

**UNIVERZITA KARLOVA V PRAZE
PŘÍRODOVĚDECKÁ FAKULTA**

Katedra antropologie a genetiky člověka



Mgr. Martina Hamtilová

**HODNOCENÍ MORFOLOGIE PATRA U BCLP
PACIENTŮ S PALATOLALIEMI**

**EVALUATION OF THE PALATE MORPHOLOGY IN BILATERAL
CLEFT LIP AND PALATE PATIENTS WITH PALATOLALY**

DIPLOMOVÁ PRÁCE

Vedoucí diplomové práce: RNDr. Jana Velemínská, PhD.

PRAHA 2011

Prohlášení

Prohlašuji, že jsem závěrečnou práci zpracovala samostatně a že jsem uvedla všechny použité informační zdroje a literaturu. Tato práce ani její podstatná část nebyla předložena k získání jiného nebo stejného akademického titulu.

V Praze, 29. 8. 2011

Martina Hamtilová

.....

Poděkování:

V první řadě bych chtěla poděkovat své školitelce RNDr. Janě Velemínské, PhD. za cenné rady a připomínky při psaní diplomové práce. Poděkování patří také Mgr. Šárce Bejdové, která mě provázela metodickou částí diplomové práce, RNDr. Václavu Krajíčkovi za pomoc se statistickým zpracováním a Doc. MUDr. Miroslavu Peterkovi za zprostředkování dentálních odlišků pacientů bez palatolalie.

Obsah

Seznam zkratk	6
Abstrakt	7
Summary	8
Úvod	9
I. TEORETICKÁ ČÁST	
1. Oboustranný rozštěp rtu a patra (BCLP)	12
1.1 Embryonální vývoj a růst orofaciální oblasti.....	12
1.1.1 Normální embryonální vývoj orofaciální oblasti.....	12
1.1.2 Normální růst patra	14
1.1.3 Embryonální vývoj orofaciální oblasti při oboustranném rozštěpu rtu a patra.....	14
1.1.4 Vývoj a růst patra při BCLP	15
1.2 Postižení pacientů s BCLP	16
1.2.1 Morfologie obličeje u neoperovaných BCLP pacientů	16
1.2.2 Morfologie tvrdého patra u neoperovaných BCLP jedinců.....	17
1.2.3 Morfologie obličeje u BCLP pacientů po operacích.....	18
1.2.4 Morfologie patra u BCLP pacientů po operacích	18
1.3 Důsledky postižení BCLP	20
2. Palatolalie	23
2.1 Fonetika a fonologie.....	23
2.1.1 Tvorba hlásek a jejich klasifikace	23
2.2 Palatolalie, její etiologie a incidence.....	27
2.3 Symptomatologie	29
2.4 Klasifikace palatolalie	30
2.5 Velofaryngeální insuficience	30
2.6 Morfologie patra u pacientů s poruchami řeči	31
2.7 Diagnostika palatolalie	32
2.8 Terapie.....	32

II. PRAKTICKÁ ČÁST

3. Cíl práce a hypotéza	35
4. Materiál	36
5. Metody	38
5.1 Skenování a úpravy skenů	38
5.2 Metody geometrické morfometrie.....	38
6. Použité statistické metody	42
7. Výsledky	43
7.1 Zjišťování variability morfologie patra	43
7.1.1 Variabilita tvaru patra u obou skupin BCLP pacientů	43
7.1.2 Variabilita tvaru patra u obou skupin BCLP pacientů ve věku nad 10 let	46
7.1.3 Variabilita tvaru patra u BCLP pacientů bez palatolalie	51
7.1.4 Variabilita tvaru patra u BCLP pacientů s palatolalií ve věku nad 10 let	55
7.2 Porovnání průměrného tvaru patra u BCLP pacientů bez palatolalie a s palatolalií ve věku nad 10 let	59
Diskuze.....	61
Závěr.....	64
Seznam použité literatury.....	65

Seznam zkratek

ANB úhel	charakteristika sagitálních mezičelistních vztahů
BCLP	oboustranný rozštěp rtu a patra (Bilateral Cleft Lip and Palate)
CLP	rozštěp rtu a patra (Cleft lip and Palate)
EGF	epidermální růstový faktor
FESA	analýza konečných prvků (Finite Element Scaling Analysis)
Hoxa1	homeoboxový gen a1
Hoxa2	homeoboxový gen a2
MSX1	Msh homeoboxový gen 1
MTHFR	methylenetetrahydrofolát reduktáza
NL/ML	sklon těla mandibuly vůči linii procházející kefalometric. body N a S
PCA	analýza hlavních komponent (Principal Component Analysis)
PC1, ..PC4	hlavní komponenta 1, ..4 (Principal Component 1, ..4)
TGF α	transformující růstový faktor alfa
TGF β 3	transformující růstový faktor beta 3

Abstrakt

Diplomová práce byla založena na hodnocení dentálních odlitků pacientů s oboustranným rozštěpem rtu a patra (BCLP) v průměrném věku 10 let. Pacienti tvoří celkem dvě skupiny, a to pacienty bez vady řeči a s vadou řeči (palatolalie). Palatolalie bývají v literatuře spojovány především s velofaryngeální insuficiencí. Studie testuje pracovní hypotézu, že se na poruše řeči podílí také odlišný, nějakým způsobem specifický, tvar patra.

Dentální odlitky byly naskenovány prostřednictvím laserového skeneru a analyzovány metodami 3-D geometrické morfometrie a mnohorozměrné statistiky: analýzou hlavních komponent (PCA), lineární regrese a analýzou konečných prvků (FESA).

Pomocí lineární regrese bylo zjištěno, že tvar patra je u mladších jedinců ovlivněn věkem, a tak muselo být 5 pacientů pro další analýzy vyřazeno. Pacienti s palatolalií mají nižší variabilitu tvaru patra než pacienti bez palatolalie, jsou si tedy navzájem podobnější a patra mají specifický tvar. Jsou širší a nižší než u jedinců bez poruchy řeči a vykazují charakteristické prohloubení za přední částí patra. Předpokládáme, že právě tyto morfologické znaky, zejména nižší klenutí a výrazné prohloubení, mají s největší pravděpodobností vliv na rozvoj poruchy řeči. Naše výsledky potvrzující pracovní hypotézu bude zapotřebí dále ověřit na širším počtu pacientů.

Klíčová slova:

oboustranný rozštěp rtu a patra (BCLP), palatolalie, morfologie patra, 3-D geometrická morfometrie, analýza konečných prvků (FESA), analýza hlavních komponent (PCA)

Summary

The diploma work was based on the evaluation of dental casts of patients with bilateral cleft lip and palate (BCLP) with a mean age of 10. Patients consist of two groups, patients without defect in speech and with speech impairment (palatolaly). Palatolalies in the literature are primarily associated with velopharyngeal insufficiency. The study tested the working hypothesis that in the failure of speech is involved a different, specific in some way, palatal shape.

Dental casts were scanned using a laser scanner and analyzed by 3-D geometric morphometry and multivariate statistics: principal component analysis (PCA), linear regression analysis and finite element analysis (FESA).

Using linear regression it was found that the shape of the palate is affected in younger individuals by age, and so had to be 5 patients excluded for further analysis. Patients with palatolaly have lower variability the palatal shape than patients without palatolalie, so their palates are similar to each other and have a specific shape. Palates are wider and lower than in individuals without speech disorder and they have a characteristic deepening behind the anterior part of the palate. We assume that these features in palate morphology primarily the lower arch and the substantial deepening are most likely to affect the development of palatolaly. Our results which corroborate the working hypothesis will need to be further verified on a broader number of patients.

Keywords:

bilateral cleft lip and palate (BCLP), palatolaly (cleft palate speech), palate morphology, 3-D geometric morphometry, finite element scaling analysis (FESA), principal component analysis (PCA)

Úvod

Bilaterální rozštěp rtu a patra (BCLP) patří mezi vzácné rozštěpy orofaciální oblasti. Incidence rozštěpových vad se v České republice pohybuje kolem 1,8 rozštěpů na 1000 živě narozených dětí (Peterka et al., 2000).

Příčiny nesyndromického BCLP, který leží v centru zájmu této práce, jsou zatím stále nejasné (Mossey et al., 2009). Pravděpodobně ale BCLP, stejně jako většina ostatních typů rozštěpových vad, je podmíněn multifaktoriálně, tedy komplexním působením genetických a environmentálních faktorů (Moore, Persaud, 2002; Jugessur, Murray, 2005). Mnohdy se hovoří v souvislosti s etiologií rozštěpů též o polygenní dědičnosti, jejímž základem je působení více genů malého účinku ovlivněných exogenními faktory (Jelínek et al., 1983).

V posledních několika letech se intenzivně zkoumají růstové faktory a metabolické enzymy, jako jsou TGF α , TGF β 3, MSX1 a MTHFR, u nichž se předpokládá souvislost se vznikem nesyndromických rozštěpů rtu a patra (Jagomagi et al., 2010; Wong, Hagg, 2004; Vieira, 2006). TGF α (transformující růstový faktor α) se podílí na regulaci palatogeneze, ve zvýšené koncentraci se nachází v patrových ploténkách (Fitzpatrick et al., 1990). Mutace jeho genu v souvislosti s kouřením matky v době koncepce zvyšuje riziko vzniku CLP (Shaw et al., 1996). TGF β 3 hraje důležitou roli při tvorbě sekundárního patra (Lidral et al., 1997). Pro patogenezi nesyndromických rozštěpů je klíčová interakce MSX1 a TGF β 3 (Lidral et al., 1998). MTHFR (methylenetetrahydrofolát reduktáza) se jako enzym účastní metabolismu kyseliny listové, která se užívá pro prevenci rozštěpových vad (Mills et al., 1999). Mutace a polymorfismy genu pro tento enzym u matky však vedou k rozštěpu (Prescott et al., 2002).

Environmentální faktory s embryotoxickým účinkem se nazývají teratogeny. Z exogenních faktorů působí embryotoxicky infekce virového (rubeola, cytomegalovirus), bakteriálního (syfilis) nebo parazitického (toxoplazmóza) původu. Pozitivní vliv na rozvoj rozštěpu u vyvíjejícího se zárodku má expozice matky radioaktivnímu záření (Vohradník, 2001; Kriegel et al., 1986). Z chemických látek má prokázaný teratogenní účinek zvýšené množství vitamínu A, glukokortikoidy, antibiotika, antipyretika a cytostatika. (Jelínek et al., 1983). Z mateřských vlivů působí na počátku ontogeneze jedince vliv výživy, metabolismu a chronických onemocnění matky (Vohradník, 2001). V kontextu s BCLP je uváděn škodlivý vliv kouření matky v těhotenství (Little et al., 2004; Honein et al., 2007).

Výsledky studií potvrzují nárůst incidence rozštěpů v souvislosti se zvyšujícím se věkem rodičů (Saxen, 1974).

Orofaciální rozštěpy však mohou z morfogenetického hlediska vznikat pouze v určitém období prenatalního vývoje, v tzv. **kritické periodě**, která se rozprostírá mezi 27. až 60. dnem. Po překročení terminačního bodu, který je prahovou hodnotou, v tomto případě 60. dne, již není možné rozštěp vyvolat. Zároveň ale musí být diferencující se tkáň v tomto období citlivá k teratogenu, tedy senzitivní, v časovém horizontu se hovoří o senzitivní periodě. Kritická a senzitivní perioda se tedy musí alespoň částečně překrývat, aby se rozštěpová vada projevila (Peterka, Novotná, 2010; Jelínek, 1983).

Jedinci s oboustranným rozštěpem rtu a patra během svého života prochází celou řadou terapií, od cheiloplastiky, přes palatoplastiku a plastiku nosu, k řešení ortodontických anomálií a poruch řeči, které si kladou za cíl umožnit žít pacientům stejně kvalitní život, jaký žijí lidé bez rozštěpu.

Hlavním cílem diplomové práce je zmapovat morfologii patra pacientů s oboustranným rozštěpem rtu a patra a objasnit její možný vliv na rozvoj palatolalie.

Diplomová práce je rozdělena na teoretickou a praktickou část. Teoretická část v sobě zahrnuje první dvě kapitoly.

První kapitola je věnována bilaterálnímu rozštěpu rtu a patra. Zde je porovnáván embryonální vývoj a následný růst orofaciální oblasti u zdravých jedinců a u pacientů s rozštěpem. Zmiňována jsou postižení, která se objevují v souvislosti se zmíněnou rozštěpovou vadou, a jejich důsledky.

Druhá kapitola pojednává o poruše řeči, zvané palatolalie. Zprvu zde uvádím a vysvětluji základní pojmy z fonetiky a principy správné artikulace. Dále se zabývám palatolalií z hlediska její etiologie, příznaků, klasifikací palatolalie, diagnostikou a terapií. Zmínka je také o velofaryngeální dysfunkci, která je většinou sdružena s palatolalií.

Praktická část je složena z celkem pěti kapitol, konkrétně ze třetí až sedmé kapitoly.

Ve třetí kapitole vymezují hypotézu a cíle diplomové práce. Ve čtvrté kapitole popisují výzkumný vzorek. Pátá kapitola se zabývá metodikou diplomové práce, přibližuje čtenáři použité 3-D metody geometrické morfometrie, kterými jsou analýza hlavních komponent a analýza konečných prvků. Šestá kapitola zahrnuje statistiku. Největší část praktické části diplomové práce zaujímá sedmá kapitola věnovaná výsledkům. Výsledková část je rozdělena na dvě hlavní podkapitoly. První z nich shrnuje výsledky založené

na porovnání průměrných tvarů pater BCLP pacientů s palatolalií a bez palatolalie. Druhá podkapitola obsahuje výsledky týkající se variability tvaru pater.

Obrazové materiály (obrázky, grafy) jsem umístila do textu z důvodu lepší orientace čtenáře v diplomové práci.

Téma diplomové práce zasahuje do oboru kosterní a klinické antropologie a logopedie. Pro téma jsem se rozhodla z několika důvodů. Již v předchozím studiu jsem se v bakalářské práci zabývala kraniofaciálními malformacemi, zahrnujícími též rozštěpové vady orofaciální oblasti, proto jsem se rozhodla pokračovat v podobném tématu i v diplomové práci a specializovat se na konkrétní typ rozštěpu. Dále mě téma oslovilo i z toho důvodu, že výsledky mohou být například využity i v lékařské praxi, neboť průkazem vlivu morfologie patra na rozvoj palatolalie by mohla být v chirurgické praxi volena cílená léčba ve snaze eliminovat tvarové charakteristiky patra typické pro pacienty s palatolalií.

1. Oboustranný rozštěp rtu a patra (BCLP)

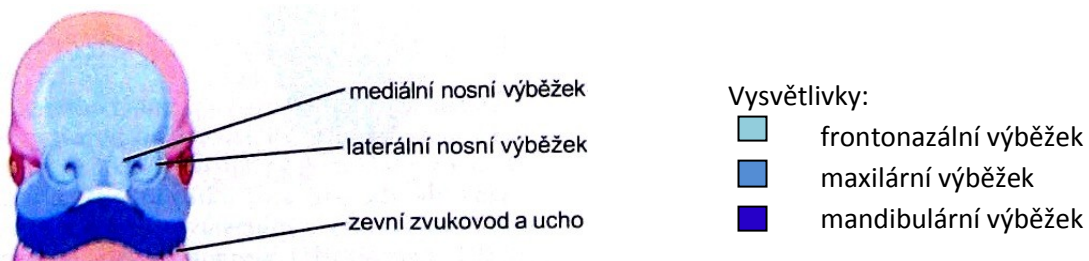
1.1 Embryonální vývoj a růst orofaciální oblasti

1.1.1 Normální embryonální vývoj orofaciální oblasti

Lidská lebka je složena z neurokrania a splanchnokrania. Kostěný podklad obličeje tvoří splanchnokranium, které se ve fylogenezi vyvinulo z žaberních oblouků. Žaberní oblouky postupně začaly splývat s krycími kostmi osifikujícími desmogeně, které se staly dominantními, a z původních žaberních oblouků pochází pouze kůstky středního ucha (kladívko, kovadlinka, třmínek), bodcovitý výběžek kosti spánkové a jazylka (Čihák, 2001).

V embryogenezi je obličej vytvářen ze základů uspořádaných kolem stomodea, primitivní dutiny ústní, na začátku čtvrtého týdne. Obličejové základy zahrnují pět výběžků, nepárový frontonasální výběžek a párové mandibulární a maxilární výběžky. Výběžky jsou diferencovány migrací proliferujících buněk neurální lišty, jež vycestovávají z neurálních valů a představují zdroj pojivových tkání v oblasti obličeje.

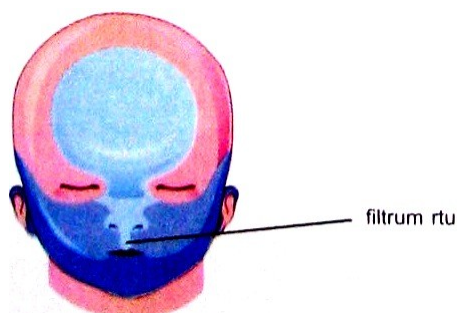
Frontonasální výběžek obklopuje stomodeum shora a tvoří čelo a hranici mezi nosem a stomodeem. Maxilární výběžky ohraničují stomodeum laterálně a mandibulární zdola. Nejprve se vyvíjí mandibula a dolní ret splynutím mandibulárních výběžků ve střední čáře. Na konci čtvrtého týdne se formují ztlustěním ektodermu nasální plakody, jejichž obvodový mezenchym proliferuje a vytváří mediální a laterální nasální výběžky (viz obr. 1).



Obr. 1: Schéma zobrazující stádium vývoje lidského obličeje ve věku 35 dnů nitroděložního vývoje. (Moore, Persaud, 2002)

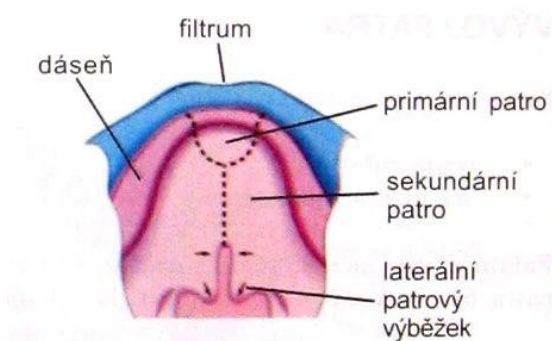
Kolem sedmého až desátého týdne splývají mediální nosní výběžky a jejich produktem je nosní přepážka, filtrum, premaxilární část maxily a primární patro. Dochází též ke spojení mediálních nosních výběžků s maxilárními, čímž se vytváří maxila a horní ret, i s laterálními nosními výběžky. Laterální nosní výběžky se podílí na vzniku nosních

křídél. Na obr. 2 je již vyobrazen kompletně vytvořený obličej plodu ve věku 14 týdnů (Moore, Persaud, 2002).



Obr. 2: Schéma zobrazující stádium vývoje lidského obličeje ve věku 14 týdnů nitroděložního vývoje. (Moore, Persaud, 2002)

Nyní se podrobněji podívejme na vývoj patra, který probíhá od konce pátého týdne až do týdne dvanáctého, tedy během embryonálního i počátku fetálního období. Patro je složeno z vývojového hlediska z primárního a sekundárního patra. Primární patro zahrnuje pouze oblast premaxily, sekundární patro rozsáhlejší segment tvrdého patra za foramen incisivum a měkké patro (viz obr. 3).



Obr. 3: Nákres stropu dutiny ústní. (Moore, Persaud, 2002)

Sekundární patro začíná být formováno na začátku šestého týdne nitroděložního vývoje, kdy z laterálních okrajů maxilárních výběžků vyrůstají patrové ploténky, které zprvu směřují vertikálně dolů podél stran jazyka. Tím jak roste mandibula, jazyk je posouván dopředu a dolů, čímž je uvolněno místo pro patrové ploténky a umožňuje to jejich horizontalizaci, jež nastává během sedmého až osmého týdne. Patrové ploténky se k sobě přibližují, až nakonec ve dvanáctém týdnu splývají ve střední čáře. Následně se v patrových ploténkách diferencuje kostní tkáň tvořící tvrdé patro, kaudální část plotének zůstává nezosifikovaná v podobě měkkého patra s uvulou (Moore, Persaud, 2002; Moxham, 2003).

Z molekulárního hlediska závisí spojení patrových plotének na epitel - mezenchymální transformaci (Lavrin et al., 2000) a účastní se ho celá řada homeoboxových genů, jako například Hoxa1 a Hoxa2, a signálních faktorů (TGFβ3, EGF...) (Mietlinen et al., 1999).

1.1.2 Normální růst patra

➤ Prenatální růst

Při již zmíněném procesu horizontalizace patrových plotének a jejich splnutí ve střední čáře se v literatuře uvádí až zdvojnásobení délky mandibuly a výšky oronasální dutiny, šířka maxily však zůstává na stejných hodnotách (Diewert, 1980).

Během časných stádií vývoje po srůstu patrových plotének roste alveolární oblouk mnohem rychleji do délky než do šířky. Později mají některé proporce patra tendenci se ustalovat (Kraus, 1960).

➤ Postnatální růst

Maxila roste do šířky pouze do 13. roku věku dítěte. Ke značnému zvětšení šířky maxilárního oblouku dochází před prořezáním dočasného chrupu, tedy mezi 6. týdnem až 2. rokem. Další významný nárůst do šířky následuje mezi 3 až 13 roky. Přírůstek vzdálenosti mezi hroty špičáků během této periody postnatálního období je u chlapců průměrně 6-7 cm a přírůstek vzdálenosti mezi středy zadních obvodů korunek druhých dočasných molárů (příp. druhých premolárů) se průměrně pohybuje kolem 4-6 mm (Jelínek et al., 1983; Bishara et al., 1997).

U šířkových parametrů se vyskytuje intersexuální diference, u dívek dosahují nižších hodnot (Peterka, Pěnkava, 1975).

Do délky roste horní čelist u chlapců lineárně od 3 do 19 let a délkový přírůstek činí 20 mm. Maxila se prodlužuje u dívek stejným způsobem jako u chlapců do 12 let, po 12. roce se růst zpomaluje a po 15 letech se téměř zastaví. V důsledku toho je maxila dívek na počátku dospělosti o 5 mm kratší oproti chlapcům (Jelínek et al., 1983).

1.1.3 Embryonální vývoj orofaciální oblasti při oboustranném rozštěpu rtu a patra

Při BCLP je vývoj orofaciální oblasti narušen. Zprvu vzniká oboustranný rozštěp rtu v důsledku nespojení maxilárních výběžků se srostlými mediálními nasálními na obou

stranách. V případě BCLP je rozštěp rtu kompletní, kromě rtu je postižený i alveolus, čímž intermaxilární segment tvořený filtrem a premaxilou volně visí a vyčnívá dopředu. Rozštěp rtu dále doprovází kompletní rozštěp patra. Možných příčin vzniku rozštěpu patra se v embryogenezi nabízí hned několik. První z nich je nedostatečná schopnost mezenchymu patrových plotének dorůstat dostatečné velikosti, aby po horizontalizaci mohlo dojít k jejich vzájemnému splynutí. Nebo dojde k narušení horizontalizace v důsledku nedostačujícího růstu mandibuly, kdy jazyk setrvává na svém původním místě a nevytvoří volný prostor pro horizontalizaci plotének (Moore, Persaud, 2002).

