationalen Vergleichsstudie

Zum einfacheren Verständnis sollen auch die wichtigsten Ergebnisse dieser internationalen Studie zusammengefasst werden:

Kollektiv. Trotz rund fünf-fach größerem taiwanesischem Patientenkollektiv verblieb bei nahezu doppelter Rücklaufquote aus Deutschland schließlich ein nur noch 2,5-fach größeres taiwanesisches Elternkollektiv. Alle sonstigen Daten stellten sich vergleichbar dar.

Reliabilität. Die Reliabilität des Fragebogens kann insgesamt als gut bis sehr gut bewertet werden.

Pränatale Informationen (Items 4 & 15). Taiwanische Eltern scheinen sich pränatal insgesamt relevant besser informiert und unterstützt zu fühlen.

Ernährung (Items 2, 5, 7 - 9, 24, 25). Im Gegensatz zur pränatalen Information scheint die Kindesernährung unter der Therapie deutschen Eltern insgesamt leichter zu fallen. Deutsche Eltern erfahren jedoch mehr Probleme beim Stillen, während sie anders als taiwanische Eltern wenig Probleme bei der Flaschenernährung empfinden.

Soziales Umfeld (Items 3, 12 - 15). Trotz allgemein guter Unterstützung durch ihr Umfeld, sehen sich taiwanische Eltern häufiger von Außenstehenden konfrontiert, wobei deutschen Eltern der Umgang hiermit deutlich besser zu gelingen scheint. Vom Austausch mit anderen Betroffenen profitieren allerdings taiwanische Eltern stärker.

Mühen & Probleme (Items 10, 11, 18, 19, 22, 23, 25 - 27). Die hohe Behandlungsfrequenz unter NAM-Therapie wird gleichermaßen als wenig belastend empfunden. Taiwanische Eltern empfanden das Lippentaping als geringfügig aufwändiger, während dieses wie auch das Plattenhandling als insgesamt einfacher als erwartet betrachtet wurden. Eltern beider Nationen nahmen die Apparatur für ihr Kind als wenig störend wahr, wenn auch deutsche diese als noch geringer einstufen.

Ängste & Sorgen (Items 1 - 4, 6, 17, 19). Mit Ausnahme der differierenden deutschseitig auf mangelnden pränatalen Informationen begründeten Sorgen konnten auf diesem Themengebiet keine relevanten internationalen Unterschiede identifiziert werden. Insgesamt werden nur geringe Ängste im Rahmen der Therapie geäußert.

Therapiezufriedenheit (Items 20, 21, 28 - 30). Eltern beider Nationen konnten die Therapiefortschritte selbst erkennen und zeigten sich insgesamt mit nur geringen, wenn auch statistisch signifikanten Unterschieden äußerst zufrieden mit der NAM-Behandlung.

Geschlecht. Geschlechtsspezifische Unterschiede scheinen zusammenfassend zu vernachlässigen zu sein.

Fazit. Auch im internationalen Vergleich scheint die Therapie des Nasoalveolar Moldings die Eltern zusammenfassend subjektiv nur wenig zu belasten und Eltern beider Nationalitäten zeigten sich übereinstimmend sehr überzeugt von dieser Therapieform.



5. Diskussion

5.1. Überblick

Wie in den bisherigen Abschnitten ausführlich dargestellt wurde, stellt die operative Rekonstruktion von Lippen-Kiefer-Gaumenspaltd deformitäten bei Neugeborenen die Behandler trotz aller chirurgischen Finesse auch weiterhin vor große Herausforderungen. Neben dem offensichtlichen Anspruch an ein ästhetisch und funktionell hochwertiges postoperatives Ergebnis wiegt insbesondere der Anspruch an minimale Komplikationsraten und kleinstmögliche negative Wachstumsbeeinflussungen schwer.

Historisch wurden bereits diverse Techniken unterschiedlicher Invasivität zur präoperativen Verschmälerung und Ausformung der Weichgewebe, vor allem aber des Alveolarbogens entwickelt^{44,46,47} mit teils umstrittenen Resultaten^{7,48}, wobei die Nasendeformität allenfalls indirekt adressiert wurde (siehe 1.10). Eben diese stellt jedoch ästhetisch, funktionell und operativ ein relevantes Problem dar, da frühe chirurgische Interventionen durch unvermeidliche Vernarbungen negative Auswirkungen auf das Wachstum bedingen⁴⁹ und damit das langfristige Rekonstruktionsergebnis gefährden. In der Folge wird Betroffenen erst nach Abschluss des Gesichtswachstums im jungen Erwachsenenalter zur sekundären Septorhinoplastik geraten⁵⁰. Offensichtlich trägt eine präoperative Spaltverkleinerung zur Minderung der Komplexität des primären rekonstruktiven Eingriffs und damit zu dessen Vereinfachung bei. Selbstverständlich sollte die Invasivität dieser prärekonstruktiven Supportivtherapie jedoch minimal gehalten werden. Nasoalveoläres Molding bietet hierfür eine non-invasive, semi-aktive, sehr sichere und effektive Methode^{53,54,87}, um sowohl präoperativ die o.g. Ziele zu erreichen als auch die Langzeitstabilität zu verbessern^{55,88-92}.

Neben diesen in erster Linie operativen und physischen Problemen leiden die jungen Patienten und deren Eltern bereits innerhalb des ersten Lebensjahres unter erheblichen psychischen Problemen⁹³. Nach initialen Reaktionen wie Schock, Unglauben und Schuld herrschen vor allem Zukunftsängste hinsichtlich der Ernährung des Kindes, der Hör- und Sprachentwicklung sowie Ängste vor den Reaktionen Außenstehender oder mangelnder Unterstützung durch soziale Netzwerke vor⁹³⁻⁹⁶. Interkulturelle Reaktionen unterscheiden sich darüber hinaus deutlich: So äußern etwa ein Drittel der betroffenen Mütter in Japan gar Suizidgedanken⁹⁷. Eltern aus Nigeria und Simbabwe glauben häufig böse Geister oder Hexerei seien Ursache der Erkrankung mit entsprechenden vorverurteilenden Folgen für Kinder, Familien und insbesondere Mütter^{98,99}. Chinesische Mütter reagieren womöglich aufgrund der lange bestehenden Ein-Kind-Politik besonders negativ auf ein betroffenes Kind, während Mütter aus Thailand besonders positiv auf ihr Kind reagieren¹⁰⁰. Außerhalb der



eigenen Familie scheinen betroffene Kinder im Laufe ihres Lebens bzw. im Besonderen während der Schulzeit als Jugendliche mehr Ausgrenzung, Mobbing, Angst und depressives Verhalten zu erleben als nicht-betroffene^{93,101-103}, wobei auffälligere Spaltdeformitäten und schlechtere OP-Ergebnisse bei Jugendlichen und vor allem unter Jungen zu mehr Mobbing führen^{93,104}, obschon oder gerade weshalb die emotionale Resilienz bei Jugendlichen mit auffälligeren Deformitäten größer zu sein scheint^{93,105}. Im Rahmen der Selbst- und Fremdwahrnehmung im jugendlichen und jungen Erwachsenenalter scheint die Nase den Hauptfokus vor Mund und Lippen zu bilden^{93,106}.

Auch im Rahmen der übergeordneten kognitiven Entwicklung, die wesentlich durch physische und psychische Faktoren beeinflusst wird, zeigen nicht-syndromale Kinder mit Lippen-Kiefer-Gaumenspaltdeformitäten einen, wenn auch in nur geringem Maße niedrigeren Intelligenzquotienten, eine geringere Sprachkapazität, Lernschwierigkeiten sowie 6- bis 10-mal häufiger Leseschwächen als nicht betroffene Gleichaltrige¹⁰⁷⁻¹¹¹. Obwohl sie initiale Defizite beim symbolischen Spielen bereits vor Vollendung des dritten Lebensjahres wieder aufholen, bleiben sie in der Sprachentwicklung zurück^{93,111}. Allgemeine und non-verbale Intelligenz bleiben jedoch unbeeinträchtigt¹¹². Frühe operative Rekonstruktionen scheinen zwar im Rahmen der kognitiven Entwicklung nicht die allgemeine Intelligenz zu verbessern, wohl aber die psychosoziale Entwicklung¹¹³.

All dies verdeutlicht die dringende Therapienotwendigkeit und insbesondere die Notwendigkeit des bestmöglichen Therapieergebnisses bereits früh postnatal zur Milderung der weiteren teils lebenslangen Auswirkungen, sodass jedes verfügbare Mittel genutzt werden sollte. Die offensichtlich notwendige operative Therapie zur Überwindung der physischen und hierdurch resultierenden psychischen Konsequenzen der Spaltdeformitäten bietet ein vordergründig zunächst befriedigendes Konzept für den Operateur und zum Teil sicherlich auch für die betroffenen Kinder. Deren Eltern jedoch werden sowohl durch die Deformität als auch durch die Therapie selbst ebenso belastet.

Dabei wünschen sich viele Eltern eine stärkere Involvierung in die Therapie ihrer Kinder^{114,115}. Obwohl die elterliche Belastung durch die Spaltdeformität selbst gut untersucht worden ist,^{93,116-118} trifft dies auf die unterschiedlichen Effekte präoperativer Behandlungsmethoden auf diese und deren mögliche Funktion als Bewältigungsstrategie (*engl. coping*) kaum zu¹¹⁸⁻¹²⁰. Im Allgemeinen gelten lösungsorientierte Bewältigungsstrategien als nützlicher und effektiver, wenn auch weniger vorhersagbar hinsichtlich des genauen Effektausmaßes, was insbesondere auf die Beeinflussbarkeit des zu bewältigenden Problems zurückgeführt wird¹²¹. Neben des Copings intraindividuelle Probleme trifft dies im Speziellen auch auf elterliches Coping bzgl. Problemen oder Erkrankungen ihrer Kinder zu¹²² und im Besonderen bei Eltern von LKGS betroffener Kinder^{116,118}. Im Rahmen des interdisziplinären ganzheitlichen Therapiekonzeptes spielen lösungsorientierte, die Eltern involvierende Coping-Strategien also



eine relevante, von operativ tätigen Ärzten aber sicher häufig unterschätzte Rolle. Diese Rolle wird unter anderem durch die *American Cleft Palate Craniofacial Association (ACPA)* explizit unterstützt in Form der Anforderung der aktiven Partizipation der Eltern in Entscheidungsfindung und Therapie¹²³.

Nasoalveoläres Molding kann in diesem Rahmen als eine solche lösungsorientierte, die Eltern involvierende und damit proaktive Coping-Strategie dienen, sodass es womöglich mehr vermag als nur der Behandlung der Kinder zu dienen. Dennoch argumentieren Kritiker häufig, NAM sei eine sehr belastende Behandlungsmethode insb. durch hohe Arbeitsbelastung und das Übertragen therapeutischer Verantwortung auf die Eltern^{119,124}, was wiederum zu mangelnder Compliance führen könne¹²⁵.

Vor diesem Hintergrund sollen im Folgenden die einzelnen Aspekte dieser Arbeit diskutiert werden.

5.2. Material und Methodik

Studiendesign. Selbstverständlich haben die präsentierten Studien insbesondere aufgrund ihres Studiendesigns Limitationen. Es handelt sich um retrospektive Studien, welche zwangsläufig Confoundern unterworfen sind, zu denen beispielsweise verlassende oder verfälschte Erinnerungen aufgrund unterschiedlicher Nachbeobachtungszeiträume gehören. Dieser sog. Recall-Bias tendiert insbesondere bei besonders detaillierten Abfragen und mit steigendem zeitlichen Abstand zum abgefragten Ereignis stärker auszufallen, d.h. je detaillierter die Abfrage und je größer der zeitliche Abstand, desto ungenauer die Erinnerung¹²⁶. Dennoch zeigt sich anhand der o.g. überwiegend sehr kleinen Standardfehler eine hohe Präzision trotz relativ großer Varianz hinsichtlich der Nachbeobachtungszeiträume, sodass von mindestens befriedigender Qualität der gewonnenen Daten auszugehen ist.

