

RICHTLIJN

OSAS BIJ KINDEREN

Mei 2013

Initiatief:

Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied

Organisatie:

CBO

Mandaterende Verenigingen / Instanties:

Apneu Vereniging

Artsen Jeugdgezondheidszorg Nederland

Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie

Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde

Nederlandse Vereniging voor Klinische Neurofysiologie

Nederlandse Vereniging voor Mondziekten, Kaak- en Aangezichtschirurgie

Vereniging van Orthodontisten

Financiering:

Deze richtlijn is tot stand gekomen met financiële steun van de Stichting Kwaliteitsgelden Medisch Specialisten (SKMS) in het kader van het ontwikkelen, onderhouden en implementeren van het kwaliteitsbeleid van medisch specialisten.

Colofon

Richtlijn OSAS bij kinderen



© Copyright 2013

Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied

Mercatorlaan 1200

Domus Medica – kamer 4c - 18

3528 BL UTRECHT

Tel: 030-28234410

www.kno.nl

Alle rechten voorbehouden.

De tekst uit deze publicatie mag worden verveelvoudigd, opgeslagen in een geautomatiseerd gegevensbestand, of openbaar gemaakt in enige vorm of op enige wijze, hetzij elektronisch, mechanisch door fotokopieën of enige andere manier, echter uitsluitend na voorafgaande toestemming van de uitgever. Toestemming voor gebruik van tekst(gedeelten) kunt u schriftelijk of per e-mail en uitsluitend bij de uitgever aanvragen. Adres en e-mailadres: zie boven.

In Nederland werken de meeste KNO-artsen in ziekenhuizen en zijn aangesloten bij de medische staf van dat ziekenhuis. In de ziekenhuizen functioneren vele kwaliteits-bevorderende commissies. Voorbeelden daarvan zijn de toetsingscommissie, de medisch-ethische commissie en de patiëntenklachtencommissie. Vrijwel alle KNO-artsen zijn aangesloten bij de (wetenschappelijke) 'Vereniging voor Keel-Neus-Oorheelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied'. Ook is men meestal lid van de landelijke Orde van Medisch Specialisten. De Wetenschappelijke Vereniging en speciale opleidingsklinieken (waaronder alle academische ziekenhuizen) organiseren landelijke congressen en cursussen ten behoeve van de bij- en nascholing van KNO-artsen. Ook worden de ziekenhuizen regelmatig door de Wetenschappelijke Vereniging en de Specialisten Registratie Commissie bezocht om ze te controleren op kwaliteit en doelmatigheid.

Op deze manier is er sprake van een voortdurende beoordeling van het werk van de KNO-arts met als doel de kwaliteit en doelmatigheid optimaal te houden.

Het CBO, gevestigd in Utrecht, heeft tot doel individuele beroepsbeoefenaren, hun beroepsverenigingen en zorginstellingen te ondersteunen bij het verbeteren van de patiëntenzorg. Het CBO biedt via programma's en projecten ondersteuning en begeleiding bij systematisch en gestructureerd meten, verbeteren en borgen van kwaliteit van de patiëntenzorg.

INHOUDSOPGAVE

Samenstelling werkgroep	1
Overzicht aanbevelingen	2
Stroomschema	12
Hoofdstuk 1: Algemene inleiding	14
Hoofdstuk 2: Specifieke inleiding en definities	20
2.1. Wat is de definitie van OSAS bij kinderen?	20
2.2. Wat is de incidentie en prevalentie van snurken en OSAS bij kinderen?	22
Hoofdstuk 3: Signalering en diagnostiek van OSAS bij kinderen	28
3.1. Wanneer is screening van een kind op OSAS zinvol?	28
3.2. Wanneer is verwijzing naar de tweede lijn noodzakelijk en naar wie wordt verwezen	32
3.3. Waarde van diagnostische instrumenten	30
3.3.1. Anamnese en lichamelijk onderzoek	37
3.3.2. Vragenlijsten voor OSAS bij kinderen	38
3.4. Welke diagnostische instrumenten kunnen gebruikt worden om OSAS bij kinderen aan te tonen en welke waarde hebben deze instrumenten?	42
3.4.1. Polysomnografie	43
3.4.2. Flow limitation index	47
3.5. Afkappunten van de apneu-hypopneu index (AHI) en de oxygenatie-desaturatie index (ODI)	56
3.6. Normaalwaarden voor de apneu-hypopneu index (AHI) en de oxygenatie-desaturatie index (ODI)	59
3.7. Gradering ernst van OSAS	62
3.8. Diagnose van hypoplasie van midsgezicht en/of mandibula van kinderen met OSAS	66
Hoofdstuk 4: Chirurgische therapie van OSAS bij kinderen en de complicaties/risico's	73
4.1. ATE	73
4.1.1. Bij welke patiënten is behandeling met ATE geïndiceerd?	73
4.2. Osteotomie van de mandibula	84
4.2.1. Bij welke patiënten is behandeling met osteotomie geïndiceerd?	84
4.3. Tracheotomie	93
4.3.1. Bij welke patiënten is behandeling met tracheotomie geïndiceerd?	93

Hoofdstuk 5: Niet-chirurgische therapie	96
5.1. Bij welke patiënten is orthodontische apparatuur geïndiceerd?	96
5.2. CPAP/BIPAP	105
5.2.1. Bij welke patiënten is behandeling met CPAP/BIPAP geïndiceerd?	105
5.3. Bij welke kinderen is medicamenteuze behandeling van OSAS geïndiceerd?	110
Hoofdstuk 6: Pre- en postoperatief traject bij ingrepen onder algehele anesthesie bij kinderen met OSAS	114
6.1. Aanvullend preoperatief onderzoek	114
6.2. Peri- en postoperatieve chirurgische complicaties	130
6.3. Dagbehandeling versus klinische opname	136
Hoofdstuk 7: Organisatie van zorg en de rol van de ouders	145
7.1. Hoe is de organisatie van de zorg rondom kinderen met OSAS geregeld?	145
7.2. Voorlichting en begeleiding van (ouders van) kinderen met OSAS	147
7.3. Eisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS worden behandeld	149
7.3.1. Wat zijn de minimeisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS geopereerd worden (kinderarts, anesthesioloog met aandachtsgebied kinderen, etc.)?	149
7.3.2. Wat zijn de minimeisen voor een kliniek waar polysomnografie verricht wordt bij kinderen met OSAS?	152
Hoofdstuk 8: Implementatie van de richtlijn OSAS bij kinderen	153
8.1. Hoe kan de implementatie van deze richtlijn worden gewaarborgd?	153
Hoofdstuk 9: Aanbevelingen voor onderzoek	156