1.1.4 Vývoj a růst patra při BCLP

Při narození mají jedinci s BCLP větší šířku definovanou vzdáleností mezi špičáky než zdraví novorozenci (Heidbuchel et al., 1998a).

Ve druhém měsíci po narození, kdy již byla provedena operace rtu, je délka maxily měřená od předního nosního trnu k fissura perygomaxillaris značně zvýšená oproti skupině s neúplným jednostranným rozštěpem rtu a patra (Heidbuchel et al., 1997). Od 6. měsíce dochází v rámci skupiny BCLP pacientů ke zkracování maxily. Ale v porovnání s jedinci bez rozštěpu mají BCLP pacienti delší maxilu až do 12. měsíců (Heidbuchel et al., 1998a). Distální maxilární šířka dosahuje v této studii u skupiny BCLP pacientů výrazně vyšších hodnot (Heidbuchel et al., 1997). Mírný nárůst vykazuje šířka mezi špičáky, a to až do věku 6 měsíců, v následujícím období do 18. měsíce dochází poté k zužování maxily (Heidbuchel et al., 1998a).

Ve 22. měsíci, tedy ještě před provedením palatoplastiky zkoumaného vzorku BCLP populace, není tak významný rozdíl u parametru zadní šířky maxily, objevuje se pouze mírné rozšíření od předchozího měření. Prognatismus maxily se v průběhu 20 měsíců snížil. Šířka maxilárního zubního oblouku na úrovni prvních trvalých molárů vykazuje zvětšení, naopak došlo k zúžení vzdálenosti mezi prvními dočasnými moláry. Pokles byl zaznamenán též u celkové délky zubního oblouku maxily (Hermann et al., 2004).

V jiné studii byly zkoumány růstové změny maxily u dětí od 3 do 17 let. U tří až šestiletých pacientů výzkumníci nezaznamenali výrazný rozdíl v hloubce horní čelisti oproti kontrolnímu zdravému souboru jedinců (Heidbuchel et al., 1997). V novějším výzkumu byla však prokázána celková menší délka maxily u čtyřletých BCLP dětí vůči stejně starým zdravým jedincům (Heidbuchel et al., 1998b). Pozorováním růstu maxily od 5 měsíců do 4 let byl objeven nižší růst do výšky při BCLP než u populace zdravých

pacientů (Wada et al., 1984). Po 9. roce věku dětí bylo zjištěno relativní zmenšení hloubky patra u BCLP pacientů ve vztahu ke zdravým dětem. Šířka maxilárního dentálního oblouku vykazovala při BCLP nižší hodnoty přes všechny sledované roky než u kontrolního souboru. Zatímco u zdravých jedinců se objevil nárůst šířky maxily, u BCLP pacientů se vyskytla opačná tendence. Nejmarkantnější šířkový rozdíl byl zaznamenán mezi špičkami. V 17 letech tak bylo patro v této oblasti o 30% užší než u jedinců bez rozštěpu. V případě šířky měřené mezi prvními moláry činilo zmenšení rozměru v totožném věku u BCLP jedinců 17% oproti kontrolnímu souboru (Heidbuchel et al., 1997).

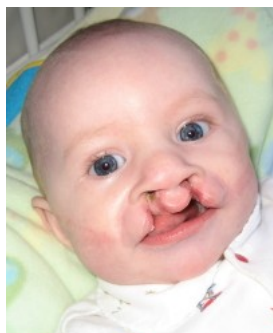
1.2 Postižení pacientů s BCLP

1.2.1 Morfologie obličeje u neoperovaných BCLP pacientů

U pacientů s neoperovaným kompletním oboustranným rozštěpem rtu a patra výrazně promínuje premaxila, v důsledku čehož je profil obličeje konvexní. Míra konvexity závisí na pohlaví, větší byla prokázána u žen. Nasolabiální úhel vykazuje značné zvětšení oproti jedincům bez rozštěpu (Silva Filho, Lauris et al., 1998b). Prolabium postrádá jakákoliv svalová vlákna, a je tak zavěšeno pouze na nosní přepážce. Z vnějšího pohledu vypadá, že je připojeno pouze ke špičce nosu. Kolumela je zkrácená nebo zcela chybí. Špičku nosu mají pacienti s BCLP širokou a plochou bez výrazné prominence. Nosní dírky jsou roztažené (McComb, 1990).

Mandibula je oproti premaxile retrognátní, což je způsobeno její rotací ve směru chodu hodinových ručiček a menší délkou. Přítomnost prominentní premaxily a malé mandibuly vyústíuje ve výrazný nepoměr mezi čelistmi (Silva Filho, Lauris et al., 1998b; Bishara et al., 1978).

Typická morfologie obličeje jedince s BCLP je znázorněna na následujících obrázcích (obr. 4 a 5).



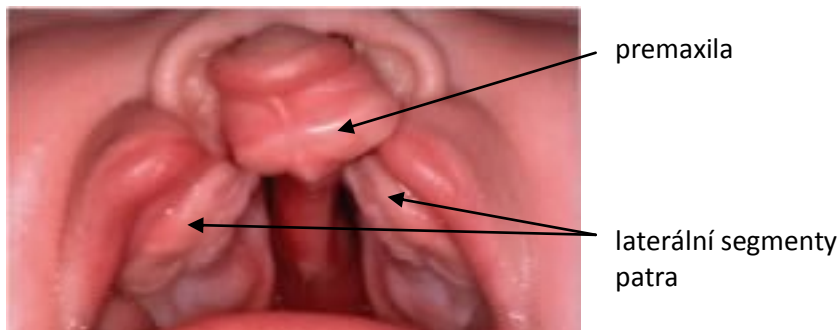
Obr. 4: BCLP novorozenec z frontálního pohledu. (www.cleftstories.com/cleft-lip-palate-archives/nam-gallery-2/)



Obr. 5: Pacient s BCLP z profilu. (Silva Filho et. al., 1998)

1.2.2 Morfologie tvrdého patra u neoperovaných BCLP jedinců

Maxila je u neoperovaných BCLP pacientů rozdělena do tří částí (viz obr. 6). Střední segment je tvořen premaxilou a dva postranní segmenty představují části patra (Silva Filho et al., 1998a).



Obr. 6: *Morfologie patra neoperovaného BCLP pacienta.* (Wutzl et al., 2009)

Premaxila je u těchto pacientů hypoplastická, výrazně vysunutá dopředu a odchýlená od střední linie obličeje (Jelínek, 1983; Bishara et al., 1997). Premaxila má ve vývoji tendenci postupovat ještě více dopředu, zatímco laterální části se k sobě postupně přibližují, což je způsobeno absencí tkáně patra mezi maxilárními výběžky (Silva Filho et al., 1998a).

Šířka maxily definovaná jako vzdálenost mezi středy zadních obvodů korunek druhých mléčných molárů (popř. druhých premolárů) je po narození největší (Jelínek, 1983). Postupným přibližováním laterálních částí maxily během růstu dochází k výslednému zúžení maxily. Autoři tak prokázali, že za zmíněným zúžením maxily nestojí chirurgická léčba, o čemž byli přesvědčeni jiní výzkumníci (viz dále).

Výsledky zahraniční studie ukazují, že pacienti s BCLP mají užší a delší horní zubní oblouk než jedinci bez rozštěpu. V této studii zároveň nebyla prokázána žádná intersexuální variabilita ve velikosti maxilárního zubního oblouku, která je jinak typická u zdravé populace. Přítomnost rozštěpu má tak v případě BCLP jedinců výrazný vliv na morfologické charakteristiky maxilárního oblouku narozdíl od pohlaví (Silva Filho et al., 1998a).

1.2.3 Morfologie obličeje u BCLP pacientů po operacích

Řada autorů se ve svých výzkumech zabývala charakteristickými rysy pater operovaných BCLP pacientů na základě porovnání s kontrolním souborem tvořeným zdravými jedinci.

Šestiletí pacienti mají ještě výrazně prominující premaxilu vzhledem k bazi lebeční. V rozmezí mezi 6 až 12 lety však byla ve studii zpozorována retropozice premaxily, čímž se snížila konvexita obličeje. Jako hlavní podíl byl uveden tlak rtů umožněný v důsledku regenerace svalstva po operaci rtu, provedené ve třech měsících věku jedinců. Retropozice pokračovala až do dospělosti, kdy bylo dosaženo normální pozice premaxily (Trotman et al., 1993; Silva Filho, Neto et al., 2002). ANB úhel charakterizující sagitální mezičelistní vztahy klesal se vzrůstajícím věkem BCLP pacientů a pohyboval se od $12,7^\circ$ v 6 letech po hodnotu $4,2^\circ$ v dospělosti. Došlo též ke zmenšení úhlu definovaného kefalometrickými body Ba-N-ANS o $2,2^\circ$. Pro porovnání, u zdravé populace tento rozdíl činil 1° . V šesti letech byl poměr výšky horního obličeje vzhledem k celkové výšce obličeje 42.8% (Trotman et al., 1993).

Po protrakci maxily se zvětšila dentoalveolární výška (Tindlund, Rygh, 1993).

Mandibula BCLP pacientů je narozdíl od horní čelisti retrusivní a má zvýšený goniový úhel. Výška předního dolního obličeje u těchto pacientů je prodloužená, zatímco zadní výška obličeje redukována. Longitudinální pozorování úhlu dolního obličeje definovaného osami NL/ML prokázalo dosažení maxima hodnoty ve 13 letech. Vývoj parametrů úhlu vykazuje střídavě vzrůstající tendenci u BCLP pacientů, zatímco u kontrolního souboru zdravých pacientů se vyskytuje tendence opačná, tedy klesající (Semb, 1991).

V rámci jiné zahraniční studie byl pozorován vývoj nosu u pacientů s BCLP. Výsledky potvrdily růst nosu převážně ve směru dolů než dopředu, přičemž největší přírůstky byly zaznamenány mezi dvanáctým až šestnáctým rokem života jedinců. Během osmého až šestnáctého roku se též zvětšila konvexita nosu (Ishii et al., 1996).

1.2.4 Morfologie patra u BCLP pacientů po operacích

➤ Cheiloplastika

Porovnáním parametrů šířky v alveolární krajině, v oblasti mezi hroty špičáků a v oblasti tuber maxillae před operací rtu a po ní došli vědci k závěru, že se po provedeném zákroku maxila zúžila. Zmíněná redukce šířky byla nejspíše způsobena

posunem segmentů horní čelisti v důsledku reparace svalové tkáně, mediálním růstem a změnami úhlu patrových plotének. Po cheiloplastice totiž došlo k mediálnímu posunu předních částí ústní dutiny a k retropozici premaxily (Harding et al., 1972). Vzdálenost mezi hroty špičáků dosahuje v období dočasné dentice nízkých hodnot, po výměně za trvalé špičáky se zvětší. K největšímu nárůstu dochází kolem 15. roku, je zde uplatňován vliv ortodontické léčby. Konečná šířka premaxily činí přibližně 36 mm, je nižší oproti šířce při izolovanému rozštěpu rtu a při jednostranném rozštěpu rtu a patra (Jelínek, 1983).

V jiné studii vědci zjistili, že rozdíl v přední šířce maxily mezi 3. až 6. měsícem po cheiloplastice činí v průměru 4 mm (Kramer et al., 1994). Na základě měření v 6 měsících bylo zjištěno prodloužení maxily, které pokračovalo i během období prořezávání dočasné dentice. Nárůst šířky v oblasti tuber maxillae byl zaznamenán v jednom a půl roce a zvětšení šířky mezi hroty špičáků ve 2 letech oproti roku prvnímu (Harding et al., 1972; Heidbuchel, Kuijpers-Jagtman, Van't Hof et al., 1998b)

➤ **Palatoplastika**

Ve stávajícím pooperačním období po palatoplastice byl v rámci zahraničních studií u BCLP pacientů zaznamenán mírný pozitivní růst šířky mezi horními špičáky (Heidbuchel, Kuijpers-Jagtman, Van't Hof et al., 1998b). Jiný výzkumný tým však dospěl k závěru, že sice dochází k rozšiřování oblasti mezi špičáky, ale pouze do 38. měsíce, po tomto datu se rozměr začne exponenciálně snižovat (Kramer et al., 1996). Zadní šířka patra byla po předchozím mírném růstu opět po uzavření patra snížena, s odstupem času však nastal catch-up růst, a parametry tohoto rozměru byly značně zvýšeny (Heidbuchel, Kuijpers-Jagtman, Van't Hof et al., 1998b).

Přední hloubka maxily vykazovala podobnou tendenci. Po přechodném snížení velikosti v období mezi 30. až 42. týdnem věku jedinců následoval nárůst rozměru. V případě celkové délky maxilárního oblouku došlo po chirurgické léčbě ke zmenšení rozměru u BCLP pacientů (Heidbuchel, Kuijpers-Jagtman, Van't Hof et al., 1998b; Kramer et al., 1996). U pacientů s BCLP se objevuje snížená růstová rychlost maxily, v důsledku čehož vznikají ortodontické anomálie v podobě špatného postavení zubů. **Délka maxily** měřená od papilla incisiva po tuber maxillae kolem 15. roku je kratší v důsledku retruze maxily. Obvod alveolárního oblouku je tak o 12 mm menší než u kontrolního souboru. V případě šířky maxily dochází po chirurgických zákrocích k jejímu zmenšení (Jelínek, 1983).

Morfologií patra operovaných BCLP pacientů ve srovnání se zdravou populací se zabývala též česká studie. Bylo zjištěno, že u patnáctiletých jedinců s BCLP je patro kóničtější v přední části po oblast mezi druhými premoláry. Značné zúžení v přední oblasti je vysvětlováno oboustranným poškozením patra v důsledku vlastní vady. V následujících úsecích se patro začíná na příčných řezech zakulacovat, stále však vykazuje nižší šířku oproti kontrolní skupině. Mírné rozšíření patra v zadní části patra koresponduje s efektivní ortodontickou léčbou. V oblasti za premaxilou je patro vyšší, posteriorním směrem dochází ke snížení výšky. U BCLP jedinců byl prokázán určitý stupeň asymetrie výšky patra na pravé straně patra, konkrétně v rovině mezi prvními premoláry bylo patro na této straně vyšší v průměru o 1 mm a na úrovni prvních molárů nižší o 1 mm. Nevyskytl se žádný výrazný rozdíl v délce dentoalveolárního oblouku (1 mm) mezi oběma skupinami (Šmahel et al., 2009).

Analogické závěry byly učiněny v novější studii jiných autorů zaměřené též na využití 3-D metod geometrické morfometrie (Bejdová et al., 2011). I zde byly prokázány rozdíly v šířkových a výškových parametrech tvrdého patra u pacientů s BCLP oproti zdravým jedincům. V oblasti mezi premaxilou a maxilou byla navíc zjištěna přítomnost konvexní prohlubně, odrážející lokalizaci původní rozštěpové štěrbiny. Vědci dále vyzkoumali, že landmark na papilla incisiva leží pod rovinou patra při BCLP oproti kontrolnímu souboru zdravých jedinců, u nichž se nachází bod v rovině.

1.3 Důsledky postižení BCLP

Oboustranný rozštěp s sebou přináší celou řadu komplikací. Po narození mají děti potíže s příjmem potravy. Následují problémy estetické, související s aspekty psychologickými a sociálními. U pacientů se často vyskytují dentální anomálie, trpí středoušními záněty a poruchami řeči.

Během prvních několik týdnů života u novorozenců s BCLP je zásadní zajistit správnou techniku **krmení**, která je vhodná vzhledem k malformaci. Jelikož v důsledku rozštěpové štěrbiny není novorozenec schopen vytvořit negativní tlak v dutině ústní, který umožňuje sání, musí ho matka krmit speciálním způsobem z kojenecké lahve (Davis, 1990). Dnes již existují i speciální lahve pro malé pacienty s rozštěpovými vadami (Reid et al., 2007).

Malí pacienti často trpí svým vzhledem, a to i po plastických operacích, neboť si vsugerovávají, že odlišnost od zdravých jedinců na nich musí být znát. Od těchto myšlenek se odvíjí **psychické problémy**, které ovlivňují **sociální interakce**. Jedna studie dokazuje, že děti s rozštěpem jsou více plaché než děti stejného věku bez rozštěpové vady, často si hrají s mladšími dětmi a vyhýbají se delším rozhovorům se svými přáteli. Jedinci s rozštěpovou vadou trpí emočními problémy či se u nich projevují poruchy chování (Lavigne, Wills, 1990). A právě rodina, přátelé, učitelé a školství jsou klíčové společenské faktory, které mohou mít vliv na sebehodnocení jedince s BCLP, ať již v pozitivním či negativním smyslu (Turner et al., 1998).

Z **dentálních anomálií** má své zastoupení absence laterálních řezáků v místě rozštěpové štěrbině a horních i dolních druhých premolárů. V důsledku zkrácení zubního oblouku dochází ke stěsnání chrupu (Chetpakdeechit et al., 2010; Bartzela et al., 2010; Tortora et al., 2008). Za hypodoncií stojí jako druhá v řadě nadpočetná dentice, která se definuje jako výskyt zubu v oblasti rozštěpové štěrbině za předpokladu přítomnosti laterálního řezáku. Nadpočetný zub se nachází distálně od pravého nebo levého postranního řezáku (Tereza et al., 2010). Také se však může objevit zdvojení horních laterálních řezáků, a to buď jednostranné, nebo oboustranné (Šmahel et al., 2009). V jedné zahraniční studii se uvádí při BCLP i zvýšená četnost rotace centrálního řezáku a malformace korunek u centrálních zubů (Tortora et al., 2008).

U pacientů s BCLP se často objevují **ušní záněty** provázené bolestivostí. Mohou vyvrcholit ztrátou sluchu, nebo opožděným vývojem řeči (Sheahan et al., 2003; Flynn et al., 2009). **Záněty středního ucha** se u těchto jedinců opakují a jsou doprovázené tvorbou ušního sekretu (Stool et al., 1967). U rozštěpových pacientů je jejich příčinou dysfunkce Eustachovy trubice, přesněji řečeno poškození svalů zodpovědných za otevření Eustachovy trubice, mezi něž patří musculus tensor veli palatini a levator veli palatini (Kuehn, 2000). Jejich svalová vlákna nejsou dostatečně ukotvena, aby mohla otevřít Eustachovu trubici. Tímto dochází k nedostatečné ventilaci středoušní dutiny, v důsledku čehož zde vzniká podtlak, jehož trvalá přítomnost vede k retrakci membrana tympani a vylučování hlenu ze sliznice do dutiny středního ucha (Masters et al., 1960; Broen et al., 1996). Tento typ zánětu může vést k již zmíněné nedoslýchavosti, ať již trvalé či opakující se, a postihnout jedno nebo obě uši (Gravel et al., 2000).

Poruchám řeči v souvislosti s rozštěpem, konkrétně palatolalii, se věnuje následující kapitola.

Cílem komplexní léčby těchto pacientů je normalizovat vzhled obličejových partií, funkce, jako řeč, dýchání, sluch či žvýkání, a psychologickou stránku jedince. A tím tedy zmírňovat problémy, které mohou narušit kvalitu života pacientů. Obvykle v době, kdy pacient dovrší věku dvaceti let, se ukončuje růst tvrdých tkání tvořících podklad obličeje a pacienti se již poté obvykle nepodrobují dalším chirurgickým zákrokům a ortodontické léčbě. Výsledky zahraniční studie dokazují, že u jedinců s BCLP přetrvávají sociální problémy, ale jinak dokáží žít poměrně kvalitní život (Marcusson et al., 2001). Jiná zahraniční studie zaměřená na dospělé pacienty ukazuje, že většina jedinců není ani po řadě terapií spokojena se vzhledem horního rtu a nosu a mají problémy s dýcháním nosem. Další funkční komplikace uvádí 30 - 45% pacientů ve zkoumaném vzorku, jedná se o řeč, sluch a konzumaci nápojů (Oosterkamp et al., 2007).

2. Palatolalie

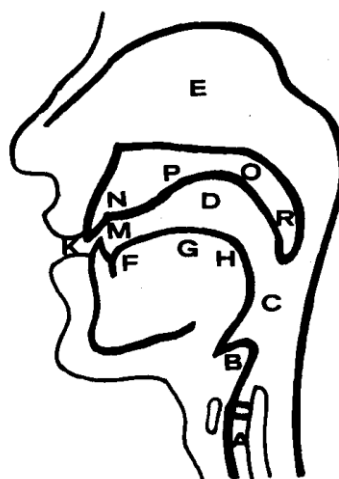
2.1 Fonetika a fonologie

Fonetika je věda zabývající se tvorbou hlásek, zatímco fonologie zkoumá zvukovou stránku řeči. Pro pochopení palatolalie je nejprve zapotřebí vysvětlit správnou tvorbu hlásek.

2.1.1 Tvorba hlásek a jejich klasifikace

Hláskotvorné zvuky vznikají rozkmitáním hlasivek průchodem proudu vzduchu a jejich rezonancí v prostorách nad glottis, a to ve faryngu, dutině ústní a nosních dutinách. Za účelem správné artikulace a rezonance je nezbytná zpětná vazba sluchového a neuromotorického aparátu. Pro tvorbu jednotlivých hlásek je klíčový kontakt mluvidel v určitých místech (Nagarajan et al., 2009; Dušková et al., 2007). Schéma mluvidel je znázorněno na obr. 7.

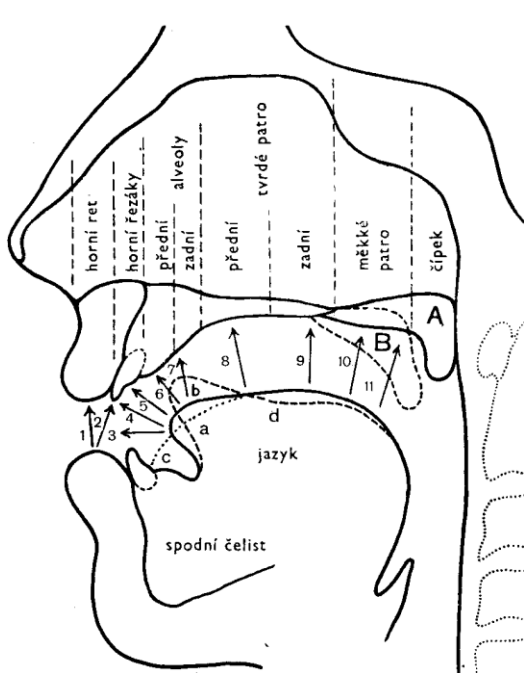
Schematický průřez mluvidly
A - hlasivky, B - příklůpek hrtanový (epiglottis), C - dutina hrdelní, D - dutina ústní, E - dutina nosní, F - špička (hrot) jazyka, G - hřbet jazyka, H - kořen jazyka, K - rty, M - horní a dolní řezáky, N - alveolární (dásňový) výstupek (alveoly), O - měkké (zadní) patro, velum, P - tvrdé (přední) patro, palatum, R - čípek



Obr. 7: Schéma mluvidel. (Vyštejn, 1991)

Hlásky lze klasifikovat na základě toho, kde vznikají, tedy kde se nachází místa jejich artikulace, v literatuře se dále popisují artikulační okrsky (viz obr. 8). V českém jazyce jsou rozlišovány hlásky retoretné (bilabiální), retozubné (labiodentální), dásňové (alveolární), tvrdopatrové (palatální), měkkopatrové (velární) a hrtanové (laryngeální), jejichž názvy odpovídají pěti artikulačním okrskům. Mezi souhlásky prvního artikulačního okrsku patří souhlásky bilabiální *p*, *b*, *m*, i hlásky labiodentální *f* a *v*. Tento okrsek se nachází mezi rty nebo rty a řezáky. Hlásky druhého artikulačního okrsku, lokalizovaného

mezi hrotem jazyka a horním alveolárním obloukem, jsou kategorizovány na přední a zadní. K předním alveolárním souhláskám jsou řazeny výbuchové hlásky, tzv. explozivy, *t, d, n, c*, zatímco k zadním alveolárním patří hlásky třené, tzv. frikativy, *s, z, l* a *ř*. Třetí artikulační okřsek rozprostírající se mezi kořenem jazyka a přechodem tvrdého a měkkého patra zahrnuje hlásky palatální, jako jsou *d', t', ň* (explozivy) a *j* (frikativ). Hlásky *k, g* (explozivy) a *ch* (frikativ) jsou vytvářeny v místě měkkého patra, tedy ve čtvrtém artikulačním okřsku. Poslední skupinu hlásek hrtanových, produkovaných hrtanovým rázem, reprezentuje souhláska *h* (Hála et al., 1962; Dušková et al., 2007).

