
REZUMATUL TEZEI DE DOCTORAT

Reabilitarea vocală, olfactivă și respiratorie pulmonară la pacienții laringectomizați

Doctorand **Cristina Uzun (Țiple)**

Conducător de doctorat **Prof. Dr. Dr. H. C. Marcel Cosgarea**

CLUJ-NAPOCA 2019



UMF
UNIVERSITATEA DE
MEDICINĂ ȘI FARMACIE
IULIU HAȚIEGANU
CLUJ-NAPOCA

CUPRINS

INTRODUCERE	15
STADIUL ACTUAL AL CUNOAȘTERII	17
1. Cancerul de laringe.....	19
1.1. Epidemiologia cancerului de laringe.....	19
1.2. Considerații anatomice ale laringelui	19
1.2.1. Laringele	19
1.2.2. Vascularizația și inervația	20
1.3. Funcțiile laringelui	21
1.4. Diagnosticul în cancerului de laringe.....	21
1.5. Abordări terapeutice în cancerul de laringe.....	22
1.6. Istoricul laringectomiei totale și a reabilitării vocale	23
2. Consecințele laringectomiei totale	25
2.1. Pierderea vocii	25
2.2. Pierderea mirosului.....	25
2.3. Pierderea condiționării aerului inspirat.....	26
3. Reabilitarea vocii postlaringectomie totală	27
3.1. Fiziologia producerii vocii.....	27
3.2. Vocea traheo-esofagiană.....	28
3.2.1. Proteza vocală.....	28
3.2.2. Tehnica chirurgicală de inserție a protezei vocale.....	29
3.3. Vocea esofagiană /erigmofonia.....	31
3.4. Electrolaringele	32
4. Reabilitarea olfactivă	33
4.1. Anatomia și fiziologia olfacției.....	33
4.2. Tulburările de miros.....	34
4.3. Evaluarea olfactivă la pacienții cu laringectomie totală	35
4.4. Reabilitarea olfactivă	37
4.4.1 Tehnica de reabilitare olfactivă “cășcatul politicos”	37
5. Reabilitarea respiratorie pulmonară	39
5.1. Date despre fiziologia respirației	39
5.2. Date despre reabilitarea respiratorie pulmonară.....	39
CONTRIBUȚIA PERSONALĂ	43
1. Ipoteza de lucru	45
2. Studiul 1. Impactul reabilitării vocale asupra calității vieții și a handicapului vocal la pacienții cu laringectomie totală.....	47
2.1. Introducere	47
2.2. Ipoteza de lucru	48
2.3. Material și metodă.....	48
2.4. Rezultate	49
2.5. Discuții	58
2.6. Concluzii.....	61
3. Studiul 2. Calitatea vocii la pacienții laringectomizați cu metodele de reabilitare vocală actuale și așteptările de la noua generație de tehnologii de asistență vocală	63

3.1. Introducere	63
3.2. Ipoteza de lucru	64
3.3. Material și metodă.....	64
3.4. Rezultate	66
3.5. Discuții	71
3.5 Concluzii	73
4. Studiul 3. Colonizarea microbiană la nivelul protezei vocale și factorii care favorizează formarea biofilmului.	75
4.1. Introducere	75
4.2. Ipoteza de lucru	76
4.3. Material și metodă.....	76
4.4. Rezultate	77
4.5. Discuții	83
4.6. Concluzii.....	86
5. Studiul 4. Reabilitarea olfactivă la pacienții laringectomizați prin tehnica „Căscatul politicos”	87
5.1. Introducere	87
5.2. Ipoteza de lucru	88
5.3. Material și metodă.....	88
5.4. Rezultate	90
5.5. Discuții	97
5.6. Concluzii.....	99
6. Studiul 5. Reabilitarea respiratorie pulmonară la pacienții laringectomizați	101
6.1. Introducere	101
6.2. Ipoteza de lucru	102
6.3. Material și metodă.....	102
6.4. Rezultate	103
6.5. Discuții	109
6.6. Concluzii.....	110
7. Concluzii generale.....	111
8. Originalitatea și contribuțiile inovative ale tezei.....	113
REFERINȚE	115
ANEXE.....	133
Cuvinte cheie: laringectomie totală, reabilitare vocală, olfactivă, respiratorie pulmonară, proteză vocală, căscatul politicos, filtre HMEs, laringofon (EL), erigmofoanație, voce esofagiană (ES), voce traheo-esofagiană, teste olfactive Sniffin stiks, teste funcționale respiratorii, SWARA.	

INTRODUCERE

Cancerul de laringe rămâne unul dintre cele mai frecvente tumori ale tractului respirator. Laringectomia totală este o procedură chirurgicală mutilantă care are un impact major asupra vieții pacientului, datorită sechelelor sale fizice și funcționale; voce, miros, deglutiție și aspectul estetic (traheostomia). Consecințele sale

psihosociale sunt, de asemenea, importante și modifică calitatea vieții pacienților și relațiile lor sociale. În ultimele trei decenii, dezvoltarea programelor de reabilitare a pacienților laringectomizați a dus la creșterea calității vieții lor. Educația medicală este slab dezvoltată în România, în special în sfera cancerelor de cap și gât. În prezent, îngrijirea pacienților cu laringectomie constă doar în informarea și educarea cu privire la anumite proceduri tehnice: înlocuirea canulei, curățarea traheostomei și a protezei vocale.

Deși literatura de specialitate internațională oferă articole cu tematică similară, în România acesta reprezintă un domeniu relativ nou de cercetare, lucrarea de față încercând să aibă un aport informațional integrativ asupra consecințelor laringectomiei totale și a calității vieții. Aceste informații fiind utile în reabilitarea comprehensivă a acestor pacienți și reintegrarea socială a acestora.