Natürlich wäre ein prospektives Studiendesign wünschenswert gewesen. Wegen guter klinischer Ergebnisse und hoher elterlicher Zustimmung sowie Leistungsbereitschaft an beiden Studienzentren zeigte sich im zeitlichen Verlauf aus ethischen Aspekten und auf Verlangen der Eltern eine deutliche Bevorzugung des Nasoalveolar Moldings. Unter diesem Gesichtspunkt wäre in Kombination mit insgesamt beschränkten Fallzahlen eine prospektive Durchführung mit adäquatem Aufwand kaum realisierbar gewesen.

Selektionsbias. Einerseits führten der dargestellte Therapieaufwand des Nasoalveolar Moldings und die hierbei nötige Mithilfe der Eltern zwangsläufig zu einer unerwünschten Selektion der auf diese Weise zu behandelnden Patientenfälle: Eltern mit erwartungsgemäß geringer Compliance beispielsweise aufgrund sprachlicher Verständnisschwierigkeiten oder geringen sozioökonomischen Status konnten kaum in die Therapie eingebunden werden, was trotz großer Anstrengungen in einigen Fällen zum Modalitätswechsel und im Umkehrschluss



in anderen Fällen bereits vorab zum Ausschluss des Nasoalveolären Moldings führte. Andererseits bedingte eine Nutzen-Aufwandsabwägung insbesondere bei milden Spaltformen häufig die Bevorzugung der weniger aufwendigen konventionellen Therapieform und umgekehrt. Folglich liegt allen gewonnenen Daten immer ein Selektionsbias zugrunde, dessen Effekt durch Subgruppenanalyse reduziert aber keineswegs ausgeschlossen werden konnte.

Gruppeneinteilung. Sowohl historisch als auch international besteht Inkonsistenz bezüglich der Terminologie der Spaltform und -ausprägung¹³, sodass trotz Empfehlung zur erweiterten LAHSHAL-Klassifikation (siehe 1.2) auch die Dokumentation der in diese retrospektiven Studien involvierten Patienten sich hinsichtlich der exakten Spaltausprägung teils inkonsistent darstellte. Sowohl dieser Umstand als auch die insgesamt kleinen Fallzahlen bedingten die abweichende Einteilung in komplette Lippen-Kiefer-Gaumenspalten und inkomplette Lippen±Kiefer±Gaumenspalten. Diese Einteilung erscheint, wenn auch sehr stark vereinfacht, aus pathophysiologischen Gründen für wesentliche Unterscheidungen bezüglich grobem Spaltausmaß, äußerer Erscheinung und Ernährungsproblematik als ausreichend zielführend für eine insbesondere auf die präoperative Ausformung der Nase abzielende Therapieform. Einteilungen nach erweiterter LAHSHAL-Klassifikation hätten die Komplexität der Studien zu stark gesteigert oder deren Umfang über einen angemessenen Aufwand erhöht.

Fragebogen. Über das Konzept von Fragebögen zur Selbstbeurteilung nach Likert wurden in der Vergangenheit nahezu endlose Diskussionen geführt, sie haben sich schließlich jedoch innerhalb der vergangenen Jahrzehnte auf dem Feld der Psychologie als ein sehr nützliches und probates Instrument der psychologischen Datenerhebung etabliert und sind allgemein akzeptiert als zuverlässiges Tool einer probanden-basierten Selbsteinschätzung¹²⁷⁻¹²⁹. Da die Wahrnehmung der elterlichen Belastung einer Therapie selbst unter der theoretischen Prämisse objektiv identischer Belastungsfaktoren zwangsläufig subjektiv bleibt und durch vielfaltsbedingt kaum messbare multifaktorielle Umstände geprägt wird, ist zu ihrer Messung eine objektive Bewertung primär kaum nötig. Folglich sind objektive Messgüteansprüche nur eingeschränkt anwendbar, sodass eine Likert-Skalen-basierte Abfrage dieses Ziel in adäquater Weise erfüllt. Um dennoch eine praktikable Validierung zu gewährleisten, wäre die Auswertung der Intrarater-Reliabilität ideal, was bedeutet, dass jeder Rater (in diesem Fall also Proband) zu mehreren Zeitpunkten dieselben Items wiederholt hätte beantworten müssen. Aus ethischen Gründen im Sinne einer möglichen übermäßigen Belästigung der Eltern wie auch zu erwartender geringerer Studienteilnahme wurde auf diese Form der Validierung verzichtet und es wurden stattdessen sich stark ähnelnde intrafamiliäre Wahrnehmungen (d.h. zwischen beiden Elternteilen) angenommen, sodass eine Analyse der Intraklassen-Korrelation (ICC) durchgeführt werden konnte mit allgemein guter Übereinstimmung und damit anzunehmender hoher Validität⁸⁵. Die in einzelnen Punkten beschriebenen abweichenden ICC bedingen dabei nicht zwingend eine geringe Validität,



sondern könnten auf reell wahrgenommene intrafamiliäre interindividuelle Unterschiede hinweisen.

„**Fishing for significance**“. Aufgrund der Anzahl der analysierten Items liegt das Problem des multiplen Testens auf der Hand: Im Rahmen der 29 analysierten Likert-bewerteten Items bei $\alpha = 0,05$ muss stark vereinfacht von einer statistisch zufälligen Anzahl signifikanter Ergebnisse von $29 * 0,05 = 1,45$ ausgegangen werden, sodass einzelne signifikante Unterschiede innerhalb der Analyse im Kontext auf Plausibilität hinterfragt werden müssen und eine klare Studienlimitation jeder Studie darstellen¹³⁰.

5.3. Ergebnisse

5.3.1. Datenbanken

Wie bereits unter 4.1.1 dargestellt, entspricht die Studienpopulation dem demografischen Mittel. Obschon das elterliche Durchschnittsalter rund ein Jahr über dem bundesdeutschen Durchschnitt bezogen auf das elterliche Alter bei Geburt des ersten Kindes liegt⁸⁶, wurde im Rahmen dieser Studie die Zahl der Kinder oder Geburtenreihenfolge nicht erfragt, sodass diese Abweichung auf Einschluss von Zweit- oder später geborenen Kindern zurückgeführt werden könnte. Es zeigen sich jedoch deutlich variierende Rückläuferquoten innerhalb der verschiedenen Behandlungsgruppen, wobei die der NAM-Gruppe 1,6-fach höher lag als die der konventionellen Behandlungsgruppe. Aufgrund des sich innerhalb des Behandlungszentrums allmählich geänderten Behandlungsprofils unter häufigerer Anwendung von NAM in der jüngeren Vergangenheit resultiert ein durchschnittlich nahezu doppelt so langer Nachbeobachtungszeitraum für die konventionelle Therapiegruppe im Vergleich zur NAM-Gruppe (ca. 4 vs. 2 1/3 Jahre). Wir vermuten hierin einen Grund der variierenden Rücklaufquoten, welche – obschon sie in der konventionellen Behandlungsgruppe mit annähernd 40% als gut und damit repräsentativ bewertet werden kann – in der NAM-Gruppe etwa 1,5fach höher bei >60% lag. Über mögliche Gründe wie Umzüge und damit mangelnde postalische Erreichbarkeit, besondere Therapie-Zufrieden- oder -Unzufriedenheit, verblassende oder verfälschte Erinnerungen kann nur gemutmaßt werden. Selbstverständlich handelt es sich hierbei um eine klare Studienlimitation, die jedoch aufgrund der allgemein konsistenten Antworten abgeschwächt wird.

Auf internationaler Ebene zeigen sich im demografischen Vergleich zwischen Taiwan und Deutschland vergleichbare Ausgangslagen^{86,131,132}, welche sich gleichartig in den beiden Studienpopulationen abbilden. Deutlich interessanter sind jedoch die stark unterschiedlichen Rücklaufquoten, die trotz vergleichbarer Nachbeobachtungszeiträume innerhalb beider Populationen in Taiwan lediglich halb so hoch ausfallen. Eindeutige Ursachen lassen sich nicht



sicher identifizieren und bleiben somit reine Spekulation. Auf Basis der geringfügig schlechter wahrgenommenen Betreuung kann allenfalls gemutmaßt werden, dass innerhalb des deutlich voluminöseren taiwanesischen Zentrums persönliche Betreuung, Zufriedenheit und folglich Rücklaufquoten leiden könnten. Für relevante variierende Follow-Up Daten konnten keine ausreichenden Daten gefunden werden.

5.3.2. Pränatale Informationen

Die signifikant bessere Wahrnehmung hinsichtlich pränataler Information und Unterstützung taiwanesischer Eltern im Vergleich zu deutschen kann möglicherweise auf infrastrukturelle Versorgungsunterschiede innerhalb beider Länder zurückgeführt werden: Während solch spezialisierte Diagnostik und Versorgung in Taiwan landesweit an einzelnen sehr großen Behandlungszentren zentralisiert und damit konzentriert wird, herrschen in Deutschland multiple dezentrale Versorgungsteams vor, wodurch auch ergänzende Versorgungsstrukturen und Expertise lockerer gestreut werden^{133,134}. In der Folge scheinen unter anderem inkonsistentere Diagnoseraten im Rahmen der pränatalen Ultraschalldiagnostik sowie eine komplexere Vernetzung von Selbsthilfegruppen als sehr wahrscheinlich, wodurch die subjektiv schlechtere Wahrnehmung deutscher Eltern objektivierbar wäre. In der Literatur sehr variant berichtete Diagnoseraten von Lippen±Kiefer±Gaumenspalten im Rahmen der pränatalen sonographischen Früherkennung (bestenfalls 9-100% bezogen auf Lippen±Gaumenspalten, siehe auch 1.7.1) lassen auf die hohe Komplexität und Untersucherabhängigkeit schließen⁴⁰. 3D-Sonographie hat hierbei das Potential die Diagnosewahrscheinlichkeit aller Spaltformen erheblich und verlässlich zu steigern (z.B. Erkennung von 86-100% aller Lippenspalten)⁴⁰. Leider gehört diese Form der Ultraschalldiagnostik in Deutschland nicht zu den durch die gesetzlichen Krankenversicherungen übernommenen Regelleistungen, sondern muss von Eltern als *Individuelle Gesundheitsleistung (IGeL)* privat übernommen und kann nur von spezialisierten Gynäkologen durchgeführt werden¹³⁵.

5.3.3. Ernährung

Unabhängig von der präoperativen supportiven Therapieform bleibt die Ernährung eines Kindes mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalte eine Herausforderung, für die diverse Ernährungsansätze von regulärem Stillen oder Flaschenernährung mit unterschiedlichen technischen Instrumenten über Nahrungseingabe mittels Spritze gar bis hin zu nasogastraler Sondenernährung regelhaft angewendet werden. Weitestgehend verbreitet sind jedoch Stillen und Flaschenernährung.¹³⁶

Im Vergleich zwischen konventioneller Therapieform und Nasoalveolärem Molding würde zunächst nicht überraschen, dass es den Eltern mit Kindern unter NAM subjektiv schwerer fiel,



ihr Kind zu stillen, da die extraoralen Plattenanbauten ein offensichtliches Hindernis beim Melken der Brust darstellen. Klassisches Saugen ist wie unter 1.6 beschrieben jedoch in beiden Fällen aufgrund der Kommunikation von Nasenhaupt- und Mundhöhle nicht suffizient möglich, die Gaumenplatten dichten den Nasenrachenraum nicht vollständig ab. Es konnte jedoch dargestellt werden, dass die Spaltausprägung, auf deren Basis eine relevante Therapieselektion erfolgte, einen wesentlichen Confounding-Faktor darstellen könnte, nach dessen Elimination durch Subgruppenanalyse keine statistisch signifikanten Unterschiede bzgl. des Stillvermögens mehr feststellbar waren. Dies impliziert allerdings nicht, dass solche Unterschiede nicht existieren, sondern zeigt nur, dass entweder das Studiendesign mit den entsprechenden Gruppengrößen hierfür nicht ausreichend waren oder der vermutete Unterschied in der Wahrnehmung der Eltern kleiner ist als initial vermutet. Die Fokussierung auf die Therapiemodalität als möglicher Faktor eines subjektiv erschwerten Stillvermögens kann auf Grundlage der präsentierten Daten nicht bestätigt werden. Auch ansonsten zeigten sich keine signifikanten Unterschiede in der Wahrnehmung hinsichtlich der Kindesernährung, sodass das Nasoalveoläre Molding in diesem Bereich für die Eltern keinen wesentlichen Belastungsfaktor darzustellen scheint.