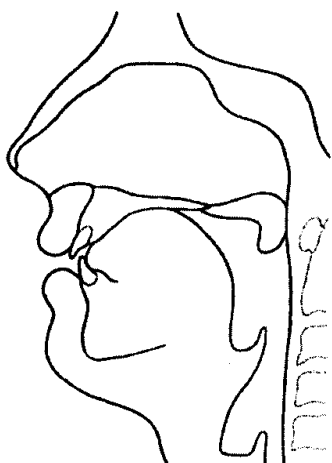


Obr. 22. Součinnost artikulačních činitelů se základnou. Artikulace: 1 – bilabiální, 2 – labiodentální, 3 – interdentální, 4 – addentální, 5 – dentální, 6 – praealveolární, 7 – postalveolární, 8 – praealveolární, 9 – postpalatální, 10 – praevelární. Hrot jazyka (apex): a – (plná čára) směr intraorální, b – (přerušovaná čára) směr supradentální, c – (tečkovaná čára) směr infradentální; d – hřbet jazyka (dorsum).

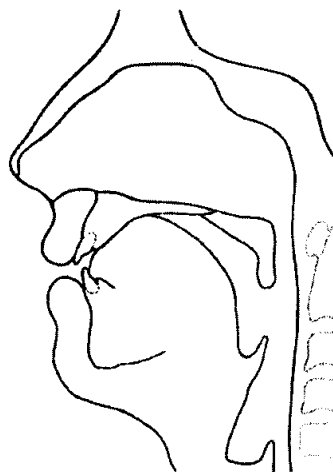
Obr. 8: Lokalizace artikulačních okřsků. (Hála et al., 1962)

Při palatolalii jsou nejvíce narušeny explozivy (*m, p, b, d, t, n, t', d', ň, k, g*) vyžadující intraorální tlak, z nichž nejvíce souhlásky třetího artikulačního okřsku, *d', t', ň* a *j*.

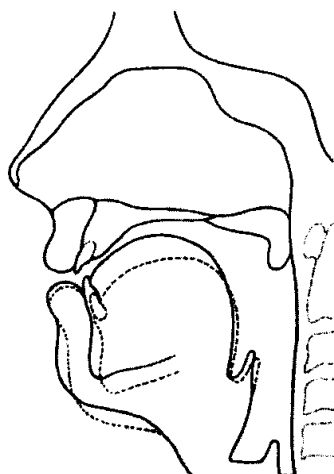
Při normální artikulaci hlásek *d', t', ň* je čelistní úhel malý, hrot jazyka je v kontaktu s dolními řezáky, jazyk se vyklene, až vytvoří závěr na tvrdém patře (viz obr. 10, 11). Hlásky *j* je vyslovována tím způsobem, že hrot jazyka je opřen za dolními zuby a zvednutím hřbetu jazyka je vytvářena úžina s tvrdým patrem (viz obr. 12) (Škodová et al., 2003; Dušková et al., 2007).



Obr. 10: Artikulace hlásky *d'*, *č*. (Škodová et al., 2003)



Obr. 11: Artikulace hlásky *ň*. (Škodová et al., 2003)



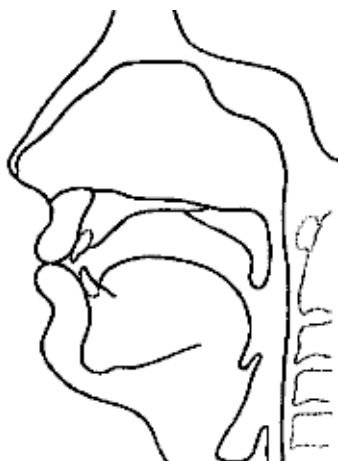
Obr. 12: Artikulace hlásky *j*. (Škodová et al., 2003)

Hlásky prvního artikulačního okrsku *m* je artikulována způsobem, při kterém je rozražen závěr rtů výdechovým proudem, měkké patro je uvolněno a část výdechového proudu uniká nosem (viz obr. 13). Analogické artikulační postavení mluvidel je též uplatněno při výslovnosti souhlásek *p* a *b*, pouze s tím rozdílem, že výdechový proud rozrážející závěr rtů je silnější.

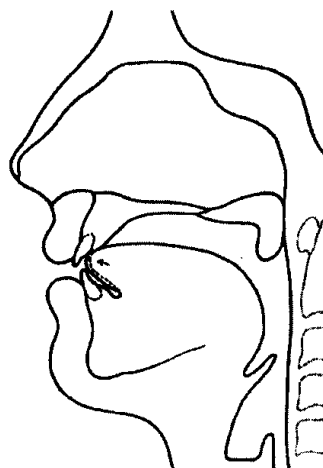
Hlásky *d*, *t*, *n* zařazované do druhého artikulačního okrsku jsou vyslovovány tak, že je hrot jazyka opřen o alveoly za horními řezáky, je zvětšen čelistní úhel a jazyk padá na spodinu ústní (viz obr. 14). Při artikulaci souhlásky *n* je přítomna nosní rezonance,

vyskytující se v důsledku relaxace měkkého patra, kdy výdechový proud zčásti prochází nosem (viz obr. 15).

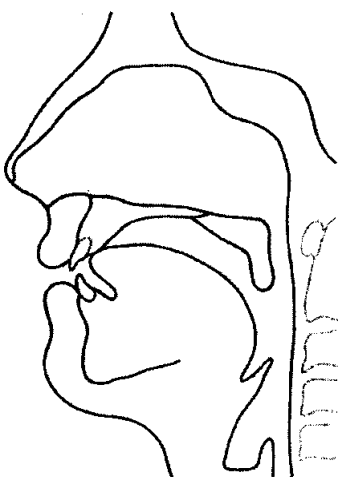
Při artikulaci hlásek čtvrtého artikulačního okrsku *k* a *g* je hrot jazyka volně položen v ústní dutině a hřbet jazyka tvoří závěr na měkkém patře (viz obr. 16) (Škodová et al., 2003).



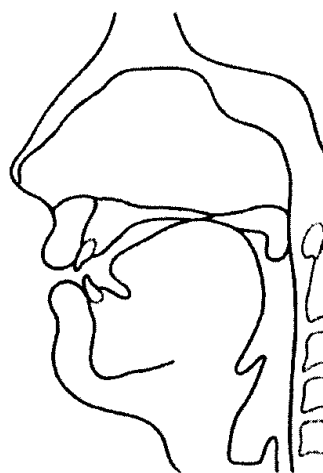
Obr. 13: Artikulace hlásky *m*. (Škodová et al., 2003)



Obr. 14: Artikulace hlásek *d* a *t*. (Škodová et al., 2003)



Obr. 15: Artikulace hlásky *n*. (Škodová et al., 2003)



Obr. 16: Artikulace hlásek *k* a *g*. (Škodová et al., 2003)

V japonské studii byl zkoumán prostřednictvím palatografie kontakt jazyka s tvrdým patrem při artikulaci předních alveolárních souhlásek. Porovnávanými skupinami byli zdraví jedinci bez rozštěpové vady dětského a dospělého věku. Studií bylo zjištěno, že dětští pacienti ve věku od tří do patnácti let mají patro v přední části kratší a mělčí oproti dospělým a v důsledku toho dochází k širšímu kontaktu hrotu jazyka s tvrdým patrem při artikulaci předních alveolárních souhlásek. Pro děti je tak problematické rozlišovat mezi frikativy a afrikáty a jejich palatalizovanými protějšky, k čemuž ještě přispívá nedostatečně kvalitně vyvinutá kontrola nad motorikou jazyka. Charakteristiky tvaru patra poté mohou způsobit opoždění vývoje artikulace předních souhlásek (Hiki, Itoh, 1986).

Na analogické téma byl proveden následující zahraniční výzkum zabývající se porovnáním artikulační a akustické variability několika samohlásek u mluvčích s rozdílnými morfologickými parametry pater. První skupina zkoumaných byla tvořena jedinci s klenutým patrem a druhou skupinu zahrnovali mluvčí s plochým, nevýrazně klenutým patrem. Snahou autora je nalézt vztah mezi artikulační a akustickou variabilitou při výslovnosti samohlásek a tvarem patra. Výsledky studie prokázaly vyšší artikulační variabilitu u jedinců s výrazněji klenutými patry oproti druhé skupině. Artikulační variabilita samohlásek u jedinců s mělkými patry je redukována ve prospěch cíle udržet akustickou variabilitu na úrovni, která je tolerována posluchačem. Další názor na nižší variabilitu artikulace samohlásek u jedinců s mělkým patrem spočívá v nižší variabilitě pozic jazyka při artikulaci hlásek v souvislosti se sníženým prostorem tvrdého patra (Brunner et al., 2009).

2.2 Palatolalie, její etiologie a incidence

Termín palatolalie označuje narušení komunikační schopnosti v důsledku orofaciálních rozštěpů, především pak rozštěpu patra či rozštěpu rtu a patra (Klenková, 2006; Vitásková, Peutelschmiedová, 2005).

Anglickým termínem pro palatolalii „cleft palate speech“ je označována atypická tvorba souhlásek, abnormální nosní rezonance, nadměrný únik vzduchu nosem, pozměněná kvalita laryngeálního zvuku a grimasy v obličeji (Sell et al., 1999).

Míra palatolalie je podmíněna spoustou faktorů. Nejčastěji se odborníci shodují na kauzálním vlivu velofaryngeální insuficience (Vohradník 2001; Hutters et al., 2004). Pacienti s tímto deficitem se jej snaží kompenzovat posunem artikulačních míst

jednotlivých hlásek dozadu, a tak vzniká chybná artikulace, tzv. palatolalie (Dušková et al., 2007). V souvislosti s rozštěpy se jedná především o závislost na druhu a velikosti rozštěpu.

U celkových rozštěpů podněcují palatolalii též ortodontické změny zahrnující anomálie chrupu a čelistí. K možným příčinám je řazen malý čelistní úhel nebo přílišné vysunutí hřbetu jazyka dozadu a vzhůru. Jiným etiologickým faktorem může být oronazální komunikace. Palatolalie se může vyvíjet též v souvislosti s poruchami sluchu, kdy má jedinec problémy s odposloucháváním správné artikulace, která má klíčový význam pro rozvoj řeči a normální artikulace. Dále souvisí s intelektem, s psychologickou stránkou člověka i na sociálních faktorech, například na rodinném a sociálním zázemí (Kuehn et al., 2000; Vohradník, 2001; Zahradková, 2006, Škodová et al., 2003, Lechta et al., 2003). Obvykle hůře hovoří pacienti rodičů s vyšším vzděláním, neboť začínají komunikovat dříve a tím si vytvoří časněji chybné stereotypy řeči, kterých se obtížněji zbavují oproti dětem začínajícím mluvit později (Dušková et al., 2007). Nesmíme ale opomenout závislost na kvalitě odborné lékařské péče a úspěšnosti provedených chirurgických zákroků při reparaci rozštěpu (Škodová et al., 2003). Palatoplastika je dnes již prováděna u malých pacientů ještě před nástupem řeči, aby děti neměly šanci si do té doby zafixovat nežádoucí palatolalické návyky (Dušková et al., 2007).

V některých studiích jsou uvažovány i abnormality tvaru patra u BCLP pacientů jako etiologický faktor poruch řeči (Šmahel et al., 2009; Trefný et al., 2004; Okazaki et al., 1991). Snížená klenba patra zmenšuje prostor pro jazyk, který je důležitým artikulačním orgánem, a přispívá tím k rozvoji patologické řeči (Okazaki et al., 1991).

V České republice jsou ve statistických studiích lidé postižení palatolalií řazeni do skupiny pacientů s poruchou řeči provázející onemocnění. V roce 2009 bylo léčeno 679 pacientů s palatolalií ve věkové kategorii 0 – 18 let. U postižených nad 19 let činila incidence léčených jedinců pouhých 35 palatolaliků, což svědčí o úspěšnosti terapie palatolalie v dětství a v adolescenci (www.uzis.cz/rychle-informace/cinnost-logopedickych-pracovist-cr-roce-2009).

Incidence palatolalické řeči je zvýšena u pacientů s rozštěpem rtu a patra než u pacientů s izolovaným rozštěpem patra, což dokazuje, že abnormální morfologie patra je pouze jednou z příčin poruchy artikulace (Okazaki et al., 1991; Ito et al., 2006).

Chybná artikulace byla objevena ve zvýšené míře u pacientů se zubním obloukem do tvaru V (Ito et al., 2006).

2.3 Symptomatologie

Mezi charakteristické symptomy palatolalie patří porucha rezonance, porucha artikulace a mnohdy i obtížně srozumitelná řeč (Kerekrétiová, 1995). Porucha rezonance, v některých zdrojích uváděná jako porucha nosovosti, se projevuje otevřenou huhňavostí, neboli hypernazalitou. Příčinou je absence patrohltanového uzávěru, a při řeči tak uniká vzduch z nosu, ale také intenzita výdechového proudu vzduchu a stupeň tlaku vzduchu v subglotálních, glotálních a supraglotálních oblastech, tedy i v prostorách orofaryngu a nasofaryngu. Mnohdy se uvádí také hypoplazie měkkého patra. Při artikulaci dochází k huhňavému zabarvení vokálů, a to zejména samohlásek i, e, u. Konsonanty jsou pozměněny v důsledku úniku vzduchu nosem, a tedy z důvodu nedostatečného tlaku vzduchu v dutině ústní. Největší změny ze souhlásek tak prodělávají již zmíněné explozivny, hlásky výbuchové (p, b, t, g,...), dále frikativy, nebo-li hlásky třené (f, v, h, ž,...), problémová je i hláska r (Wyatt et al., 1996; Zahrádková, 2006; Klenková, 2006; Škodová et al., 2003; Lechta et al., 2003).

Kiml, 1978 považuje za základní symptomy otevřenou huhňavost, nesprávnou artikulaci a poruchy mimiky.

Dalšími příznaky, které se nemusí vždy vyskytovat, jsou opožděný vývoj řeči, poruchy hlasu a poruchy neverbálního chování. Opožděný vývoj řeči postihuje dokonce až polovinu dětí s palatolalií (Škodová, Jedlička, 2003). Část symptomů způsobuje vlastní vada, část kompenzační mechanismy (Vohradník, 2001).

Děti s palatolalií se snaží maskovat příznaky rozštěpové vady při řeči, za zmíněným účelem tak užívají různé kompenzační mechanismy. Pacienti je vytváří jednak aktivně, a to kompenzační aktivitou jazyka, způsobující náhradní zvuky, souhyby nosních křídel a mimického svalstva, které mají zamezit úniku vzduchu nosem, či se objevují samovolně, jako v případě hypertrofie nosní sliznice a nosohltanu. Poměrně častá je i kompenzace prostřednictvím zvětšení tzv. Passavantova valu, který při polykání uzavírá nosohltan (Vitásková, Peutelschmiedová, 2005; Sell et al., 1994).

Při palatolalii je posunuta artikulační báze dozadu. V důsledku toho alveolární explozivny (t, d), správně artikulované kontaktem hrotu jazyka s horní alveolární lištou, mají posunuty artikulační body do střední části patra nebo až do oblasti měkkého patra (Ainoda et al., 1985).

2.4 Klasifikace palatolalie

Dříve byla palatolalie řazena mezi poruchy zvuku řeči, a to mezi otevřenou huhňavost či rhinolalie. Dnes však tvoří samostatnou nosologickou jednotku (Klenková, 2006).

Existuje několik klasifikací palatolalie dle různých autorů a kritérií. Palatolalie se podle závažnosti dělí do několika stupňů. Nejčastěji se v odborné literatuře setkáváme s dvojitým členěním.

První z nich (Sovák, 1978) je následující:

1. stupeň – řeč, v níž se projeví jen nepatrné zbytky palatolalie v podobě nenápadné otevřené huhňavosti a zbytků dyslalie,
2. stupeň – v řeči jsou význačnější příznaky huhňavosti i poruchy artikulace, avšak neprojevují se příliš nápadně při komunikaci,
3. stupeň – palatolalie velmi nápadná, řeč ještě srozumitelná,
4. stupeň – řeč není srozumitelná.

Druhá klasifikace (Kerekrétiová, 1995) hodnotí řeč takto:

1. dobrá – řeč je srozumitelná, bez nedostatků typických pro palatolalii s lehkou poruchou rezonance,
2. společensky únosná – v řeči se objevují zbytky palatolalie,
3. těžší srozumitelnost – řeč je obtížně srozumitelná pro okolí, někdy i pro nejbližší,
4. nesrozumitelná řeč – řeč nesrozumitelná pro okolí i pro nejbližší.

Intenzita palatolalie není závislá pouze na velikosti rozštěpové štěrbině, ale i na dalších vlastnostech v dutině ústní, nosní a v nosohltanu (Vohradník, 2001).

2.5 Velofaryngeální insuficience

Správně fungující **velofaryngeální mechanismus** je důležitý pro normální funkci řeči. Kromě toho se účastní primárních funkcí sání a polykání (Lechta et al., 2003). Velofaryngeální uzávěr je tvořen měkkým patrem, laterálními a zadními stěnami hltanu a následujícími svaly: m. levator veli palatini, m. azygos, m. constrictor pharyngis superior, m. palatopharyngeus. U rozštěpových vad orofaciální oblasti vykazují svalová vlákna tendenci sledovat směr rozštěpového okraje, čímž sval začíná a upíná se na kosti a pozbývá

správnou funkci. Principem patrohltanového mechanismu je pohyb měkkého patra nahoru a dozadu (tzv. záklopkový mechanismus) a laterálních stěn hltanu mediálně (tzv. sfinkterový mechanismus) při fonaci hlásek (Lechta et al., 2003; Dušková et al., 2007; Vohradník 2001).

S palatolalií souvisí nedostatečnost patrohltanového mechanismu, zvaná **velofaryngeální insuficience**. Ta vzniká, jestliže nedojde k operaci rozštěpu primárního či sekundárního patra, nebo když se operací sekundárního patra nepodaří vytvořit dostatečný velofaryngeální uzávěr. Měkké patro tak netvoří záklopku a vzduch při řeči odchází nosem, čímž se objevuje hypernasalita. Velofaryngeální insuficience byla prokázána u 10 až 20% dětí, které podstoupily primární palatoplastiku před 18. měsícem života (Shprintzen, 2005).

V lékařských slovnících je velofaryngeální insuficience definována jako nedostatečné uzavření velofaryngeálního uzávěru během řeči, které se projevuje nosovým zabarvením hlasu (medical-dictionary.thefreedictionary.com/velopharyngeal+insufficiency). Jiná definice popisuje velofaryngeální insuficienci jako anatomický defekt měkkého patra nebo m. constrictor superior, jenž má za následek neschopnost vytvořit velofaryngeální uzávěr a poruchy řeči (medical.yourdictionary.com/velopharyngeal-insufficiency).

2.6 Morfologie patra u pacientů s poruchami řeči

Výzkumy zaměřené na morfologii patra u rozštěpových pacientů a v souvislosti s poruchou řeči se vyskytují v malém počtu. Setkala jsem se s publikacemi analogického typu založených pouze na případech pacientů s palatalizovanou artikulací, kterou je však nutné odlišovat od palatolalie. Palatalizovaná artikulace představuje poruchu artikulace, kdy jsou dentální a alveolární souhlásky tvořené za běžných okolností prostřednictvím zubů a hrotu jazyka vytvářené součinností artikulačního pohybu patra a centrální části jazyka (Okazaki et al., 1980). Při palatalizované artikulaci se výrazněji uplatňuje vliv morfologie patra než velofaryngeální nedostatečnost. Ve studii japonských autorů jsou porovnávány morfologické charakteristiky pacientů s jednostranným rozštěpem rtu a patra (UCLP) bez poruchy artikulace a pacientů s palatalizovanou artikulací. V souhrnu vykazují pacienti s poruchou řeči v průměru nižší hodnoty měřených parametrů pater. Nižší index šířky patra u pacientů s poruchou artikulace vypočítaný jako poměr šířky měřené mezi špičáky a zadní šířky mezi nejmediálnějším okrajem dočasných druhých molárů dokazuje

zúžení patra v přední části u této skupiny pacientů. Přední část patra je u nich zkrácená. Zmenšení velikosti tak je vztaženo pouze na přední část patra. Existuje předpoklad, že posledně zmíněné charakteristiky jsou příčinou palatalizované artikulace. Pacienti s palatalizovanou artikulací mají též patro nižší oproti jedincům kontrolního vzorku (Okazaki et al., 1991).

Obdobná zahraniční studie založená na trojrozměrné analýze morfologie patra u operovaných pacientů s UCLP a s palatalizovanou artikulací přinesla následující výsledky. Zadní část patra u pacientů s palatalizovanou artikulací je v horizontálním pohledu užší oproti kontrolnímu souboru se správnou artikulací. Na frontálním pohledu vykazuje přední oblast patra značnou asymetrii. V sagitální rovině je patro těchto jedinců ploché a mělké. Je zde brán v úvahu předpoklad, že zmíněné charakteristiky mohou být příčinou posunu artikulačních bodů směrem dozadu (Nishikubo et al., 2009).

2.7 Diagnostika palatolalie

Speciální diagnostika palatolalie slouží ke zhodnocení úspěšnosti palatoplastiky, a zároveň je důležitá pro odpovídající výběr metod, postupů, forem a prostředků logopedické péče o pacienty s palatolalií (Lechta et al., 2003).

V diagnostice palatolalií je brán zřetel na všeobecné zásady diagnostiky, které v sobě zahrnují zásadu objektivitu, komplexnosti a týmového přístupu.

Nejprve je provedena osobní, rodinná a sociální anamnéza. Poté následuje orientační vyšetření sluchu, je hodnocena schopnost porozumění řeči a produkce řeči a dále je vyšetřována motorika artikulačních orgánů (Klenková, 2006).