Această lucrare investighează diferitele metode de reabilitare vocală, olfactivă și respiratorie pulmonară pentru îmbunătățirea calității vieții pacienților cu laringectomie totală în România.

Prima parte a tezei cuprinde stadiul actual al cunoașterii, care prezintă cele mai recente date în ceea ce privește consecințele fizice și psihologice după laringectomia totală și impactul asupra calității vieții acestor pacienți. Ca urmare a laringectomiei totale se produce pierderea vocii, pierderea simțului olfactiv, tuse, dificultăți de înghițire, modificări ale funcției pulmonare și complicațiile traheostomei permanente. Atenție specială se acordă tehnicilor de reabilitare a tuturor funcțiilor care afectează calitatea vieții, astfel încât pacientul să poată trăi o viață fără restricții, ca urmare a laringectomiei totale. Cea de-a doua parte a tezei, intitulată Contribuții personale, prezintă în detaliu cele cinci studii de sechele funcționale ale laringectomiei totale și tehnicile de reabilitare a pacienților laringectomizați.

Primul studiu de analiză a datelor privind impactul reabilitării vocale asupra calității vieții la pacienții laringectomizați a demonstrat influența reabilitării vocale.

Tot în această parte am evaluat un nou sistem de asistare vocală, care implică tehnologia smartphone, ce sintetizează o voce artificială îmbunătățită și personalizată, pentru pacienții cu afonie chirurgicală. Studiul a fost susținut de grantul SWARA Project, PN-II-PT-PCCA-2013-4-1660, contract no. 6/2014. Dezvoltarea acestui proiect a avut loc ca urmare a necesității de asistare vocală a pacienților cu afonie chirurgicală, care nu reușesc să comunice cu metodele de reabilitare vocală actuale. Deși integrarea cu sinteza de voce mobilă a fost realizată deja, rezultatele sunt complet noi în literatura științifică de specialitate, atât pe plan național cât și internațional, aducând informații valoroase pentru practica clinică.

Un alt subiect de interes în cadrul lucrării este studiul privind pierderea mirosului ca urmare a laringectomiei totale și metoda de reabilitare a acestuia, prin manevra de inducere a fluxului de aer nazal (NAIM).

Investigând factorii care influențează durata de viață a protezei vocale și factorii care favorizează colonizarea microbiană a protezei vocale, am constatat că colonizarea fungică și bacteriană rămâne principalul motiv care favorizează o durată de viață suboptimală a protezei vocale.

Cele mai grave consecințe ale laringectomiei totale sunt modificările în fiziologia pulmonară conducând la un schimb gazos suboptimal intrapulmonar. În speranța că putem reduce aceste efecte secundare am efectuat reabilitarea respiratorie pulmonară cu ajutorul filtrului HMEs, fiind în prezent singurul tratament eficient al

problemelor pulmonare la pacienții laringectomizați. Astfel, am evaluat funcția respiratorie pulmonară și eficacitatea utilizării filtrului HMEs.

Deși în literatura de specialitate din Romania nu se pune accent pe includerea evaluării și reabilitării funcțiilor compromise după laringectomia totală, studiile inovative din cadrul acestei lucrări au impact la nivel național, reprezentând un nou domeniu în cercetare.

CONTRIBUȚIA PERSONALĂ

Ipoteza de lucru

În debutul lucrării am considerat necesară evaluarea calității vieții pacienților cu laringectomie totală. Am avut ca obiective principale evaluarea impactului reabilitării vocale asupra calității vieții (QOL), a stării de sănătate în relație cu calitatea vieții (HRQL) și a indicelui handicapului vocal VHI, precum și investigarea tehnicilor de reabilitarea vocală, respiratorie pulmonară și olfactivă la pacienții laringectomizați. Pentru atingerea obiectivelor principale am urmărit evaluarea utilizării și gradul de adaptare a pacienților la sistemul de sinteză text-vorbire, identificarea factorilor care influențează durata de viață a protezei vocale și a factorilor care favorizează colonizarea microbiană a protezei vocale.

În vederea reabilitării olfactive, am început prin evaluarea mirosului cu ajutorul testelor olfactive, ulterior pacienții au fost învățați tehnica NAIM cunoscută și sub numele de „căscatul politicos”, în vederea restabilirii unui flux de aer nazal, urmată de o nouă evaluare a mirosului, după exersarea tehnicii. Evaluarea statusului funcțional respirator pulmonar la pacienții laringectomizați s-a făcut cu ajutorul spirometriei. În scopul evaluării eficacității filtrelor HMEs, am urmărit parametrii funcționali respiratori după utilizarea filtrelor, pentru o perioadă de timp dată.

Studiul 1. Impactul reabilitării vocale asupra calității vieții și a handicapului vocal la pacienții cu laringectomie totală

Ipoteza de lucru

În acest studiu, am evaluat impactul reabilitării vocale asupra calității vieții (QOL), a stării de sănătate în relație cu calitatea vieții (HRQL) și a indicelui handicapului vocal VHI la pacienții laringectomizați.