Insgesamt zeigte sich im Vergleich zu taiwanesischen eine von deutschen Eltern als allgemein einfacher wahrgenommene Ernährung ihres Kindes. Diverse nationale und internationale Studien stellen Stillen unter deutschen Eltern als deutlich beliebter dar^{87,137,138}, während unter taiwanesischen Eltern Flaschenernährung deutlich populärer zu sein scheint¹³⁹⁻¹⁴¹. Wenngleich deutschen Eltern die Ernährung allgemein leichter zu fallen scheint, so erscheint es im Rahmen der üblichen Bevorzugung des Stillens dennoch nachvollziehbar, dass deutsche Eltern eine Unfähigkeit zur Durchführung dieser Ernährungsweise subjektiv häufiger oder eher wahrnehmen als taiwanesische Eltern dies tun, wobei Flaschenernährung in beiden Studienpopulationen als generell unproblematischer wahrgenommen wurde. Stillen hingegen scheint für Eltern im Allgemeinen problematischer zu sein, was auf die Unfähigkeit regulärer Saug- und Schluckfunktionen zurückgeführt wird, die durch spezielle Sauger (z.B. *Haberman-Feeder*) im Rahmen der Flaschenernährung unkompliziert kompensiert werden kann^{136,142}. Zusammenfassend scheint NAM aber auch in diesem Zusammenhang keine übermäßige Belastung an die Eltern zu stellen.

5.3.4. Soziales Umfeld

Obschon es sich um subjektive Eindrücke handelt, die objektiv nur schwer messbar erscheinen, scheinen sich taiwanesische Eltern im Vergleich häufiger durch Außenstehende konfrontiert zu fühlen und hiermit subjektiv schlechter umgehen zu können als es deutschen Eltern vorkommt. Solche direkten Vergleiche dieser beiden Nationalitäten sind in der Literatur bis dahin nicht berichtet, dennoch scheinen ähnliche Berichte anderer kultureller Gruppen



vergleichbare interkulturelle Unterschiede hinsichtlich der generellen Einstellung gegenüber kongenitaler Fehlbildungen zu bestätigen⁹³. Im ethnischen Vergleich maternalen Reaktionen auf eigene Kinder mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten zeigten thailändische Mütter die positivsten Reaktionen vor kolumbianischen, amerikanischen und uigurischen Müttern. Chinesische Mütter zeigten mit Abstand die negativsten Reaktionen, was die Autoren insbesondere den vorherrschenden Glaubensrichtungen bzw. im Falle Chinas der ein-Kind-Politik zurechneten¹⁰⁰. Letztere ablehnende Haltung scheint in der Vergangenheit in China von Außenstehenden wie Lehrern und Arbeitgebern verstärkt zu werden und wurde mangelnder Aufklärung im Bereich des Gesundheitswesens in Bezug auf Menschen mit Behinderung im Allgemeinen zugeschrieben¹⁴³. Reaktionen nigerianischer Außenstehender ebenso wie direkter Familienangehöriger und Eltern wurden als in hohem Maße stigmatisierend, teils beschämend und in einem erheblichen Anteil gar ausstoßend beschrieben¹⁴⁴. In einem Vergleich ägyptischer und indischer Familien von Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten zeigen sich Eltern beider Nationen als sehr erwartungsvoll bzgl. der Therapie aufgrund von Reaktionen Dritter, jedoch scheinen indische Familien in erheblichem Umfang mit Ausgrenzung und sogar Ausschluss unbehandelter Kinder von Schulbildung zu kämpfen, sodass etwa 10% der Familien betroffene Kinder gar von der Außenwelt isolieren, während sich ägyptische Familien weniger um die Reaktionen anderer als vielmehr um die Herstellung physiologischer Funktionen zu sorgen scheinen¹⁴⁵. Innerhalb dieses stark variierenden Reaktionsspektrums fällt eine exakte Einordnung taiwanesischer und deutscher Attitüden anhand der präsentierten Arbeit zwar schwer, jedoch scheinen beide Nationen trotz milder, wenn auch statistisch signifikanter Unterschiede beide innerhalb eines gemäßigten akzeptierenden Rahmens zu liegen. Für ein genaues globales Verständnis wären einheitliche Befragungen innerhalb der verschiedenen Länder nötig, die aufgrund des Aufwandes und eingeschränkter globaler Vernetzung diverser internationaler Behandlerteams jedoch fehlen. Eine umfassende Einordnung diesbezüglich bleibt daher auch in Zukunft schwierig und mit Zweifeln behaftet.

Im Vergleich des Einflusses konventioneller bzw. NAM-Therapie auf die elterlichen Erfahrung mit ihrem sozialen Umfeld zeigten sich keine statistisch signifikanten Unterschiede, sodass sich hieraus kein Hinweis auf eine negative oder positive Beeinflussung der Außenwelt durch Nasoalveoläres Molding schließen lässt. Dieses scheint Außenstehende also einerseits nicht zu mehr Unterstützung zu animieren, aber insbesondere auch nicht zu mehr Ablehnung zu führen, sodass NAM hierbei keinen Nachteil darstellt.

5.3.5. Ängste und Sorgen, Mühen und Probleme

Die unter 5.3.4 bereits genannte Einschätzung einer gemäßigten, tendenziell eher positiven Einstellung der Eltern gegenüber der Deformität ihres Kindes wird auch durch die Ergebnisse



der Auswertung auf diesem Themenfeld bestätigt. Innerhalb beider Nationen wurden allgemein nur sehr geringe spalt- und therapieassoziierte Ängste und Sorgen geäußert ohne relevante internationale Unterschiede.

Interessant bleibt in diesem Rahmen insbesondere die Frage, ob NAM als lösungsorientierte Copingstrategie dienen kann, wie es auch von anderen Autoren vorgeschlagen wird¹¹⁹. Fehlende statistisch signifikante Unterschiede auf diesem Themengebiet im Vergleich zwischen konventioneller Therapie und NAM erlauben im Rahmen dieser Studie allerdings keine quantitative Bestätigung dieser Vermutung, dennoch bleibt auf Basis vieler individueller Berichte und konsistenter Logik die qualitative Vermutung bestehen, die es künftig weiter zu untersuchen gilt. Eine Ablehnung anhand des primär nicht auf diese Fragestellung ausgelegten Fragebogens wäre verfrüht, insbesondere aufgrund der u.g. einheitlich hohen elterlichen Therapiezufriedenheit als indirekter Indikator.

Wider Erwarten konnten zwischen konventioneller und NAM-Gruppe keinerlei statistisch signifikante Unterschiede bezüglich der Wahrnehmung von Mühen & Problemen festgestellt werden, auch wenn nahezu allen Eltern ein direkter Vergleich zwischen konventioneller und NAM-Therapie unmöglich blieb, da in den meisten Familien nur ein einzelnes Kind aufgrund einer Spaltdeformität behandelt werden musste. Dennoch zeigen nicht nur die fehlende statistische Signifikanz, sondern auch nahezu gleiche Mittelwerte in beiden Therapiegruppen selbst nach Subgruppenanalysen, dass insbesondere die frequenten Konsultationen unter NAM-Therapie eine untergeordnete über das Maß der konventionellen Therapie hinausgehende subjektive Belastung darstellen.

Im Rahmen der NAM-spezifischen Auswertung wird dieser qualitative Eindruck weiter quantitativ deskriptiv untermauert in einheitlich geringer Belastungswahrnehmung durch die NAM-Therapie im Allgemeinen wie auch in ihrer praktischen Durchführung im Speziellen. Relevante Wahrnehmungsunterschiede zwischen Eltern beider Nationen wurden nicht gefunden, die Therapie wurde einheitlich als einfacher als erwartet bewertet.

Im Gegensatz zu den in diesem Fall lediglich indirekten Hinweisen ist in der Literatur der direkte Nutzen der NAM-Therapie zur Reduktion depressiver Gefühle und Ängstlichkeit unter Eltern beschrieben¹⁴⁶⁻¹⁴⁸. Demgegenüber wird die physische Belastung der Eltern berichtet mit durchschnittlich 9 (4 – 15) Konsultationen während 92 (78 – 136) Tagen und einer mittleren Anfahrt von etwas mehr als 100km¹⁴⁶, wobei diese mittleren Anfahrtstrecken auf Basis der Darstellung unter 1.10.3 (Abbildung 10) dennoch eher weit anmuten, obschon die Zahl der Konsultationen in unseren Behandlungszentren geringfügig häufiger ausfällt (10 – 15). Die finanzielle Belastung der Eltern wird hingegen kontrovers diskutiert aufgrund der variierenden Kostenübernahme der Krankenversicherungen bei offensichtlichen, kurzfristigen pekuniären Mehraufwendung, aber langfristigen Einsparungen durch geringere Kosten für Folgebehandlungen inkl. Folgeoperationen¹⁴⁶.



5.3.6. Therapiezufriedenheit und Zusammenfassung

Sowohl in Taiwan als auch in Deutschland konnte eine sehr hohe Zufriedenheit und Identifikation mit der Therapie des Nasoalveolären Moldings gezeigt werden. Geringfügige, wenn auch signifikante Unterschiede mit minimalen Defiziten in Taiwan lassen allenfalls auf die weniger persönliche Betreuung innerhalb großer, zentralisierter Behandlungseinheiten schließen, wie bereits unter 5.3.2 ausgeführt^{133,134}.

Die subjektive elterliche Belastung durch NAM scheint zusammenfassend geringer als primär vermutet. Auch wenn die dargestellten Ergebnisse keine eindeutigen quantitativen Hinweise liefern für Nasoalveoläres Molding als überwältigende elterliche Coping-Strategie, so zeigen qualitative Berichte von Eltern, die Diskussion mit internationaler Literatur sowie die konsistente psychologische Argumentation zur elterlichen Einbindung unter Verwendung einer Lösungsorientierung deren Möglichkeiten als positive Bewältigungsstrategie. Das Fehlen signifikanter Unterschiede in der elterlichen Wahrnehmung der eigenen Belastungssituation zwischen NAM und konventioneller Therapie stützt diese Erkenntnis weiter.



6. Ausblick

Obgleich es sich beim *Nasoalveolären Molding* inzwischen um eine etablierte Therapieform handelt, die bisherigen Daten wider Erwarten deutlich weniger subjektive Belastungswahrnehmung der Eltern erahnen lassen und diese Form der präoperativen Supportivtherapie den Eltern die Möglichkeit einer lösungsorientierten Coping-Strategie bietet, so gibt es vielerlei Bestrebungen zur Vereinfachung sowie Automation der komplexen und aufwendigen Apparatur-Fertigung. Neben Ideen zum Einsatz superelastischer Materialien zur konstant niedrig dosierten Kraftapplikation auf die Nasenpelotte und damit Reduktion nötiger Behandlungssitzungen, empirisch basierter teilindividualisierter Größenskalierung von Apparaturen zur schnelleren Verfügbarkeit ähnlich der nächsten Schuhgröße beim Entwachsen, bis hin zu austauschbaren konfektionierten Nasenbügeln mit Arretierungsfunktion zum schnelleren Wechsel¹⁴⁹ stellen künftig sicherlich digitale Fertigungstechniken unter zunehmender Automation aufwendiger und behandlerabhängiger Planungs- und Fertigungsschritte das größte Einsparpotential dar. Einen vielversprechenden Ansatz bietet dabei RapidNAM, welches die automatische Überbrückung des Spaltbereiches mit einfacher additiver Fertigung und semiautomatischer Positionierung von Haltepins und Nasenpelotten verbindet und so bisherige stundenlange digitale Planungen auf wenige Minuten schrumpfen lassen kann¹⁵⁰⁻¹⁵³. In Verbindung mit zunehmender Verbreitung kleinerer, schnellerer und präziserer Intraoralscanner ergeben sich so künftig womöglich gar telemedizinische, dezentralisierte Planungen, die auch unerfahreneren Behandlern Zugang zu dieser an sich anspruchsvollen Therapieform ermöglichen, um unkomplizierter mehr Patienten bei weniger Belastung aller Beteiligten versorgen zu können.