2.8 Terapie

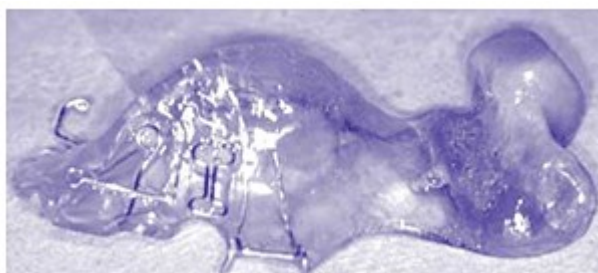
Terapie je založena na interdisciplinárním přístupu, a to na týmové spolupráci v centralizovaných zdravotních zařízeních. Komplexní tým, starající se o pacienty s orofaciálními rozštěpy, se skládá z pediatra, genetika, teratologa, antropologa, anesteziologa, plastického chirurga, ortodonta, foniatra, otorinolaryngologa, stomatologa, psychologa a logopeda. Svou roli však hrají i rodiče a pedagogové. Je důležité, aby si s dětmi povídali a podporovali je v osvojování řeči (Klenková, 2006; Lewis, 1954; Vitásková, Peutelschmiedová, 2005; www.cleftline.org/docs/PDF_Factsheets/Speech.pdf).

První těžko postřehnutelné znaky, které poukazují na odchylky v řeči, rozpoznají pouze zkušení logopedi. Logopedi vedou poradenství pro rodiče, aby tak věděli, jak mají s dítětem doma pracovat. Lékaři dále pro pacienty připravují cvičení pro správný rozvoj rezonance a artikulace. Okolo 15 měsíců je zahájen nácvik řeči prostřednictvím jednoduchých her, kterými jsou foukání do větrníku a syčení. Tato prvotní opatření by měla nasměrovat děti na cestu ke správnému vývoji řeči. Kolem 2 let, kdy začíná být u dětí rozvíjena řeč jako taková, začínají pravidelné návštěvy u logopeda. Prvotní jednotka řeči, která je užívána při terapii, je slabika. Poté jsou zahrnuty jednoduché fráze až postupně celé věty. Další fáze terapie nastává ve 4 letech dítěte. Pacient dochází jednou týdně na kontrolu k logopedovi, a ten jednak kontroluje dech a výstup vzduchu při řeči, dále posuzuje činnost svalů, rtů, jazyka a měkkého patra a hodnotí správnost artikulace (Klenková, 2006; Lewis, 1954).

Pokud nepomůže náprava řeči logopedem ani ortodontem, je přistoupeno k chirurgickému zákroku, jehož hlavním cílem je odstranit velopharyngeální insuficienci. Jsou prováděny dva typy operací: vytvoření faryngeální záklopky (pharyngeal flap procedure) nebo sfinkterová faryngoplastika. V prvním případě vedou chirurgové řez v zadní části krku a vytvoří z tkáně záklopku, kterou následně přišijí k měkkému patru. Tím vznikne přemostění mezi krkem a měkkým patrem, jenž redukuje velofaryngeální prostor. Popsaná technika je považována za efektivnější při léčbě korekce velofaryngeální insuficience, a to zejména u těžkých případů. Při sfinkterové faryngoplastice chirurgové udělají dva řezy po stranách krku. Vzniknou tak dvě přepážky, které jsou připevňovány ke stranám a k zadní oblasti krku. Výsledkem této metody je prstenec tkáně, jenž zmenšuje velofaryngeální prostor (www.cleftline.org/docs/PDF_Factsheets/Speech.pdf; www.cleftline.org/docs/Booklets/SPE_01.pdf; Sloan, 2000). Po chirurgické reparaci je třeba pokračovat v terapii řeči, aby se tak dítě naučilo správně hovořit.

Jestliže se pacient odmítá podrobit chirurgické léčbě, nebo pokud trpí nemocí a není z tohoto důvodu vhodná anestezie, existuje v zahraničí jiná neoperativní možnost, jak improvizovat velofaryngeální uzávěr, a to v podobě protetického aparátu. Protézy vyrábí zubní specialisté. Jejich nevýhodou může být nepříjemný pocit pacienta z přítomnosti cizího tělesa v ústní dutině, v důsledku čehož někteří jedinci odmítají aparát nosit. O protézu je nutné pečovat, vyžaduje pravidelné čištění, úpravy velikosti a jiné technické úpravy (Blakeley, 1964). Existují dva typy patrových náhrad. Jedním z nich je „zaoblené tělíčko umožňující pacientovi řeč“ (*speech bulb*) (viz obr. 13). Aparát má podobu

plastického tělíska, zužující se směrem k velofaryngeální oblasti a částečně uzavírající prostor mezi měkkým patrem a krkem. Protéza drží prostřednictvím úchytů na několika zubech a před spaním si ji pacient vyndává.



Obr. 17: *Speech bulb*. ([www.speechpathology.com/..](http://www.speechpathology.com/))

Druhou možnost pak představuje „zdviháč patra“ (*palatal lift*) (viz obr. 14). Tento prostředek je podobný předchozímu. Prodlouženou část tvoří širší plastická lopatka, která je protažena dozadu, nadzdvihává měkké patro a posunuje ho dozadu. Tím je uzavírán velofaryngeální prostor. Zůstávají pouze malé otvory po stranách, aby mohl člověk dýchat nosem. Aparát drží měkké patro nahoře bez ohledu na to, zda člověk hovoří nebo ne. Je používán u pacientů, jež mají sice normální délku měkkého patra, ale je málo pohyblivé, stejně tak jako stěny krku. Na noc je obvykle vyndáván.



Obr. 18 : *Speech lift*. ([www.speechpathology.com/..](http://www.speechpathology.com/))

Zmíněné protetické pomůcky jsou doporučovány u dětí starších nejméně pěti let (Lewis, 1954; www.cleftline.org/docs/PDF_Factsheets/Speech.pdf; www.cleftline.org/docs/Booklets/SPE_01.pdf; Sloan, 2000).

3. Cíl práce a hypotéza

Jako výchozí bod pro diplomovou práci jsem si stanovila následující pracovní hypotézu:

- ***Na přítomnosti palatolalie u pacientů s BCLP se kromě nedostatečné funkce měkkého patra spolupodílí také morfologické charakteristiky tvrdého patra.***

K jejímu znění mě vedlo několik skutečností. V literatuře jsem se dočítala o velkém vlivu velofaryngeální insuficience na rozvoj palatolalie, její prokazatelný efekt tedy v diplomové práci nijak nepodceňuji. Na druhé straně jsem se setkala též se studiemi, které zkoumaly další možné etiologické faktory v souvislosti s palatolalií a mezi nimi i morfologii tvrdého patra. Jedná se v tomto případě o oblast, která je předmětem neustálých diskuzí ve vědecké sféře, jedni odborníci se přiklání k tomuto názoru, jiní ho odsuzují. Již i zesnulý pan Prof. Šmahel se začal touto problematikou zabývat, setkal se však s opovržením ze strany některých českých logopedů. Jelikož však došlo v zahraničních studiích k pokroku ve zmíněném pohledu, rozhodly jsme se s vedoucí diplomové práce po několika letech vrátit k tomuto tématu.

Pro ověření hypotézy, aby mohla být jednoznačně potvrzena nebo vyvrácena, bylo stanoveno ještě několik dílčích cílů:

- **porovnat variabilitu morfologie a velikosti tvrdého patra u BCLP pacientů s palatolalií a u BCLP pacientů bez palatolalie,**
- **ověřit, zda neexistuje korelace hlavních komponent s věkem,**
- **porovnat průměrné tvary pater u BCLP pacientů s palatolalií a u BCLP pacientů bez palatolalie, na základě toho**
- **popsat morfologii tvrdého patra BCLP pacientů s palatolalií,**
- **zjistit, zda morfologie tvrdého patra může mít vliv na rozvoj palatolalie u pacientů s oboustranným rozštěpem rtu a patra.**

4. Materiál

Pro výzkum byly použity sádrové dentální odlitky maxily pacientů s nesyndromickým oboustranným rozštěpem rtu a patra. Jednu skupinu pacientů tvořili BCLP pacienti bez palatolalie a druhou BCLP pacienti s palatolalií. Celkově se jednalo o dentální odlitky 25 BCLP pacientů, z nichž 13 jedinců mělo palatolalii a 12 jedinců nikoli. Průměrný věk pacientů činil 10,3 let.

Do první analýzy pro zjištění variability tvaru patra obou skupin BCLP pacientů byli zahrnuti všichni uvedení pacienti. Lineární regrese byla provedena pro ověření, zda tvar patra není ovlivněn věkem, pouze u pacientů s poruchou řeči, neboť právě tato skupina vykazovala značnou variabilitu ve věkovém složení. Nejmladšímu jedinci bylo 7,9 let a nejstaršímu 12,1 let.

V analýze pro sledování variability tvaru patra u obou skupin BCLP pacientů nad 10 let bylo pracováno pouze s patry pacientů starších deseti let. Soubor pacientů bez poruchy byl tvořen všemi 12 jedinci. Ze vzorku pacientů s palatolalií bylo vyloučeno 5 pacientů ve věku osm až devět let vzhledem k významné korelaci tvaru patra s věkem. Výsledný soubor těchto pacientů byl zastoupen 8 jedinci.

Soubor pacientů bez palatolalie pro stanovení variability tvaru patra u pacientů bez palatolalie byl složen z 12 jedinců. Variabilita tvaru patra u pacientů s palatolalií byla zkoumána na 8 jedincích starších 10 let.

FESA analýza založená na porovnání průměrných tvarů byla provedena na souboru 8 BCLP pacientů bez poruchy řeči a 8, pouze starších, BCLP pacientů s palatolalií. Ve skupině jedinců bez palatolalie musela být učiněna redukce počtu pacientů na osm z důvodu požadavku analýzy porovnávat výhradně soubory o shodném počtu jedinců.

Dentice obou skupin těchto pacientů byla smíšená. Pouze u jednoho pacienta z každé skupiny byl nalezen chrup kompletní.

V případě BCLP skupiny pacientů bez palatolalie 8 jedincům zcela chyběl druhý řezák v pravém horním kvadrantu, zatímco na levé straně maxily 6 dětem. Na levé straně jsem též zaznamenala 1 případ zdvojeného řezáku a u jednoho jedince se laterální řezák nacházel v místě rozštěpové štěrbině. Absenci špičáků jsem zaznamenala u 4 jedinců. Téměř všichni pacienti, s výjimkou 2, kterým chyběly, měli již prořezány první premoláry. Nad druhými premoláry měly převahu ještě dočasné druhé moláry. U všech pacientů z této skupiny byly již přítomny první moláry trvalé dentice.

U dentice 7 jedinců s palatolalií byla zjištěna absence laterálního řezáku současně na pravé i levé straně. 1 jedinec postrádal první řezák v pravém horním zubním kvadrantu a 1 pacient druhý řezák v levém kvadrantu. V případě 4 jedinců jsem též zaregistrovala absenci pravého špičáku. U všech pacientů již proběhla náhrada prvních dočasných molárů za první premoláry. U 2 jedinců jsem zaznamenala nadpočetný zub mezi druhým řezákem a špičákem v pravém kvadrantu a u dvou pacientů na levé straně. Místo druhých premolárů byly ještě více zastoupeny druhé mléčné moláry, z toho čtyřem jedincům chyběl alespoň jeden. První trvalé moláry byly přítomny u všech dětí.

Všichni pacienti byli léčeni na Klinice plastické chirurgie ve Fakultní nemocnici Královské Vinohrady v Praze. Cheiloplastika byla provedena v průměrném věku 0,9 let a palatoplastika ve věku 4,4 let. Při palatoplastice byla užitá metoda bridge, která spočívá v přemostění rozštěpové štěrbině.

5. Metody

5.1 Skenování a úpravy skenů

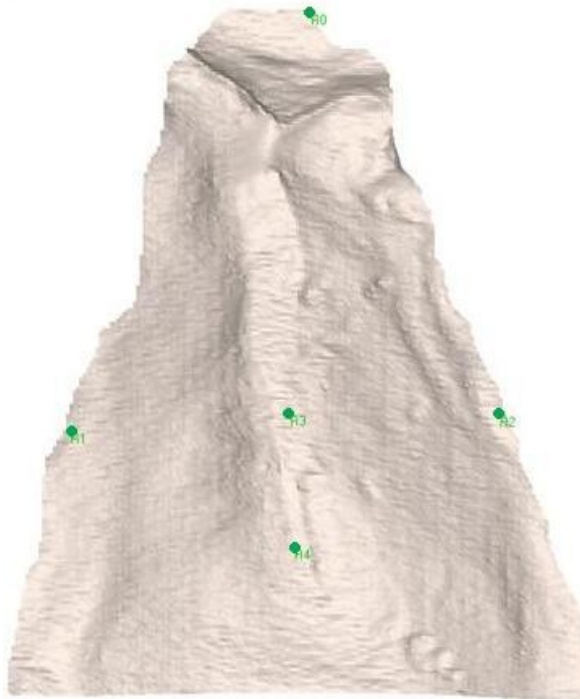
Pro digitalizaci dentálních odlitků nezbytnou pro analýzu tvaru bylo nejprve potřeba odlitky naskenovat. Učinila jsem tak použitím 3-D laserového scanneru Roland LPX 250. Vlastní skenování jsem spustila pomocí softwaru Dr. Picza, kde jsem nastavila plošné skenování, míru přesnosti na 0,2 mm a zvolila jsem počet snímaných ploch objektu, v našem případě 4. Poté jsem již potvrdila tlačítko skenování a dentální odlitky byly skenovány.

Po naskenování sádrových odlitků bylo potřebné skeny upravit v počítačovém programu Pixform 2001 na ploše Polygon. Úpravy spočívaly v odstranění píků, které vznikly při snímání objektu, v zaplňování vzniklých děr, v zarovnávání okrajů a vyhlazování povrchu objektu. A jelikož byla pro tuto diplomovou práci klíčová morfologie patra, odstranila jsem na závěr dentici.

5.2 Metody geometrické morfometrie

Analýza tvaru byla provedena za použití 3-D metod geometrické morfometrie. Geometrická morfometrie se věnuje studiu tvaru objektů a propojuje spoustu oborů, a sice geometrii, biologii, antropologii a statistiku. Nástroje geometrické analýzy tvaru v sobě zahrnují řadu výhod. Nabízí přesný a správný popis, slouží pro snadnou vizualizaci rozdílů různě složitých tvarů a jejich interpretaci (Zelditch et al., 2004).

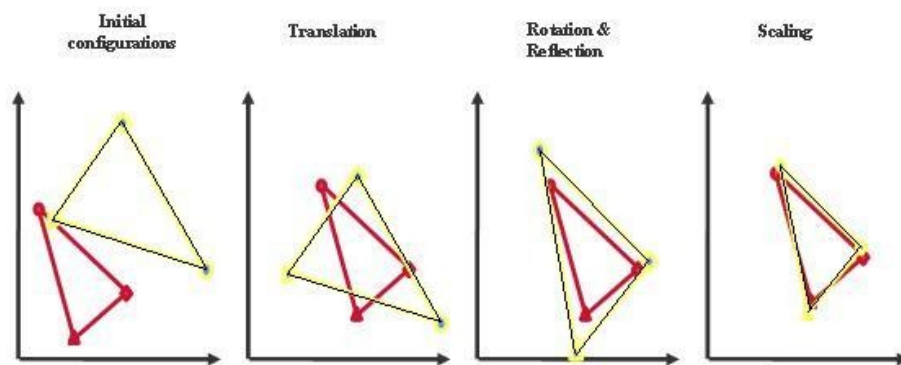
Analýzu tvaru umožňuje provést speciální software MorphoStudio v 3.0, který jsem využívala pro diplomovou práci. Zprvu jsem v tomto programu ručně zadala *pět referenčních landmarků*. První landmark jsem označila na místě mezi předními řezáky na papilla incisiva. Druhý a třetí landmark jsem umístila na alveolární výběžky, konkrétně na nejmediálnější okraje krčků druhých premolárů, popř. druhých dočasných molárů. Čtvrtý landmark měl pozici ve středu linie spojující nejmediálnější okraje krčků prvních trvalých stoliček (Bejdová et al., 2011). Jako pátý landmark jsem označila bod ve středu spojnice nejmediálnějších okrajů krčků druhých premolárů (druhých dočasných molárů) (viz obr. 15).



Obr. 19: Zadání referenčních landmarků.

Po zadání landmarků jsem provedla *dense correspondence* algoritmus, který přepočítal plochy všech modelů tak, aby měly stejný počet trojúhelníků, případně landmarků či uzlů polygonální sítě, jako u sítě základního vybraného objektu, jenž jsem si zvolila již před načítáním dat do programu MorphoStudio. Přesněji řečeno, do polygonální sítě ostatních objektů jsou promítnuty landmarky ze sítě základního modelu prostřednictvím algoritmu nejbližšího bodu a inverzní transformace. Dense correspondence je založena na metodě *tenkých ohebných pásků (TPS)* popisující deformaci (Zelditch et al., 2004).

Dense correspondence kromě TPS zahrnuje i tzv. *Prokrustovskou analýzu* sloužící pro získání průměrného tvaru a principiálně postavenou na metodě nejmenších čtverců. Jedná se o metodu umožňující superpozici dvou a více objektů jejich transformací (viz obr. 20).



Obr. 20: Princip Prokrustovské analýzy.

(www.sensorysociety.org/ssp/wiki/2851ec204f6b62130cf9fe027606a739)

Transformace spočívá v posunu, rotaci a v uniformní změně velikosti tak, že je minimalizována suma čtverců vzdáleností jednotlivých landmarků od příslušných landmarků referenčního objektu, jinými slovy musí být minimální Prokrustovská vzdálenost (viz obr. 20). Při superpozici není pozměněn tvar ani velikost modelů pater (Zelditch et al., 2004; Macholán, 1999).

Další použitou metodou v rámci programu MorphoStudio byla *analýza hlavních komponent PCA* (Principal Components Analysis), která se užívá pro zobrazení variability tvaru. Analýza spočívá v redukci původního počtu proměnných na menší počet transformovaných proměnných, tzv. hlavních komponent, které v sobě zahrnují původní informaci a jsou lineárními kombinacemi původních proměnných (Zelditch et. al., 2004). Pouze však prvních několik komponent v sobě zahrnuje nejvíce variability (Abdi et al., 2010; Zelditch et. al., 2004). Výstup PCA tvoří scatterplot, který zobrazuje variabilitu mezi skupinami rozštěpových pacientů s palatolalií a bez palatolalie. Patro každého jedince představuje v grafu jeden bod, a pokud na některý z bodů klikneme myší, zobrazí se nám podoba patra příslušného pacienta. Obdobným postupem, kdy si takto označíme body podél os jednotlivých komponent, tak můžeme zjistit, za kterou morfologickou charakteristiku pater je zodpovědná která komponenta.

Poslední v řadě byla provedena *analýza konečných prvků FESA* (Finite Elements Analysis), jejímž základem je porovnávání průměrných tvarů (Singh et al., 1999). Jelikož se jedná o metodu porovnávání, je zapotřebí dvou tvarů, jednak referenčního tvaru představovaného původní konfigurací landmarků na objektu a jednak druhého finálního tvaru reprezentovaného konečnou konfigurací těch samých landmarků na jiném objektu (Richtsmeier et al., 2002).

Polygonální síť tvořící objekt je složena z trojúhelníkových prvků, jejichž landmarky představují samotné vrcholy. Vnitřní body všech prvků podstupují homologní transformaci, čímž se tyto body proporčně prodlouží či zmenší. Pro představu, kruh uvnitř jednoho z trojúhelníků je po transformaci modelu přeměněn na elipsu. Transformaci tak lze popsat směrem a velikostí na základě tvaru a velikosti elipsy v porovnání oproti parametrům původního kruhu. Takto funguje metoda pro dvourozměrné objekty. V případě 3-D modelů jsou konečnými prvky jehly, popřípadě čtyřstěny, a vnitřní bod je nahrazen koulí, která je transformována na elipsoidu. Často jsou 3-D tvary popsány také obklopující plochou složenou z trojúhelníkové sítě a trojúhelníky jakožto prvky jsou přetvářeny v závislosti na formě transformace. Rozdíly způsobené transformací můžeme graficky

znázornit (Singh et al., 1999). Výstupem této metody jsou barevné mapy průměrných tvarů pater dvou skupin jedinců, v našem případě BCLP pacientů s palatolalií a bez palatolalie. Při promítnutí průměrného tvaru patra jedné skupiny do průměrného tvaru patra skupiny druhé jsou modely zobrazeny do podoby barevných map. Každá barva z barevného spektra označuje relativně větší či menší změnu velikosti oproti druhé populaci jedinců. Růžová a červená barva charakterizuje relativní zvětšení velikosti určité části patra, zelená neutrální rozdíl velikosti mezi skupinami a modrá oblast barevného spektra relativní zmenšení velikosti.

6. Použité statistické metody

Statistické údaje jsem zpracovávala v programu PAST. Pro ověření, zda neexistuje korelace věku pacientů na morfologii patra daného jednotlivými komponentami, jsem ze statistických metod využila *lineární regresi a multivariační analýzu rozptylu MANOVA*.

Lineární regrese popisuje vztah dvou kvantitativních proměnných, a sice nezávislé proměnné na ose X a závislé proměnné na ose Y. Jedná se o proložení několika datových bodů v grafu regresní přímkou tak, aby součet druhých mocnin odchylek jednotlivých bodů od přímky byl co nejmenší (www.wikipedia.cz).

MANOVA je používána pro ověření významnosti vlivu jedné nezávislé proměnné na více závislých proměnných. V našem případě je nezávislou proměnnou věk a závislými proměnnými hlavní komponenty zodpovídající za konkrétní tvar patra jedinců. Na rozdíl od jednoduché lineární regrese, kde jsou výstupem korelační koeficienty, od nichž je odvozena hodnota p , u mnohorozměrné lineární regrese funguje jako statistický ukazatel Wilksova lambda, která nabývá hodnot od 0 do 1. Wilksovu lambda lze upravit na jinou statistiku, která usnadní výpočet p hodnoty (Crichton, 2000).

7. Výsledky

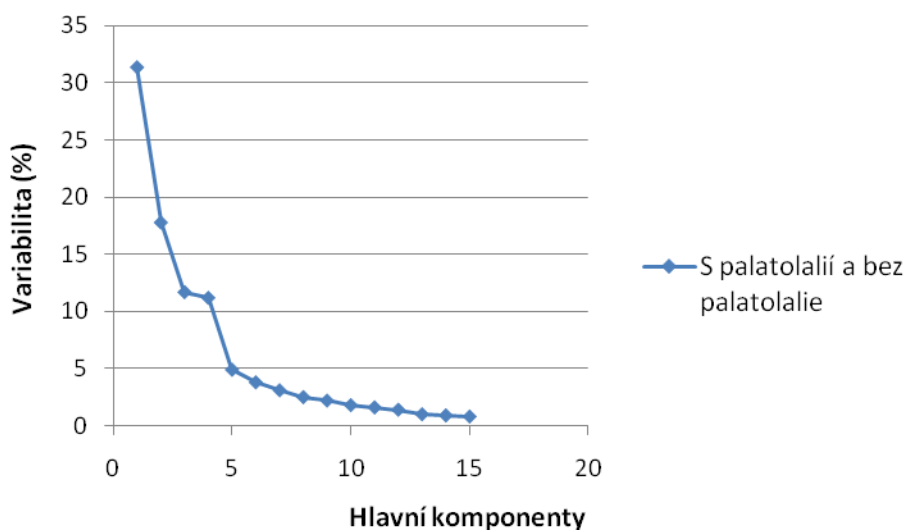
7.1 Zjišťování variability morfologie patra

Za zmíněným účelem byla provedena analýza hlavních komponent.

