

Adherencia al tratamiento de moldeado nasoalveolar en pacientes con fisura labiopalatina

B. Gironés Camarasa¹, C. García Dueñas¹, E. Castilla Parrilla¹, E. Licerías Licerías¹, K. Mátar Sattuf¹, A. España López², A. Martínez Plaza², R. Fernández-Valadés^{1,2}

¹Servicio de Cirugía Pediátrica; ²Unidad de Malformaciones craneofaciales y Fisuras labiopalatinas. Hospital Universitario Virgen de las Nieves. Granada.

RESUMEN

Objetivos. El dispositivo de moldeamiento nasoalveolar (NAM), diseñado para aproximar los segmentos fisurados y mejorar la asimetría nasal, facilita la intervención quirúrgica mejorando los resultados. Sin embargo, necesita gran colaboración por parte de la familia por ser largo, y a veces, tedioso. El objetivo de este trabajo es determinar la adherencia al tratamiento y las posibles variables que puedan determinar su rechazo.

Material y métodos. Pacientes tratados con NAM en los últimos 6 años (64 pacientes). Recogida de datos retrospectiva (historias) y encuesta telefónica. Clasificación en 5 grupos según el seguimiento del tratamiento (rechazo del tratamiento hasta un cumplimiento correcto del tratamiento). Analizamos factores relacionados con el cuidador, el paciente y el contexto social (nivel de estudios, número de cuidadores, distancia al hospital, etc.). Mediante el programa SPSS se realizó un estudio descriptivo, analizando las variables mediante χ^2 con corrección exacta de Fisher.

Resultados. Se completaron las 46 encuestas (32 niños y 14 niñas), el 63% fueron unilaterales, el 91% con fisura palatina. El cumplimiento terapéutico fue bueno en el 80%, y solo el 7% rechazaron el tratamiento. La adherencia fue mayor, de forma significativa, si habían contactado con otras familias de pacientes ($P < 0,01$) y tendencia a mayor abandono en otras nacionalidades distinta a la española, aunque sin significación estadística.

Conclusiones. El cumplimiento terapéutico de estos pacientes es bueno de forma general, y no podemos determinar de forma significativa las variables que pueden condicionar el rechazo al tratamiento, pero si, que el contacto con familiares de afectados o asociaciones de pacientes hacen que la adherencia sea mayor.

PALABRAS CLAVE: Moldeado nasoalveolar; Fisura labiopalatina; Adherencia al tratamiento.

ADHERENCE TO THE TREATMENT OF PRE SURGICAL NASOALVEOLAR MOLDING IN CLEFT LIP AND PALATE

ABSTRACT

Objectives. The nasoalveolar molding device (NAM) designed to decrease the size of the defect and improve nasal asymmetry, facilitates surgical intervention improving the results. However, family involvement is highly necessary due to the fact that the treatment herein referred is long and tedious. The aim of this study is to determine adherence to treatment and possible variables that can determine their rejection.

Materials and methods. Patients treated with NAM over the last 6 years (64 patients). Retrospective data collection and telephone surveys. 5 groups established depending on its respective adherence to the treatment (from rejection of the treatment to good adherence to it). Several aspects are herein analyzed related to the caregiver, the patient and the social background (degree of education, number of caregivers, distance to the hospital, etc.). Through the SPSS program, a descriptive study was carried out, analyzing the variables using χ^2 with Fisher's exact correction.

Results. 46 surveys were completed (32 boys and 14 girls), 63% were unilateral, 91% had a cleft palate. Adherence to the treatment was good by 80%, and only 6% rejected the treatment. The adherence was significantly higher, if they had contacted with other families of patients ($P < 0.01$) and a higher tendency of abandonment of treatment in other nationalities than the Spanish one, although without significant differences.

Conclusions. Adherence to treatment is very good in general, and we can not significantly determine the variables that can condition the rejection of treatment, but contacting with family members of patients or associations of patients makes the adherence-greater.

KEY WORDS: Nasoalveolar molding; Lip-palate fissure; Adherence to treatment.