Material și metodă

Studiul a inclus 65 de pacienți cu laringectomie totală pentru cancer de laringe sau hipofaringe. În studiu am inclus 40 de pacienți cu reabilitare vocală și 25 de pacienți fără reabilitarea vocală. Toți participanții au fost rugați să răspundă la trei chestionare: VHI, chestionarul QOL EOTRC 30 (QLQ - C30, versiunea 3) și chestionarul cancerelor de cap și gât EOTRC (QLQ-H și N35) în aceeași zi. Aceste chestionare au fost retrimise pacienților cu proteză vocală la 6 luni de la prima evaluare. VHI este un chestionar de autoevaluare care conține 30 de întrebări, conceput de Jacobson și colab. pentru a cuantifica percepția pacientului asupra dizabilității care rezultă din tulburarea sa de voce. Scorurile variază de la 0 la 120. Chestionarul EORTC QLQ-C30 este format din cinci scale funcționale (fizic, rol/funcție, cognitiv, emoțional și social), trei scale simptomatice (oboseală, durere, greață și vărsături), o scală globală QOL și șase elemente independente (dispnee, insomnie, pierderea apetitului, constipație, diaree și probleme financiare). Chestionarul specific pentru cancerul de cap și gât EORTC QLQ-H și N35, cuprinde

35 de întrebări, grupate în 7 scale (durere, deglutiție, simțuri, vorbire, alimentația în public, contact social și sexualitate) și 11 elemente independente.

Rezultate

Rezultatele chestionarelor EORTC QLQ-C30 au arătat o diferență apropiată de pragul semnificației statistice între grupul cu reabilitarea vocală și grupul fără reabilitarea vocală. Cei cu voce esofagiană au avut un scor mai bun pe scala funcțională ($64,84 \pm 38,51$) comparativ cu pacienții cu voce traheosofagiană ($70,23 \pm 33,44$), cei cu electrolaringe ($69,60 \pm 31,86$) și pacienții care nu au avut nici un tip de reabilitare vocală. La fel și pe scala fizică.

Pacienții cu reabilitare vocală au avut un scor total VHI (handicap vocal) mai bun ($55,85 \pm 23$) decât cei fără reabilitare vocală ($60,71 \pm 25,99$), diferența între grupuri fiind semnificativă statistic ($P = 0,05$). Rezultatele chestionarului QLQ-H și N35 au evidențiat că pacienții fără reabilitare vocală au fost afectați semnificativ mai puternic decât cei cu reabilitare vocală.

Concluzii

Acest studiu a demonstrat că calitatea vieții a fost mai bună la pacienții care au urmat reabilitare vocală față de cei fără reabilitare vocală. Chestionarele EORTC QLQ-C30, EORTC QLQ-H și N35 și VHI ajută la obținerea de informații privind modul în care viața pacienților laringectomizați este afectată după tratament.

Studiul 2. Calitatea vocii la pacienții laringectomizați cu metodele de reabilitare vocală actuale și așteptările de la noua generație de tehnologii de asistență vocală

Ipoteza de lucru

În acest studiu, într-o încercare de a evalua handicapul vocal și satisfacția pacienților cu metodele actuale de reabilitare vocală și pentru a identifica nevoile sau cerințele care ar trebui abordate de o nouă tehnologie de asistare vocală, pentru pacienții cu afonie chirurgicală, am utilizat metode calitative - interviuri tip focus grup cât și metode cantitative - chestionare online și chestionarul VHI. Am evaluat și utilizarea, gradul de adaptare a pacienților la sistemul de sinteză text-vorbire, utilizând metode cantitative – completarea unui chestionar de către pacienți, la o lună după testarea aplicației SWARA.

Material și metodă

În prima etapă a studiului, primul eșantion a fost format din 62 de bărbați și 3 femei, cu vârsta medie de 59,15 ani, iar cel de al doilea a fost format din 24 de pacienți cu laringectomie totală. La pacienții din primul eșantion am evaluat handicapul vocal cu ajutorul chestionarelor: Voice Handicap Index (VHI). În al doilea grup pentru a aduna informațiile, au fost folosite metode atât calitative (interviuri în profunzime, focus-grupuri) și metode cantitative (sondaje online). Pacienții din al doilea grup au fost intervievați de către o echipă de psihologi de la Departamentul de Psihologie Clinică și Psihoterapie, Universitatea Babeș-Bolyai. În a doua parte a studiului am inclus 20 de pacienți laringectomizați cu sau fără reabilitare vocală.

Pacienții au oferit un feedback referitor la sistemul de sinteză de voce în urma utilizării acestuia timp de 1 lună. Pentru a evalua comparativ satisfacția percepută a vocilor sintetice cu cea a unui pacient cu laringectomie, am folosit chestionarul pentru evaluarea sistemului mobil de sinteză de voce – SWARA.

Rezultate

Analiza handicapului vocal (VHI) a relevat faptul că grupul de pacienți cu voce esofagiană și cei cu laringofon au avut un handicap vocal moderat (scor mediu $52,67 \pm 19,32$ față de $52,82 \pm 24,2$), în timp ce pacienții cu proteză vocală și pacienții fără reabilitare vocală a avut un handicap sever (scor mediu $61,57 \pm 24,2$, respective $68,48 \pm 28,91$). Rezultatele celui de al doilea eșantion au subliniat faptul că majoritatea pacienților (60%), folosesc o metodă de reabilitare vocală. Probleme referitoare la metoda de reabilitare vocală actuală pot fi grupate în următoarele categorii: dificultăți în a fi înțeleși de către partenerii de comunicare, faptul că alții evită să comunice cu ei, faptul că ei vorbesc mult mai puțin decât înainte de intervenția chirurgicală, dificultăți în a fi auziți atunci când vorbesc de la o distanță considerabilă și dificultăți în a fi auziți atunci când există zgomot de fond. În ceea ce privește atitudinea față de utilizarea vocilor sintetice, un procent de 55% au considerat ideea utilizării vocilor sintetice pentru pacienții cu laringectomie ca fiind utilă dacă funcționează într-o aplicație ce poate oferi continuitate în exprimare.