7.1.1 Variabilita tvaru patra u obou skupin BCLP pacientů

Do PCA analýzy byly zahrnuty obě skupiny BCLP pacientů. Konkrétně bylo analyzováno 12 pacientů bez palatolalie a 13 pacientů s palatolalií.

Přepočtem vlastních čísel, která získáme prostřednictvím PCA, na procenta zjistíme, kolik procent celkové variability zastupuje která komponenta. Na grafu 1 s vyjádřením závislosti prvních patnácti komponent na procentech celkové variability, vidíme klesající tendenci. První čtyři komponenty zahrnují více jak 70% celkové variability, z tohoto důvodu jsem je zahrnula do analýzy. Procentuální podíl ostatních komponent na celkové variabilitě morfologie patra je zanedbatelný.

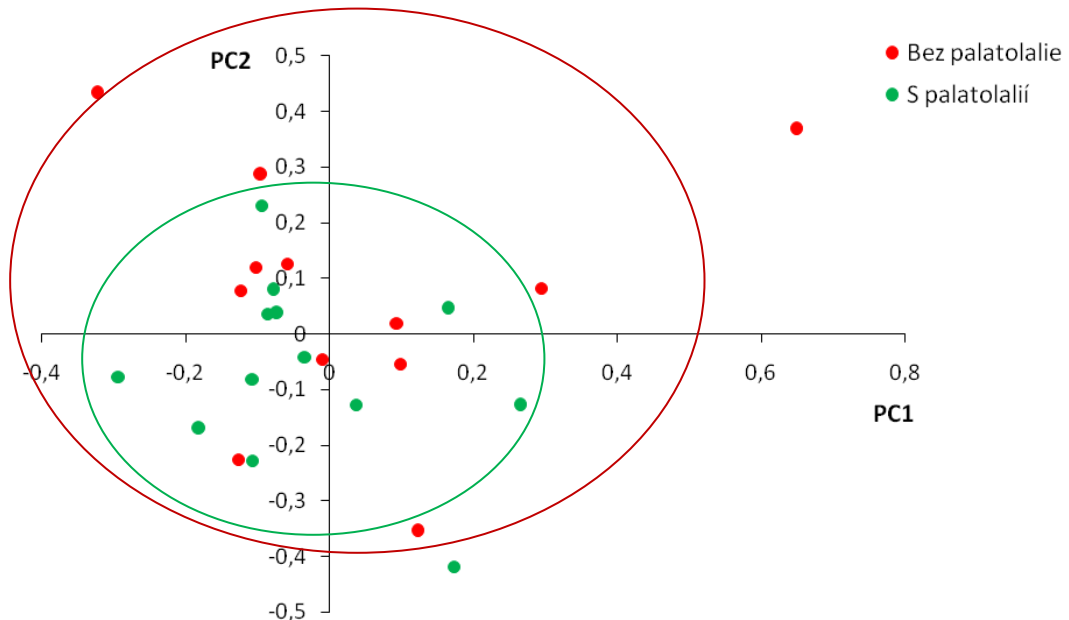


Graf 1: Znárodnění závislosti prvních patnácti komponent na procentech celkové variability.

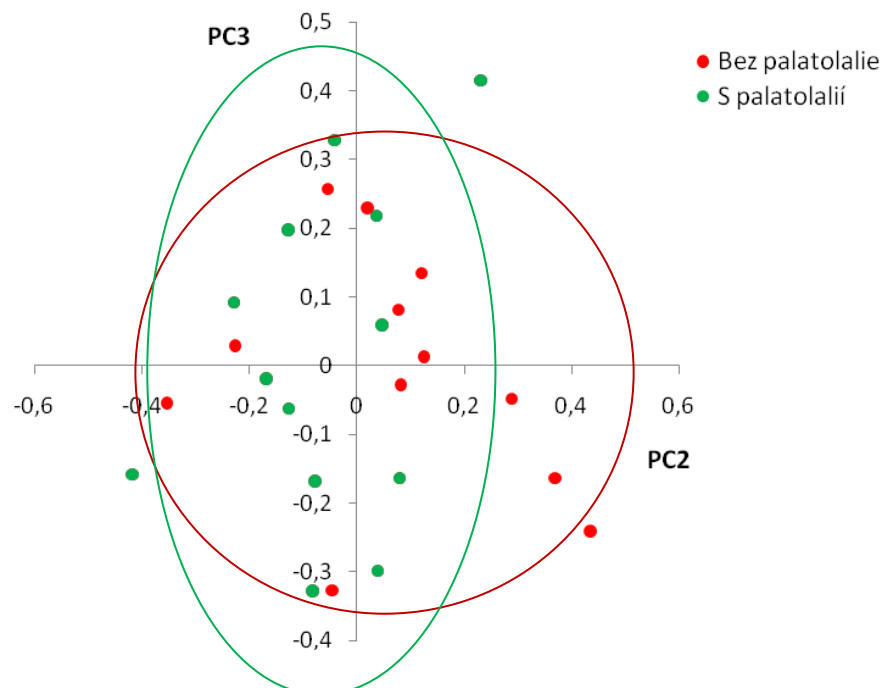
Z výsledného scatterplotu pro první dvě komponenty (PC1 a PC2) (viz graf 2) je zřejmé, že skupiny nejsou významně odděleny. Variabilita tvaru patra u pacientů s poruchou řeči je rozložena v rámci variability tvaru patra skupiny bez palatolalie. Tento fakt není výrazně pozměněn ani v následujících dvou komponentách, PC3 a PC4. Větší variabilita je zastoupena u pacientů bez palatolalie oproti druhé skupině. Menší variabilita u pacientů s palatolalií dokazuje, že jsou v této skupině přítomny typické znaky charakterizující tuto skupinu pacientů.

Největší počet BCLP pacientů bez palatolalie na grafu závislosti první a druhé komponenty se nachází v horním levém kvadrantu.

Většina pacientů s poruchou řeči zastávají na témže grafickém znázornění pozici v dolním levém kvadrantu.



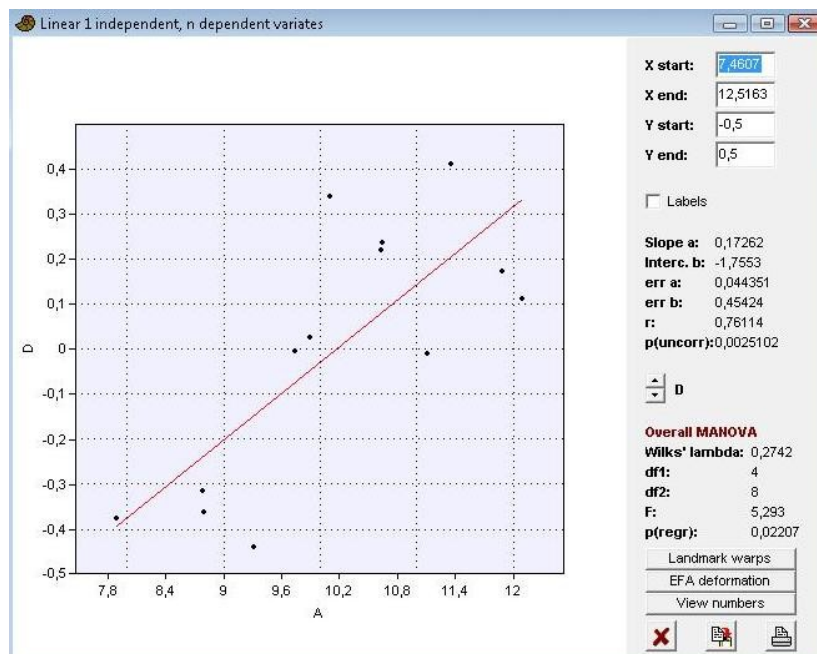
Graf 2: Vyobrazení PCA skóre pro PC1 a PC2 u obou skupin BCLP pacientů.



Graf 3: Vyobrazení PCA skóre pro PC2 a PC3 u obou skupin BCLP pacientů.

Na scatterplotu závislosti PC2 a PC3 (viz graf 3) jsou od sebe obě skupiny pacientů odděleny prostřednictvím druhé komponenty. Patra 8 pacientů s palatolalií jsou rozmístěna podél záporné osy PC2, zatímco morfologie patra 8 jedinců bez palatolalie je podmíněna kladnou částí osy druhé komponenty.

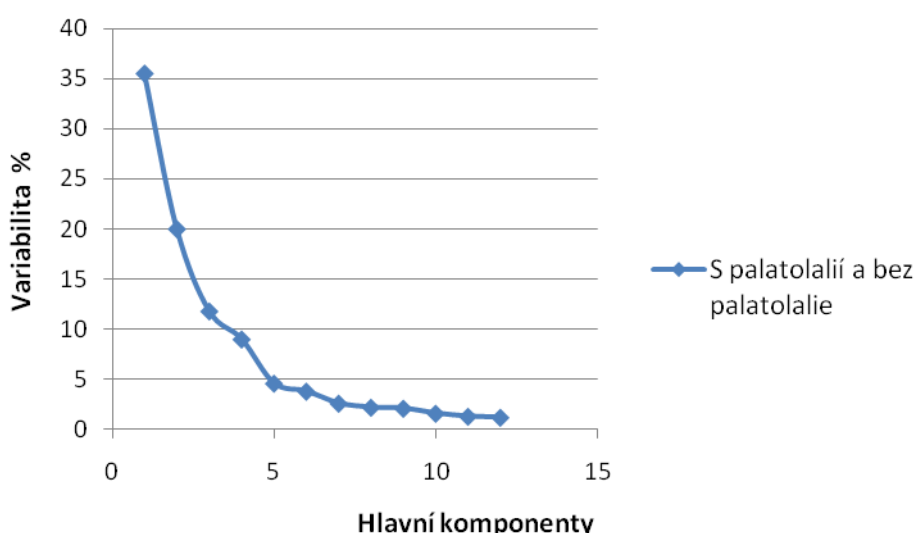
Z důvodu značné variability věku BCLP pacientů s palatolalií (7,9 -12,1 let), bylo zapotřebí ověřit, zda neexistuje ve zmíněném souboru korelace věku s některými ze čtyř komponent odrážejících morfologii patra. Za tímto účelem byla provedena lineární regrese a MANOVA. Pouze u třetí komponenty byla prokázána silná korelace s věkem na 95% hladině spolehlivosti, hodnota p činila pouhých 0,0025 (viz graf 4). Znamená to tedy užší a kóničtější patro u mladších jedinců a širší, nižší a zaoblenější patro u starších pacientů. Třetí komponenta zároveň natolik ovlivnila i multivariační analýzu rozptylu pro sledování celkové korelace všech čtyř komponent s věkem, že hodnota Wilksova lambda činila 0,2742 a p hodnota jen 0,02207. Obě hodnoty vyšly nízké a tím se nám prokázala korelace. I když v jiných studiích korelace s věkem potvrzená dosud nebyla, zřejmě došlo v tomto případě ke zkreslení daném malým souborem pacientů z důvodu nízké frekvence výskytu BCLP jedinců. Z tohoto důvodu byla provedena PCA analýza ještě jednou, a to bez pacientů mladších osmi až devíti let.



Graf 4: Výstup programu PAST - korelace PC3 s věkem (A - věk, D - PC3).

7.1.2 Variabilita tvaru patra u obou skupin BCLP pacientů ve věku nad 10 let

Z grafu závislosti prvních dvanácti komponent na procentech zastoupení celkové variability (viz graf 5) vyplývá, že více jak 75% celkové variability zahrnují opět první čtyři komponenty. První komponenta zastupuje nejvíce procent variability, a to 35,5%, druhá komponenta 20%, třetí komponenta 11,8% a čtvrtá komponenta 9%. Proto byly použity v rámci PCA.

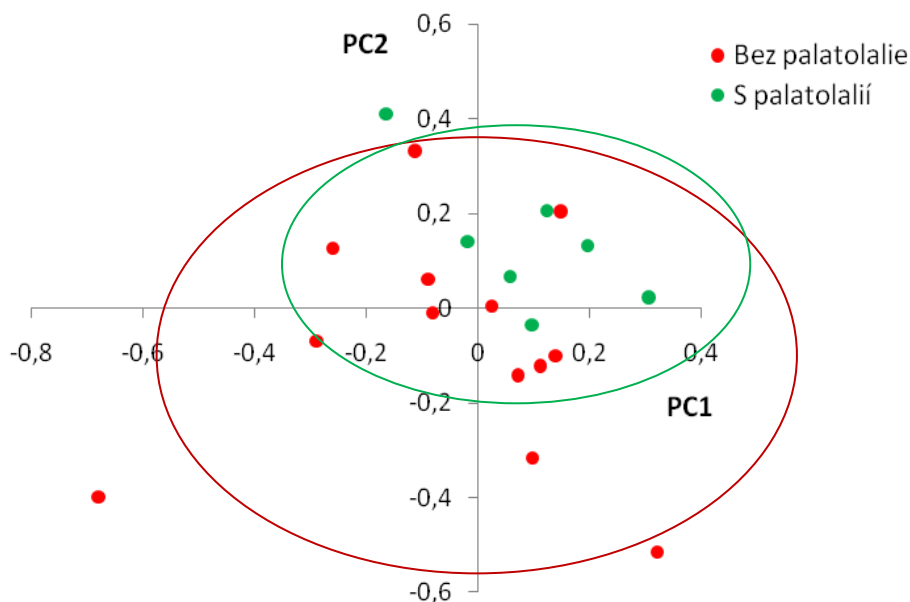


Graf 5: Znáznornění závislosti prvních dvanácti komponent na procentech celkové variability.

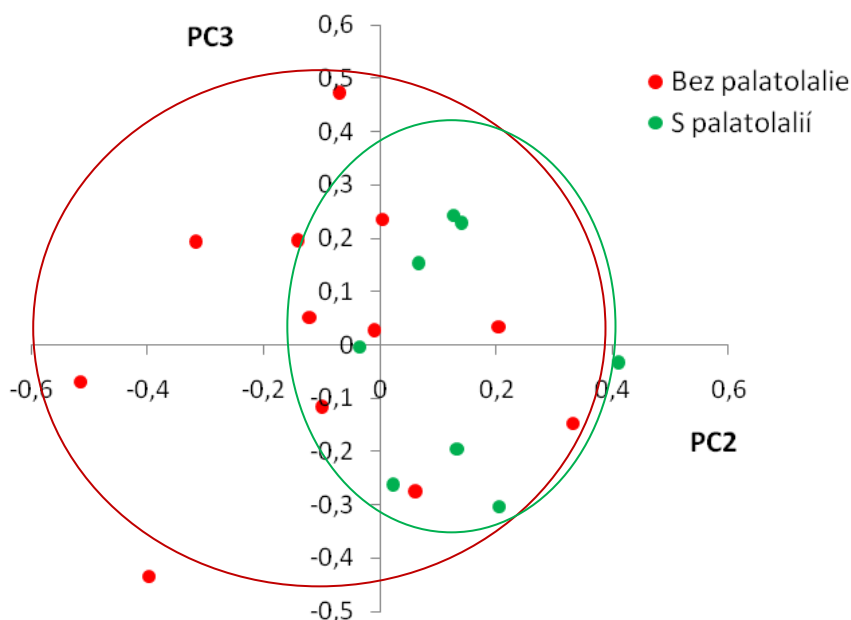
Na grafu PCA skóre pro první dvě komponenty (viz graf 6) je patrné, že pacienti bez palatolalie mají větší variabilitu tvaru patra než pacienti s palatolalií. Skupina jedinců s palatolalií leží v rámci variability druhé skupiny. Z uvedeného tedy můžeme usoudit, že patra pacientů s palatolalií vykazují určité charakteristické morfologické znaky.

Graf PCA skóre prvních dvou komponent (viz graf 6) vykazuje mírné oddělení skupin, zejména podél druhé komponenty. Tento fakt je ještě více zvýrazněn u zobrazení druhé a třetí komponenty (viz graf 7). Nejprve k prvnímu grafickému vyjádření. **První komponenta** hraje roli směrem ke kladným hodnotám v rozšiřování patra za současného zvyšování a zkracování patra, podílí se též na vertikalizaci polohy patra. **Druhou komponentu** je možné nazvat komponentou velikosti. V průběhu osy k záporným hodnotám dochází ke zmenšování a zužování patra, doprovázeného zvyšováním klenutí patra. Je též pozměňována poloha patra do vzpřímenější pozice, čímž nastávají rozdíly ve zvýšení polohy přední oblasti patra. Morfologie patra v závislosti na prvních čtyřech komponentách je zobrazena na obr. 21.

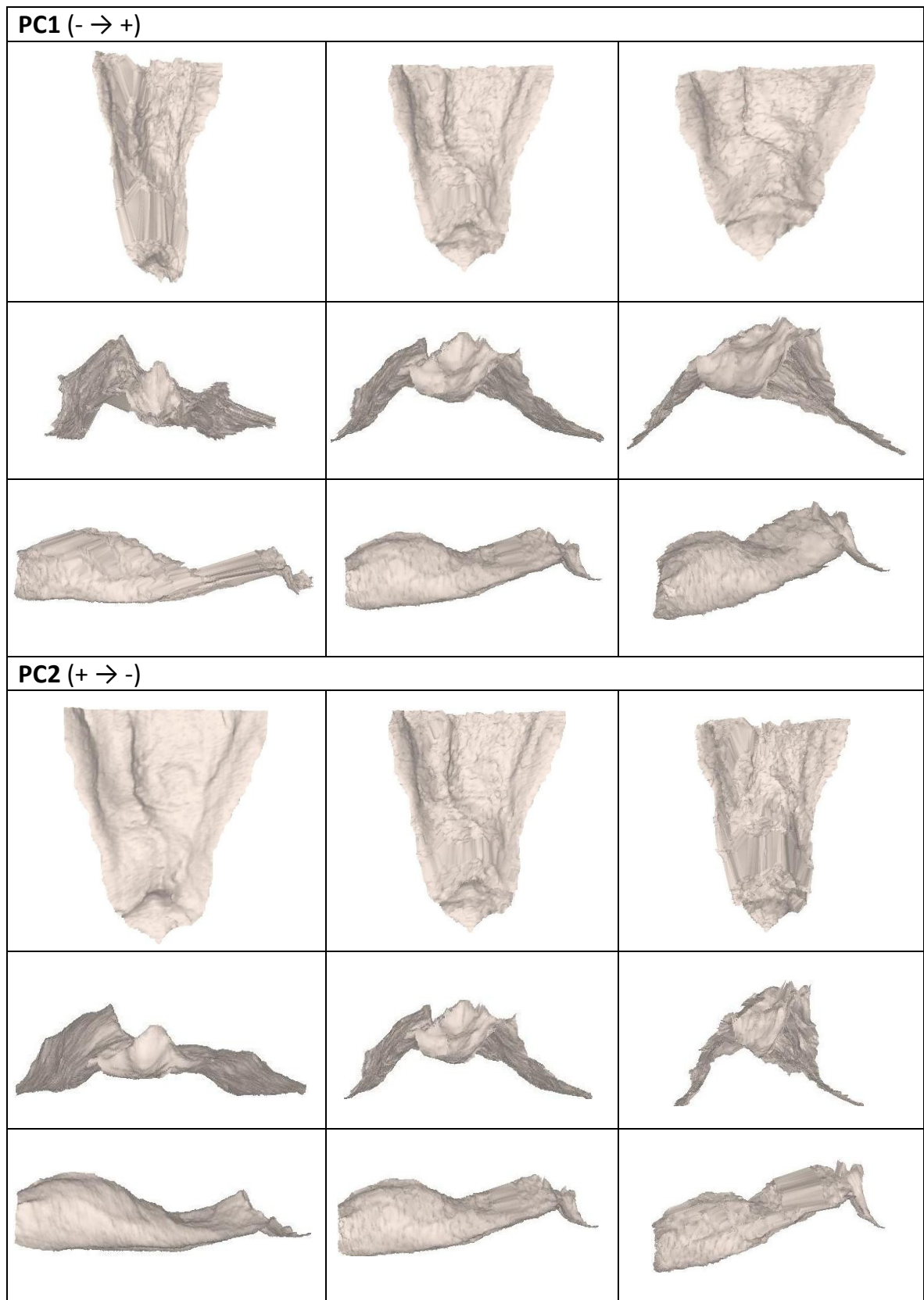
V popisovaném grafickém vyjádření (viz graf 6) pacienti s palatolalií, kromě jednoho, zaujímají místo v pravém horním kvadrantu. Pacienti bez palatolalie jsou rozptýleni v obou pravých kvadrantech, mají tak větší variabilitu morfologie patra.



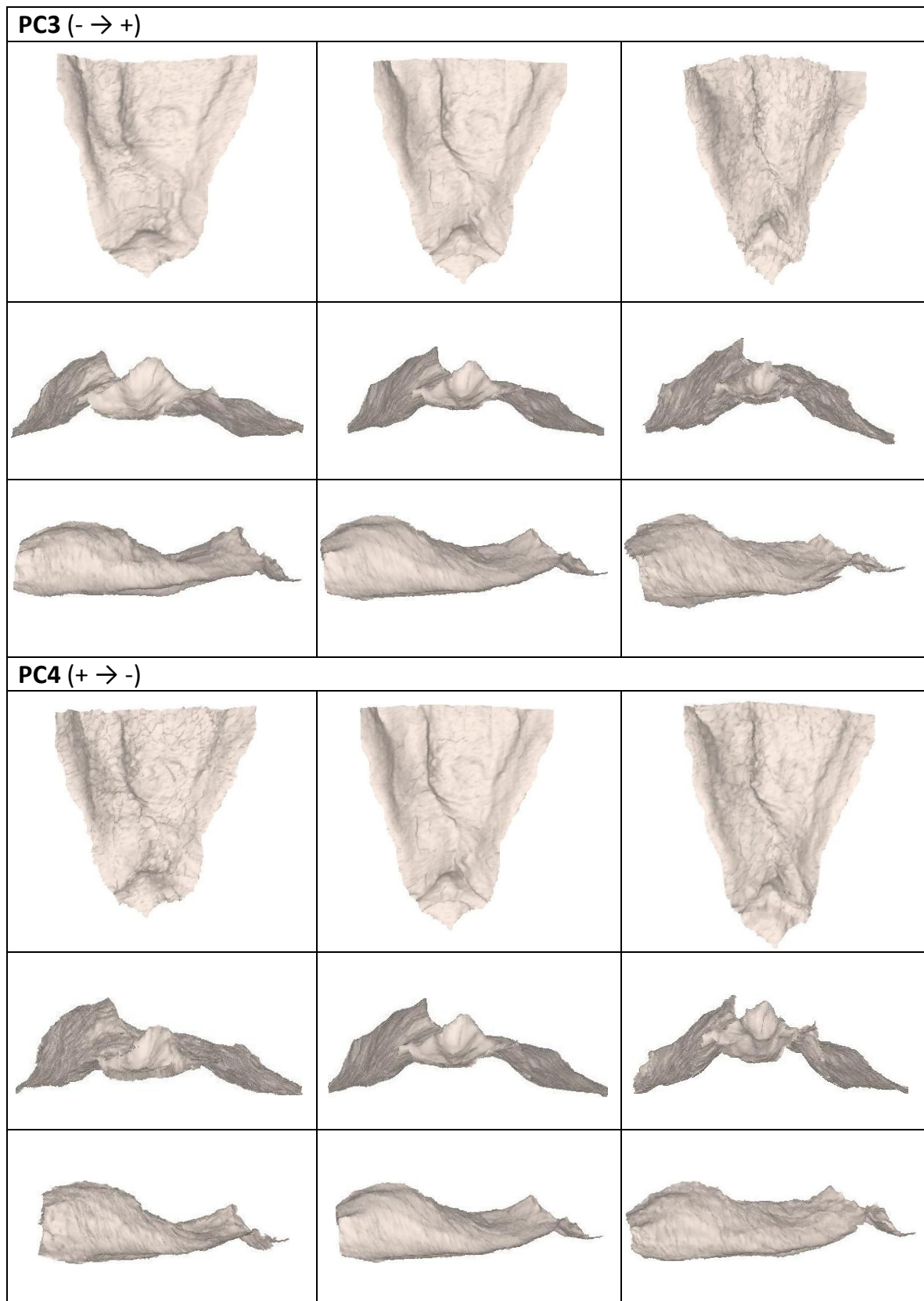
Graf 6: Vyobrazení PCA skóre pro PC1 a PC2 u obou skupin BCLP pacientů nad 10 let.