7. Verzeichnisse

7.1. Literaturverzeichnis

- 1 Hagberg, C., Larson, O. & Milerad, J. Incidence of cleft lip and palate and risks of additional malformations. *Cleft Palate Craniofac. J.* 35, 40-45 (1998). doi:10.1597/1545-1569(1998)035<0040:loclap>2.3.Co;2
- 2 Doray, B., Badila-Timbolschi, D., Schaefer, E., Fattori, D., Monga, B., Dott, B., Favre, R., Kohler, M., Nisand, I., Viville, B. *et al.* [Epidemiology of orofacial clefts (1995-2006) in France (Congenital Malformations of Alsace Registry)]. *Arch. Pediatr.* 19, 1021-1029 (2012). doi:10.1016/j.arcped.2012.07.002
- 3 Pavri, S. & Forrest, C. R. Demographics of orofacial clefts in Canada from 2002 to 2008. *Cleft Palate Craniofac. J.* 50, 224-230 (2013). doi:10.1597/10-223
- 4 Panamonta, V., Pradubwong, S., Panamonta, M. & Chowchuen, B. Global Birth Prevalence of Orofacial Clefts: A Systematic Review. *J. Med. Assoc. Thai.* 98 Suppl 7, S11-21 (2015).
- 5 Hoffman, J. I. & Kaplan, S. The incidence of congenital heart disease. *J. Am. Coll. Cardiol.* 39, 1890-1900 (2002). doi:10.1016/s0735-1097(02)01886-7
- 6 Mossey, P. A. & Catilla, E. E. in *W. H. O. Registry Meeting on Craniofacial Anomalies* (World Health Organization, Geneva, 2003).
- 7 Berkowitz, S. *Cleft Lip and Palate. Diagnosis and Management.* 3 edn, (Springer-Verlag, 2013).
- 8 Mossey, P. A., Little, J., Munger, R. G., Dixon, M. J. & Shaw, W. C. Cleft lip and palate. *Lancet* 374, 1773-1785 (2009). doi:10.1016/s0140-6736(09)60695-4
- 9 Jahresbericht des Bundeslandes Sachsen-Anhalt zur Häufigkeit von congenitalen Fehlbildungen und Anomalien sowie genetisch bedingten Erkrankungen 2020. (Medizinische Fakultät der Otto-von-Guericke-Universität Magdeburg, Magdeburg, 2021).
- 10 Grill, F. D., Behr, A. V., Rau, A., Ritschl, L. M., Roth, M., Bauer, F. X., Wolff, K. D., Esser, T. & Loeffelbein, D. J. Prenatal intrauterine maxillary development - An evaluation with three-dimensional ultrasound. *J. Craniomaxillofac. Surg.* 47, 1077-1082 (2019). doi:10.1016/j.jcms.2019.01.029
- 11 Aumüller, G. in *Duale Reihe Anatomie* (ed Gerhard Aumüller) (Georg Thieme Verlag, 2010).
- 12 Schwenzer, N. & Ehrenfeld, M. *Mund-Kiefer-Gesichtschirurgie.* 4 edn, (Georg Thieme Verlag, 2011).
- 13 Koch, J., Koch, H., Grzonka, M. & Gundlach, K. K. [Facial clefts and their coding with LAHS nomenclature]. *Mund Kiefer Gesichtschir.* 7, 339-344 (2003). doi:10.1007/s10006-003-0502-z
- 14 Kernahan, D. A. & Stark, R. B. A new classification for cleft lip and cleft palate. *Plast. Reconstr. Surg. Transplant. Bull.* 22, 435-441 (1958). doi:10.1097/00006534-195811000-00001
- 15 Kriens, O. in *What is a cleft lip and palate? Proceedings of an Advanced Workshop, Bremen 1987* (ed Otto Kriens) (Georg Thieme Verlag, 1989).
- 16 *Lippen-, Kiefer- und Gaumenspalte (Q35-Q37), Kapitel XVII, Internationale statistische Klassifikation der Krankheiten und verwandter Gesundheitsprobleme, 10. Revision, German Modification (ICD-10-GM, Version 2022), <<https://www.dimdi.de/static/de/klassifikationen/icd/icd-10-gm/kode-suche/htmlgm2022/block-q35-q37.htm>>* (2022).
- 17 Radlanski, R. J. & Wesker, K. H. *Das Gesicht. Bildatlas klinische Anatomie.* 2 edn, (Quintessenz Verlags-GmbH, 2015).
- 18 Berkowitz, S. *Cleft Lip and Palate. Diagnosis and Management.* 2 edn, (Springer-Verlag Berlin Heidelberg, 2006).
- 19 Zilles, K. & Tillmann, B. N. *Anatomie.* (Springer Berlin, Heidelberg, 2010).
- 20 Little, J., Cardy, A. & Munger, R. G. Tobacco smoking and oral clefts: a meta-analysis. *Bull. World Health Organ.* 82, 213-218 (2004).
- 21 Honein, M. A., Rasmussen, S. A., Reefhuis, J., Romitti, P. A., Lammer, E. J., Sun, L. & Correa, A. Maternal smoking and environmental tobacco smoke exposure and the risk of orofacial clefts. *Epidemiology* 18, 226-233 (2007). doi:10.1097/01.ede.0000254430.61294.c0
- 22 Bille, C., Olsen, J., Vach, W., Knudsen, V. K., Olsen, S. F., Rasmussen, K., Murray, J. C., Andersen, A. M. & Christensen, K. Oral clefts and life style factors--a case-cohort study based



- on prospective Danish data. *Eur. J. Epidemiol.* 22, 173-181 (2007). doi:10.1007/s10654-006-9099-5
- 23 Romitti, P. A., Sun, L., Honein, M. A., Reefhuis, J., Correa, A. & Rasmussen, S. A. Maternal periconceptional alcohol consumption and risk of orofacial clefts. *Am. J. Epidemiol.* 166, 775-785 (2007). doi:10.1093/aje/kwm146
- 24 Johnson, C. Y. & Little, J. Folate intake, markers of folate status and oral clefts: is the evidence converging? *Int. J. Epidemiol.* 37, 1041-1058 (2008). doi:10.1093/ije/dyn098
- 25 Gordon, J. E. & Shy, C. M. Agricultural chemical use and congenital cleft lip and/or palate. *Arch. Environ. Health* 36, 213-221 (1981). doi:10.1080/00039896.1981.10667627
- 26 Garcia, A. M. Occupational exposure to pesticides and congenital malformations: a review of mechanisms, methods, and results. *Am. J. Ind. Med.* 33, 232-240 (1998).
- 27 Dravet, C., Julian, C., Legras, C., Magaouda, A., Guerrini, R., Genton, P., Soulayrol, S., Giraud, N., Mesdjian, E., Trentin, G. *et al.* Epilepsy, antiepileptic drugs, and malformations in children of women with epilepsy: a French prospective cohort study. *Neurology* 42, 75-82 (1992).
- 28 Abrishamchian, A. R., Khoury, M. J. & Calle, E. E. The contribution of maternal epilepsy and its treatment to the etiology of oral clefts: a population based case-control study. *Genet. Epidemiol.* 11, 343-351 (1994). doi:10.1002/gepi.1370110404
- 29 Shaw, G. M., Wasserman, C. R., O'Malley, C. D., Lammer, E. J. & Finnell, R. H. Orofacial clefts and maternal anticonvulsant use. *Reprod. Toxicol.* 9, 97-98 (1995). doi:10.1016/0890-6238(95)93875-j
- 30 Park-Wyllie, L., Mazzotta, P., Pastuszak, A., Moretti, M. E., Beique, L., Hunnisett, L., Friesen, M. H., Jacobson, S., Kasapinovic, S., Chang, D. *et al.* Birth defects after maternal exposure to corticosteroids: prospective cohort study and meta-analysis of epidemiological studies. *Teratology* 62, 385-392 (2000). doi:10.1002/1096-9926(200012)62:6<385::Aid-tera5>3.0.Co;2-Z
- 31 Garland, M. A., Sun, B., Zhang, S., Reynolds, K., Ji, Y. & Zhou, C. J. Role of epigenetics and miRNAs in orofacial clefts. *Birth Defects Res* 112, 1635-1659 (2020). doi:10.1002/bdr2.1802
- 32 Koya, P. K., Chougankar, M. P., Predeep, P., Jojo, P. J., Cheriyan, V. D., Mayya, Y. S. & Seshadri, M. Effect of low and chronic radiation exposure: a case-control study of mental retardation and cleft lip/palate in the monazite-bearing coastal areas of southern Kerala. *Radiat. Res.* 177, 109-116 (2012). doi:10.1667/rr2699.1
- 33 Luteijn, J. M., Brown, M. J. & Dolk, H. Influenza and congenital anomalies: a systematic review and meta-analysis. *Hum. Reprod.* 29, 809-823 (2014). doi:10.1093/humrep/det455
- 34 Mossey, P. A. & Little, J. in *Cleft lip and palate. From Origin to Treatment.* (ed D. F. Wyszynski) Ch. 12, 127-158 (Oxford University Press, 2002).
- 35 in *twice a year* (European network of population-based registries for the epidemiological surveillance of congenital anomalies. European Commission., 2021).
- 36 (European network of population-based registries for the epidemiological surveillance of congenital anomalies. European Commission., 2015).
- 37 Chang, W. J., See, L. C. & Lo, L. J. Time trend of incidence rates of cleft lip/palate in Taiwan from 1994 to 2013. *Biomed J* 39, 150-154 (2016). doi:10.1016/j.bj.2015.10.003
- 38 Hoffmann, V. & Schäfer, K. *Kindliche Hörstörungen.* (Springer, 2020).
- 39 Lenarz, T. & Boenninghaus, H.-G. *Hals-Nasen-Ohren-Heilkunde.* 14 edn, (Springer, 2012).
- 40 Maarse, W., Bergé, S. J., Pistorius, L., van Barneveld, T., Kon, M., Breugem, C. & Mink van der Molen, A. B. Diagnostic accuracy of transabdominal ultrasound in detecting prenatal cleft lip and palate: a systematic review. *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 35, 495-502 (2010). doi:10.1002/uog.7472
- 41 Gesundheit, B. f. *Gesundheitsuntersuchungen für Kinder und Jugendliche,* <<https://www.bundesgesundheitsministerium.de/themen/praevention/kindergesundheit/frueherkennungsuntersuchung-bei-kindern.html>> (2022).
- 42 Bundesausschuss, G. (16.09.2021 BAnz AT 03.11.2021 B4, 2022).
- 43 Hotz, M. M. & Perko, M. Early management of bilateral total cleft lip and palate. *Scand. J. Plast. Reconstr. Surg.* 8, 104-108 (1974). doi:10.3109/02844317409084378
- 44 Hotz, M., Perko, M. & Gnoinski, W. Early orthopaedic stabilization of the praemaxilla in complete bilateral cleft lip and palate in combination with the Celesnik lip repair. *Scand. J. Plast. Reconstr. Surg. Hand Surg.* 21, 45-51 (1987). doi:10.3109/02844318709083579
- 45 Kogo, M., Okada, G., Ishii, S., Shikata, M., Iida, S. & Matsuya, T. Breast feeding for cleft lip and palate patients, using the Hotz-type plate. *Cleft Palate Craniofac. J.* 34, 351-353 (1997). doi:10.1597/1545-1569_1997_034_0350_bffcla_2.3.co_2
- 46 McNeil, C. Orthodontic procedures in the treatment of congenital cleft palate. *Dent. Rec. (London)* 70, 126-132 (1950).