Concluzii

Deși pacienții exprimă o anumită satisfacție față de metodele de reabilitare vocală actuale, există mult spațiu pentru îmbunătățiri și există mai multe probleme și nevoi care nu sunt abordate de dispozitivele disponibile. Astfel, sistemul mobil de sinteză de voce permite oamenilor cu dizabilități de vorbire să interacționeze prin intermediul tehnologiilor. Analiza atitudinii față de utilizarea instrumentelor tehnologice pentru asistarea vocală a condus la concluzia că este absolut necesară producerea unui device care să producă sinteza de voce fără a fi necesară accesarea rețelei de internet. Chestionarul VHI este un instrument util în colectarea de informații cu privire la handicapul vocal și este capabil de a cuantifica impactul diferitelor metode de asistare vocale privind funcționarea și adaptarea acestora la această condiție.

Studiul 3. Colonizarea microbiană la nivelul protezei vocale și factorii care favorizează formarea biofilmului.

Ipoteza de lucru

Colonizarea fungică și bacteriană la nivelul protezei vocale scade durata de viață a protezei vocale, astfel în acest studiu am investigat factorii care influențează durata de viață a protezei vocale și factorii care favorizează colonizarea microbiană a protezei vocale.

Material și metodă

Acest studiu s-a desfășurat pe 16 pacienți cu laringectomie totală, reabilitați vocal cu proteza vocală. Am recoltat proteza vocală după schimbarea acesteia și am împărțit proteza vocală în două jumătăți egale, flanșa externă (traheală) și cea internă (esofagiană) și s-au pus separat, în recipiente sterile. Cu ajutorul tamponului faringian s-a prelevat secreție de la nivelul orofaringelui și a cavității bucale, precum și de la nivelul orificiului fistulos traheo-esofagian. Secrețiile recoltate și protezele vocale s-au trimis pentru examen microbiologic și fungic.

S-au adăugat 5 - 10 ml ser fiziologic steril și s-a spălat flanșa protezei vocale. Cu ansa sterilă s-au însămânțat următoarele medii de cultură: Agar Columbia, Agar chocolate, Agar McCokey, Agar Sabouraud (pentru izolare fungi). Plăcile au fost incubate la 37°C timp de 24 - 48 de ore. Culturile obținute din flanșa traheală și

esofagiană a protezei s-au examinat microscopic pentru identificarea fungilor și a bacteriilor. Am efectuat examenul microbiologic și fungic al secrețiilor prelevate de pe protezele vocale utilizate și de la nivelul cavității bucale, pentru identificarea agenților patogeni. Am analizat factorii care influențează durata de viață a protezei vocale.

Rezultate

Analiza microbiologică a protezelor vocale și de la nivelul cavității bucale, a evidențiat o creștere mixtă (atât fungică cât și bacteriană). Fungul *Candida Albicans*, a fost prezent în 12 cazuri, în trei culturi (18,8%) fiind singurul fung izolat, în restul culturilor a fost asociat cu încă 3 specii de *Candida*: *Candida Tropicalis* în 5 culturi (31,3%), *Candida Glabrata* în 4 culturi (25,0%) și *Candida Krusei* în 11 culturi (68,8%). Cele mai frecvente bacterii identificate în acest studiu au fost: *Staphylococcus aureus* în 9 culturi (56,3%), *Pseudomonas spp* în 5 (31,3%), *Klebsiella ESBL* în 3 culturi (18,8%), *Streptococ Beta hemolitic* în 3 culturi (18,8%). În doar 4 (25,0%) din cazuri s-a evidențiat creșterea bacteriilor în culturile de la nivelul cavității bucale și în secrețiile de la nivelul orificiului fistulos și de la nivelul flanșei esofagiene. Depunerile de la nivelul protezei a fost principalul motiv pentru schimbarea protezei vocale (37,5%). urmată de scurgerile pe lângă proteza vocală au fost identificate la 25%.

Concluzii

Acest studiu a arătat că flora microbiană a fost similară celei găsite în studiile raportate în literatura de specialitate. Colonizarea fungică și bacteriană rămâne principalul motiv care favorizează o durată de viață suboptimală a protezei vocale. Nu am putut stabili relația exactă a microorganismelor bacteriene din cavitatea bucală în formarea biofilmelor de la nivelul protezelor vocale.

Studiul 4. Reabilitarea olfactivă la pacienții laringectomizați prin tehnica „Căscatul politicos”

Ipoteza de lucru

Acest studiu și-a propus evaluarea mirosului la pacienții laringectomizați și rezultatul reabilitării olfactive cu tehnica NAIM (Nasal Airflow Inducing Manoeuvre) cunoscută și sub numele de „căscatul politicos” la pacienții laringectomizați din România.

Material și metodă

Studiul a cuprins 26 de pacienți cu laringectomizați, la care s-a efectuat reabilitare olfactivă prin tehnica NAIM- „căscatul politicos”. Fiecare pacient a fost evaluat și instruit individual pentru învățarea tehnicii „căscatul politicos”. Pentru un feedback vizual în timp real în timpul practicii manevrei NAIM, s-a utilizat manometrul cu apă. Toți pacienții au fost evaluați olfactiv, cu ajutorul testelor olfactive „Sniffin’ Sticks”, înainte de învățarea exercițiului de reabilitare olfactivă, imediat după efectuarea reabilitării olfactive și peste 6 luni.

Rezultate

Pe baza performanțelor obținute la testul olfactiv (scor global TDI), pacienții au fost diagnosticați funcțional „are miros” – pentru hiposmie și normosmie – și „nu are miros” – pentru anosmie. În clasificarea funcțională a capacității de miros post intervenție, șase (23%) pacienți au trecut la o clasă superioară, de la categoria „nu are miros” la „are miros”, iar la șase luni după învățarea tehnicii cincisprezece (57%)

pacienți au trecut la categoria „are miros”. Media scorului TDI înainte de învățarea tehnicii a fost ($5,38 \pm 54,41$), imediat după efectuarea exercițiilor de reabilitare olfactivă, media scorului TDI a fost de ($12,77 \pm 4,25$), iar la 6 luni după reabilitarea olfactivă, a fost ($16,65 \pm 4,00$). Valorile scorului TDI sunt în creștere, fiind semnificativ statistic ($p=0,00$).