Graf 7: Vyobrazení PCA skóre pro PC2 a PC3 u obou skupin BCLP pacientů nad 10 let.



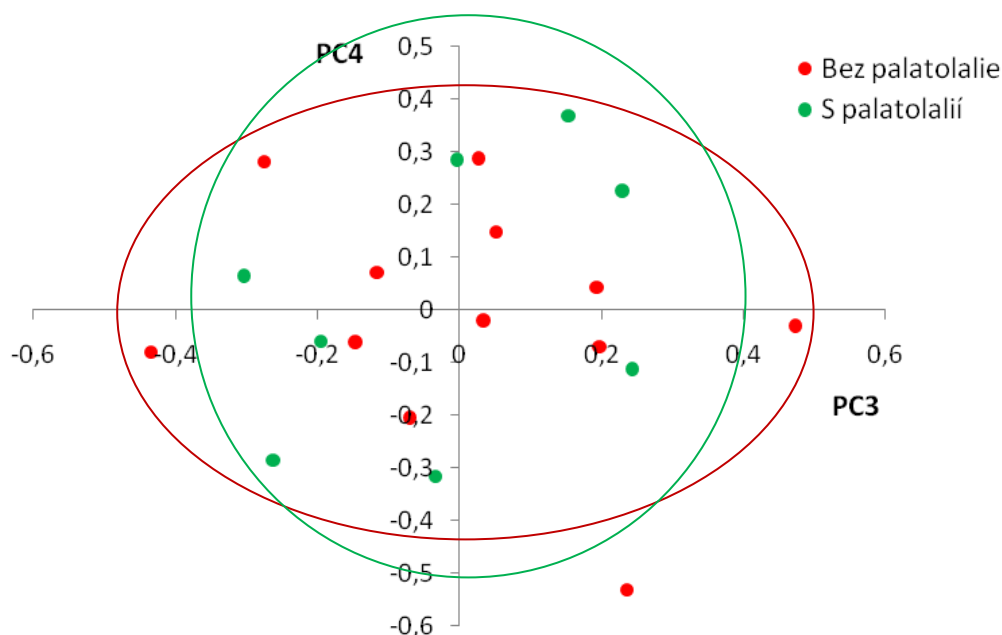
Obr. 21: Znáznornění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u obou skupin BCLP pacientů.



Pokračování obr. 21: Znárodnění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u obou BCLP pacientů.

V případě druhého grafu s PC2 a PC3 (viz graf 7) se všech 8 jedinců s palatolalií rozprostírá v pravých kvadrantech, zatímco nadpoloviční většina z druhé skupiny, číselně 7 pacientů, se nachází v levých kvadrantech.

Variabilita morfologie patra v závislosti na třetí a čtvrté komponentě je zachycena na grafu 8. **Třetí komponenta** ovlivňuje šířku patra. Patra pacientů v grafu lokalizovaná v blízkosti kladných hodnot jsou užší a současně konkávnější. Premaxila je horizontálněji položená a zmenšuje se prohloubení mezi přední a zadní částí patra. Naopak širší patra s negativními hodnotami PCA skóre jsou širší a méně klenutá, s premaxilou orientovanou více vertikálně a s výrazným prohloubením mezi přední a zadní částí patra. Výše uvedené charakteristiky dobře ilustruje pokračování obr. 21. **Čtvrtá komponenta** odráží velikostní změny, především délkových parametrů patra (viz pokrač. obr. 21). Patra pacientů s kladnými hodnotami PCA skóre jsou kratší a méně klenutá v přední části než patra na opačné straně osy komponenty. Směrem k záporným hodnotám se patra prodlužují a stávají více klenutá v přední části, což je zřejmé zejména na sagitálním pohledu.



Graf 8: Vyobrazení PCA skóre pro PC3 a PC4 u obou skupin BCLP pacientů nad 10 let.

V uvedeném grafickém znázornění (viz graf 8) je patrné částečné oddělení morfologie pater pacientů podél třetí komponenty. Většina pater pacientů s palatolalií, konkrétně 5, se vyskytuje v levých kvadrantech grafu, zatímco patra 7 jedinců bez poruchy řeči jsou

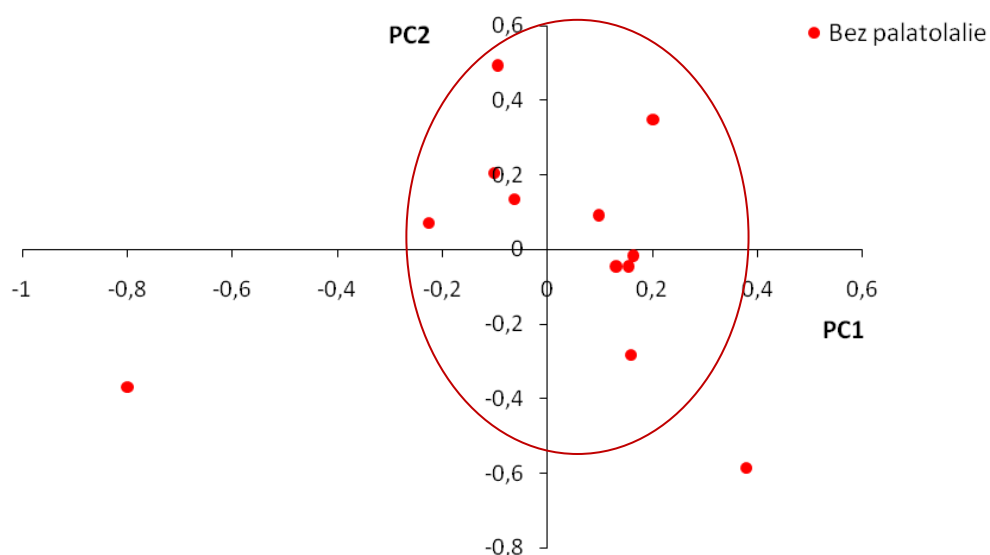
rozmístěna v pravých kvadrantech, z toho 6 pacientů pravý horní kvadrant. Jeden pacient bez palatolalie je dislokován mimo variabilitu své skupiny.

Pro ověření, zda patra pacientů nejsou i v tomto případě ovlivněna věkem, byla použita lineární regrese. Provedením lineární regrese se souborem BCLP pacientů bez palatolalie a BCLP jedinců s palatolalií ve věku nad deset let již na 95% intervalu spolehlivosti nebyla prokázána významná korelace s věkem u žádné ze čtyř komponent. Výsledná P hodnota činila 0,825. Vícerozměrná analýza rozptylu dopadla analogicky. Wilksova lambda byla ve výsledku 0,635 a od ní odvozená p hodnota 0,124.

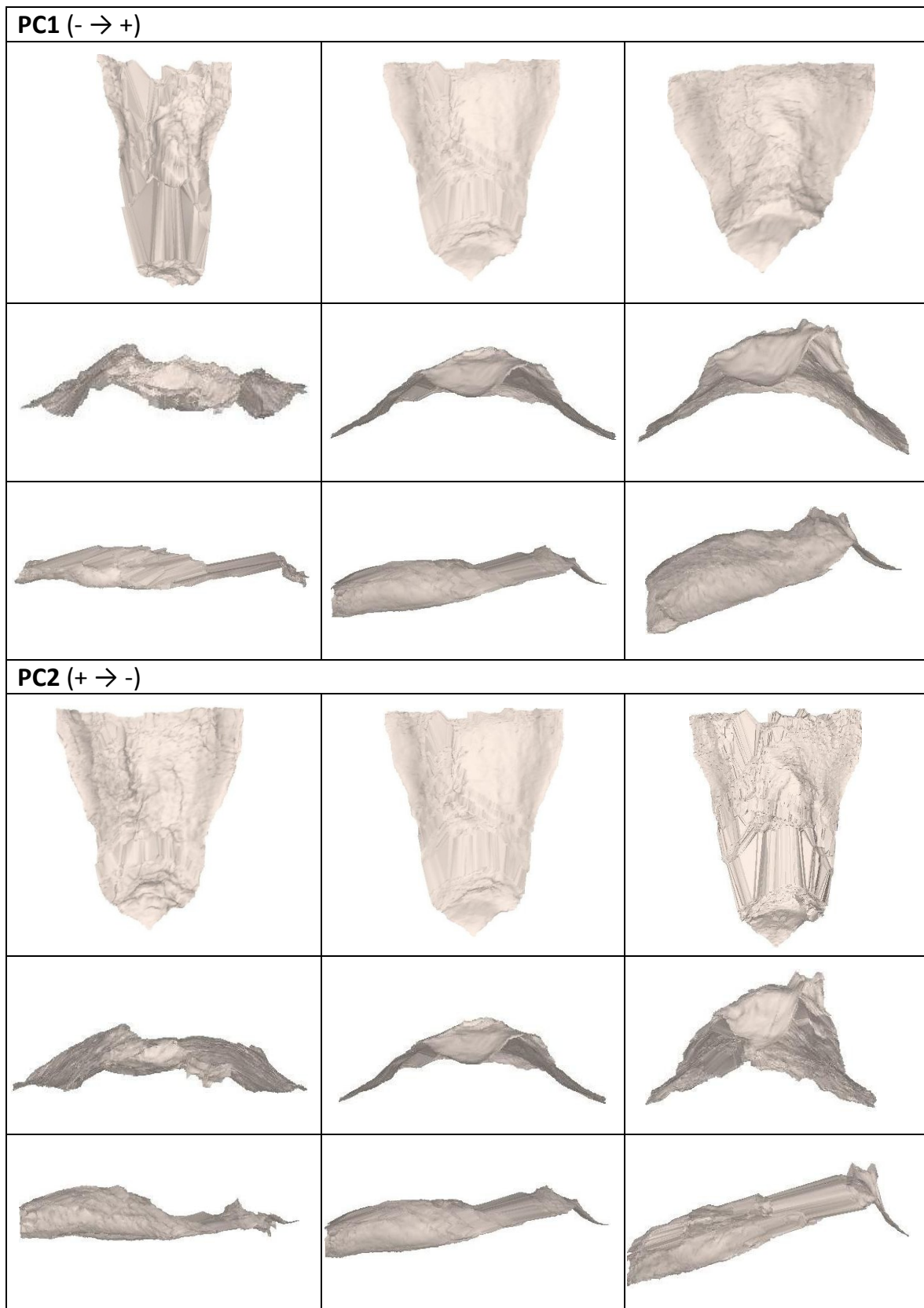
7.1.3 Variabilita tvaru patra u BCLP pacientů bez palatolalie

Z grafu PCA pro první dvě komponenty (viz graf 9) je patrné, že 2 jedinci vybočují mimo normální variabilitu tvaru pater v rámci této skupiny. Zobrazováním tvarů pater podél komponent (viz obr. 22) jsem zjistila, která ze čtyř komponent odpovídá za kterou morfologickou charakteristiku. **První** komponenta se podílí na rozšiřování, zkracování a zvětšování hloubky patra směrem ke kladným hodnotám. **Druhá** komponenta směrem k záporným hodnotám hraje roli v zužování, prodlužování patra a zvětšování jeho hloubky.

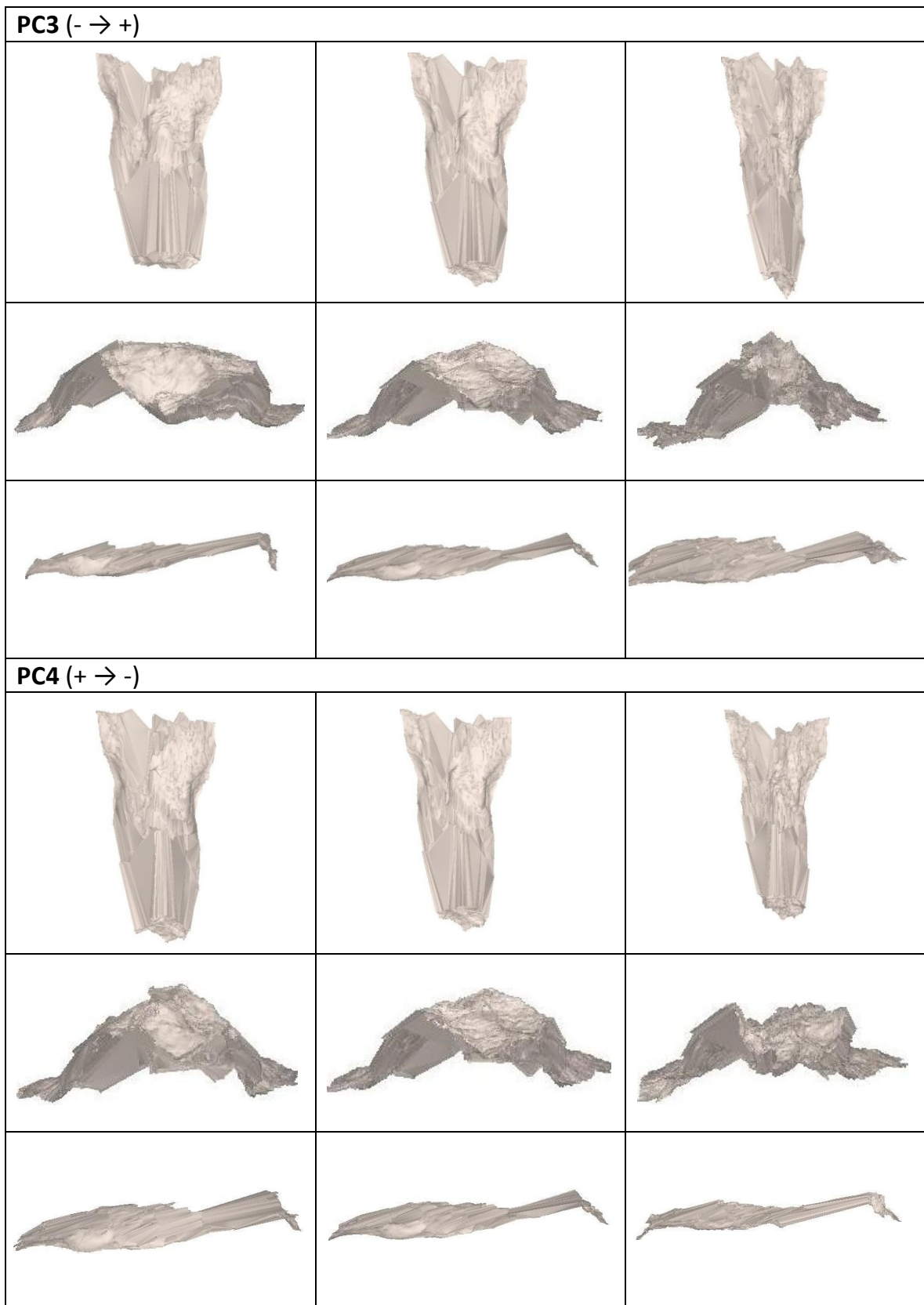
Většina BCLP pacientů bez palatolalie (celkem 10) je rozmístěna v grafu pro první dvě komponenty v pravých kvadrantech, podél kladné osy první komponenty. Patro pacientů bez palatolalie je tak klenutější, středně široké a spíše kratší.



Graf 9: Vyobrazení PCA skóre pro PC1 a PC2 u BCLP pacientů bez palatolalie.



Obr. 22: Znárodnění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u BCLP pacientů bez palatolalie.



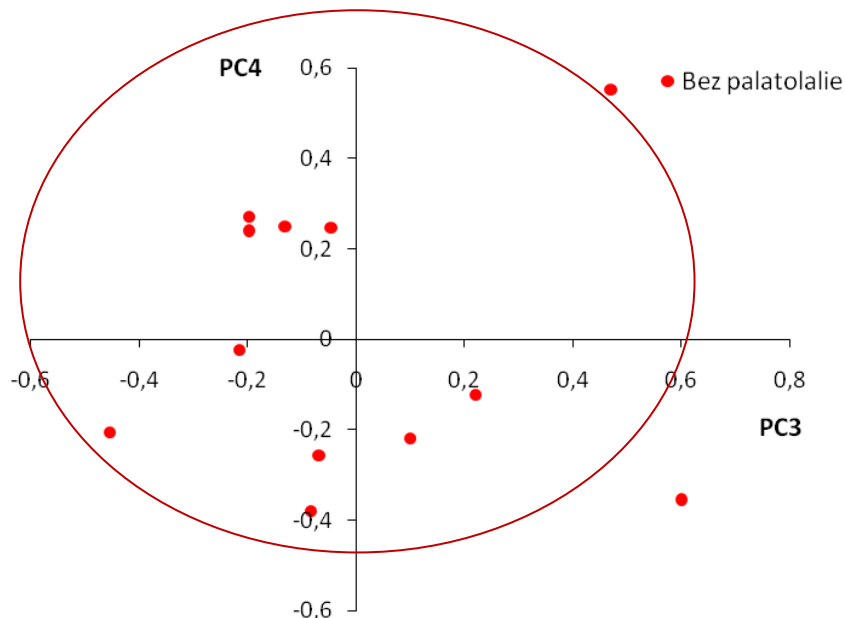
Pokračování obr. 22: Znázornění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u BCLP pacientů bez palatolalie.

Dva pacienti bez palatolalie jsou lokalizováni mimo rámeček variability skupiny. Patro jedince v levém dolním kvadrantu je výrazně prodloužené a úzké. Patro druhého pacienta z pravého dolního kvadrantu je orientováno značně vertikálně a je významně kónické.

Graf 10 zobrazuje PCA skóre pro třetí a čtvrtou komponentu. **Třetí** komponenta zodpovídá za prodlužování, zvětšování klenutí a zužování patra se zvyšujícími se hodnotami. **Čtvrtá** komponenta směrem k negativním hodnotám vede ke zmenšování a k oplošťování patra (viz pokrač. obr. 22).

Osm BCLP pacientů bez palatolalie se v grafu PCA skóre pro PC3 a PC4 nalézají podél záporné osy třetí komponenty, zatímco pouze 4 pacienti v blízkosti kladné osy téže komponenty. Z uvedeného vyplývají následující charakteristiky tvaru patra pacientů bez palatolalie: střední šířka, nevýrazná klenutost.

Dvě patra pacientů i v tomto případě vybočují mimo normální variabilitu BCLP jedinců bez palatolalie. Patro pacienta v pravém horním kvadrantu se distancuje od ostatních prodloužením, zúžením a kóničtější tvarem. Rozdíl u druhého pacienta v pravém dolním kvadrantu spočívá v nápadném zúžení přední třetiny tvrdého patra.

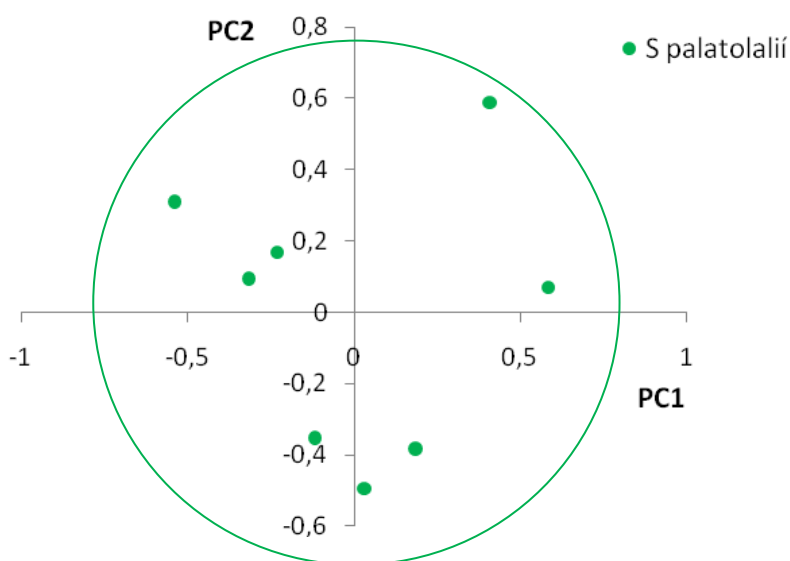


Graf 10: Vyobrazení PCA skóre pro PC3 a PC4 u BCLP pacientů bez palatolalie.