SAMENSTELLING WERKGROEP

Werkgroep

- Dr. A. Kropveld, voorzitter, Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- Prof. dr. A.G. Becking, Nederlandse Vereniging voor Mondziekten, Kaak- en Aangezichtschirurgie
- Dr. G.J.F. Brekelmans, Nederlandse Vereniging voor Klinische Neurofysiologie
- Drs. R.P.G.M. (Rob) Bijlmer, Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde (tot mei 2010)
- Dr. R.J.H. Ensink, Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- Drs. J. Goorhuis, Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde (vanaf juni 2010)
- Dr. K.F.M. Joosten, Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde
- Drs. J.P. Koopman, Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied
- R. Lammers, CBO (tot 18 november 2010)
- Drs. P.H.J.M. van Mechelen, Apneu Vereniging
- Drs. J.H.A.M. Megens, Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie
- Dr. H.J. Remmelink, Vereniging van Orthodontisten
- Dr. C.J.I. Raats, CBO (tot maart 2010)
- Drs. C.J.G.M. Rosenbrand, CBO
- Dr. D. Sent, CBO
- Dr. D. van Waardenburg, Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde (vanaf juni 2010)
- Drs. W de Weerd, Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde (vanaf juni 2010)

Adviseurs

- Drs. D.B.M. van der Werff, anesthesioloog, Wilhelmina Kinderziekenhuis, UMC Utrecht
- Dr. E.C.S.M. van Woerkens, anesthesioloog, Diaconessenhuis Utrecht
- Drs. G.G. van Iperen, kindercardioloog, Wilhelmina Kinderziekenhuis, UMC Utrecht.

OVERZICHT AANBEVELINGEN

2.1. Wat is de definitie van OSAS bij kinderen?

OSAS (Obstructief Slaap Apneu Syndroom) bij kinderen is een slaap gerelateerde ademhalingsstoornis die gekarakteriseerd wordt door een partiële bovenste luchtwegobstructie en/of door een intermitterende complete obstructie, die de normale ademhaling gedurende slaap en het normale slaappatroon verstoort. Vaak is er sprake van een daling in de zuurstofsaturatie.

2.2. Wat is de incidentie en prevalentie van snurken en OSAS bij kinderen?

De prevalentie van middels PSG (polysomnografie) bevestigde pediatrische OSAS varieert bij gezonde kinderen zonder comorbiditeit, tussen de 1 en 4%.

De prevalentie van habitueel snurken ligt in de leeftijd van 4-6 jaar rond de 12%.

De prevalentie van OSAS bij kinderen met obesitas bedraagt ongeveer 13%.

Er zijn aanwijzingen dat de prevalentie van OSAS bij kinderen met het syndroom van Down (voornamelijk bij jongens en kinderen < 8 jaar) meer dan 50% is.

In de groep kinderen met een ernstige comorbiditeit zoals achondroplasie, neuromusculaire aandoeningen en mucopolysacharidosen varieert de prevalentie van een OSAS tussen 42 en ruim 90%.

3.1. Wanneer is screening van een kind op OSAS zinvol?

De werkgroep is van mening dat screening op OSAS in het kader van reguliere jeudgezondheidszorg bij (gezonde) kinderen zonder comorbiditeit is aan te bevelen door actief te vragen naar de aanwezigheid van de 4 belangrijkste symptomen van OSAS: frequent snurken, stokkende ademhaling in slaap, onrustige slaap en gedrags- of concentratieproblemen of slaperigheid overdag.

De werkgroep is van mening dat bij kinderen met obesitas (zie bijlage 5, tabel 'Criteria signalering overgewicht en obesitas bij jongens en meisjes') screening op OSAS in het kader van reguliere jeudgezondheidszorg is aan te bevelen door volledige anamnese en lichamelijk onderzoek gericht op klachten en symptomen van OSAS.

De werkgroep is van mening dat kinderen met morbide obesitas (BMI > 35 met geassocieerde morbiditeit of indien de BMI > 40) verwezen moeten worden naar de tweede lijn (kinderarts) voor screening op OSAS waarbij laagdrempelig een PSG moet worden overwogen.

Op basis van de sterk verhoogde prevalentie van OSAS, de moeilijke herkenning van symptomen en omdat er aanwijzingen zijn voor een mogelijk gunstig effect van therapeutische interventie is de werkgroep van mening dat kinderen met het syndroom van Down om de 1 tot 2 jaar gescreend moeten worden op de symptomen van OSAS door gerichte anamnese en lichamelijk onderzoek conform het stroomdiagram. Bij persisterende symptomen na adenotonsillectomie of onduidelijke symptomen (zoals vermoeidheid) zonder duidelijke oorzaak dient laagdrempelig een polysomnografie verricht te worden.

De werkgroep is van mening dat kinderen met ernstige comorbiditeit die een (sterk) verhoogd risico hebben op OSAS verwezen moeten worden naar (een gespecialiseerd centrum) voor screening middels PSG.

3.2. Wanneer is verwijzing naar de tweede lijn noodzakelijk en naar wie wordt verwezen?

Bij kinderen die op grond van anamnese of lichamelijk onderzoek worden verdacht van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de tweede of derde lijn voor verder onderzoek en eventueel behandeling.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van geen of slechts milde comorbiditeit wordt geadviseerd te verwijzen naar de KNO-arts, aangezien adenotonsillectomie meestal de behandeling van keuze is.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van obesitas wordt geadviseerd te verwijzen naar de kinderarts aangezien gewichtsreductie meestal de initiële behandeling is.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van ernstige comorbiditeit wordt geadviseerd te verwijzen naar de hoofdbehandelaar of het behandelteam in de tweede of derde lijn.

3.3. De waarde van diagnostische instrumenten, zoals anamnese, lichamelijk onderzoek en vragenlijsten bij de diagnostiek van OSAS bij kinderen

De werkgroep benadrukt dat anamnese en lichamelijk onderzoek bij een kind zonder co-morbiditeit onvoldoende betrouwbaar zijn voor het stellen van de diagnose OSAS.