Correspondencia: Dr. Ricardo Fernández Valadés. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Virgen de las Nieves. Av. de las Fuerzas Armadas, 2. 18014 Granada.
E-mail: rfdezvalades@me.com

Presentado en el LVII Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica. Granada 24-26 de mayo de 2018.

Recibido: Mayo 2018

Aceptado: Agosto 2018

INTRODUCCIÓN

La fisura labiopalatina es la malformación craneofacial más frecuente, con una incidencia en nuestro medio de aproximadamente 1 de cada 700 recién nacidos vivos. Alrededor del 25% de los pacientes pueden presentar malformaciones asociadas.

El espectro de esta malformación es muy amplio, desde mínima afectación unilateral del labio hasta amplia afecta-

ción tanto del labio, nariz y paladar primario y secundario uni o bilateral. Esto da lugar no solo a una alteración estética importante, sino también, alteraciones funcionales (habla, alimentación, mímica, etc.), afectando también a la integración social de los pacientes^(1,2).

Para el tratamiento de estos niños, la intervención quirúrgica primaria es la que determina el resultado final de la estética y funcionalidad del mismo. En los casos en los que la separación de los dos segmentos de la fisura es amplia, la intervención quirúrgica es más complicada y somete a tensión la unión de los tejidos blandos, lo que condiciona una peor cicatrización.

Numerosos métodos y estrategias de tratamiento se han desarrollado a lo largo de los años para reducir la distancia de los procesos alveolares y facilitar la cirugía primaria, reduciendo el número de intervenciones quirúrgicas⁽³⁻⁵⁾. Desde aparatos fijos (Latham) a dispositivos diversos fabricados de forma artesanal (cincha de esparadrapo, gorros, moldeadores nasales diversos, etc.)⁽⁶⁻⁸⁾.

Es en este contexto donde surge el “moldeamiento nasolabial prequirúrgico”, basado en la maleabilidad del cartílago nasal en el recién nacido^(9,10), que mejora la asimetría nasal, y además, aproxima los procesos alveolares y alarga la columela, facilitando con ello la intervención y mejorando los resultados⁽¹¹⁻¹³⁾.

Todos los tratamientos que se prolongan a lo largo del tiempo y que conllevan disconfort y colaboración estrecha de los familiares, pueden sufrir abandono o no aceptación del mismo, condiciones que se dan en el tratamiento con NAM^(8,14).

Por ello la importancia de identificar los factores que están relacionados con el cuidador, el paciente y el contexto social y estructural que más fuertemente podrían determinar tanto la adherencia al NAM como el rechazo⁽¹⁵⁾.

MATERIAL Y MÉTODOS

Se realiza un estudio retrospectivo de los pacientes tratados con NAM en nuestra unidad multidisciplinar de malformaciones craneofaciales y fisura labiopalatina, en los últimos 6 años (64 pacientes).

La recogida de los datos se realizó de forma retrospectiva, revisión de historias clínicas y encuestas telefónicas de los pacientes tratados con NAM entre 2012-2017.

El moldeado nasolabial fue realizado en nuestro centro por el mismo ortodoncista durante todo el periodo, y todos los pacientes fueron tratados de forma ambulatoria, y revisados semanal o bisemanal hasta su finalización.

Los criterios de inclusión fueron pacientes con fisura labiopalatina que precisaron NAM, previamente a la corrección del labio por las características de la deformidad. Todos los niños fueron identificados e informados los familiares por parte del cirujano y del ortodoncista, de forma conjunta, explicándoles de forma detallada las ventajas y las dificultades del tratamiento.