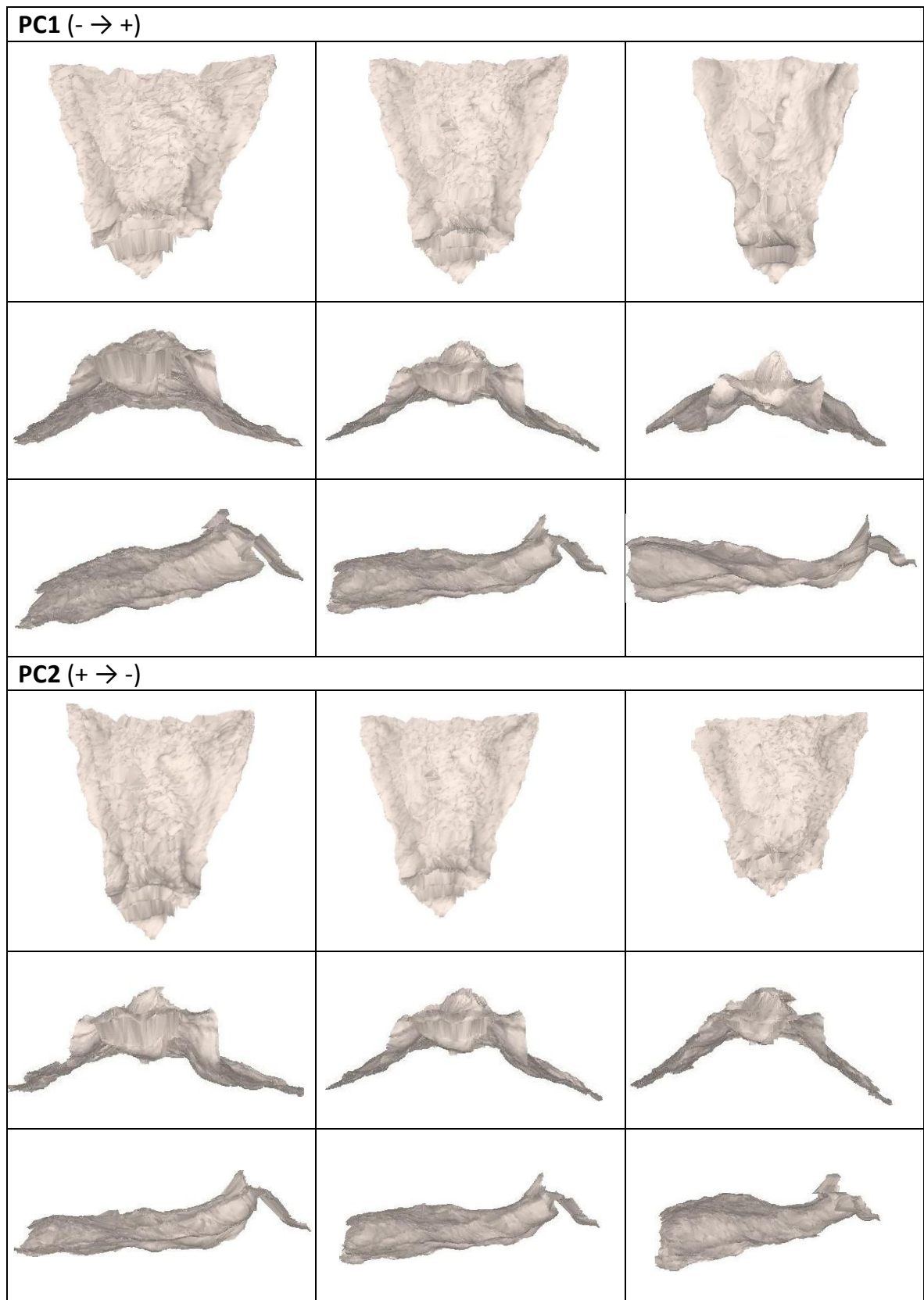
7.1.4 Variabilita tvaru patra u BCLP pacientů s palatolalií ve věku nad 10 let

Na grafu PCA skóre pro první dvě komponenty je patrná značná variabilita morfologie patra u pacientů s palatolalií starší deseti a více let (viz graf 11). **První komponenta** zodpovídá za změnu pozice patra a snižování klenutí patra (viz obr. 23). Při frontálním zobrazení se patro směrem od záporných ke kladným hodnotám zmenšuje, snižuje se klenutí patra, a patro se zároveň v přední části orientuje více kaudálněji, zatímco zadní část více kraniálněji. Výsledkem je tedy postupné sklápění patra dopředu. V horizontální rovině je dobře viditelné zužování patra při zachování stejné délky ve směru ke kladným hodnotám. Promítneme-li si změny morfologie patra v závislosti na první komponentě, dojdeme k závěru, že již popsané snížení výšky patra je orientováno zejména na oblast přední poloviny patra. **Druhá komponenta** odráží změnu výšky patra (viz obr. 23). Ve prospěch záporných hodnot se patra z hlediska zmíněného parametru stávají kóničtější, což je možné dobře pozorovat na frontálním pohledu. Podíváme-li se na boční zobrazení patra, je znatelné zvýšení patra v zadní polovině patra a jeho zkrácení. Druhá komponenta je též komponentou velikosti. Směrem k záporným hodnotám na ose komponenty se patra zmenšují, a to především v délkových parametrech.

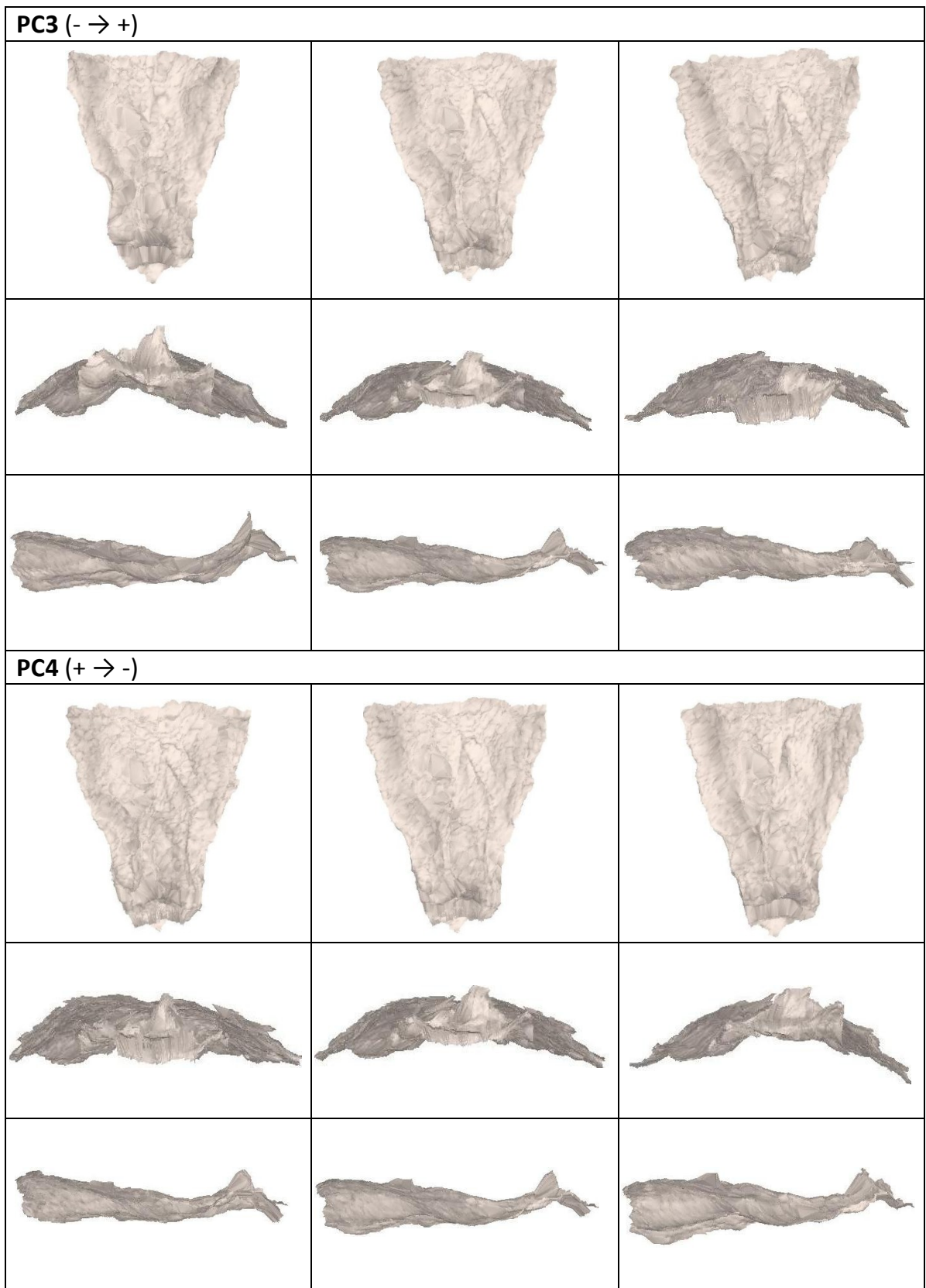
Nadpoloviční počet pater pacientů je soustředěn do prvních dvou sousedních kvadrantů PCA grafu, které spolu svírají kladnou část osy pro druhou komponentu. Ve zkoumaném vzorku pater pacientů převažují patra nižší, širší a delší, v souhrnu tedy celkově větší.



Graf 11: Vyobrazení PCA skóre pro PC1 a PC2 u BCLP pacientů s palatolalií nad 10 let.



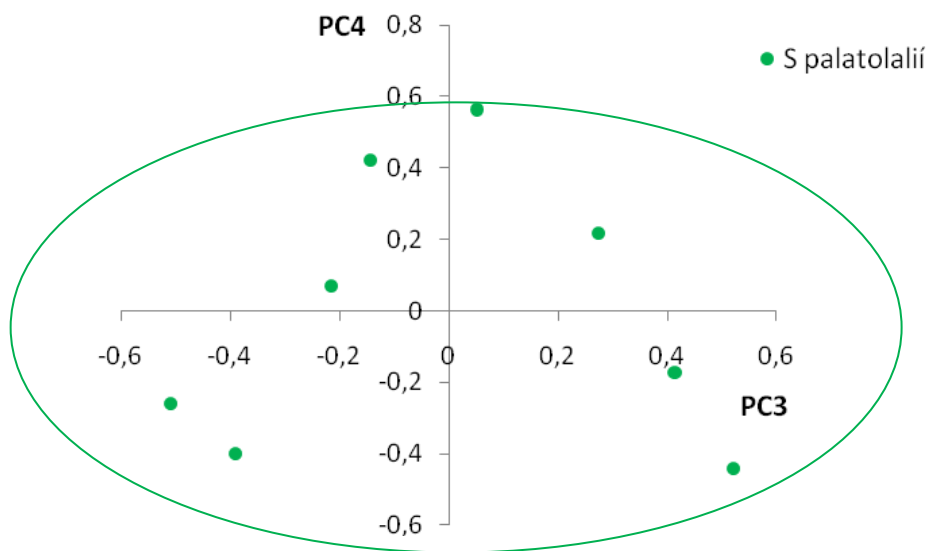
Obr. 23: Znáznornění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u BCLP pacientů s palatolalií nad 10 let.



Pokračování obr. 23: Znáznornění variability morfologie patra v závislosti na PC1 - PC4 u BCLP pacientů s palatolalií nad 10 let.

Na grafu 12 je vyobrazena závislost třetí a čtvrté komponenty. **Třetí komponenta** zahrnuje změnu velikosti a pozice patra (viz pokrač. obr. 23). Ve směru ke kladným hodnotám vede komponenta ke snižování klenutí patra a v souvislosti s tím též k jeho rozšiřování. Při pohledu na patra z boku je možné zaznamenat oploštění či zarovnání horního povrchu patra u pater jedinců situovaných do blízkosti kladných hodnot osy komponenty. Oblast kolem premaxily je v důsledku toho orientována více horizontálně než u pater na opačném konci osy. Zmíněná charakteristika má svůj podíl na zmenšení prohlubně v přední polovině patra. Pro **čtvrtou komponentu** je odpovídající přívlastek komponenta výšky a délky (viz pokrač. obr. 23). Směrem k záporným hodnotám na ose komponenty dochází ke zvětšování výšky patra, zvyšuje se tedy klenutost patra, následkem čehož se patro zároveň zužuje. Prvně zmíněná charakteristika je viditelná při promítnutí pater v různých pohledech. Sagitální pohled dobře ilustruje vertikalizaci polohy oblasti premaxily a prodloužení u pater v blízkosti záporné osy komponenty.

V grafu pro třetí a čtvrtou komponentu jsou všechna patra zkoumané skupiny pacientů rozmístěna rovnoměrně ve všech kvadrantech. Nelze z nich proto vyčíst, které parametry jsou pro tento vzorek populace typické.

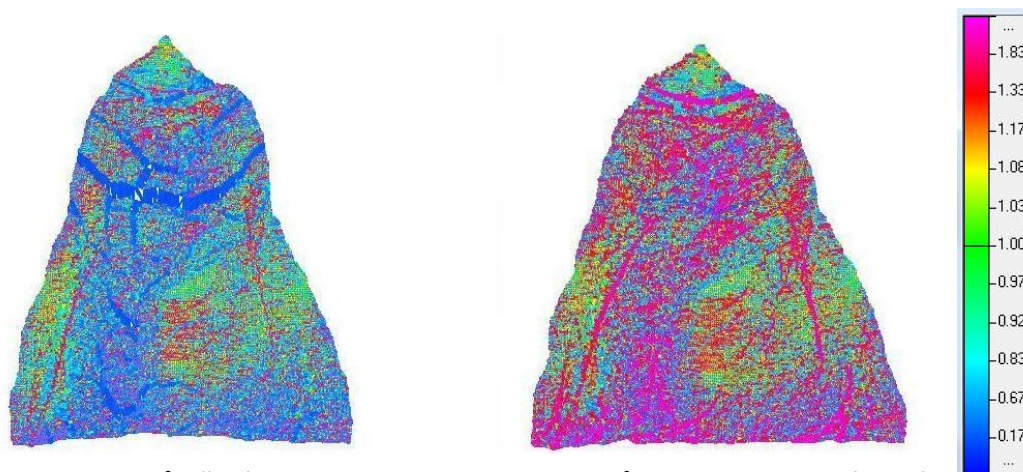


Graf 12: Vyobrazení PCA skóre pro PC3 a PC4 u BCLP pacientů s palatolalií nad 10 let.

7.2 Porovnání průměrného tvaru patra u BCLP pacientů bez palatolalie a s palatolalií ve věku nad 10 let

Výsledky získané FESA poukázaly na určité morfologické rozdíly ve tvaru patra u pacientů s palatolalií a bez palatolalie.

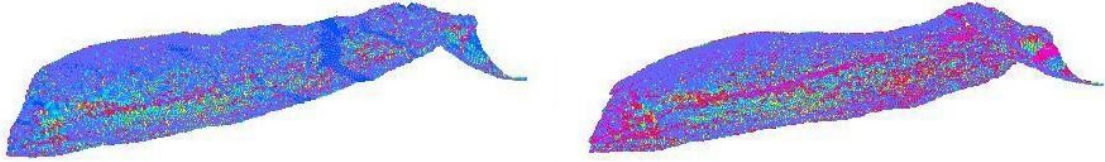
V horizontálním pohledu se jeví patro pacientů s palatolalií v průměru celkově větší a širší oproti pacientům bez palatolalie, jejichž patro je výrazně užší. U modelu patra jedinců s palatolalií si můžeme povšimnout relativního zvětšení znázorněného červenou barvou v oblasti za premaxilou, konkrétně v místě přechodu premaxily v patrové kosti maxily oproti druhé skupině. Červená barva na barevné mapě modelu patra pacientů s palatolalií se vyskytuje též na pacientově pravé straně patra pod alveolárním výběžkem, což poukazuje na určitý stupeň asymetrie patra, a na konci tvrdého patra. Délka patra mezi skupinami pacientů však nevykazuje rozdíly. Zmíněné parametry jsou znatelné na obr. 16.



Obr. 16: Průměrné tvary pater u BCLP pacientů bez palatolalie (vlevo) a s palatolalií (vpravo) - horizontální pohled.

Ze sagitálního pohledu na pravý bok (viz obr. 17) je průměrné patro pacientů s palatolalií více konkávnější mezi oblastí premaxily a patrovými kostmi maxily, dá se tedy říci v místě bývalé rozštěpové štěrbině, a z tohoto důvodu zde vypadá klenutější a vyšší. Stejně parametry se nachází i na levé straně bočního profilu patra. Nápadné zvětšení je znatelné v přední třetině patra. Navíc můžeme také pozorovat, že pacienti s palatolalií mají zadní dvě třetiny patra nižší, ale přitom rovnoměrněji klenuté, a s výraznějším spádem na konci než pacienti bez palatolalie. V důsledku toho se u pacientů s poruchou řeči vyskytuje prohloubení mezi těmito dvěma částmi, které v morfologii patra pacientů bez palatolalie nenalezneme. U jedinců bez palatolalie je patro naopak v oblasti přední třetiny

v průměru v relativně nižší, a zadní dvě třetiny patra vyšší, ale jen s mírným spádem na konci patra.



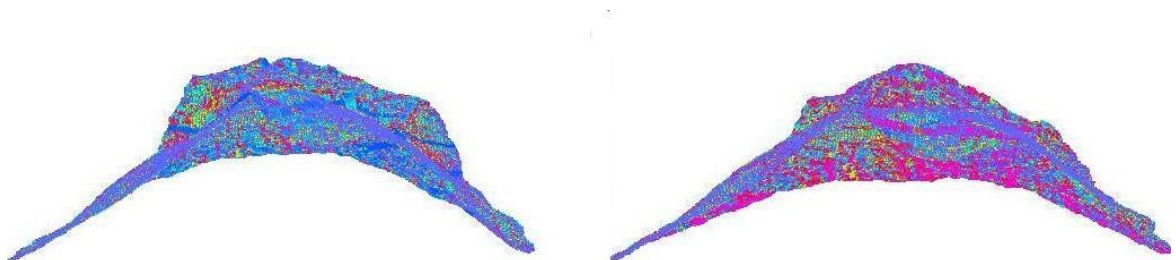
Obr. 17: Průměrné tvary pater u BCLP pacientů bez palatolalie (vlevo) a s palatolalií (vpravo) - sagitální pohled.

Na frontálním pohledu (viz obr. 18) vypadá průměrný tvar patra pacientů s poruchou řeči více obloukovitě, patrná je také větší šířka a v souvislosti s tím menší klenutí. Tvar patra jedinců bez palatolalie se jeví konkávnější. Je to způsobeno užší a vyšší oblastí premaxily, což zvýrazňuje celkové užší parametry průměrného tvaru patra.



Obr. 18: Průměrné tvary pater u BCLP pacientů bez palatolalie (vlevo) a s palatolalií (vpravo) - frontální pohled.

Podíváme-li se na průměrné tvary pater ze zadního pohledu (viz obr. 19), patro jedinců s palatolalií je méně klenuté a širší, zatímco pro patro nepalatolalíků platí vyšší klenutí a menší šířka.



Obr. 19: Průměrné tvary pater u BCLP pacientů bez palatolalie (vlevo) a s palatolalií (vpravo) - zadní pohled.

Diskuze

Patra BCLP pacientů byla zkoumána prostřednictvím 3-D metod geometrické morfometrie, které slouží pro analýzu morfologie a zjišťování variability tvaru. Analýza konečných prvků prokázala větší šířku, menší klenutí a charakteristické prohloubení za přední částí patra v případě průměrného tvaru patra BCLP pacientů s palatolalií ve srovnání s kontrolní skupinou BCLP jedinců bez palatolalie.

Předkládané výsledky jsou částečně v souladu a částečně v rozporu s jinými publikacemi. Studie zaměřené na porovnání morfologie pater rozštěpových pacientů s poruchou řeči a bez ní uvádí nižší výšku pater u jedinců s palatalizovanou artikulací (Okazaki et al., 1991; Nishikubo et al., 2009), k čemuž jsem dospěla i v diplomové práci. Navíc však ve zmíněných publikacích bylo zjištěno zúžení a zkrácení patra v přední části u jedinců s poruchou řeči (Okazaki et al., 1991), nebo naopak v zadní části (Nishikubo et al., 2009), což již neodpovídá výsledkům této práce. Možnou příčinou nesouladu mohou být následující faktory:

1. Malý vzorek pacientů. Uvedení autoři jiných publikací pracovali se souborem 20 až 30 pacientů pro každý vzorek populace (Okazaki et al., 1991; Nishikubo et al., 2009). V naší studii však byly soubory omezeny nízkou incidencí této rozštěpové vady v České republice a sledovaným věkovým rozmezím 8 (10) - 12 let.
2. Jiná chirurgická metoda léčby rozštěpu. Čeští pacienti byli operováni metodou bridge, zatímco zahraniční metodou pushback.

Při statistickém ověřování nezávislosti hlavních komponent, ovlivňujících výslednou morfologii patra, na věku jsem v případě skupiny BCLP pacientů s palatolalií ve věku od 7,9 do 12,1 let dospěla k rozdílnému výsledku než v jiné studii (Bejdová et al., 2011). Rozdíl byl zřejmě zapříčiněn odlišnou věkovou kategorií pacientů. Ve výzkumu (Bejdová et al., 2011) byli sledováni jedinci, jejichž průměrný věk činil 14,7 let. V uvedeném věkovém období je již převážná část růstu dokončena, a proto nebyla zjištěna významná korelace komponent s věkem. Z důvodu negativních výsledků jsem zopakovala PCA se všemi pacienty staršími 10 a více let. V následujícím případě nebylo prokázáno ovlivnění morfologie a velikosti patra věkem.

Cílem této práce bylo také na základě zjištěných výsledků posoudit, zda morfologie patra může ovlivnit vznik palatolalie. Závěry výzkumu nasvědčují, že tvar patra se s největší pravděpodobností spolupodílí na progresi palatolalie kromě velofaryngeální

insuficience a dalších faktorů. V literatuře však panují rozdílné názory na tuto problematiku. V některých českých studiích autoři (Šmahel et al., 2003; Trefný et al., 2004) uvažují o působení abnormalit tvaru patra na chybný vývoj řeči. Zmíněnou tezi podporuje také studie japonských autorů, kteří ačkoli vedli výzkum na zdravé populaci dětí a dospělých, dospěli k závěru, že mělčí patro dětí ve frontální části ve srovnání s dospělými vede k nesprávné artikulaci předních alveolárních souhlásek (Hiki, Itoh, 1986, Okazaki et al., 1991). Artikulační a akustická variabilita u samohlásek ve vztahu k morfologii patra jedinců byla studována univerzitními vědci z Německa a z Francie (Brunner et al., 2009). Zde bylo prokázáno, že osoby s nižším, mělčím patrem mají nižší variabilitu artikulace. Jazyk je při artikulaci omezován sníženým klenutím, a v důsledku toho není schopen vytvářet přesné a natolik rozmanité artikulační pozice při výslovnosti různých hlásek jako jazyk jedinců s klenutějším patrem. Jedinci tak dle uvedené studie přizpůsobují artikulaci morfologii patra.

Když s tímto zkonfrontuji výsledky výzkumu diplomové práce, kdy patro BCLP pacientů s palatolalií vykazuje též nižší výšku, nasvědčuje to platnosti pracovní hypotézy.

V odborné literatuře zabývající se fonetickou a fonologickou stránkou českého jazyka jsou uváděny hlásky, tzv. explozivy, m, p, b, d, t, n, t', d', ň, k, g jako nejvíce narušené u jedinců s palatolalií (Škodová et al., 2003). Důvody mohou být následující.

V případě artikulace souhlásek m, p a b je zřejmou příčinou chybné výslovnosti nedostatečná elasticita svalstva horního rtu. Zde není uplatňován vliv tvrdého patra, protože se při artikulaci jazyk patra v žádném místě nedotýká. Vyloučit je třeba též velofaryngeální insuficenci z důvodu relaxovaného stavu patrohltanového uzávěru.

Artikulační oblast hlásek d, t a n je lokalizována za alveolární výběžky za horními řezáky. Je zde uplatňováno dozajista více kauzálních faktorů na defekt řeči: morfologie přední části premaxily, především sklon a výška premaxilární části maxily; dále anomálie dentice nejčastěji zastoupené absencí laterálních řezáků a nebo velofaryngeální insuficience, v jejímž důsledku není dostatečně kontrahováno velum, aby byl vytvořen závěr a vzduch neunikal do nosní dutiny.

Při artikulaci hlásek d', t' a ň je zapotřebí vytvořit závěr jazykem. Hřbet jazyka je tak opřen o velkou část tvrdého patra. Když uvážíme, že tvrdé patro pacientů s poruchou řeči je nižší a sníženo o to více v oblasti prohloubení mezi přední a zadní částí patra, které je místem kontaktu hřbetu jazyka s patrem, nebylo by nesmyslné tvrdit, že tvar má vliv na poruchu řeči.