Concluzii

Laringectomia totală determină afectarea olfactivă și gustativă care ar putea compromite aportul alimentar și calitatea vieții pacienților. Manevra de inducere a fluxului de aer nazal este o metodă pentru reabilitarea cu succes a mirosului, la pacienții laringectomizați.

Studiul 5. Reabilitarea respiratorie pulmonară la pacienții laringectomizați

Ipoteza de lucru

Scopul acestui studiu este de a caracteriza statusul funcțional respirator pulmonar la pacienții laringectomizați și prezența tulburărilor funcționale respiratorii, precum și evaluarea eficacității filtrelor.

Material și metodă

În acest studiu am inclus 11 pacienți cu laringectomie totală. Pacienții au utilizat filtrele HMEs pentru o perioadă de 1 lună. S-a evaluat funcția respiratorie pulmonară înainte de utilizarea filtrelor și la o lună după utilizarea acestora. Toți pacienții au fost intervievați inițial de utilizarea filtrelor și după. Pentru evaluarea non- invazivă a funcției respiratorii pulmonare, am efectuat spirometrie.

Rezultate

În studiu am inclus 11 pacienți cu media de vârstă de $55,73 \pm 15,467$. Rezultatele testelor funcționale respiratorii (Spirometrie) la pacienții laringectomizați au evidențiat: valoarea indicelui PEF ($3,19 \pm 1,58$) este redusă la pacienții cu laringectomie totală comparativ cu valoarea predictivă ($7,54 \pm 1,16$), diferența celor două valori ($4,34 \pm 2,58$) fiind semnificativă statistic ($p=0,00$). Valoarea medie indicilor: VEMS, FVC, FEV1/FVC, MEF 50, au fost mai reduse comparativ cu valoarea predictivă, însă diferența dintre valori nu a fost semnificativ statistică. 63,6% dintre pacienți au fost găsiți cu valori modificate ale funcției respiratorii pulmonare: 5 (45,5%) pacienți au fost descoperiți cu sindrom ventilator mixt, 1 (9, 1%) pacient a prezentat sindrom ventilator obstructiv și 1 (9,1%) pacient restrictiv. La 1 lună după utilizarea filtrelor, 72% dintre pacienți au prezentat valori modificate, după cum urmează: cu sindrom ventilator mixt 4 (36,4 %), obstructiv 2 (18,2%) și 2 (18,2%) pacienți cu sindrom ventilator restrictiv.

Concluzii

Cu toate că HME nu poate restabili complet funcțiile căilor respiratorii superioare, joacă un rol major în reabilitarea pulmonară pentru pacienții cu laringectomie totală, reducând atât problemele fizice cât și cele psihosociale. Deși, în acest studiu, evaluarea obiectivă a demonstrat înrăutățirea rezultatelor indicilor funcționali respiratori, totuși a existat o diferență semnificativă subiectivă în reducerea episoadelor de tuse, reducerea expectorației și a îmbunătățirea calității vieții. Pentru a obține un efect optim al reabilitării pulmonare, este necesar utilizarea continuă a filtrelor HME.

PHD THESIS SUMMARY

Vocal, olfactory and respiratory pulmonary rehabilitation in laryngectomized patients

PhD Student **Cristina Uzun (Țiple)**

PhD Scientific Coordinator **Prof. Dr. Dr. H. C. Marcel Cosgarea**



UMF
UNIVERSITATEA DE
MEDICINĂ ȘI FARMACIE
IULIU HAȚIEGANU
CLUJ-NAPOCA

CLUJ-NAPOCA 2019

SUMMARY

INTRODUCTION.....	15
CURRENT STATE OF KNOWLEDGE	17
1. Larynx cancer.....	19
1.1. Epidemiology of laryngeal cancer	19
1.2. Anatomical considerations of the larynx.....	19
1.2.1. Larynx	19
1.2.2. Vascularization and innervation.....	20
1.3. Functions of the larynx.....	21
1.4. Diagnosis in laryngeal carcinoma.....	21
1.5. Therapeutic approaches in larynx cancer.....	22
1.6. History of total laryngectomy and vocal rehabilitation	23
2. Consequences of total laryngectomy	25
2.1. Loss of voice	25
2.2. Loss of smell	25
2.3. Loss of inspired conditioning air	26
3. Voice rehabilitation after total laryngectomy.....	27
3.1. Physiology of voice production.....	27
3.2. The tracheo-oesophageal voice	28
3.2.1. Voice prosthesis.....	28
3.2.2. Surgical technique of insertion of the vocal prosthesis	29
3.3. The esophageal voice	31
3.4. Electrolarynx.....	32
4. Olfactory rehabilitation.....	33
4.1. The anatomy and physiology of olfaction	33
4.2. Odor disorders	34
4.3. Olfactory evaluation in patients with total laryngectomy	35
4.4. Olfactory rehabilitation.....	37
4.4.1 The technique of olfactory rehabilitation "the polite yawning"	37
5. Pulmonary respiratory rehabilitation.....	39
5.1. Data on the physiology of breathing.....	39
5.2. Data on pulmonary respiratory rehabilitation	39
PERSONAL CONTRIBUTION	43
1. WORKING HYPOTHESIS...	45
2. Study No 1. The impact of vocal rehabilitation on quality of life and voice handicap in patients with total laryngectomy.....	47
2.1. Introduction	47
2.2. Working Hypothesis	48
2.3. Material and methods	48
2.4. Results.....	49
2.5. Discussions	58