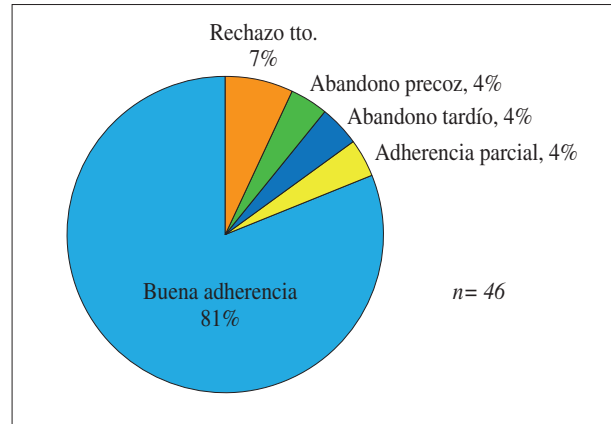


Figura 1. Adherencia al tratamiento en nuestros pacientes.

Los pacientes fueron clasificados en cinco grupos según el seguimiento del tratamiento: rechazo, abandono precoz, abandono tardío, adherencia parcial y buena adherencia. Considerando adherencia parcial, cuando los padres no cumplían el horario total de tratamiento diario.

Se analizaron factores relacionados con el cuidador y su entorno (estudios de los padres, contacto con otras familias con hijos con fisura labiopalatina o con asociaciones de pacientes, antecedentes de fisura labiopalatina, nacionalidad, distancia en kilómetros al centro, número de cuidadores en casa, diagnóstico prenatal), con el paciente (sexo, tipo de fisura, fisura paladar asociada o no) y la repercusión de los mismos en cuanto a la adherencia al tratamiento.

Mediante el programa SPSS se realizó un estudio descriptivo, analizando las variables mediante χ^2 con corrección exacta de Fisher.

RESULTADOS

De un total de 64 pacientes, en 46 se pudo recabar toda la información, ya que respondieron a la encuesta telefónica y los otros 12 fueron excluidos ya que no se pudieron completar todos los datos.

De estos pacientes: 3 rechazaron el tratamiento (7%), el abandono tanto precoz como tardío fue de 2 pacientes respectivamente (2%), y otros 2 tuvieron una adherencia parcial al mismo (4%). La adherencia al tratamiento fue buena en 37 pacientes (81%) (Fig. 1).

No se excluyó para el tratamiento a ningún paciente por razones de distancia, comorbilidades médicas, ni ningún otro motivo.

La mayoría de los pacientes fueron varones (69,6%). Sin diferencias en cuanto a la adherencia al tratamiento y el sexo del paciente (Tabla I).

El tipo de fisura de labio se dividió en 2 grupos: unilateral y bilateral (con o sin afectación del paladar) teniendo una afectación unilateral 29 (63%) y bilateral 17 (37%). El 91,3%

Tabla I. Características de los pacientes y repercusión en la adherencia al tratamiento.

Variable	Valor	N (%)	Rechazo	Abandono precoz	Abandono tardío	Adherencia parcial	Adherencia buena
Sexo	Niño	32 (69,6%)	1	0	2	2	27
	Niña	14 (30,4%)	2	2	0	0	10
Tipo de fisura de labio	Unilateral	29 (63%)	2	2	2	2	22
	Bilateral	17 (37%)	3	1	2	2	37
Fisura del paladar	Sí	42 (91,3%)	3	1	1	2	34
	No	4 (8,7%)	0	1	1	0	3
Diagnóstico prenatal	Sí	30 (65,2%)	1	1	1	1	26
	No	16 (34,8%)	2	1	1	1	11

Tabla II. Factores relacionados con el cuidador y su entorno, determinantes en la adherencia al tratamiento.

Variable	Valor	N (%)	Rechazo	Abandono precoz	Abandono tardío	Adherencia parcial	Adherencia buena
Estudios de los padres	Básicos	22 (47,8)	2	2	0	0	18 (81,8%)
	Medios	14 (30,4)	0	0	2	1	11 (78,5%)
	Universidad	10 (21,7)	1	0	0	1	8 (80%)
Antecedentes familiares	Sí	10 (21,7)	1	1	0	0	8 (80%)
	No	36 (78,3)	2	1	2	2	29 (80,5%)
Nacionalidad	Española	37 (80,4)	1	1	2	1	32 (86,5%)
	Otra	9 (19,6)	2	1	0	1	5 (55,5%)
Nº de cuidadores	Uno	1 (2,2)	0	0	0	0	1 (100%)
	Dos o más	44 (95,7)	3	2	2	2	35 (79,54%)
	Acogida	1 (2,2)	0	0	0	0	1 (100%)
Contacto familias/ Asociaciones	Sí	24 (52,2%)	0	0	0	0	24 (100%)
	No	22 (47,8%)	3	2	2	2	13 (59,09%)

de nuestros pacientes tenían asociada una fisura de paladar. No se encontraron diferencias significativas entre el tipo de fisura labiopalatina y el cumplimiento terapéutico (Tabla I).