Výslovnost hlásek k a g je založena na kontaktu hřbetu jazyka se zadní částí tvrdého patra a s předním úsekem měkkého patra. Uvážíme-li tvar tvrdého patra pacientů s palatolalií, na konci byl prokázán výraznější spád než u pacientů bez poruchy řeči. Uvedený aspekt by mohl přispívat k poruše řeči. Při artikulaci musí být též vytvořen patrohltanový uzávěr, jehož nedostatečnost vyúsťuje v hypernazální zabarvení tónů.

Mnozí čeští odborníci (Dušková, 2007; Vohradník, 2001) nadsazují význam patrohltanové nedostatečnosti jako původce palatolalie a odmítají uplatnění vlivu morfologie patra. Jejich teze vysvětlující vznik palatolalie je opodstatněna posunem míst artikulace směrem dozadu za účelem kompenzace velofaryngeální insuficience, jak dokládá též zahraniční autor (Ainoida et al., 1985). Za podmínky, že jsou artikulační místa posunuta zadním směrem, jsou však hlásky zároveň produkovány dle mého názoru v úsecích s odlišnými morfologickými charakteristikami než při správné artikulaci.

Nesmíme však opomenout, že palatolalie i jiné vady řeči, jsou podmíněny širším spektrem faktorů, než které byly doposud diskutovány. Do rozvoje palatolalie jsou promítnuty též sociální a psychologické aspekty jedince, případné poruchy sluchové percepce a významný vliv má nepochybně správné načasování chirurgických zákroků a jejich efektivní provedení (Kuehn et al., 2000; Vohradník, 2001; Zahrádková, 2006, Škodová et al., 2003, Lechta et al., 2003).

Závěr

- Analýzou hlavních komponent u obou skupin BCLP pacientů v grafu byla prokázána větší variabilita tvaru patra u pacientů bez palatolalie. Variabilita pacientů s palatolalií je rozložena uvnitř variability druhé skupiny, což poukazuje na přítomnost specifických morfologických charakteristik patra význačných pro skupinu s poruchou řeči.
- Výsledky statistického zpracování všech BCLP pacientů ve věku 7,9 až 12,1 let poukázaly na korelaci morfologie patra determinovanou hlavními komponentami s věkem. Mladší jedinci mají užší a kónický tvar patra, zatímco starší jedinci nižší, širší a zaoblenější.
- Při statistickém hodnocení zahrnující výhradně jedince starší 10 a více let již nebyla zjištěna korelace komponent s věkem.
- Porovnáním průměrných tvarů pater byly prokázány morfologické rozdíly pater mezi skupinou BCLP pacientů s palatolalií a bez této poruchy řeči. Jedinci s palatolalií mají patro širší a nižší, bez rozdílu v délkových parametrech v porovnání s druhou skupinou. Na frontálním pohledu je kontura hřbetní části patra u jedinců s poruchou řeči obloukovitá, zatímco u správně hovořících pacientů kónická. Charakteristickým rysem pater pacientů s palatolalií je existence prohloubení patra lokalizovaného mezi přední třetinou a zadními dvěma třetinami patra, které je umocněno většími výškovými parametry v přední oblasti maxily a nižší výškou v její zadní části. Na laterální projekci je viditelný výrazný spád na konci patra, který se u druhé skupiny pacientů nevyskytuje.
- Z důvodu zjištěných morfologických rozdílů mezi skupinou BCLP jedinců s palatolalií a bez palatolalie je možné očekávat, že tvar patra může být také činitelem při rozvoji palatolalie. Podíváme-li se na místa artikulace určitých souhlásek, k chybné artikulaci zřejmě přispívá nižší výška patra, prohloubení v oblasti za přední částí maxily a strmější sklon v zadní části patra.
- Všechny předložené výsledky sice směřují k potvrzení pracovní hypotézy, ale platnost hypotézy je zapotřebí ještě ověřit na větším souboru pacientů.

Seznam použité literatury:

- Abdi H., Williams L. J. (2010). Principal component analysis. *Wiley Interdisciplinary Reviews: Computational Statistics*, 2: 1–47.
- Ainoda N., Yamashita K., Tsukada S. (1985). Articulation at age 4 in children with early repair of cleft palate. *Annual Plastic Surgery*, 15: 415–422.
- Bartzela T. N., Carels C. E. L., Bronkhorst E. M., Ronning E., Rizell S., Kuijpers-Jagtman A. M. (2010). Tooth agenesis patterns in bilateral cleft lip and palate. *European Journal of Oral Sciences*, 118: 47–52.
- Bejdová Š., Krajíček V., Peterka M., Trefný P., Velemínská J. (2011). Variability in palatal shape and size in patients with bilateral complete cleft lip and palate assessed using dense surface model construction and 3D geometric morphometrics. *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery*. In press.
- Bishara S. E., Olin W. H., Krause Ch. V. (1978). Cephalometric findings in two cases with unrepaired bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Journal*, 15: 233–238.
- Bishara S. E., Ortho D., Jakobsen J. R., Treder J., Nowak A. (1997). Arch width changes from 6 weeks to 45 years of age. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 111: 401–409.
- Blakeley R. W. (1964). The complementary use of speech prosthesis and pharyngeal flaps in palatal insufficiency. *Cleft Palate Journal*, 1: 194–198.
- Broen P. A., Moller K. T., Carlstrom J., Doyle S. S., Devers M., Keenan K. M. (1996). Comparison of the hearing histories of children with and without cleft palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 33: 127–133.
- Brunner J., Fuchs S., Perrier P. (2009). On the relationship between palate shape and articulatory behavior. *The Journal of the Acoustical Society of America*, 125: 3936–3949

Crichton N. A. (2000). Defining and assessing competence: Issues and debates. *Journal of Clinical Nursing*, 9: 369–381.

Čihák R. (2001). Anatomie I. Praha: Grada, 497 s.

Davis A. T. (1990). Pediatric management of the child with a cleft. In: Kernahan D. A., Rosenstein S. W. et al. *Cleft lip and palate. A system of management*. USA: Williams & Wilkins, pp. 28–32.

Diewert W. M. (1980). The role of craniofacial growth in palatal shelf elevation. In: Pratt R. M., Christiansen R. L. et al. *Current Research Trends in Craniofacial Development*, New York, Amsterdam, Oxford: Elsevier/North Holland, p. 165.

Dušková M. (2007). Pokroky v sekundární léčbě nemocných s rozštěpem. Praha: Olga Čermáková, 176 s.

Fitzpatrick D. R., Denhez F., Kondaiah P., Athurst R. J. (1990). Differential expression of TGF β isoforms in murine palatogenesis. *Development*, 109: 585–595.

Flynn, T., Moller, C., Jonsson, R., Lohmander, A. (2009). The high prevalence of otitis media with effusion in children with cleft lip and palate as compared to children without clefts. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 73: 1441–1446.

Gravel J. S., Wallace I. F. (2000). Effects of otitis media with effusion on hearing in the first 3 years of life. *Journal of Speech, Language and Hearing Research*, 43: 631–644.

Hála B., Sovák M. (1962). Hlas, řeč, sluch. Praha: SPN, 327 s.

Harding R. L., Mazaheri M. (1972). Growth and the spatial changes in the arch form in bilateral cleft lip and palate patients. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 50: 591–599.

Heidbuchel K. L. W. M., Kuijpers-Jagtman A. M. (1997). Maxillary and mandibular dental-arch dimension and occlusion in bilateral cleft lip and palate patients from 3 to 17 years of age. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 34: 21–26.

Heidbuchel K. L. W. M., Kuijpers-Jagtman A. M., Kramer G. J. C., Prah-Andersen B. (1998a). Maxillary arch dimensions in bilateral cleft lip and palate from birth until four years of age in boys. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 35: 233–239.

Heidbuchel K. L. W. M., Kuijpers-Jagtman A. M., Van't Hof M. A., Kramer G. J. C., Prah-Andersen B. (1998b). Effects of early treatment on maxillary arch development in BCLP. A study on dental casts between 0 and 4 years of age. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 26: 140–147.

Hermann N. V., Darvann T. A., Jensen B. L., E. Dahl, Bolund S., Kreiborg S. (2004). Early craniofacial morphology and growth in children with bilateral complete cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 41: 424–438.

Hiki S., Itoh H. (1986). Influence of palatal shape on lingual articulation. *Speech Communication*, 5: 141–158.

Honein M. A., Rasmussen S. A., Reefhuis J., Romitti P. A. (2007). Maternal smoking and environmental tobacco smoke exposure and the risk of orofacial clefts. *Epidemiology*, 18: 226–233.

Hutters B., Henningsson G. (2004). Speech outcome following treatment in cross-linguistic cleft palate studies: methodological implications. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 41: 544–549.

Chetpakdeechit W., Stavropoulos D., Hagberg C. (2010). Dental appearance, with focus on the anterior maxillary dentition, in young adults with bilateral cleft lip and palate (CLP). A follow up study. *Swedish Dental Journal*, 34: 27–34.

Ishii K., Vargervik K. (1996). Nasal growth in complete bilateral cleft lip and palate. *Journal of Craniofacial Surgery*, 7: 290–296.

Ito S., Noguchi M., Suda Y., Yamaguchi A., Kohama G., Yamamoto E. (2006). Speech evaluation and dental arch shape following pushback palatoplasty in cleft palate patients: Supraperiosteal flap technique versus mucoperiosteal flap technique. *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery*, 34: 135–143.

Jagomagi T., Nikopensius T., Krjutskov K., Tammekivi V., Viltrop T., Saag M., Metspalu A. (2010). MTHFR and MSX1 contribute to the risk of nonsyndromic cleft lip/palate. *European Journal of Oral Sciences*, 118: 213–220.

Jelínek R., Dostál M., Peterka M. (1983). Rozštěp rtu a patra v obraze experimentu. Praha: Univerzita Karlova, 203 s.

Jugessur A., Murray J. C. (2005). Orofacial clefting - recent insights into a complex trait. *Current Opinion in Genetics and Development*, 15: 270–278.

Kerekrétiová A. (1995). Diagnostika porúch zvuku reči. In: Lechta V., et al.: *Diagnostika narušenej komunikačnej schopnosti*. Martin: Osveta, s. 99–140.

Kiml J. (1978). Základy foniatrie: vady a poruchy funkcií sdělovacího procesu: léčebná péče, výchova, reedukace a rehabilitace sluchu, hlasu a řeči. Praha: Avicenum, 279 s.

Klenková J. (2006). Logopedie. Praha: Grada Publishing, 224 s.

Kramer G. J. C., Hoeksma J. B., Prah-Andersen B. (1994). Palatal changes after lip surgery in different types of cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 31: 376–384.

Kramer G. J. C., Hoeksma J. B., Prah-Andersen B. (1996). Early palatal changes after initial palatal surgery in children with cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 33: 104–111.

- Kraus B. S. (1960). Prenatal growth and morphology of the human bony palate. *Journal of Dental Research*, 39: 1177–1198.
- Kriegel H., Schmahl W., Gerber G. B., Stive F. E. (1986). Radiation risks to the developing nervous system. Stuttgart: Gustav Fischer, 435 pp.
- Kuehn D. P. M. K. T. (2000). Speech and language issues in the cleft palate population: the state of the art. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 37: 348–383.
- Lavigne J. V., Wills K. E. (1990). Psychological aspects of clefting. In: Kernahan D. A., Rosenstein S. W. et al. *Cleft lip and palate. A system of management*. USA: Williams & Wilkins, pp. 37–46.
- Lavrin I. G., Hay E. D. (2000). Epithelial-mesenchymal transformation, palatogenesis and cleft palate. *Angle Orthodontist*, 70: 181–182.
- Lechta V. et al. (2003). Diagnostika narušené komunikační schopnosti. Praha: Portál, 360 s.
- Lewis R. (1954). Speech and the cleft palate child. *Canadian Medical Association Journal*, 71: 600–603.
- Lidral A. C., Murray J. C., Kenneth H. B., Basart A. M., Schearer H., Shiang R., Naval A., Layda E., Magee K., Magee W. (1997). Studies of the candidate genes TGFB2, MSX1, TGFA, and TGFB3 in the etiology of cleft lip and palate in the Phillipines. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 34: 1–6.
- Lidral A. C., Romitti P. A., Basart A. M., Doetschman T., Leysens N. J., Daack-Hirsch S., Semina E. V., Johnson L. R., Machida J., Burds A., Parnell T. J., Rubenstein J. L. R., Murray J. C. (1998). Association of MSX1 and TGFB3 with nonsyndromic clefting in human. *American Journal of Human Genetics*, 63: 557–568.

- Little, J., Cardy, A., & Munger, R. G. (2004). Tobacco smoking and oral clefts: a metaanalysis. *Bull World Health Organ*, 82: 213–218.
- Macholán M. (1999). Prokrustes, deformace a nová morfometrie. Tichá revoluce v biometrii? *Vesmír*, 78: 35–39.
- Marcusson A., Akerlind I., Paulin G. (2001). Quality of life in adults with repaired complete cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, Vol. 38: 379–385.
- Masters F. W., Bingham H. G., Robinson D. W. (1960). The prevention and treatment of hearing loss in the cleft palate child. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 25: 503–509.
- McComb H. (1990). Anatomy of the unilateral and bilateral cleft lip nose. In: Bardach J., Morris H. L., et al., *Multidisciplinary Management of Cleft Lip and Palate*. Philadelphia: WB Saunders, pp. 144–149.
- McComb H. (1990). The nasal deformity in clefts. In: Kernahan D. A., Rosenstein S. W. et al. *Cleft lip and palate. A system of management*. USA: Williams & Wilkins, pp. 68–73.
- Mietlinen P. J. et al. (1999). Epidermal growth factor receptor function is necessary for normal craniofacial development and palate closure. *Nature Genetics*, 22: 69–73.
- Mills J. L., Kirke P. N., Molloy A. M., Burke H. et al. (1999). Methylenetetrahydrofolate reductase thermolabile variant and oral clefts. *American Journal of Medical Genetics*, 86: 71–74.
- Moxham B. J. (2003). The development of the palate - a brief review. *European Journal of Anatomy*, 1: 53–74.
- Moore K. L., Persaud T. V. N. (2002). *Zrození člověka. Embryologie s klinickým zaměřením*. Praha: ISV, 564 s.

- Mossey, P., Little, J., Munger, R. G., Dixon, M. J., Shaw, W. C. (2009). Cleft lip and palate. *Lancet*, 374: 1773–1785.
- Nagarajan R., Savitha V. H., Subramaniyan B. (2009). Communication disorders in individuals with cleft lip and palate: An Overview. *Indian Journal of Plastic Surgery*, 42: 137–143.
- Nishikubo M., Hirahara N., Gomi A., Nozoe E., Nakamura N. (2009). 3-D analysis of palatal morphology associated with palatalized articulation in patients with unilateral cleft lip and palate. *Oral Science International*, 6: 36–45.
- Okazaki K., Kato M., Onizuka T. (1991). Palate morphology in children with cleft palate with palatalized articulation. *Annals of Plastic Surgery*, 26: 156–163.
- Okazaki K., Onizuka T., Abe M., Sawashima M. (1980). Palatalized articulation as a type of cleft palate speech: observation by dynamic palatograph and cineradiograph. *The Japan Journal of Logopedics and Phoniatics*, 21: 109–120.
- Oosterkamp B. C. M., Dijkstra P. U., Remmelink H. J. et al. (2007). Satisfaction with treatment outcome in bilateral cleft lip and palate patients. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 36: 890–895.
- Peterka M., Novotná B. (2010). Úvod do teratologie: příčiny a mechanismy vzniku vrozených vad. Praha: Karolinum, 89 s.
- Peterka M., Pěnkava J. (1975). Growth of the width of the upper dental arch in a sample of the Czech population. *Československá Stomatologie*, 75: 44–50.
- Peterka M., Peterková R., Tvrdek M., Kuderová J., Likovský Z. (2000). Significant differences in the incidence of orofacial clefts in fifty-two Czech districts between 1983 and 1997. *Acta Chirurgica Plastica*, 4: 124–129.

Prescott N. J., Winter R. M., Malcolm S. (2002). Maternal MTHFR genotype contributes to the risk of nonsyndromic cleft lip and palate. *Journal of Medical Genetics*, 39: 368–369.

Reid, J., Reilly, S., Kilpatrick, N. (2007). Sucking performance of babies with cleft conditions. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 44: 312–320.

Richtsmeier J. T., DeLeon V. B., Lele S. R. (2002). The promise of geometric morphometrics. *Yearbook of Physical Anthropology*, 45: 63–91.

Saxen I. (1974). Cleft lip and palate in Finland: parental histories, course of pregnancy and selected environmental factors. *International Journal of Epidemiology*, 3: 263–270.

Sell D. A., Harding A., Grunwell P. (1994). A screening assessment of cleft palate speech (Great Ormond Street Speecg Assessment). *European Journal of Disorders of Communication*, 29: 1–15.

Sell D. A., Harding A., Grunwell P. (1999). Speech assessment for children with cleft palate and/or velopharyngeal dysfunction. *International Journal of Disorders of Communication*, 34: 17–33.

Semb G. (1991). A study of facial growth in patients with bilateral cleft lip and palate treated by the Oslo CLP team. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 28: 22–39.

Shaw G. M., Wasserman C. R., Lammer E. J., O'Malley C. D., Murray J. C., Basart A. M., Tolarova M. M. (1996). Orofacial clefts, parental cigarette smoking, and transforming growth factor alpha gene variants. *American Journal of Human Genetics*, 58: 551–556.

Sheahan, P., Miller, I., Sheahan, J. N., Earley, M. J., Blayney, A. W. (2003). Incidence and outcome of middle ear disease in cleft lip and/or cleft palate. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 67: 785–793.

Shprintzen R. J. (2005). The velopharyngeal mechanism. In: Berkowitz S. *Cleft lip and palate diagnosis and management*. Germany: Springer, pp. 643–657.

Silva Filho O. G., Castro Machado F. M., Andrade A. C., Souza Freitas J. A., Bishara S. E. (1998a). Upper dental arch morphology of adult unoperated complete bilateral cleft lip and palate. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 114: 154–161.

Silva Filho O. G., Lauris R. C. M. C., Filho L. C., Semb G. (1998b). Craniofacial morphology in adult patients with unoperated complete bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 35: 111–119.

Silva Filho O. G., Neto J. V., Filho L. C., Souza Freitas J. A. (2003). Influence of lip repair on craniofacial morphology of patients with complete bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 40: 144–153.

Singh G. D., McNamara J. A., Lozanoff S. (1999). Finite-element morphometry of soft tissue morphology in subjects with untreated Class III malocclusions. *Angle Orthodontist*, 69: 215–224.

Sloan G. M. (2000). Posterior pharyngeal flap and sphincter pharyngoplasty: The state of the art. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 37: 112–122.

Sovák M. (1978). Logopedie. Praha: SPN, 459 s.

Stool S. E., Randall P. (1967). Unexpected ear disease in infants with cleft palate. *Cleft Palate Journal*, 4:99–103.

Škodová E., Jedlička I. (2003). Klinická logopedie. Praha: Portál, 616 s.

Šmahel Z., Trefný P., Formánek P., Müllerová Ž., Peterka M. (2003). Three dimensional morphology of the palate in subjects with isolated cleft palate at the stage of permanent dentition. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 40:577–584.

Šmahel Z., Velemínská J., Trefný P., Müllerová (2009). Three-dimensional morphology of the palate in patients with bilateral complete cleft lip and palate at the stage of permanent dentition. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 46: 399–408.

Tereza C. P. G., de Carvalho Carrara C. D., Costa B. (2010). Tooth abnormalities of number and position in the permanent dentition of patients with complete bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 47: 247–252.

Tindlund R. S., Rygh P. (1993). Maxillary protraction: different effects on facial morphology in unilateral and bilateral cleft lip and palate patients. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 30: 208–221.

Tortora C., Meazzini M. C., Garattini G., Brusati R. (2008). Prevalence of abnormalities in dental structure, position and eruption pattern in a population of unilateral and bilateral cleft lip and palate patients. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 45: 154–162.

Trefný P., Šmahel Z., Formánek P., Peterka M. (2004). Three-dimensional analysis of maxillary dental casts using fourier transform profilometry: precision and reliability of the measurement. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 41: 20–26.

Trotman C. A., Ross R. B. (1993). Craniofacial growth in bilateral cleft lip and palate: ages six years to adulthood. *Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 30: 261–273.

Turner, S. R., Rumsey, N., Sandy, J. R. (1998). Psychological aspects of cleft lip and palate. *European Journal of Orthodontics*, 20: 407–415.

Vieira, A. R. (2006). Association between the transforming growth factor alpha gene and nonsyndromic oral clefts: a HuGE review. *American Journal of Epidemiology*, 163: 790–810.

Vitásková K., Peutelschmiedová A. (2005). Logopedie. Olomouc: Univerzita Palackého v Olomouci, 182 s.

Vohradník M. (2001). Poruchy řečové komunikace u velofaryngeální insuficience. Hlas, řeč a sluch u dětí s rozštěpovými vadami obličeje. Dolní Břežany: Scriptorium, 134 s.

Vyštejn J. (1991). Vady výslovnosti. Praha: SPN, 174 s.

Wada T., Mizokawa N., Miyazaki T., Ergen G. (1984). Maxillary dental arch growth in different types of cleft. *Cleft Palate Journal*, 21: 180–192.

Wong, F. K., & Hagg, U. (2004). An update on the aetiology of orofacial clefts. *Hong Kong Medical Journal*, 10: 331–336.

Wutzl A., Sinko K., Shengelia N., Brozek W., Watzinger F., Schicho K., Ewers R. (2009). Examination of dental casts in newborns with bilateral complete cleft lip and palate. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 38: 1025–1029.

Wyatt R., Sell D., Russell J., Harding A., Albery E. (1996). Cleft palate speech dissected: a review of current knowledge and analysis. *British Journal of Plastic Surgery*, 49: 143–149.

Zahrádková M. (2006). Speciální pedagogika. Logopedie. České Budějovice: Zdravotně sociální fakulta Jihočeské univerzity v Českých Budějovicích, 30 s.

Zelditch M. L., Swiderski D. L., Sheets H. D., Fink W. L. (2004). Geometric morphometrics for biologists: A primer. Boston: Elsevier Academic Press, 443 pp.

Elektronické zdroje:

medical-dictionary.thefreedictionary.com/velopharyngeal+insufficiency

medical.yourdictionary.com/velopharyngeal-insufficiency

www.cleftline.org/docs/Booklets/SPE_01.pdf

Cleft Palate Foundation (2008). *Developing good speech*. New York.

www.cleftline.org/docs/PDF_Factsheets/Speech.pdf

Cleft Palate Foundation (2001). *Speech development*. New York.

www.cleftstories.com/cleft-lip-palate-archives/nam-gallery-2/

www.speechpathology.com/articles/article_detail.asp?article_id=293

www.sensorysociety.org/ssp/wiki/2851ec204f6b62130cf9fe027606a739

www.uzis.cz/rychle-informace/cinnost-logopedickych-pracovist-cr-roce-2009

ÚZIS ČR (2010). *Aktuální informace. Činnost logopedických pracovišť v ČR v roce 2009*. Praha.

www.wikipedia.cz