De werkgroep realiseert zich dat polysomnografie niet overal beschikbaar is en is van mening dat de arts de diagnose OSAS dan zal moeten overwegen op basis van anamnese en lichamelijk onderzoek.

De werkgroep benadrukt dat de behandelend arts zich zal moeten realiseren dat de in de literatuur beschikbare vragenlijsten onvoldoende betrouwbaar zijn om de diagnose OSAS te stellen.

In geval van kinderen zonder comorbiditeit adviseert de werkgroep dan om de vier meest voorkomende symptomen die kunnen wijzen op OSAS uit te vragen namelijk: snurken, vastgestelde schokkende of stokkende ademhaling, onrustige slaap en overmatige slaperigheid overdag.

De werkgroep is van mening dat de vragenlijst van Chervin* kan worden gebruikt voor onderzoeksdoeleinden bij kinderen die worden verdacht van OSAS.

*<http://www.ibridgenetwork.org/umich/sleep-related-breathing-disorder-scale>

3.4 Welke diagnostische instrumenten kunnen gebruikt worden om OSAS bij kinderen aan te tonen en welke waarde hebben deze instrumenten?

De klinisch bewaakte PSG type 1 wordt beschouwd als de gouden standaard voor de detectie van OSAS bij kinderen. PSG type 1 dient standaard te omvatten EEG, elektroden paren F3-4, C3-4, O1-2), EOG, kin EMG, been EMG, luchtstroommeting, adem-arbeidmeting, O₂ saturatie, ECG, videomonitoring en lichaamspositie meting.

Type 1 PSG wordt aangeraden als er anamnestiche verdenking is op OSAS bij kinderen met ernstige comorbiditeit.

Bij kinderen met verdenking op OSAS zonder ernstige comorbiditeit kan worden volstaan met type 3 polygrafie.

De werkgroep is van mening dat type 4 pulsoximetrie niet gebruikt dient te worden om OSAS bij kinderen aan te tonen of uit te sluiten.

3.5. en 3.6. Afkappunten en normaalwaarden apneu-hypopneu index (AHI) en oxygenatie-desaturatie index (ODI)

Het gebruik van de apneu-hypopneu index en de oxygenatie-desaturatie index wordt aanbevolen om ademhalingsstoornissen tijdens slaap te karakteriseren.

De volgende definities voor apneus worden gehanteerd:

Obstructieve apneu: de aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.

Een obstructieve apneu wordt gedefinieerd indien er bij aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen een afwezigheid is van oronasale luchtflow met een duur van >2 ademcycli.

Centrale apneu: de afwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow met een duur van >20 sec of een kortere apneu waarbij tenminste 2 ademcycli ontbreken en die geassocieerd zijn met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een afwakening.

Hypopneu: $\geq 50\%$ afname in de amplitude van het oronasale luchtflow of druk signaal met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een afwakening.

Een apneu-hypopneu index <1 uur kan als normaal beschouwd worden.

Een oxygenatie-desaturatie index <1 uur kan als normaal beschouwd worden.

Een gemiddelde saturatie van 97% met als ondergrens een laagste saturatie van 90% kan als normaal beschouwd worden.

3.7. Gradering ernst van OSAS

Aanbevolen wordt om bij kinderen een AHI index van 1-5/uur als mild afwijkend, van >5-10/uur als matig afwijkend en >10/uur als ernstig afwijkend te beschouwen.

De werkgroep is van mening dat voor een definitief oordeel of er sprake is van een milde, matige of ernstige OSAS verder in ogenschouw genomen dient te worden:

- de ernst van de klinische klachten 's nachts en overdag;
- de diepte van desaturaties;
- de hoogte van het capillair, arterieel transcutaan of end-tidal gemeten CO₂ waarde;
- de kwaliteit van slaap;
- het aantal arousals en awakenings;
- de aanwezigheid van cardiovasculaire comorbiditeit.

De werkgroep is van mening dat detectie van paradoxale bewegingen van thorax en abdomen (X-flow), de pulse transit time en de hartslagvariabiliteit in bijzondere gevallen aanvullend gebruikt worden om obstructieve apneus vast te stellen.

3.8. Diagnose van hypoplasie van middegezicht en/of mandibula van kinderen met OSAS

Aangezien er geen gegevens bekend zijn over de sensitiviteit en specificiteit van cefalometrisch onderzoek als diagnostisch instrument bij het vaststellen of uitsluiten van OSAS, heeft dit onderzoek een beperkte waarde bij de diagnostiek van OSAS.

4.1. ATE

Bij kinderen met OSAS zonder comorbiditeit is een (adeno)tonsillectomie (ATE) de eerste keus om de slaapgerelateerde klachten te verminderen.

De KNO-arts zal zich bij de postoperatieve controle moeten vergewissen of de OSAS symptomatologie verbeterd is.

Behoudens de groep kinderen met OSAS zonder comorbiditeit zal er speciale aandacht moeten zijn voor de groep kinderen met obesitas, het syndroom van Down en bij oudere kinderen.

Bij gezonde kinderen met OSAS die ondanks een (adeno)tonsillectomie klachten blijven houden, dient een verbeterde postoperatieve screening ontwikkeld te worden. Ook dient er aandacht te zijn voor de rol van de neus en de onder- en bovenkaak bij kinderen die zowel anamnestic of middels een postoperatief polysomnogram persisterende OSAS blijven houden.

4.2. Osteotomie en distractie van de maxilla en de mandibula

Bij kinderen met (syndromale) middegezichtshypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie geïndiceerd lijkt, kan distractie van het hypoplastische middegezicht op Le Fort III niveau worden toegepast.

Bij kinderen met (syndromale) middegezichtshypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie is aangelegd, kan distractie van het hypoplastische middegezicht op Le Fort III niveau worden toegepast om de tracheotomie op te heffen.

Bij kinderen met mandibulaire hypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie geïndiceerd lijkt, is distractie van de mandibula te overwegen. De voorkeursleeftijd hiervoor is mogelijk na het derde levensjaar.

Bij zuigelingen met mandibulaire hypoplasie en ernstige OSAS, eventueel met een tracheotomie, kan een distractie van de mandibula worden overwogen.