- 47 Georgiade, N. G. & Latham, R. A. Maxillary arch alignment in the bilateral cleft lip and palate infant, using pinned coaxial screw appliance. *Plast. Reconstr. Surg.* 56, 52-60 (1975). doi:10.1097/00006534-197507000-00011
- 48 Grayson, B. H. & Maull, D. J. in *Cleft Lip and Palate. Diagnosis and Management* Ch. 21, (Springer-Verlag Berlin Heidelberg, 2006).
- 49 Yoshimura, Y., Okumoto, T., Iijima, Y. & Inoue, Y. Reduced nasal growth after primary nasal repair combined with cleft lip surgery. *J. Plast. Reconstr. Aesthet. Surg.* 68, e159-166 (2015). doi:10.1016/j.bjps.2015.06.014
- 50 Deutsche Gesellschaft für Hals-Nasen-Ohrenheilkunde, K.-u. H.-C. e. V. S2k-Leitlinie 017/070: Formstörungen der inneren und / oder äußeren Nase (mit funktioneller und / oder relevanter ästhetischer Beeinträchtigung) - aktuell in Überarbeitung. (2016). <<https://www.awmf.org/leitlinien/detail/II/017-070.html>>.
- 51 Matsuo, K., Hirose, T., Tomono, T., Iwasawa, M., Katohda, S., Takahashi, N. & Koh, B. Nonsurgical correction of congenital auricular deformities in the early neonate: a preliminary report. *Plast. Reconstr. Surg.* 73, 38-51 (1984).
- 52 Matsuo, K. & Hirose, T. Nonsurgical correction of cleft lip nasal deformity in the early neonate. *Ann Acad Med Singap* 17, 358-365 (1988).
- 53 Grayson, B. H., Cutting, C. & Wood, R. Preoperative columella lengthening in bilateral cleft lip and palate. *Plast. Reconstr. Surg.* 92, 1422-1423 (1993).
- 54 Grayson, B. H., Santiago, P. E., Brecht, L. E. & Cutting, C. B. Presurgical nasoalveolar molding in infants with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac. J.* 36, 486-498 (1999). doi:10.1597/1545-1569(1999)036<0486:pnmiw>2.3.co;2
- 55 Maull, D. J., Grayson, B. H., Cutting, C. B., Brecht, L. L., Bookstein, F. L., Khorrambadi, D., Webb, J. A. & Hurwitz, D. J. Long-term effects of nasoalveolar molding on three-dimensional nasal shape in unilateral clefts. *Cleft Palate Craniofac. J.* 36, 391-397 (1999). doi:10.1597/1545-1569(1999)036<0391:ltonm>2.3.co;2
- 56 Grayson, B. H. & Cutting, C. B. Presurgical nasoalveolar orthopedic molding in primary correction of the nose, lip, and alveolus of infants born with unilateral and bilateral clefts. *Cleft Palate Craniofac. J.* 38, 193-198 (2001). doi:10.1597/1545-1569_2001_038_0193_pnomip_2.0.co_2
- 57 Veau, V. *Bec-de-lièvre: formes cliniques, chirurgie.* (Masson, 1938).
- 58 VP, B. & JB, B. Mirault operation for single harelip. *Surg Gynec Obstet* 51, 81-98 (1930).
- 59 Pfeifer, G. Über ein geschichtlich begründetes Verfahren des Verschlusses von Lippenspalten. *Dtsch. Zahn. Mund. Kieferheilkd. Zentralbl. Gesamte* 54, 69-77 (1970).
- 60 *Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie. Operationslehre und -atlas.* 5 edn, (Springer Berlin, 2021).
- 61 Kauffmann, P., Cordesmeier, R., Fouellefack, G. A., Schminke, B. & Wiese, K. G. Postoperative long-term results for the comparison of the symmetry of the upper lip during lip closure according to Millard and Pfeifer. *Maxillofac Plast Reconstr Surg* 40, 18 (2018). doi:10.1186/s40902-018-0157-1
- 62 Scheller, K. & Schubert, J. Closure of cleft lips with Pfeifer's wave line technique does not inhibit upper lip growth: A retrospective study. *J. Craniomaxillofac. Surg.* 50, 254-261 (2022). doi:10.1016/j.jcms.2021.11.013
- 63 LeMesurier, A. A method of cutting and suturing the lip in the treatment of complete unilateral clefts. *Plast. Reconstr. Surg.* (1946) 4, 1-12 (1949). doi:10.1097/00006534-194901000-00001
- 64 Tennison, C. W. The repair of the unilateral cleft lip by the stencil method. *Plast. Reconstr. Surg.* (1946) 9, 115-120 (1952). doi:10.1097/00006534-195202000-00005
- 65 Randall, P. A triangular flap operation for the primary repair of unilateral clefts of the lip. *Plast. Reconstr. Surg. Transplant. Bull.* 23, 331-347 (1959). doi:10.1097/00006534-195904000-00003
- 66 Millard, D. R. Extensions of the rotation-advancement principle for wide unilateral cleft lips. *Plast. Reconstr. Surg.* 42, 535-544 (1968). doi:10.1097/00006534-196812000-00004
- 67 Noordhoff, M. S. Reconstruction of vermilion in unilateral and bilateral cleft lips. *Plast. Reconstr. Surg.* 73, 52-61 (1984). doi:10.1097/00006534-198401000-00011
- 68 Fisher, D. M. Unilateral cleft lip repair: an anatomical subunit approximation technique. *Plast. Reconstr. Surg.* 116, 61-71 (2005). doi:10.1097/01.prs.0000169693.87591.9b
- 69 Cronin, T. D. & Upton, J. Lengthening of the short columella associated with bilateral cleft lip. *Ann. Plast. Surg.* 1, 75-95 (1978). doi:10.1097/00000637-197801000-00015
- 70 Millard, D. R. Bilateral cleft lip and a primary forked flap: a preliminary report. *Plast. Reconstr. Surg.* 39, 59-65 (1967). doi:10.1097/00006534-196701000-00006
- 71 Delaire, J. Theoretical principles and technique of functional closure of the lip and nasal aperture. *J. Maxillofac. Surg.* 6, 109-116 (1978). doi:10.1016/s0301-0503(78)80078-2



- 72 Liao, Y. F., Lee, Y. H., Wang, R., Huang, C. S., Chen, P. K., Lo, L. J. & Chen, Y. R. Vomer flap for hard palate repair is related to favorable maxillary growth in unilateral cleft lip and palate. *Clin. Oral Investig.* 18, 1269-1276 (2014). doi:10.1007/s00784-013-1084-2
- 73 Minatel, L., Marcela de Luna Gomes, J., Aparecido Araújo Lemos, C., Justino de Oliveira Limirio, J. P. & Pellizzer, E. P. Influence of vomer flap on craniofacial growth in patients with cleft lip and palate: A systematic review. *J. Craniomaxillofac. Surg.* 47, 902-908 (2019). doi:10.1016/j.jcms.2019.03.011
- 74 de Jong, J. P. & Breugem, C. C. Early hard palate closure using a vomer flap in unilateral cleft lip and palate: effects on cleft width. *Clin. Oral Investig.* 18, 1285-1290 (2014). doi:10.1007/s00784-013-1091-3
- 75 Martin-Smith, J. D., Fitzgerald, L. & Orr, D. J. A. How reliable is the vomer flap in early hard palate repair? *J. Plast. Reconstr. Aesthet. Surg.* 70, 828-832 (2017). doi:10.1016/j.bjps.2017.02.026
- 76 Vandenberg, K., Castle, M., Qeadan, F. & Kraai, T. Oronasal Fistula Incidence Associated With Vomer Flap Repair of Cleft Palate: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Cleft Palate Craniofac. J.* 58, 957-965 (2021). doi:10.1177/1055665620974562
- 77 Pichler, H. & Trauner, R. *Mund- und Kieferchirurgie, Teil II.*, (Urban & Schwarzenberg, 1948).
- 78 Campbell, A. The closure of congenital clefts of the hard palate. *Br. J. Surg.* 13, 715-719 (1926).
- 79 Kriens, O. Anatomische Untersuchungen am gespaltenen weichen Gaumen. 14-32 (1967).
- 80 Kriens, O. B. An anatomical approach to veloplasty. *Plast. Reconstr. Surg.* 43, 29-41 (1969). doi:10.1097/00006534-196901000-00006
- 81 Latham, R. A., Winslow, R. B. & Bevin, A. G. Induction of new palatal growth as an aid to cleft closure in dogs: neopalate formation. *Br. J. Plast. Surg.* 27, 264-273 (1974). doi:10.1016/s0007-1226(74)90086-1
- 82 Millard, D. R., Jr. & Latham, R. A. Improved primary surgical and dental treatment of clefts. *Plast. Reconstr. Surg.* 86, 856-871 (1990). doi:10.1097/00006534-199011000-00006
- 83 Stellmach, R. in *Kopf-und Halschirurgie Vol. 2* (ed Naumann HH) (Thieme, Stuttgart, 1974).
- 84 Likert, R. A technique for the measurement of attitudes. *Archives of Psychology* 22, 55 (1932).
- 85 Cicchetti, D. V. Guidelines, criteria, and rules of thumb for evaluating normed and standardized assessment instruments in psychology. *Psychol. Assess.* 6, 284-290 (1994). doi:10.1037/1040-3590.6.4.284
- 86 Daten zum durchschnittlichen Alter der Eltern bei Geburt nach der Geburtenfolge für 1. Kind, 2. Kind, 3. Kind der Mutter und insgesamt 2021. (2022). <<https://www.destatis.de/DE/Themen/Gesellschaft-Umwelt/Bevoelkerung/Geburten/Tabellen/geburten-eltern-biologischesalter.html>>.
- 87 Weissenborn, A., Martin, A., Bergmann, R., Dudenhausen, J. W. & Przyrembel, H. [Survey on breast-feeding initiation and potential impact factors in hospitals and birth centres in Berlin]. *Gesundheitswesen* 71, 332-338 (2009). doi:10.1055/s-0029-1220759
- 88 Barillas, I., Dec, W., Warren, S. M., Cutting, C. B. & Grayson, B. H. Nasoalveolar molding improves long-term nasal symmetry in complete unilateral cleft lip-cleft palate patients. *Plast. Reconstr. Surg.* 123, 1002-1006 (2009). doi:10.1097/PRS.0b013e318199f46e
- 89 Chang, C. S., Liao, Y. F., Wallace, C. G., Chan, F. C., Liou, E. J., Chen, P. K. & Noordhoff, M. S. Long-term comparison of the results of four techniques used for bilateral cleft nose repair: a single surgeon's experience. *Plast. Reconstr. Surg.* 134, 926e-936e (2014). doi:10.1097/prs.0000000000000715
- 90 Chang, C. S., Por, Y. C., Liou, E. J., Chang, C. J., Chen, P. K. & Noordhoff, M. S. Long-term comparison of four techniques for obtaining nasal symmetry in unilateral complete cleft lip patients: a single surgeon's experience. *Plast. Reconstr. Surg.* 126, 1276-1284 (2010). doi:10.1097/PRS.0b013e3181ec21e4
- 91 Meazzini, M. C., Parravicini, F., Donati, V., Brusati, R., Biglioli, F. & Autelitano, L. Photometric Evaluation of Adult Patients With Bilateral Cleft Lip and Palate Treated With Nasoalveolar Molding and Primary Columella Lengthening. *Cleft Palate Craniofac. J.* 59, 852-858 (2022). doi:10.1177/10556656211024069
- 92 Rochlin, D. H., Park, J., Parsaei, Y., Kalra, A., Staffenberg, D. A., Cutting, C. B., Grayson, B. H., Shetye, P. R. & Flores, R. L. "Clinical Outcomes of Bilateral Cleft Lip and Palate Repair with Nasoalveolar Molding and Gingivoperiosteoplasty from Birth to Facial Maturity". *Plast. Reconstr. Surg.* (2023). doi:10.1097/prs.0000000000010450
- 93 Zeytinoglu, S. & Davey, M. P. It's a privilege to smile: impact of cleft lip palate on families. *Fam Syst Health* 30, 265-277 (2012). doi:10.1037/a0028961