El 65,2% fueron diagnosticados de forma prenatal. De los 30 pacientes con diagnóstico prenatal, 26 (86,6%) tuvieron una buena adherencia al tratamiento con NAM, y el resto se encontraban en los otros grupos de grados intermedios de cumplimiento del mismo. En los pacientes sin diagnóstico prenatal el 68,75% tuvieron una buena adherencia terapéutica (Tabla I).

En cuanto a los factores que se analizaron, relacionados con el cuidador y su entorno, como determinantes en la adherencia al tratamiento el nivel de estudios de los padres no fue una circunstancia determinante en la adherencia al mismo, tampoco los antecedentes familiares de fisurados, la nacionalidad o el número de cuidadores en casa mostraron diferencias significativas (Tabla II).

Se recogió como variable el contacto con otras familias con hijos con fisura labiopalatina o con asociaciones de pacientes afectados. En 24 (52,2%) casos se estableció dicho contacto,

siendo el cumplimiento del tratamiento bueno en todos ellos. Mientras que en los 22 casos que no se estableció dicho contacto la adherencia terapéutica fue buena solo en 13 (59,09%). En este caso la diferencia de adherencia al tratamiento fue estadísticamente significativa ($p=0,01$) (Tabla II, Fig. 2).

La distancia del domicilio familiar a nuestro centro no influyó de forma significativa la adherencia al tratamiento.

DISCUSIÓN

La falta de adherencia a los tratamientos prescritos es la principal causa de fracaso de los mismos a largo plazo en niños. Por eso son muchos los estudios, en los diversos ámbitos, que tratan de obtener una mayor comprensión de las razones de los padres y cuidadores para no cumplir los mismos. Esto permite ayudar a abordar este problema y mejorar el cumplimiento de los tratamientos prescritos^(16,17).

Los pacientes con fisura labiopalatina están sometidos a múltiples procedimientos quirúrgicos a lo largo de su vida.



Figura 2. Grupo de familias con pacientes en distintas fases de tratamiento. (Publicada con consentimiento de las familias).

Hoy día son tratados en equipos multidisciplinares que ofrecen un tratamiento integral de todas las alteraciones morfofuncionales que presentan. Esta es la dinámica que seguimos en nuestro centro, ya que consideramos fundamental que estos pacientes sean tratados por una unidad multidisciplinar, que siga a los pacientes desde el inicio al final del tratamiento, disminuyendo en número de revisiones y visitas al centro hospitalario.

El dispositivo de moldeamiento nasopalveolar (NAM), constituye una de las herramientas que forman parte del arsenal terapéutico actual del paciente fisurado, y que consigue un mejor resultado precoz y a largo plazo de la misma⁽¹⁸⁾. Son muchos los estudios que muestran la superioridad en cuanto a los resultados tanto funcionales como estéticos de los pacientes tratados con NAM en comparación con los que no reciben dicho tratamiento^(7,19). Sin embargo, se necesita gran colaboración por parte de la familia por ser largo que requiere revisiones semanales o bisemanales durante los dos a cinco meses de duración del mismo. Además, produce inicialmente molestias en el paciente. Todo esto pueden condicionar el abandono si no hay una gran implicación familiar⁽¹⁾.

A pesar de existir literatura que hace referencia al impacto en la vida familiar del nacimiento de un niño con fisura labiopalatina, no son frecuentes las publicaciones acerca del cumplimiento terapéutico de estos pacientes, y cuales son los factores que podrían modificar el mismo⁽²⁰⁾.