4.3. Tracheotomie

Een tracheotomie bij kinderen met een OSAS dient met de grootste terughoudendheid te worden toegepast. Voor kinderen in bepaalde risicogroepen, bijvoorbeeld de jonge zuigeling met ernstige aanvullende pathologie, is een tracheotomie voor ernstig OSAS soms de enige of tijdelijke behandeloptie.

Bij kinderen met OSAS en ernstige comorbiditeit dient steeds te worden afgewogen of de tracheotomie de kwaliteit van leven verbetert.

5.1. Bij welke patiënten is orthodontische apparatuur geïndiceerd?

Orthodontische behandelingen zijn niet geïndiceerd als primaire behandeling van OSAS bij kinderen.

Een MRA (mandibulair repositie apparaat) kan als secundaire interventie worden overwogen bij de behandeling van OSAS bij kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie en een leeftijd van 5 jaar of ouder.

RME ('rapid maxillary expansion') kan als secundaire interventie worden overwogen bij de behandeling van OSAS bij kinderen met een smalle bovenkaak en een leeftijd van 5 jaar of ouder.

Er is weinig bewijs dat PEBP's ('Pre-Epiglottic Baton Plates') een plaats hebben in de behandeling van baby's met Robin-sequentie en een apneu index >3. Het verdient aanbeveling om hierover meer wetenschappelijke onderzoeksgegevens te verkrijgen.

Het verdient aanbeveling om voorafgaande aan een behandeling van OSAS bij kinderen met een MRA of RME eerst een uitgebreid orthodontisch onderzoek uit te voeren en een behandelingsplan op te stellen.

De gebitsontwikkeling, kaakgroei, (neven)effecten van de apparatuur, mondhygiëne en compliantie tijdens een orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen dienen met regelmatige intervallen door de orthodontist te worden gecontroleerd en indien nodig moeten apparatuur en behandelingsplan op grond van bevindingen tijdig worden bijgesteld.

Het effect van een orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen moet door een multidisciplinair team met (poly)somnografie worden gecontroleerd.

5.2. CPAP/BIPAP

De behandeling van OSAS bij kinderen met CPAP (Continuous Positive Airway Pressure) of BIPAP (Bilevel Positive Airway Pressure) dient overwogen te worden indien er sprake is van ernstige OSAS of matige OSAS waarbij ernstige klachten bestaan na falen van een adenotonsillectomie en/of medicamenteuze therapie.

Het instellen van CPAP of BIPAP bij kinderen met OSAS dient in centra met expertise te geschieden met ervaring in deze vormen van ademhalingsondersteuning en bij voorkeur in overleg met de centra voor thuisbeademing.

Bij kinderen met OSAS die met CPAP of BIPAP worden behandeld verdient het aanbeveling regelmatig (minimaal 1x per jaar) het klinisch beeld te evalueren teneinde vast te kunnen stellen of CPAP of BIPAP nog geïndiceerd is.

Het instellen van CPAP of BIPAP bij kinderen met OSAS dient plaats te vinden in gespecialiseerde centra voor thuisbeademing bij kinderen.

5.3. Bij welke kinderen is medicamenteuze behandeling van OSAS geïndiceerd?

Een langdurige behandeling (> 3 maanden) met nasale inhalatie corticosteroiden heeft geen plaats bij de behandeling van een mild of matig OSAS bij kinderen.

Een nasaal corticosteroid kan bij milde OSAS kortdurend gebruikt worden voor een tijdelijke verlichting van klachten.

5.4. Zuurstoftherapie voor behandeling van OSAS bij kinderen

Zuurstoftherapie bij kinderen met OSAS kan als tijdelijke therapie gebruikt worden ter overbrugging van de periode tot aan een chirurgische ingreep.

Zuurstoftherapie bij OSAS kan als palliatieve therapie gebruikt worden bij kinderen waarbij er een contra-indicatie is voor chirurgische interventie of ademhalingsondersteuning.

6.1. Aanvullend preoperatief onderzoek

Bij kinderen met aandoeningen waarbij een hoge prevalentie van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen of OSAS voorkomt (zie tabel 2.2.1, hoofdstuk 2.2), dient tijdens de preoperatieve screening gevraagd te worden naar de belangrijkste symptomen van OSAS:

- Frequent snurken
- Stoppen of stikken met ademen tijdens de slaap
- Onrustige slaap
- Gedrags- en concentratie problemen of slaperigheid overdag

Het verdient aanbeveling bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS tijdens het preoperatieve onderzoek de bloeddruk non-invasief te meten.

Het verdient aanbeveling kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS bij wie tijdens het preoperatieve onderzoek hypertensie wordt gemeten of er een klinische verdenking op cardiale comorbiditeit is, te verwijzen naar een kinderarts.

Indien men het gebruik van sedativa zou overwegen bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS, zonder comorbiditeit, kan Midazolam voorgeschreven worden.

De werkgroep is van mening dat bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS die een adeno / tonsillectomie ondergaan intubatie overwogen moet worden tijdens de ingreep, zeker indien er sprake is van comorbiditeit.

Bij het gebruik van opioïden bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS is voorzichtigheid geboden in verband met een hogere gevoeligheid op de ademhaling.

Bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS waarbij opioïden overwogen worden in de postoperatieve fase, gaat de voorkeur uit naar zwakwerkende opioïden zoals Tramadol.

Het verdient aanbeveling bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS rekening te houden met een verhoogde kans op luchtwegproblematiek in de perioperatieve periode.

6.2. Peri- en postoperatieve chirurgische complicaties

Bij de tonsillectomie worden geen grote verschillen in uitkomst gevonden tussen de verschillende operatietechnieken. Een specifieke techniek kan derhalve niet worden aanbevolen.

6.3. Dagbehandeling versus klinische opname

Kinderen, zonder verdere comorbiditeit, met verdenking op of vastgestelde milde of matige OSAS die ouder zijn dan 3 jaar kunnen veilig een (A)TE ondergaan in dagbehandeling mits er de mogelijkheid bestaat om in geval van complicaties de dagopname te verlengen tot een nacht klinische bewaakte opname in hetzelfde ziekenhuis.