- 94 Baker, S. R., Owens, J., Stern, M. & Willmot, D. Coping strategies and social support in the family impact of cleft lip and palate and parents' adjustment and psychological distress. *Cleft Palate Craniofac. J.* 46, 229-236 (2009). doi:10.1597/08-075.1
- 95 Benson, B. A., Gross, A. M., Messer, S. C., Kellum, G. & Passmore, L. A. Social support networks among families of children with craniofacial anomalies. *Health Psychol.* 10, 252-258 (1991). doi:10.1037//0278-6133.10.4.252
- 96 Collett, B. R. & Speltz, M. L. A developmental approach to mental health for children and adolescents with orofacial clefts. *Orthod. Craniofac. Res.* 10, 138-148 (2007). doi:10.1111/j.1601-6343.2007.00394.x
- 97 Natsume, N., Suzuki, T. & Kawai, T. Maternal reactions to the birth of a child with cleft lip and/or palate. *Plast. Reconstr. Surg.* 79, 1003-1004 (1987). doi:10.1097/00006534-198706000-00036
- 98 Mzezewa, S. & Muchemwa, F. C. Reaction to the birth of a child with cleft lip or cleft palate in Zimbabwe. *Trop. Doct.* 40, 138-140 (2010). doi:10.1258/td.2010.090329
- 99 Nwanze, H. O. & Sowemimo, G. O. Maternal stress, superstition and communicative behaviour with Nigerian cleft lip and palate children. *Scand. J. Plast. Reconstr. Surg. Hand Surg.* 21, 15-18 (1987). doi:10.3109/02844318709083573
- 100 Black, J. D., Giroto, J. A., Chapman, K. E. & Oppenheimer, A. J. When my child was born: cross-cultural reactions to the birth of a child with cleft lip and/or palate. *Cleft Palate Craniofac. J.* 46, 545-548 (2009). doi:10.1597/08-151.1
- 101 Berger, Z. E. & Dalton, L. J. Coping with a cleft: psychosocial adjustment of adolescents with a cleft lip and palate and their parents. *Cleft Palate Craniofac. J.* 46, 435-443 (2009). doi:10.1597/08-093.1
- 102 Murray, L., Artech, A., Bingley, C., Hentges, F., Bishop, D. V., Dalton, L., Goodacre, T. & Hill, J. The effect of cleft lip on socio-emotional functioning in school-aged children. *J. Child Psychol. Psychiatry* 51, 94-103 (2010). doi:10.1111/j.1469-7610.2009.02186.x
- 103 Zeitlin, S., Rosenblatt, W. & Williamson, G. Family stress: A coping model for intervention. *B.C. Journal of Special Education* 10, 231-242 (1986).
- 104 Feragen, K. B. & Borge, A. I. Peer harassment and satisfaction with appearance in children with and without a facial difference. *Body Image* 7, 97-105 (2010). doi:10.1016/j.bodyim.2009.12.001
- 105 Feragen, K. B., Kvaalem, I. L., Rumsey, N. & Borge, A. I. Adolescents with and without a facial difference: The role of friendships and social acceptance in perceptions of appearance and emotional resilience. *Body Image* 7, 271-279 (2010). doi:10.1016/j.bodyim.2010.05.002
- 106 Meyer-Marcotty, P. & Stellzig-Eisenhauer, A. Dentofacial self-perception and social perception of adults with unilateral cleft lip and palate. *J. Orofac. Orthop.* 70, 224-236 (2009). doi:10.1007/s00056-009-8813-9
- 107 Nopoulos, P., Langbehn, D. R., Canady, J., Magnotta, V. & Richman, L. Abnormal brain structure in children with isolated clefts of the lip or palate. *Arch. Pediatr. Adolesc. Med.* 161, 753-758 (2007). doi:10.1001/archpedi.161.8.753
- 108 Richman, L. C. Cognitive patterns and learning disabilities of cleft palate children with verbal deficits. *J. Speech Hear. Res.* 23, 447-456 (1980). doi:10.1044/jshr.2302.447
- 109 Richman, L. C., Eliason, M. J. & Lindgren, S. D. Reading disability in children with clefts. *Cleft Palate J.* 25, 21-25 (1988).
- 110 Richman, L. C., Wilgenbusch, T. & Hall, T. Spontaneous verbal labeling: visual memory and reading ability in children with cleft. *Cleft Palate Craniofac. J.* 42, 565-569 (2005). doi:10.1597/04-128r.1
- 111 Snyder, L. E. & Scherer, N. The development of symbolic play and language in toddlers with cleft palate. *Am. J. Speech Lang. Pathol.* 13, 66-80 (2004). doi:10.1044/1058-0360(2004/008)
- 112 Conrad, A. L., Richman, L., Nopoulos, P. & Dailey, S. Neuropsychological functioning in children with non-syndromic cleft of the lip and/or palate. *Child Neuropsychol.* 15, 471-484 (2009). doi:10.1080/09297040802691120
- 113 Petráčková, I., Zach, J., Borský, J., Černý, M., Hacklová, R., Tvrdek, M. & Janota, J. Early and late operation of cleft lip and intelligence quotient and psychosocial development in 3-7 years. *Early Hum. Dev.* 91, 149-152 (2015). doi:10.1016/j.earlhumdev.2014.12.015
- 114 Knapke, S. C., Bender, P., Prows, C., Schultz, J. R. & Saal, H. M. Parental perspectives of children born with cleft lip and/or palate: a qualitative assessment of suggestions for healthcare improvements and interventions. *Cleft Palate Craniofac. J.* 47, 143-150 (2010). doi:10.1597/08-259_1
- 115 Pannbacker, M. & Scheuerle, J. Parents' attitudes toward family involvement in cleft palate treatment. *Cleft Palate Craniofac. J.* 30, 87-89 (1993). doi:10.1597/1545-1569_1993_030_0087_patfii_2.3.co_2



- 116 Hasanzadeh, N., Khoda, M. O., Jahanbin, A. & Vatankhah, M. Coping strategies and psychological distress among mothers of patients with nonsyndromic cleft lip and palate and the family impact of this disorder. *J. Craniofac. Surg.* 25, 441-445 (2014). doi:10.1097/scs.0000000000000483
- 117 Jeong, J. H., Kim, B. N., Choi, T. H. & Kim, S. A psychological analysis of the Korean mothers of cleft lip and palate patients: screening for psychological counseling and neuropsychiatric treatment. *J. Craniofac. Surg.* 24, 1515-1520 (2013). doi:10.1097/SCS.0b013e31828f2372
- 118 Roth, M., Lonic, D., Grill, F. D., Ritschl, L. M., Loeffelbein, D. J., Wolff, K. D., Niu, L. S., Pai, B. C., Prantl, L., Kehrer, A. *et al.* NAM-help or burden? Intercultural evaluation of parental stress caused by nasoalveolar molding: a retrospective multi-center study. *Clin. Oral Investig.* 25, 5421-5430 (2021). doi:10.1007/s00784-021-03850-7
- 119 Sischo, L., Broder, H. L. & Phillips, C. Coping With Cleft: A Conceptual Framework of Caregiver Responses to Nasoalveolar Molding. *Cleft Palate Craniofac. J.* (2014). doi:10.1597/14-113
- 120 Sischo, L., Clouston, S. A., Phillips, C. & Broder, H. L. Caregiver Responses to Early Cleft Palate Care: A Mixed Method Approach. *Health Psychol.* (2015). doi:10.1037/hea0000262
- 121 Taylor, S. E. & Stanton, A. L. Coping resources, coping processes, and mental health. *Annu. Rev. Clin. Psychol.* 3, 377-401 (2007). doi:10.1146/annurev.clinpsy.3.022806.091520
- 122 Latta, L. C., Dick, R., Parry, C. & Tamura, G. S. Parental responses to involvement in rounds on a pediatric inpatient unit at a teaching hospital: a qualitative study. *Acad. Med.* 83, 292-297 (2008). doi:10.1097/ACM.0b013e3181637e21
- 123 Association, A. C. P. C. (2022).
- 124 Nelson, P. A., Kirk, S. A., Caress, A. L. & Glenney, A. M. Parents' emotional and social experiences of caring for a child through cleft treatment. *Qual. Health Res.* 22, 346-359 (2012). doi:10.1177/1049732311421178
- 125 Levy-Bercowski, D., Abreu, A., DeLeon, E., Looney, S., Stockstill, J., Weiler, M. & Santiago, P. E. Complications and solutions in presurgical nasoalveolar molding therapy. *Cleft Palate Craniofac. J.* 46, 521-528 (2009). doi:10.1597/07-236.1
- 126 Coughlin, S. S. Recall bias in epidemiologic studies. *J. Clin. Epidemiol.* 43, 87-91 (1990). doi:10.1016/0895-4356(90)90060-3
- 127 Baumeister, R. F., Vohs, K. D. & Funder, D. C. Psychology as the Science of Self-Reports and Finger Movements: Whatever Happened to Actual Behavior? *Perspect. Psychol. Sci.* 2, 396-403 (2007). doi:10.1111/j.1745-6916.2007.00051.x
- 128 Clark, L. A. & Watson, D. Constructing validity: New developments in creating objective measuring instruments. *Psychol. Assess.* 31, 1412-1427 (2019). doi:10.1037/pas0000626
- 129 Jebb, A. T., Ng, V. & Tay, L. A Review of Key Likert Scale Development Advances: 1995-2019. *Front. Psychol.* 12, 637547 (2021). doi:10.3389/fpsyg.2021.637547
- 130 Bender, R., Lange, S. & Ziegler, A. [Multiple testing]. *Dtsch. Med. Wochenschr.* 132 Suppl 1, e26-29 (2007). doi:10.1055/s-2007-959035
- 131 Table 11. Number of Births by Age of Mother, Total Fertility Rate, Average Age of Mother and Average Age of First Birth. (2023). <<https://www.ris.gov.tw/app/en/3911>>.
- 132 Table 12. Number of Births by Age of Father, Total Fertility Rate of Men and Average Age of Father. (2023). <<https://www.ris.gov.tw/app/en/3911>>.
- 133 World Health Organization. *Germany statistics summary (2002 - present)*, <<http://apps.who.int/gho/data/node.country.country-DEU>> (2016).
- 134 Ho Chan, W. S. Taiwan's healthcare report 2010. *The EPMA Journal* 1, 563-585 (2010). doi:10.1007/s13167-010-0056-8
- 135 Bundesausschuss, G. (16.09.2021 BAnz AT 26.11.2021 B4, 2022).
- 136 Duarte, G. A., Ramos, R. B. & Cardoso, M. C. Feeding methods for children with cleft lip and/or palate: a systematic review. *Braz. J. Otorhinolaryngol.* 82, 602-609 (2016). doi:10.1016/j.bjorl.2015.10.020
- 137 von der Lippe, E., Brettschneider, A. K., Gutsche, J. & Poethko-Muller, C. [Factors influencing the prevalence and duration of breastfeeding in Germany: results of the KiGGS study: first follow up (KiGGS Wave 1)]. *Bundesgesundheitsblatt, Gesundheitsforschung, Gesundheitsschutz* 57, 849-859 (2014). doi:10.1007/s00103-014-1985-5
- 138 Walburg, V., Goehlich, M., Conquet, M., Callahan, S., Scholmerich, A. & Chabrol, H. Breast feeding initiation and duration: comparison of French and German mothers. *Midwifery* 26, 109-115 (2010). doi:10.1016/j.midw.2008.04.001
- 139 Chiu, W. C., Liao, H. F., Chang, P. J., Chen, P. C. & Chen, Y. C. Duration of breast feeding and risk of developmental delay in Taiwanese children: a nationwide birth cohort study. *Paediatr. Perinat. Epidemiol.* 25, 519-527 (2011). doi:10.1111/j.1365-3016.2011.01236.x