2.6. Conclusions.....	61
3. Study No 2. Voice-related quality of life results in laryngectomies with today's speech options and expectations from the next generation of vocal assistive technologies	63
3.1. Introduction	63
3.2. Working Hypothesis	64
3.3. Material and methods	64
3.4. Results.....	66
3.5. Discussions	71
3.6 Conclusions.....	73
4. Study No 3. Microbial colonization on the voice prosthesis and the factors that favor the formation of the biofilm.....	75
4.1. Introduction	75
4.2. Working Hypothesis	76
4.3. Material and methods	76
4.4. Results.....	77
4.5. Discussions	83
4.6. Conclusions.....	86
5. Study No 4. Olfactory Rehabilitation in Laryngectomized Patients by the "Polite Yawning" Technique.	87
5.1. Introduction	87
5.2. Working Hypothesis	88
5.3. Material and methods	88
5.4. Results.....	90
5.5. Discussions	97
5.6. Conclusions.....	99
6. Study No 5. Pulmonary rehabilitation in patients with total Laryngectomy.....	101
6.1. Introduction	101
6.2. Working Hypothesis	102
6.3. Material and methods	102
6.4. Results.....	103
6.5. Discussions	109
6.6. Conclusions.....	110
7. General Conclusions	111
8. Originality and innovative contributions of the thesis.....	113
REFERECENS.....	115
ANNEXES.....	133

Keywords: total laryngectomy, vocal rehabilitation, olfactory, pulmonary rehabilitation, vocal prosthesis, polite yawning, filters HMEs filters, electrolarynx (EL), esophageal voice (ES), tracheo-esophageal voice, olfactory tests Sniffin stiks, teste funcțională respiratorie, SWARA.

INTRODUCTION

Larynx cancer remains one of the most common tumors of the respiratory tract. Total laryngectomy is a mutilating surgical procedure that has a major impact on the patient's life, due to its physical and functional sequelae; voice, odor, swallowing and aesthetic appearance (tracheostomy). Its psychosocial consequences are also important and change the quality of life of patients and their social relationships.

Over the last three decades, the development of rehabilitation programs for laryngectomized patients has increased the quality of their life. Medical education is poorly developed in Romania, especially in the field of head and neck cancers. Currently, the care of patients with laryngectomy consists only in informing and educating about certain technical procedures: replacement of the cannula, cleaning of the tracheostome and of the vocal prosthesis. Although the international literature offers similar articles, in Romania it is a relatively new field of research, the present paper trying to have an integrative informative contribution on the consequences of total laryngectomy and quality of life.

This information is useful in the comprehensive rehabilitation of these patients and their social reintegration. This work investigates the different methods of comprehensive respiratory rehabilitation in order to improve the quality of life of patients with total laryngectomy in Romania.

The first part of the thesis covers the current state of knowledge, which presents the latest data regarding the physical and psychological consequences after total laryngectomy and the impact on the quality of life of these patients. As a result of total laryngectomy, there is loss of voice, loss of sense of smell, cough, difficulty in swallowing, changes in lung function and complications of permanent tracheostomy. Special attention is paid to the techniques of rehabilitation of all functions that affect the quality of life, so that the patient can live an unrestricted life as a result of total laryngectomy.

The second part of the thesis, entitled Personal contributions, presents in detail the five studies of functional sequelae of total laryngectomy and techniques of vocal, olfactory and pulmonary respiratory rehabilitation. The first data analysis study on the impact of vocal rehabilitation on quality of life in laryngectomized patients demonstrated the influence of vocal rehabilitation.

Also in this part we evaluated a new voice assistance system, which involves smartphone technology, which synthesizes an improved and personalized artificial voice, for patients with surgical aphonia. The study was supported by the SWARA Project grant, PN-II-PT-PCCA-2013-4-1660, contract no. 6/2014. The development of this project was due to the need for vocal assistance of patients with surgical aphonia, who are unable to communicate with the current methods of vocal rehabilitation. Although integration with mobile voice synthesis has already been achieved, the results are completely new in the specialized scientific literature, both nationally and internationally, providing valuable information for clinical practice.

Another topic of interest in the work is the study of odor loss as a result of total laryngectomy and its method of rehabilitation, through nasal airflow induction maneuver (NAIM).

Investigating the factors that influence the life span of the vocal prosthesis and the factors that favor the microbial colonization of the vocal prosthesis, we found that fungal and bacterial colonization remain the main reason that favors a suboptimal life span of the vocal prosthesis.

The most serious consequences of total laryngectomy are changes in pulmonary physiology leading to suboptimal intrapulmonary gas exchange. In the hope that we can reduce these side effects, we performed pulmonary respiratory rehabilitation using the HMEs filter, being currently the only effective treatment of lung problems in laryngectomized patients. Thus, we evaluated the lung respiratory function and the effectiveness of using the HMEs filter.

Although in the Romanian literature there is no emphasis on including the evaluation and rehabilitation of compromised functions after total laryngectomy, the innovative studies within this paper have a national impact, representing a new field in research.

PERSONAL CONTRIBUTION

Working hypothesis

At the beginning of the work I considered it necessary to evaluate the quality of life of patients with total laryngectomy. The main objectives were to evaluate the impact of vocal rehabilitation on quality of life (QOL), health status in relation to quality of life (HRQL) and the VHI vocal disability index, as well as to investigate the techniques of vocal, pulmonary and olfactory respiratory rehabilitation in laryngectomized patients.

In order to achieve the main objectives we aimed to evaluate the use and the degree of adaptation of the patients to the text-speech synthesis system, to identify the factors that influence the life of the vocal prosthesis and of the factors that favor the microbial colonization of the vocal prosthesis.