Kinderen met OSAS die een (A)TE ondergaan worden tenminste klinisch bewaakt gedurende de eerste postoperatieve nacht, indien één of meer van de volgende risicofactoren op een gecompliceerd postoperatief beloop aanwezig zijn:

- Neurologische of neuromusculaire aandoeningen, zoals cerebrale parese, epilepsie of hypotonie
- Syndromale afwijkingen, zoals het syndroom van Down
- Craniofaciale afwijkingen
- Genetische / metabole of stapelingsziekten, zoals mucopolysaccharidose, sikkelcel-anemie
- Achondroplasie
- Congenitale hartaandoeningen, cor pulmonale, ECG of echocardiografische afwijkingen, hypertensie
- Aandoeningen van de luchtwegen, zoals bronchopulmonale dysplasie, subglottische stenose, stembandparese, trauma van de luchtweg in de voorgeschiedenis, ernstig astma, laryngomalacie, recente / chronische of recidiverende bovenste luchtweg-infectie
- Failure to thrive

- Morbide obesitas
- Ex-prematuuriteit (geboorte bij een zwangerschapsduur < 37 weken) (verdenking)
- Ernstige OSAS
- Spoed adenotonsillectomie*
- Leeftijd jonger dan 3 jaar
- Gewicht onder de 15 kg
- ASA klasse 3 of hoger

Bij kinderen bij wie het verrichten van een spoed adenotonsillectomie wordt overwogen dient een preoperatief onderzoek plaats te vinden en dient de gezondheidstoestand van de patiënt waar mogelijk geoptimaliseerd te worden.

Het lijkt de werkgroep raadzaam om kinderen met een zwak sociaal vangnet of kinderen die verder dan 30 minuten reizen van het ziekenhuis wonen voor een nachtopname in aanmerking te laten komen.

* een adenotonsillectomie tijdens dezelfde opname als het stellen van de diagnose OSAS

7.1. Hoe is de organisatie van de zorg rondom kinderen met OSAS geregeld?

Een ruime beschikbaarheid van een patiëntenversie van deze richtlijn met daarin voor leken begrijpelijk wat de belangrijkste symptomen zijn, is van het grootste belang bij de voorlichting van ouders, zodat deze tijdig opmerkzaam gemaakt worden op de belangrijkste symptomen en de huisarts opzoeken voor nadere evaluatie van de klachten van hun kind.

Een toegankelijke kernversie van de richtlijn is ook van belang voor de groepen verwijzers in de eerste en tweede lijn zoals artsen en consulenten bij consultatiebureaus, huisartsen, KNO-artsen en kinderartsen. Verwerking van deze richtlijn in nascholingen en online wikibased interactieve naslagprogramma's (bijvoorbeeld WikiNO.nl) om inbedding in de beroepsgroep te stimuleren.

Een inventarisatie van de huidige kennis, kunde en capaciteit m.b.t. diagnose en behandeling van osas bij kinderen verdient de hoogste prioriteit.

De werkgroep is van mening dat het aanbeveling verdient om het tot stand komen van centers of expertise te bevorderen met de nadruk op het ontwikkelen van multidisciplinaire teams voor osas bij kinderen.

7.2 .Voorlichting en begeleiding van (ouders van) kinderen met OSAS

De rol van ouders is van belang bij het signaleren van OSAS, maar ook bij de begeleiding en ondersteuning van het kind tijdens het diagnostisch proces en behandeling van OSAS.

Voorlichtingsmateriaal omvat een algemeen deel (omschrijving van OSAS, de risicogroepen, de symptomen, de belangrijkste behandelingen en wanneer deze worden toegepast) en een specifiek deel (gang van zaken in dit ziekenhuis bij diagnose en behandeling).

Het wordt aanbevolen om multimedia ondersteuning te ontwikkelen ter ondersteuning van de informatievoorziening.

Goede voorlichting kent een afgewogen mix tussen persoonlijke informatie (behandelend specialist en (OSAS-) verpleegkundige), zelf te raadplegen betrouwbare voorlichting (website, brochures) en groepsvoorlichting. Effectieve informatie is toegesneden op het abstractieniveau van ouders en kind.

7.3. Eisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS worden behandeld

De werkgroep is van mening dat voor het uitvoeren van een operatieve ingreep bij kinderen met OSAS, het ziekenhuis moet beschikken over de volgende faciliteiten:

- Een kinderafdeling, waar 24 uur per dag zorg geleverd kan worden en rooming-in mogelijk is en een dagverpleging aangepast aan kinderen, met kinderverpleegkundigen en overig personeel die ruime ervaring hebben met de behandeling van chirurgische kinderen.
- De operatiekamer, de verkoeverkamer, de afdeling Spoedeisende Hulp, de poli-klinieken, het laboratorium en de afdeling beeldvormende diagnostiek beschikken over voldoende voorzieningen (apparatuur, personeel, ruimte en organisatie) voor kinderen.
- Op de verkoeverkamer, de kinderafdeling en de dagbehandeling is materiaal aanwezig om kinderen postoperatief te monitoren (pulsoximeter, ademhalingsmonitor), met materiaal om de luchtweg / ademhaling te ondersteunen en met personeel dat een ademwegobstructie en ademhalingsdepressie kan herkennen en adequaat kan opvangen.
- Op de operatiekamer is materiaal aanwezig voor de acute opvang van de moeilijke intubatie met materiaal dat geschikt is voor kinderen en personeel dat hiermee kan omgaan.
- Voor de preoperatieve screening van en de preoperatieve voorlichting aan kinderen en ouders is een poliklinisch spreekuur ingesteld conform het verenigingsstandpunt van de NVA.
- Er is schriftelijke voorlichting over anesthesie bij kinderen aanwezig met instructies over o.a. beleid rondom het nuchter blijven, postoperatieve pijnbehandeling.
- Er zijn protocollen specifiek voor kinderen betreffende de perioperatieve zorg (nuchter zijn, postoperatieve pijnbehandeling en ontslagcriteria).
- De ouder krijgt de gelegenheid om het kind te begeleiden bij diagnostisch onderzoek, bij de inleiding van de anesthesie en bij het ontwaken op de verkoeverkamer, volgens het uitgangspunt van de SKA (sectie kinderanesthesiologie) november 2008.
- Er zijn duidelijke schriftelijke afspraken over de verantwoordelijkheden bij complicaties met betrekking tot opvang en eventueel transport naar en opname op een kinderafdeling of pediatrie intensive care unit.