- 140 Chuang, C. H., Chang, P. J., Hsieh, W. S., Guo, Y. L., Lin, S. H., Lin, S. J. & Chen, P. C. The combined effect of employment status and transcultural marriage on breast feeding: a population-based survey in Taiwan. *Paediatr. Perinat. Epidemiol.* 21, 319-329 (2007). doi:10.1111/j.1365-3016.2007.00828.x
- 141 Lee, C. C., Chiou, S. T., Chen, L. C. & Chien, L. Y. Breastfeeding-Friendly Environmental Factors and Continuing Breastfeeding Until 6 Months Postpartum: 2008-2011 National Surveys in Taiwan. *Birth* 42, 242-248 (2015). doi:10.1111/birt.12170
- 142 Goyal, M., Chopra, R., Bansal, K. & Marwaha, M. Role of obturators and other feeding interventions in patients with cleft lip and palate: a review. *Eur. Arch. Paediatr. Dent.* 15, 1-9 (2014). doi:10.1007/s40368-013-0101-0
- 143 Chan, R. K., McPherson, B. & Whitehill, T. L. Chinese attitudes toward cleft lip and palate: effects of personal contact. *Cleft Palate Craniofac. J.* 43, 731-739 (2006). doi:10.1597/05-111
- 144 Adeyemo, W. L., James, O. & Butali, A. Cleft lip and palate: Parental experiences of stigma, discrimination, and social/structural inequalities. *Annals of maxillofacial surgery* 6, 195-203 (2016). doi:10.4103/2231-0746.200336
- 145 el-Shazly, M., Bakry, R., Tohamy, A., Ali, W. M., Elbakry, S., Brown, S. E. & Weatherley-White, R. C. Attitudes toward children with clefts in rural Muslim and Hindu societies. *Ann. Plast. Surg.* 64, 780-783 (2010). doi:10.1097/SAP.0b013e3181b0230c
- 146 Alfonso, A. R., Ramly, E. P., Kantar, R. S., Wang, M. M., Eisemann, B. S., Staffenberg, D. A., Shetye, P. R. & Flores, R. L. What Is the Burden of Care of Nasoalveolar Molding? *Cleft Palate Craniofac. J.* 57, 1078-1092 (2020). doi:10.1177/1055665620929224
- 147 Nur Yilmaz, R. B., Germeç Çakan, D. & Türkyilmaz Uyar, E. Maternal and Paternal Well-Being During Nasoalveolar Molding and Primary Surgery Periods. *J. Craniofac. Surg.* 30, 2227-2232 (2019). doi:10.1097/scs.00000000000006028
- 148 Sischo, L., Clouston, S. A., Phillips, C. & Broder, H. L. Caregiver responses to early cleft palate care: A mixed method approach. *Health Psychol.* 35, 474-482 (2016). doi:10.1037/hea0000262
- 149 Grill, F. D., Ritschl, L. M., Dikel, H., Rau, A., Roth, M., Eblenkamp, M., Wolff, K. D., Loeffelbein, D. J. & Bauer, F. X. Facilitating CAD/CAM nasoalveolar molding therapy with a novel click-in system for nasal stents ensuring a quick and user-friendly chairside nasal stent exchange. *Sci. Rep.* 8, 12084 (2018). doi:10.1038/s41598-018-29960-z
- 150 Bauer, F. X., Schönberger, M., Gattinger, J., Eblenkamp, M., Wintermantel, E., Rau, A., Güll, F. D., Wolff, K. D. & Loeffelbein, D. J. RapidNAM: generative manufacturing approach of nasoalveolar molding devices for presurgical cleft lip and palate treatment. *Biomed. Tech. (Berl.)* 62, 407-414 (2017). doi:10.1515/bmt-2016-0035
- 151 Grill, F. D., Ritschl, L. M., Bauer, F. X., Rau, A., Gau, D., Roth, M., Eblenkamp, M., Wolff, K. D. & Loeffelbein, D. J. A semi-automated virtual workflow solution for the design and production of intraoral molding plates using additive manufacturing: the first clinical results of a pilot-study. *Sci. Rep.* 8, 11845 (2018). doi:10.1038/s41598-018-29959-6
- 152 Grill, F. D., Ritschl, L. M., Bauer, F. X., Rau, A., Gau, D., Roth, M., Eblenkamp, M., Wolff, K. D. & Loeffelbein, D. J. Author Correction: A semi-automated virtual workflow solution for the design and production of intraoral molding plates using additive manufacturing: the first clinical results of a pilot-study. *Sci. Rep.* 10, 4726 (2020). doi:10.1038/s41598-020-61778-6
- 153 Schiebl, J., Bauer, F. X., Grill, F. & Loeffelbein, D. J. RapidNAM: Algorithm for the Semi-Automated Generation of Nasoalveolar Molding Device Designs for the Presurgical Treatment of Bilateral Cleft Lip and Palate. *IEEE Trans. Biomed. Eng.* 67, 1263-1271 (2020). doi:10.1109/tbme.2019.2934907



7.2. Abbildungsverzeichnis

Abbildung 1. Faziale Ontogenese (basiert auf ¹¹).	8
Abbildung 2. Schema der perioralen Muskulatur (basiert auf ¹⁷).	11
Abbildung 3. Muskuläre Balance zwischen fazialer und Zungenmuskulatur (basiert auf ¹⁸). ..	12
Abbildung 4. kartilaginäres Nasenskelett von lateral (A) und basal (B) (basiert auf ¹⁷).	13
Abbildung 5. Muskulatur des Weichgaumens (basiert auf ¹⁹).	15
Abbildung 6. Zeitliches und organisatorisches Behandlungsschema. Ablauf entsprechend der Klinik und Poliklinik für Mund-, Kiefer- und Gesichtschirurgie des Universitätsklinikums Regensburg	25
Abbildung 7. konventionelle Gaumenplatte	26
Abbildung 8. NAM-Apparatur mit Retentionspins und Nasenpelotten.	29
Abbildung 9. Ablaufdiagramm NAM-Therapie inkl. Gegenüberstellung konventioneller und digitaler Fertigungsverfahren	32
Abbildung 10. Einzugsgebiet LKG-Patienten der Klinik und Poliklinik für Mund-Kiefer- Gesichtschirurgie des Klinikums rechts der Isar der Technischen Universität München 2010- 2014.	33
Abbildung 11. Wellenförmige Schnittführung nach <i>Pfeifer</i> (basiert auf ⁶²). A Schnittführung. B Nahtverlauf	37
Abbildung 12. Geometrische Schnittführung nach <i>LeMesurier</i> (basiert auf ⁶³). A Schnittführung. B Nahtverlauf	37
Abbildung 13. Geometrische Schnittführung nach <i>Tennison</i> mit Modifikation nach <i>Randall</i> (basiert auf ⁶⁵). A Schnittführung. B Nahtverlauf.	37
Abbildung 14. Geometrische Schnittführung nach <i>Millard</i> , als sog. Rotation-Advancement bezeichnet (basiert auf ⁶⁶). A Schnittführung. B Nahtverlauf	38
Abbildung 15. Geometrische Schnittführung nach <i>Noordhoff</i> (basiert auf ⁶⁷). A Schnittführung. B Nahtverlauf	38
Abbildung 16. Geometrische Schnittführung nach <i>Fisher</i> (basiert auf ⁶⁸). A Schnittführung. B Nahtverlauf	38
Abbildung 17. Gerade Schnittführung bei beidseitiger Lippenspalte nach <i>Millard</i> (basiert auf ⁷⁰). A Schnittführung. B Nahtverlauf.	39
Abbildung 18. Stiellappenplastik nach <i>Veau</i> (basiert auf ⁵⁷). A Schnittführung, B nach Medialisierung und Vereinigung der beiden Lappen.	42
Abbildung 19. Therapieabhängige Unterschiede des Gesamtkollektivs der Items 1-15.	56
Abbildung 20. Therapieabhängige Unterschiede innerhalb der Spaltarten	58
Abbildung 21. Überblick elterlicher Wahrnehmungen im Rahmen der NAM-Therapie.	61



Abbildung 22. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich pränataler Informationen im internationalen Vergleich.....	66
Abbildung 23. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich der Ernährung im internationalen Vergleich.	67
Abbildung 24. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich Reaktionen Außenstehender im internationalen Vergleich.....	68
Abbildung 25. Elterliche Wahrnehmung hinsichtlich persönlicher Mühen im internationalen Vergleich.	69
Abbildung 26. Therapiezufriedenheit im internationalen Vergleich.	70



7.3. Tabellenverzeichnis

Tabelle 1. LAHS-Kodierungslegende.....	9
Tabelle 2. Erweiterung der LAHSHAL-Kodierung anhand des Schweregrades.	10
Tabelle 3. Europäische Inzidenzen für orofaziale Spalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT. ³⁵	17
Tabelle 4. Europäische Inzidenzen für Lippen±Kiefer±Gaumenspalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT. ³⁵	18
Tabelle 5. Europäische Inzidenzen für isolierte Gaumenspalten von 2010 bis 2019 anhand Daten von EUROCAT. ³⁵	18
Tabelle 6. Fragebogen.	48
Tabelle 7. Alterskennzahlen hinsichtlich Spaltart und Therapieform.	50
Tabelle 8. Altersverteilung.....	51
Tabelle 9. Verteilung hinsichtlich Spaltart und Therapieform.....	51
Tabelle 10. Einseitig randomisierte Intraklassen-Korrelation der internationalen Vergleichsstudie.....	52
Tabelle 11. Spaltartabhängige Unterschiede innerhalb der Behandlungsgruppen.....	54
Tabelle 12. Therapieabhängige Unterschiede am Gesamtkollektiv.....	55
Tabelle 13. Therapieabhängige Unterschiede innerhalb der Spaltarten.....	57
Tabelle 14. Geschlechtsspezifische Unterschiede am Gesamtkollektiv.	59
Tabelle 15. Mittelwerte der elterlichen Wahrnehmung im Rahmen der NAM-Therapie.....	60
Tabelle 16. Deskriptive Parameter im internationalen Vergleich.....	63
Tabelle 17. Einseitig randomisierte Intraklassen-Korrelation der internationalen Vergleichsstudie.....	64
Tabelle 18. Interkulturelle Differenzen.....	65
Tabelle 19. Geschlechtsspezifische Unterschiede des internationalen Gesamtkollektivs.	71
Tabelle 20. Geschlechtsspezifische Unterschiede der jeweiligen internationalen Subgruppen.	72



8. Danksagung

An dieser Stelle möchte ich allen Beteiligten, Unterstützern und Weggefährten meinen tiefen Dank ausdrücken:

Allen voran danke ich meinem Doktorvater PD Dr. Dr. Denys J. Loeffelbein für die Chance Teil seiner Forschungsgruppe *Rapid-NAM* sein zu dürfen, für den Vorschlag des Arbeitsthemas sowie das geduldige berufliche Mentorat. Besonderen Dank verdient seine über diese Arbeit hinausgehende hervorragende chirurgische Lehre über die Jahre hinweg. Ich bin sehr froh ihn als meinen Chef, Mentor und insbesondere Freund bezeichnen zu können.

Bei PD Dr. Dr. Florian D. Grill möchte ich mich für die enge Freundschaft und tatkräftige Unterstützung in allen Arbeits- und Lebensbereichen bedanken. Die Zusammenarbeit war von unser beider Erststudium an immer fruchtbar, viel wichtiger aber weiß ich in ihm meinen stets verlässlichsten und vertrauenswürdigsten Freund.

Für die freundschaftliche Betreuung in und außerhalb der Klinik bei allen Fragen um Arbeit und Wissenschaft sowie die immer stimmungsaufhellende Gesellschaft gilt mein besonderer Dank Prof. Dr. Güralp O. Ceyhan.

Prof. Dr. Dr. Andrea Rau möchte ich für die langjährige Begleitung, fachliche Beratung und wertvolle klinische Lehre danken, die ich während ihrer Zeit am Klinikum rechts der Isar erfahren durfte. Unbeirrt der inzwischen räumlichen Distanz innerhalb Deutschlands bin ich mir doch sicher in ihr stets eine gute Freundin erwarten zu können und freue mich über jedes Wiedersehen.