En otros estudios similares, se observó que las pacientes niñas y la presencia de hermanos suponían una mejor adherencia terapéutica, hecho no constatado en nuestra revisión⁽¹⁶⁾.

Otro factor que puede influir en el cumplimiento terapéutico, recogido en algunas publicaciones, es el grado de afectación (uni o bilateral)⁽¹⁵⁾. Sin embargo, en nuestro estudio no ha sido decisivo a la hora del seguimiento del tratamiento.

Se han publicado otros factores determinantes del seguimiento del tratamiento, como problemas financieros o seguro

médico público^(15,21,22); en nuestro medio todos los pacientes están cubiertos por el sistema público de salud, por lo cual no podemos determinar si esto sería un condicionante.

La distancia del domicilio al centro de tratamiento puede ser también decisivo en la falta de cumplimiento del tratamiento. Sin embargo, tampoco ha sido significativa en nuestra revisión, posiblemente debido a que las distancias reflejadas en otros estudios no son comparables con las que se recogen en el nuestro^(15,16).

Son muchos los artículos que reflejan la falta de información fácilmente accesible en el momento del diagnóstico, así como la necesidad de los padres de contar con información precisa y equilibrada sobre la enfermedad y su tratamiento⁽¹⁶⁾, la mayoría de los padres prefieren recibir la información de forma temprana por parte de médicos especialistas⁽²⁰⁾. En nuestro centro la información por parte de los facultativos de la unidad se realiza en cuanto el ginecólogo detecta la malformación lo que puede hacer que en estos casos la adherencia al tratamiento sea alta (86,7%).

Incluimos como factor que modifica positivamente la adherencia terapéutica el hablar con otros padres o asociaciones de pacientes con fisura labiopalatina, ya que disminuye la ansiedad y permite intercambiar información e inquietudes con padres o familiares que ya han experimentado o recibido los mismos tratamientos que ellos, además de poder ver resultados a largo plazo, siendo esto un efecto tranquilizador que contribuye a disminuir la ansiedad.

CONCLUSIÓN

Como conclusión, el contacto con asociaciones de pacientes, o familias que pasan por los mismos tratamientos, hace que mejore el cumplimiento del tratamiento con NAM. Es por esto, y por nuestra buena experiencia en cuanto a los resultados, que consideramos que debería recomendarse este

contacto de forma protocolizada en todos los servicios que tratan a este tipo de pacientes. Además, sería importante realizar estudios prospectivos a largo plazo valorando dicha práctica y los resultados en cuanto a la adherencia terapéutica.