De werkgroep is van mening dat de anesthesioloog zich moet conformeren aan de standpunten (waaronder Standpunt voor de organisatie van anesthesiologische zorg-verlening aan en ingrepen bij kinderen) van de Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie.

De werkgroep is van mening dat de kinderarts moet werken volgens de standaarden en kwaliteitscriteria die in het kader van het kwaliteitsbeleid van de Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde zijn vastgesteld.

De werkgroep is van mening dat kinderen met OSAS een electieve operatieve ingreep kunnen ondergaan in een ziekenhuis, met een kinderafdeling waar 24 uur zorg per dag kan worden geboden en dat beschikt over bovengenoemde faciliteiten.

De werkgroep is van mening dat kinderen met OSAS en aanvullende ernstige comorbiditeit of verhoogd perioperatieve risico altijd in een centrum met een pediatrische intensive care unit moeten worden behandeld.

Het verrichten van een polysomnogram bij kinderen dient plaats te vinden in gespecialiseerde centra waarbij er voldoende expertise is in een multidisciplinair team voor het uitlezen en interpreteren van de registraties.

Het verdient aanbeveling om in de toekomst een minimum aantal PSG's per kliniek af te spreken om de kwaliteit te waarborgen.

8.1. Hoe kan de implementatie van deze richtlijn worden gewaarborgd?

De werkgroep is van mening dat de uitvoering van de in dit hoofdstuk genoemde initiatieven en voorstellen zal bijdragen aan de implementatie van deze richtlijn en daardoor aan de verbetering van de kwaliteit van zorg voor de kinderen met OSAS.

Stroomschema voor kinderen met (verdenking) OSAS

Verdenking OSAS op basis van onderstaande symptomen:

1. Belangrijkste symptomen OSAS (zie hfdstk 3.2):

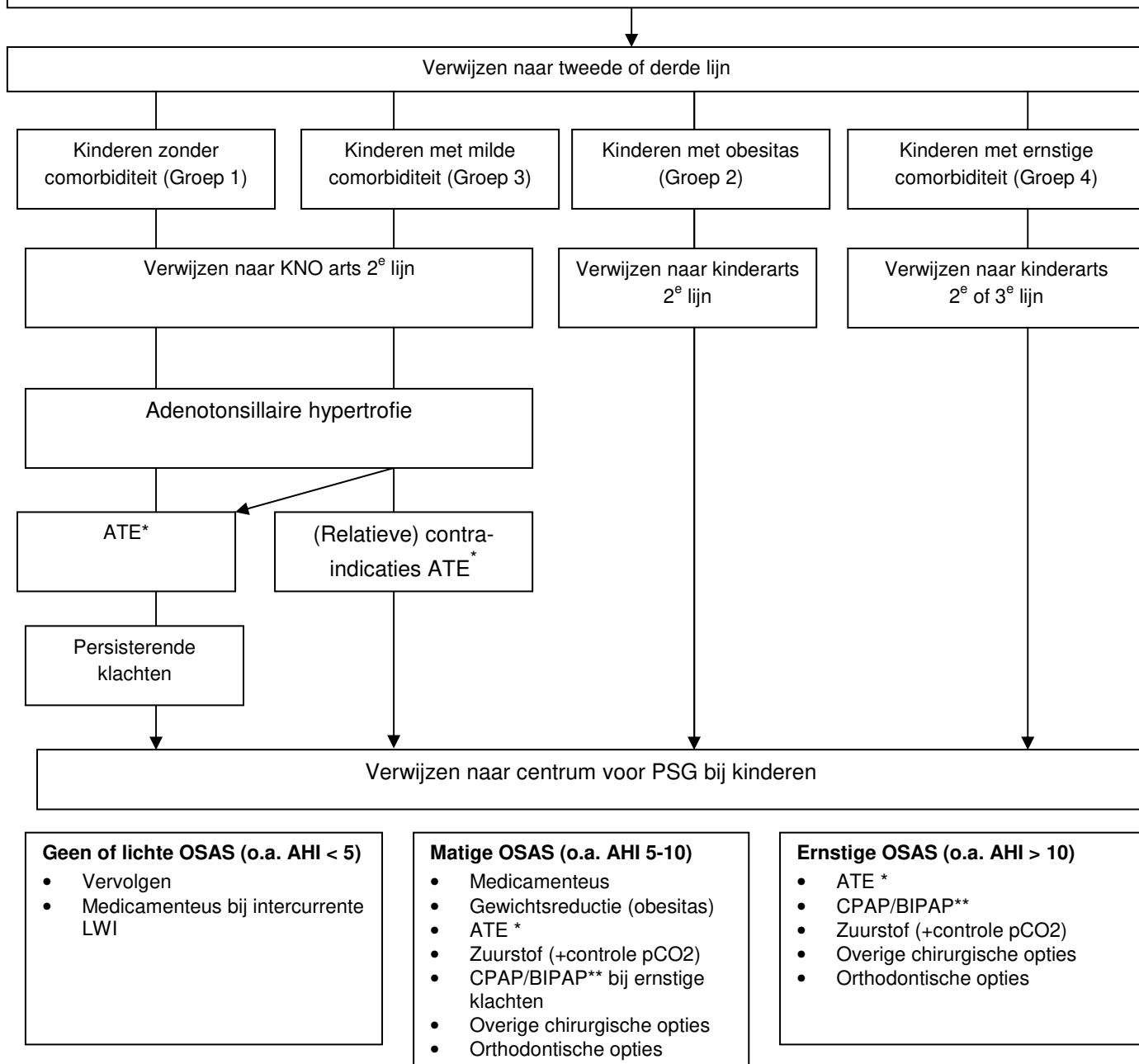
- Frequent snurken, moeite met ademen
- Stokkende ademhaling of stoppen met ademen tijdens slaap
- Onrustige slaap
- Gedrags- of concentratieproblemen of slaperigheid overdag

2. Overige symptomen

- Abnormale slaaphouding, overmatig transpireren, bedplassen, mondademhaling, ochtendhoofdpijn

3. Symptomen bij lichamelijk onderzoek

- vergrote tonsillen, open mondademhaling, failure to thrive



* Afhankelijk van het risico op perioperatieve complicaties is ATE mogelijk in dagbehandeling of bij matige tot ernstige comorbiditeit in ziekenhuizen met postoperatieve monitorbewakingsmogelijkheid danwel postoperatieve PICU opnamemogelijkheid.