Natürlich darf ich auch PD Dr. Dr. Lucas M. Ritschl nicht vergessen, mit dem das Studium der Zahnmedizin ebenso amüsant und produktiv war wie jede der arbeitsreichen Stunden am Klinikum rechts der Isar in Wissenschaft und klinischer Tätigkeit. Ihm und PD Dr. Dr. Thomas Mücke gilt insbesondere auch Dank für die mikrochirurgische Ausbildung, die ich bei beiden im Labor sehr genoss.

Meinem Freund PD Dr. Daniel Lonic gilt Dank für die internationale Zusammenarbeit mit Taiwan, die nur durch ihn überhaupt zustande kam. In diesem Zusammenhang danke ich auch Prof. Lun-Jou Lo und seiner gesamten *Abteilung für kraniofaziale Chirurgie* des *Chang Gung Memorial Hospitals* für die Ermöglichung der internationalen Studie und Präsentation unserer Ergebnisse beim *Chang Gung Cleft Forum 2018* in Taipeh.



Für seine psychologische Expertise und Beratung bei der Erstellung des Fragebogens bedanke ich mich bei Prof. Dr. Peter Herschbach.

Selbstverständlich möchte ich mich auch herzlich beim Direktor der Klinik für Mund-Kiefer-Gesichtschirurgie des Klinikums rechts der Isar Prof. Dr. Dr. Klaus-Dietrich Wolff bedanken, dem ich an dieser Stelle zudem fachlich und menschlich meinen größten Respekt ausspreche. Herzlichen Dank für die stets freundliche und verständnisvolle Art sowie den menschlichen Umgang auf Augenhöhe.

Bei meiner Schwester Lara bedanke ich mich sehr herzlich für die Ausarbeitung der Grafiken dieser Arbeit ohne deren Hilfe diese optisch nicht halb so ansprechend geworden wären und mich mindestens viermal so viel Zeit gekostet hätten.

Auch möchte ich mich beim Rest meiner Familie sowie all meinen Freunden bedanken für die Unterstützung über die Jahre hinweg und insbesondere bei meinen geliebten Großeltern Klaus und Gudrun, denen diese Arbeit gewidmet ist.

Zu guter Letzt darf meine geliebte Frau Sina nicht unerwähnt bleiben: Ohne sie wäre ich niemals da, wo ich bin, und wäre wohl an mancher Situation verzweifelt. Danke, dass du immer für mich da warst und ich mich stets auf dich verlassen kann! Ohne dich wäre keine Freude auch nur im Ansatz so groß und jeder Kummer dagegen unermesslich schwerer.



9. Anhänge

- Anhang 1. Fragebogen
- Anhang 2. Ethikvotum Klinikum rechts der Isar 92/15
- Anhang 3. Ethikvotum Chang Gung Memorial Hospital IRB 104-2216B



Fragebogen für Eltern von Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten

Alle Angaben sind freiwillig und werden vertraulich behandelt.
Die Datenauswertung erfolgt anonymisiert.

Nummer: _____ Datum: __/__/____

Bitte kreuzen Sie an, wer diesen Fragebogen ausfüllt:

Mutter () Alter__ oder Vater () Alter__

1)

Als ich erfahren habe, dass mein Kind eine Lippen-Kiefer-Gaumenspalte haben wird, habe ich mir Sorgen um die Zukunft gemacht.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

2)

Ich hatte Angst, dass die Ernährung meines Kindes problematisch werden würde.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

3)

Ich hatte Angst vor den Reaktionen Anderer.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

4)

Die Informationen, die ich seitens meiner Ärzte über Lippen-Kiefer-Gaumenspalten vor der Geburt erhalten habe, waren hilfreich und haben mich beruhigt.

- Trifft nicht zu

- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

5)

Nach der Geburt habe ich schnell gelernt, mich auf die speziellen Bedürfnisse meines Kindes bezüglich Ernährung und Pflege einzustellen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

6)

In den ersten Tagen nach der Geburt musste ich mich erst an das Aussehen meines Kindes gewöhnen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

7)

Mein Kind konnte gestillt werden.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

8)

Die Flaschenernährung war ohne Probleme möglich.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

9)

Die Ernährung meines Kindes im ersten Lebensjahr war insgesamt problematisch.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

10)



Die häufigen Arztbesuche während des ersten Lebensjahres meines Kindes stellten für mich eine Belastung dar.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

11)

Das erste Lebensjahr meines Kindes habe ich als schwierig empfunden, ich habe mich oft überfordert gefühlt.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

12)

Bei der Betreuung meines Kindes wurde ich durch mein soziales Umfeld gut unterstützt.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

13)

Ich wurde häufig von Fremden auf die Lippen-Kiefer-Gaumenspalte meines Kindes angesprochen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

14)

Mit den Reaktionen von Außenstehenden in Bezug auf die Lippen-Kiefer-Gaumenspalte meines Kindes konnte ich gut umgehen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

15)

Ich habe vom Austausch mit anderen betroffenen Eltern profitiert.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu

- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

16)

Sonstige Anmerkungen:

Nasoalveolar Molding Therapie (NAM)

17)

Vor Beginn der Behandlung hatte ich Bedenken, ob ich es schaffen würde das Einsetzen und das Befestigen der Platte zu erlernen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

18)

Das häufige Kleben der Tapes und Einsetzen der Platte hat mich viel Zeit gekostet.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

19)

Das Einsetzen und Befestigen der Platte war leichter als zunächst von mir erwartet.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

20)

Ich konnte während der dreimonatigen Behandlungszeit selbst Fortschritte bei der Ausformung der Nase erkennen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu



21)
Ich konnte während der dreimonatigen Behandlungszeit selbst Fortschritte bei der Ausformung der Lippe erkennen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

22)
Ich hatte den Eindruck, dass die Platte und die Befestigungstapes mein Kind beim Schlafen oder bei Bewegungen gestört haben.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

23)
Unter der Behandlung traten vermehrt Hautirritationen im Gesicht meines Kindes auf.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

24)
Mein Kind konnte ohne Platte nicht trinken.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

25)
Damit mein Kind trinken konnte, musste ich die Platte herausnehmen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

26)
Mein(e) Partner(in) und ich haben uns mit dem Einsetzen der Platte abgewechselt.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu

- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

27)
Ich habe es als aufwendig empfunden zu den wöchentlichen Kontrollterminen zu kommen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

28)
Ich habe mich während der dreimonatigen Behandlungszeit gut betreut gefühlt.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

29)
Ich hatte das Gefühl, meinem Kind mit der Nasoalveolar Molding Therapie zu helfen.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

30)
Die Nasoalveolar Molding Therapie hat mich insgesamt überzeugt.

- Trifft nicht zu
- Trifft wenig zu
- Trifft mittelmäßig zu
- Trifft ziemlich zu
- Trifft sehr zu

31)
Sonstige Anmerkungen:



Technische Universität München · Fakultät für Medizin · Ethikkommission
Ismaninger Str. 22 · 81675 München · Germany

Herrn Prof. Dr. Dr. K.-D. Wolff
Herrn Priv.-Doz. Dr. Dr. Denys Loeffelbein
Frau Dr. Dr. Andrea Rau
Klinik und Poliklinik für Mund-Kiefer-Gesichtschirurgie
Klinikum rechts der Isar
Ismaninger Str. 22

81675 München

04.03.2015
Projektnummer: **92/15** (bitte bei jedem Schriftwechsel angeben)

Fragebogen für Eltern mit Kindern mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten


Sehr geehrter Herr Kollege Wolff,
sehr geehrter Herr Kollege Loeffelbein,
sehr verehrte Frau Kollegin Rau,

die Ethikkommission hat das von Ihnen eingereichte, oben genannte,
Forschungsvorhaben im verkürzten Verfahren abgehandelt.

Zur Begutachtung lagen die Beschreibung des Forschungsprojektes und
Elterninformation vor.

Die Ethikkommission kam zu folgendem Votum:
Die Ethikkommission erhebt keine Einwände gegen das o.g. geplante
Forschungsprojekt.

Mit freundlichem Gruß


Prof. Dr. G. Schmidt
Vorsitzender

Die Ethikkommission der Fakultät für Medizin der Technischen Universität München arbeitet
gemäß den nationalen gesetzlichen Bestimmungen und den ICH-GCP-Richtlinien.
Mitteilungen über schwerwiegende oder unerwartete unerwünschte Ereignisse sind mit einer
Stellungnahme des Prüfarztes zum Nutzen/Risiko-Verhältnis des Vorhabens einzureichen (§ 40,
Abs. 1, Satz 4 AMG)
Bei der Einreichung geänderter Unterlagen und bei Amendments sind Änderungen oder
Ergänzungen deutlich zu kennzeichnen. Der Prüfarzt sollte die Protokolländerungen (aufgeteilt
nach „wesentlichen“ und „nicht wesentlichen“ Änderungen) einzeln auflisten und mitteilen, ob die
Änderungen nach seiner Ansicht ethisch relevant sind. Falls erforderlich, ist eine revidierte
Patienteninformation/ Einverständniserklärung einzureichen.
Nach Publikation der Studie bittet die Ethikkommission um Kenntnisnahme.



Technische Universität München



Fakultät für Medizin
Ethikkommission

Prof. Dr.
Georg Schmidt
Vorsitzender

Prof. Dr.
Kurt Ulm
Stellvertretender Vorsitzender

Ismaninger Str. 22
81675 München
Germany

Tel +49.89.4140.4371
Tel +49.89.4140.7737
Fax +49.89.4140.4199

info@ek.med.tum.de
www.ek.med.tum.de

Lieferanschrift für Kuriere:
Grillparzerstr. 16/III
81675 München



長庚醫療財團法人人體試驗倫理委員會 臨床試驗同意證明書

地址：333 桃園縣龜山鄉蕃路村頂湖路123
傳真：03-3494549
聯絡人及電話：張正怡 03-3196200 ext. 3713
電子郵件信箱：ccyi@cgmh.org.tw

試驗名稱：唇顎裂病人之鼻型齒槽塑型治療(牙蓋板)-輔助工具或額外負擔一針
對唇顎裂父母之跨國研究調查

本院案號：104-2216B

試驗期間：104年05月13日起至105年05月12日止

本次核准執行期間：104年05月13日起至105年05月12日止

主持人：林口顯顏中心羅綸洲學術組教授 兼主治醫師

共同主持人：Daniel L.、白健蓉

執行機構：長庚醫院台北、長庚醫院桃園、長庚醫院林口

核准之計畫書版本：2015/04/28 v2

核准之同意書版本：本案經本會同意免除受試者同意書

通過日期：104年05月13日

※ 本研究將於105年05月12日到期，請於試驗到期後三個月內繳交結案報告至本會審查，若需要展延試驗期間者，請於到期前兩個月提出變更案，並繳交期中報告。

長庚醫療財團法人
人體試驗倫理委員會謝燦堂主席



中 華 民 國 104 年 05 月 14 日

【主持人須知】

- 一、實施人體研究計畫前，應擬定研究計畫，經人體試驗倫理委員會審查通過，始得為之。另醫療法所稱之人體試驗案及應用人體生物資料庫檢體進行之案件，尚需經衛生署核准，方可進行。人體試驗倫理委員會或主管機關命令中止/終止試驗案件時，不得繼續執行。
- 二、試驗進行前，主持人應確實核對試驗計畫書、受試者同意書等之正確版本，以及人體試驗倫理委員會與衛生署核准之試驗進行期間；醫療法所稱之人體試驗案，應於本院人體試驗倫理委員會與衛生署皆已核准，方可進行；並以人體試驗倫理委員會核准之同意臨床試驗證明迄日為試驗截止日。
- 三、應完全熟悉試驗藥品/醫療材料、醫療技術在試驗計畫書、最新主持人手冊及其他由試驗委託者提供的相關資訊中描述的使用方法。
- 四、應明瞭並遵守「醫療法」、「人體試驗管理辦法」、「人體研究法」、「人體生物資料

第 1 頁，共 2 頁