In order to enable the olfactory ability, we started by assessing the smell with the help of olfactory tests, afterwards the patients were taught the NAIM technique also known as the "polite yawning", in order to restore a nasal air flow, followed by a new odor evaluation, after practice of the technique.

Assessment of lung respiratory functional status in laryngectomized patients was performed using spirometry. In order to evaluate the effectiveness of HMEs filters, we monitored the respiratory functional parameters after using the filters, for a given period of time.

Study No 1. The impact of vocal rehabilitation on quality of life and voice handicap in patients with total laryngectomy

Working Hypothesis

This study aimed to evaluate to assess the impact on QOL (HRQL) and VHI of laryngectomies regarding voice rehabilitation.

Material and Methods

The study consisted of 65 patients who had undergone total laryngectomy for laryngeal or hypopharyngeal cancer. We included 40 patients undergoing voice rehabilitation, and we

also followed 25 patients without voice rehabilitation. All participants were asked to answer three questionnaires; the VHI, the EORTC core QOL questionnaire 30 (QLQ-C30 version 3), and the EORTC head and neck cancer module (QLQ-H and N35) questionnaires applied in the same day. These questionnaires were mailed to patients with voice prosthesis 6 months after the first application of the questionnaires, and patients were asked to fill them again to assess patient speech success. The VHI is a 30-item self-administered questionnaire that was developed by Jacobson to quantify the patient's perception of disability resulted from voice disorder. Scores range from 0 to 120. The EORTC QLQ-C30 questionnaire consists of five functional scales (physical, role, cognitive, emotional, and social), three symptom scales (fatigue, pain, nausea and vomiting), one global QOL scale, and six independent items (dyspnea, insomnia, appetite loss, constipation, diarrhea, and financial problems). The specific head and neck cancer module, EORTC QLQ-H and N35, includes 35 items, grouped into 7 symptom scales (pain, swallowing, senses, speech, social eating, social contact, and sexuality) and 11 independent items.

Results

The results of EORTC QLQ-C30 showed a difference close to the threshold of statistical significance between group with voice rehabilitation and the group without voice rehabilitation. The functional scale showed a better score for esophageal speakers ($64,84 \pm 38,51$) than for TE speakers ($70,23 \pm 33,44$), those with EL ($69,60 \pm 31,86$), and patients who did not undergo voice rehabilitation. Patients who underwent voice rehabilitation therapy had a better total VHI score ($55,85 \pm 23$) than those who did not ($60,71 \pm 25,99$), with statistically significant differences between groups ($P = 0.05$). The results of the QLQ-H and N35 questionnaire showed that patients without voice rehabilitation were affected significantly stronger than those who underwent voice rehabilitation therapy.

Conclusions

This study demonstrated that QOL was better in patients who underwent voice rehabilitation therapy than in those who did not. The EORTC QLQ-C30, EORTC QLQ-H and N35, and VHI questionnaires help getting information regarding the way life is affected in laryngectomies after treatment.

Study No 2. Voice-related quality of life results in laryngectomies with today's speech options and expectations from the next generation of vocal assistive technologies.

Working Hypothesis

The present study assesses the voice handicap and the satisfaction of patients with today's voice assisting methods and to identify the needs or requirements that should be addressed by a new vocal assistive technology for aphonic patients after total laryngectomy with or without vocal rehabilitation. We investigated the use of SWARA Corpus, as well as the speakers' adaptation for speech synthesis systems.

Material and Methods

The first sample included 62 males and 3 women, with a median age of 59.15 years, and the second sample comprised 24 patients with total laryngectomy. We evaluated voice handicap with the Voice Handicap Index (VHI) questionnaires for the first group. In the second group both qualitative (in-depth interviews, focus groups) and

quantitative (online surveys) methods was used to gather information. Patients from the second group were interviewed and surveyed by a team of psychologists from Department of Clinical Psychology and Psychotherapy, Babes-Bolyai University. The second study included 20 participants. The clinical study included patients already using an alternative voice assistant (electrolarynx or voice prosthesis) and patients without any voice assistant. Patients were trained to use the assistive communication system, web-based text-to-speech synthesis service accessible from any device. We used the SWARA Voice Synthesis Assessment Questionnaire, to assess the benefits and problems of the voice synthesis system. Patients provided feedback on the voice synthesis system after using it for 1 month.

Results

Analysis of the VHI total revealed that the esophageal speakers group and electrolarynx speakers had a moderate voice handicap (52.67 mean score versus 52.82 mean score), and TE speakers and patients without vocal rehabilitation had a severe handicap (61.57/68.48 mean score). Results for sample 2 pointed out that the majority of the patients (60%) that were using a vocal assistive method. However, based on their content, these problems can be grouped under the following categories: difficulties in being understood by the communication partners, the fact that others avoid to communicate with them, the fact that they speak much less as compared to the condition before surgery, difficulties in being heard when speaking from a considerable distance, and difficulties in being heard when there is background noise. Regarding the attitude towards the use of synthetic voices, 55% of the participants considered the idea of using synthetic voices for patients who had undergone laryngectomy as useful if it works using an application that enables communication.

Conclusions

Although patients express some satisfaction towards current vocal assistive methods technology there is much space for improvements and there are many problems and needs that are not tackled by available tools. The analysis of the attitude towards the use of the technological tools for voice assistance has led to the conclusion that it is absolutely necessary to produce a voice synthesis device that does not require Internet access as this makes it difficult to use the TTS system. This study demonstrated that VHI questionnaire is a useful instrument in gathering information regarding the quality of life in laryngectomized patients and is able to quantify impact of different vocal assistive methods on their functioning and adaptation to this condition.

Study No 3. Microbial colonization on the voice prosthesis and the factors that favor the formation of the biofilm

Working Hypothesis

The objectives of this study were to investigate the factors that influence the lifespan of the vocal prosthesis and to identify the models of colonization from the vocal prosthesis level and if it is related to that in the oral cavity.