** Alleen in een centrum met uitgebreide ervaring met CPAP/BIPAP bij kinderen bij voorkeur in samenwerking met een van de Centra voor Thuisbeademing.

HOOFDSTUK 1: ALGEMENE INLEIDING

Aanleiding

Het Obstructief Slaap Apneu Syndroom (OSAS) is het einde van een continuüm van obstructieve slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen, in volgorde van ernst bestaande uit primair snurken (PS), upper airway resistance syndrome (UARS), obstructieve hypoventilatie (OH) en obstructieve slaapapneu (OSA). In alle gevallen is snurken het meest kenmerkende symptoom.

OSAS wordt gekenmerkt door een herhaald optreden van episoden van hogere luchtwegobstructie tijdens de slaap, gewoonlijk geassocieerd met zuurstofsaturatiedaling in het bloed. Tijdens de slaap collabeert de absoluut of relatief te nauwe en/of te slappe farynx waardoor onderbreking van de luchtstroom (apneu) optreedt. Hervatting van de ademhaling is pas weer mogelijk na een ontwaakreactie (arousal) en daarbij optredend herstel van de luchtwegdoorgankelijkheid. Slaapapneu gaat doorgaans gepaard met heftig snurken en forse bewegingsonrust.

Onbehandelde OSAS bij kinderen kan leiden tot een diversiteit aan medische en ontwikkelingsgerelateerde problemen, zoals groeistoornissen ('failure to thrive'), cardiovasculaire complicaties (hypertensie) en neurocognitieve problemen (leer- en gedragsstoornissen en ontwikkelingsachterstand). Medisch minder dramatisch, maar sociaal wel belastend zijn de (door)slaapstoornissen voor zowel kind als ouder. De gevolgen op school respectievelijk werk zijn moeilijk meetbaar maar hebben een grote impact op het maatschappelijk functioneren.

Er bestaat geen eenduidigheid met betrekking tot de diagnostiek en behandeling van kinderen met OSAS. De bestaande variatie in aanpak op deze deelgebieden kan leiden tot over- of onderbehandeling.

In de richtlijn 'Ziekten van Adenoid en Tonsillen in de Tweede lijn' (ZATT) uit 2007 is het onderwerp OSAS bij kinderen slechts summier ter sprake gekomen. De reden voor de beknoptheid op het punt van de OSAS in de richtlijn ZATT is de uitgebreidheid van de literatuur aangaande OSAS en het ontbreken van bepaalde deelnemende wetenschappelijke verenigingen die een rol spelen in de diagnostiek en behandeling van OSAS. Om analoge redenen is in de richtlijn OSAS bij volwassenen uit 2009 de pediatrische patiëntengroep niet besproken.

Door goede en tijdige diagnostiek en adequate behandeling van OSAS kan er een aanzienlijke gezondheidswinst geboekt worden. Er is een gestructureerde, multidisciplinaire aanpak nodig. Ook de voorlichting naar patiënten kan aanzienlijk worden verbeterd.

Bovengenoemde overwegingen waren voor de Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-halsgebied aanleiding een multidisciplinaire, 'evidence-based' richtlijn te ontwikkelen voor diagnostiek en behandeling van het obstructievelaapapneusyndroom bij kinderen. Het CBO verleende hierbij methodologische expertise.

Doelstelling

Deze richtlijn is een document met aanbevelingen ter ondersteuning van de dagelijkse praktijkvoering. De richtlijn berust op de resultaten van wetenschappelijk onderzoek en aansluitende meningsvorming, gericht op het vaststellen van goed medisch handelen. Er wordt aangegeven wat in het algemeen de beste zorg is voor kinderen met OSAS.

De richtlijn geeft aanbevelingen over de screening, diagnostiek, verwijzing, indicatiestelling, behandeling en nazorg van kinderen met OSAS.

Specifieke doelen zijn:

- Het voorkomen van gezondheidsschade bij de patiënt door inadequate diagnostiek of behandeling.
- Het bieden van ondersteuning aan zorgverleners bij het realiseren van een uniform beleid.
- Het doen van duidelijke uitspraken over te verrichten screening en diagnostiek, over het moment van verwijzen door huisartsen, over het tijdstip en de wijze waarop (operatief) behandeld moet worden, over de rol van non-invasieve behandelingen en over de rol van co-morbiditeit.
- Het maken van afspraken over taken en verantwoordelijkheden tussen de verschillende disciplines.
- Het geven van adviezen over de wijze van follow-up.

De richtlijn kan worden gebruikt bij het geven van voorlichting aan (ouders van) patiënten. Ook biedt de richtlijn aanknopingspunten voor bijvoorbeeld transmurale afspraken of lokale protocollen ter bevordering van de implementatie.

Deze richtlijn zal tevens bijdragen aan verbeterde communicatie tussen behandelaars en (ouders van) patiënten en tussen behandelaars onderling.

Doelgroep

De richtlijn is bedoeld voor alle zorgverleners die betrokken zijn bij de diagnostiek en behandeling van kinderen met OSAS: huisartsen, artsen jeugdgezondheidszorg, KNO-artsen, kinderartsen, neurologen, longartsen, kaakchirurgen, tandartsen, orthodontisten en anesthesiologen.

Uitgangsvragen

Om belangrijke problemen in het veld ten aanzien van diagnostiek en behandeling van OSAS bij kinderen in kaart te brengen werd bij de doelgroep een enquête gehouden om de knelpunten in de dagelijkse praktijk te inventariseren. Hierbij was ook een lijst met mogelijke uitgangsvragen opgenomen met de vraag deze te prioriteren. Op basis van deze knelpuntenanalyse werd een definitieve lijst met uitgangsvragen (zie bijlage 1) opgesteld, gericht op de meest belangrijke knelpunten in de dagelijkse praktijk. De uitgangsvragen vormen de basis voor de verschillende hoofdstukken van deze richtlijn. De richtlijn beoogt dus niet volledig te zijn.