BIBLIOGRAFÍA

- Ruiz-Escolano MG, Martínez-Plaza A, Fernández-Valadés R, Cortés-Sánchez R, Muñoz-Miguelsanz MA, Velasco-Ortega E, et al. Nasoalveolar molding therapy for the treatment of unilateral cleft lip and palate improves nasal symmetry and maxillary alveolar dimensions. *J Craniofac Surg.* 2016; 27: 1978-82.
- Kasten EF, Schmidt SP, Zickler CF, Berner E, Damian LA, Christian GM, et al. Team care of the patient with cleft lip and palate. *Curr Probl Pediatr Adolesc Health Care.* 2008; 38: 138-58.
- Prasad S, Ravindran S, Radhakrishnan V, Hazarey PV, Vanka A, Rajan B. Initial experiences with NAM-assisted primary repair of the BCLP deformity. *Spec Care Dent.* 2017; 37: 304-8.
- Shen C, Yao CA, Magee W, Chai G, Zhang Y. Presurgical nasoalveolar molding for cleft lip and palate: the application of digitally designed molds. *Plast Reconstr Surg.* 2015; 135: 1007e-15e.
- Alajmi H, Tahiri Y, Jamal B, Gilardino MS. Montreal children's hospital formula for nasoalveolar molding cleft therapy. *Plast Reconstr Surg.* 2013; 131: 349-53.
- Rau A, Ritschl LM, Mücke T, Wolff KD, Loeffelbein DJ. Nasoalveolar molding in cleft care - Experience in 40 patients from a single centre in Germany. *PLoS One.* 2015; 10: e0118103.
- Peanchitlertkajorn S, Mercado A, Daskalogiannakis J, Hathaway R, Russell K, Semb G, et al. An intercenter comparison of dental arch relationships and craniofacial form including a center using nasoalveolar molding. *Cleft Palate-Craniofacial J.* 2016: 16-18.
- Delgado MD, Marti E, Romance A, Romero M, Lagarón E, Salván R, et al. Uso de la ortopedia prequirúrgica en pacientes con fisura palatina: nuestra experiencia. *Cir Pediatr.* 2004; 17: 17-20.
- Kinouchi N, Horiuchi S, Yasue A, Kuroda Y, Kawai N, Watanabe K, et al. Effectiveness of presurgical nasoalveolar molding therapy on unilateral cleft lip nasal deformity. *Saudi Med J.* 2018; 39: 169-78.
- Matsuo K, Hirose T. Nonsurgical correction of cleft lip nasal deformity in the early neonate. *Ann Acad Med Singapore.* 1988; 17: 358-65.
- Esenlik E, Aydin MA. Nasoalveolar molding in a case of incomplete cleft lip: Is it worth doing? *Ann Maxillofac Surg.* 2015; 5: 112-4.
- Rubin MS, Clouston S, Ahmed MM, Lowe KM, Shetye PR, Broder HL, et al. Assessment of presurgical clefts and predicted surgical outcome in patients treated with and without nasoalveolar molding. *J Craniofac Surg.* 2015; 26: 71-5.
- Grayson BH, Maull D. Nasoalveolar molding for infants born with clefts of the lip, alveolus, and palate. *Clin Plast Surg.* 2004; 31: 149-58. doi:10.1016/S0094-1298(03)00140-8.
- Monasterio L, Ford A, Gutiérrez C, Tastets ME, García J. Comparative study of nasoalveolar molding methods: Nasal elevator plus DynaCleft versus NAM-grayson in patients with complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial J.* 2013; 50: 548-54.
- Esmonde NO, Garfinkle JS, Chen Y, Lambert WE, Kuang AA. Factors associated with adherence to nasoalveolar molding (NAM) by caregivers of infants born with cleft lip and palate. *Cleft Palate-Craniofacial J.* 2018; 55: 252-8.
- Nelson P, Glenny AM, Kirk S, Caress AL. Parents' experiences of caring for a child with a cleft lip and/or palate: A review of the literature. *Child Care Health Dev.* 2012; 38: 6-20.
- Santer M, Ring N, Yardley L, Geraghty AWA, Wyke S. Treatment non-adherence in pediatric long-term medical conditions: systematic review and synthesis of qualitative studies of caregivers' views. *BMC Pediatr.* 2014; 14: 1-10.
- Bajaj A, Rao KS, Sharma SM, Shetty V. Modified Presurgical Nasoalveolar Molding in the Infants with Complete Unilateral Cleft Lip and Palate: A Stepwise Approach. *J Maxillofac Oral Surg.* 2011; 10: 275-80.
- Mandwe RS, Puri S, Shingane S, Pawar G, Ramdas Kolhe V, Alsi A. Presurgical nasoalveolar remodeling - An experience in the journey of cleft lip and palate. *Clin Cosmet Investig Dent.* 2015; 7: 1-7.
- Collett BR, Speltz ML. Social-emotional development of infants and young children with orofacial clefts. *Infants Young Child.* 2006; 19: 262-91.
- Nazarian Mobin SS, Karatsonyi A, Vidar EN, Gamer S, Groper J, Hammoudeh JA, et al. Is presurgical nasoalveolar molding therapy more effective in unilateral or bilateral cleft lip-cleft palate patients? *Plast Reconstr Surg.* 2011; 127: 1263-9.
- Mayer ML, Slifkin RT, Skinner AC. The effects of rural residence and other social vulnerabilities on subjective measures of unmet need. *Med Care Res Rev.* 2005; 62: 617-28.