Material and Methods

We describe a prospective study realized on 16 patients with total laryngectomy and voice rehabilitation with vocal prosthesis. We took the vocal prosthesis, after we removed from the patient and we divided it in two equal halves, external flange (tracheal) and the internal (oesophageal). We put the voice prosthesis flanges

separated, in sterile containers. With the help of pharyngeal swab, the secretion were collected from the oropharynx level and oral cavity level, as well as from the tracheoesophageal fistulous opening level. The harvested secretions and the vocal prostheses were sent for a microbacteriological and fungal examination.

Results

The microbiological analysis of the voice prosthesis from the oral cavity level, has highlighted a mixed increase (fungic and bacterial). Fungi *Candida Albicans* was present in 12 cases, in 3 cultures (18.8%) being the only isolated fungi, in the rest of the cultures it was associated with another 3 *Candida* species: *Candida Tropicalis* in 5 cultures (31.3%), *Candida Glabrata* in 4 cultures (25.0%) and *Candida Krusei* in 11 cultures (68.8%). The most frequent identified bacteria in this study were: *Staphylococcus aureus* in 9 cultures (56.3%), *Pseudomonas* spp in 5 cultures (31.3%), *Klebsiella* ESBL in 3 cultures (18.8%), *Sreptococ* Beta hemolytic in 3 cultures (18.8%). Only in 4 (25%) cases, it was emphasized the growth of bacteria in the cultures from the oral cavity level and in the secretions from the fistulous opening level and from oesophageal flange level. Biofilm from the prosthesis level, it was the main reason for the change of the voice prosthesis (37.5%) followed by leakage around voice prosthesis(at 25% of patients).

Conclusions

The main reason for the suboptimal lifespan of voice prosthesis is the bacterial and fungal contamination. This study showed that microbial flora was similar to that found in studies reported in the literature.

Study No 4. Olfactory Rehabilitation in Laryngectomized Patients by the "Polite Yawning" Technique

Working Hypothesis

This study aimed to evaluate the the efficacy of the nasal airflow-inducing maneuver (NAIM), also known as “polite yawning”, as a method of olfactory rehabilitation in laryngectomized patients.

Material and Methods

The study included 26 laryngectomy patients undergoing rehabilitation of olfaction by “polite yawning” technique. Olfactory rehabilitation consisted in restoring the sense of smell with the NAIM, also known as the “polite yawning” technique. Each patient was evaluated and trained individually. Real-time visual feedback during the NAIM was performed using the water manometer. The maneuver is performed correctly when the liquid in the manometer fluctuates and moves toward the patient’s nose. For this study, patients were evaluated again 6 months after the intervention. In this study, the sense of smell of patients was assessed using the Sniffin’ Sticks odor identification test- before and after the maneuver.

Results

Based on olfactory test performance, the patient will be functionally diagnosed as “smeller” for hyposmia and normosmia, and “nonsmeller” for anosmia. In the functional classification of the ability to smell after total laryngectomy, six out (23%) of 26 patients advanced from “nonsmellers” to “smellers” and six months after learning the technique, fifteen (57%) patients advanced to the "smellers" category. The mean TDI score before learning the technique was ($5,38 \pm 54,41$), after the olfactory rehabilitation exercises, the meanTDI score was ($12,77 \pm 4,25$), and at 6

months after olfactory rehabilitation, it was (16.65 ± 4.00). There was a statistically significant increase in TDI scores after performing the nasal airflow-inducing maneuver (NAIM) ($p < 0.000$).

Conclusions

The sense of smell and taste is reduced in patients with laryngectomy, which causes an impairment of food intake and of quality of life. The polite yawning technique is an efficient method for restoring the sense of smell in laryngectomized patients

Study No 5. Pulmonary rehabilitation in patients with total Laryngectomy

Working Hypothesis

The aim of the study is to characterize the pulmonary functional status in patients with laryngectomy and the presence of functional respiratory alterations, as well as to evaluate the efficacy of filters.

Material and Methods

This study included 11 patients diagnosed with laryngeal cancer. The patients have used the HMEs filters for a period of one month. Pulmonary respiratory function was evaluated before the use of the filters and one month after that. All the patients were interviewed before the use of the filters and after it. The spirometry was employed in order to evaluate the pulmonary function.

Results

We included in the study 11 patients with a mean age of 55.7 ± 15.4 . The results of pulmonary functional tests (spirometry) in patients with laryngectomy showed: the PEF ($3,19 \pm 1,58$) value was reduced in patients with laryngectomy as compared with the predicted value ($p < 0.001$). The mean value of measured FEV1, value of measured FEV1/CVF and value of MEF50 is reduced in patients with total laryngectomy, as compared with the predicted values, but the difference was not statistically significant. Approximately 63.6% patients had modified values of pulmonary function: 5 (45.5%) patients had mixt respiratory disorder, 1 (9.1%) patient had obstructive airways disorder, and 1 (9.1%) had restrictive disorder. After 1 month of filter use, 72% patients had modified values, as follows: 4 (36.4%) patients had mixt respiratory disorder, 2 (18.2%) patients had obstructive airways disorder, and 2 (18.2%) had restrictive disorder.

Conclusions

Although HME cannot completely reestablish the upper airways function, it plays a major role in pulmonary rehabilitation in patients with total laryngectomy, by reducing the physical and psychosocial problems. Even though, in this study, the objective evaluation showed a worsening in respiratory function indexes results, there was a subjective significant difference in decrease of coughing episodes, expectoration and an improvement of quality of life. For obtaining an optimal effect of pulmonary rehabilitation, it is necessary a continuous use of HME filters.