Samenstelling van de werkgroep

Voor het ontwikkelen van deze richtlijn is in 2009 een multidisciplinaire werkgroep samengesteld, bestaande uit vertegenwoordigers van de belangrijkste bij de diagnostiek en behandeling van kinderen met OSAS betrokken medische disciplines, de Apneu Vereniging en adviseurs van het CBO (Zie 'Samenstelling van de werkgroep').

Bij het samenstellen van de werkgroep is zoveel mogelijk rekening gehouden met de geografische spreiding van de werkgroepleden, met een evenredige vertegenwoordiging van de verschillende betrokken verenigingen en instanties, evenals met een spreiding al dan niet in academische en niet-academische ziekenhuizen. De werkgroepleden hebben onafhankelijk gehandeld en waren gemandateerd door hun vereniging.

Er zijn geen voor deze richtlijn relevante relaties van werkgroepleden met farmaceutische en/of hulpmiddelenindustrie gemeld. Een overzicht van de belangenverklaringen van werkgroepleden over mogelijke financiële belangenverstremgeling is als addendum bij de richtlijn gevoegd.

Werkwijze van de werkgroep

De richtlijn is ontwikkeld met behulp van de webapplicatie Diliguide. Diliguide staat voor Digital Living Guidelines. Diliguide ondersteunt werkgroepen bij het ontwikkelen en reviseren van richtlijnen, patiëntenversies van richtlijnen en publiceren.

Gezien de omvang van het werk werd een aantal subgroepen gevormd met vertegenwoordigers van relevante disciplines. Daarnaast zorgde een redactieteam, bestaande uit de voorzitter, enkele werkgroepleden en adviseurs van het CBO voor de coördinatie en onderlinge afstemming van de subgroepen.

De werkgroep heeft gedurende een periode van ongeveer twee jaar gewerkt aan de tekst voor de conceptrichtlijn. De bedoeling van deze en andere richtlijnen is niet om een compleet boek over het betreffende onderwerp te schrijven, wel om dieper in te gaan op specifieke vraagstellingen.

Tijdens de eerste vergaderingen werden relevante uitgangsvragen geformuleerd betreffende de diagnostiek en behandeling van kinderen met OSAS. De werkgroepleden schreven afzonderlijk of in de subgroepen teksten, antwoorden op de geformuleerde uitgangsvragen, die met behulp van Diliguide werden becommentarieerd en aangepast. Vervolgens werden de teksten tijdens plenaire vergaderingen besproken en na verwerking van de commentaren geaccordeerd. De voltallige werkgroep is tijdens acht vergaderingen bijeen geweest om de resultaten van de subgroepen in onderling verband te bespreken.

De teksten van de subgroepen zijn door het redactieteam samengevoegd en op elkaar afgestemd tot één document: de conceptrichtlijn. De conceptrichtlijn werd vervolgens op 24 februari 2012 voor commentaar naar de participerende beroepsverenigingen gestuurd. Na verwerking van het commentaar is de richtlijn op 25 juni 2012 door de voltallige werkgroep vastgesteld en ter autorisatie naar de relevante beroepsverenigingen gestuurd.

Wetenschappelijke bewijsvoering

De aanbevelingen uit deze richtlijn zijn voor zover mogelijk gebaseerd op bewijs uit gepubliceerd wetenschappelijk onderzoek. Relevante artikelen werden gezocht door het verrichten van systematische zoekacties in de Cochrane Database of Systematic Reviews (CDSR, via Wiley InterScience), Medline en Embase (beiden via OvidSP). Hierbij werd de taal gelimiteerd tot Nederlands, Engels en Duits en werden artikelen uitsluitend over dierstudies uitgesloten. Er werd gezocht vanaf publicatiejaar 1994 tot en met de datum van de zoekactie (tussen januari en juni 2010). Voor de patiëntenpopulatie werd de MeSH (Medical Subject Heading) term ' Sleep Apnea, Obstructive' gebruikt, aangevuld met artikelen gevonden met de woorden 'osas', 'apnea' of 'apnoea' in titel of samenvatting. De opbrengst werd daarbij ingeperkt op artikelen over 'kinderen'. De volledige zoekstrategie is per vraag in bijlage 6 weergegeven.

Belangrijke selectiecriteria hierbij waren: vergelijkend onderzoek met hoge bewijskracht, zoals meta-analyses, systematische reviews, randomised controlled trials (RCT's) en controlled trials (CT's). Waar deze niet voorhanden waren, werd verder gezocht naar

vergelijkend cohortonderzoek, vergelijkend patiëntcontrole onderzoek of niet-vergelijkend onderzoek.

De kwaliteit van deze artikelen werd door de werkgroepleden beoordeeld aan de hand van 'evidence-based richtlijnontwikkeling' (EBRO)-beoordelingsformulieren. Artikelen van matige of slechte kwaliteit werden uitgesloten. Na deze selectie bleven de artikelen over die als onderbouwing bij de verschillende conclusies in de richtlijn staan vermeld. De geselecteerde artikelen zijn vervolgens gegradeerd naar de mate van bewijs, waarbij de volgende indeling is gebruikt (Tabel 1). De mate van bewijskracht en niveau van bewijs zijn in de conclusies van de verschillende hoofdstukken weergegeven. De belangrijkste literatuur waarop de conclusies zijn gebaseerd is daarbij vermeld.

Indeling van de onderbouwing naar mate van bewijskracht

[Tabel 1: tabel met niveau van bewijs artikelen en niveau van bewijs van de conclusies]

De beschrijving en beoordeling van de verschillende artikelen staan in de verschillende teksten onder het kopje 'Wetenschappelijke onderbouwing'. Het wetenschappelijk bewijs is samengevat in een 'Conclusie', waarbij het niveau van het meest relevante bewijs is weergegeven.

Totstandkoming van de aanbevelingen

Voor het komen tot een aanbeveling zijn er, naast het wetenschappelijk bewijs vaak andere aspecten van belang, bijvoorbeeld: patiëntenvoorkeuren, beschikbaarheid van speciale technieken of expertise, organisatorische aspecten, maatschappelijke consequenties of kosten. Deze aspecten worden besproken na de 'Conclusie' in de 'Overige overwegingen'. Hierin wordt de conclusie op basis van de literatuur in de context van de dagelijkse praktijk geplaatst en vindt een afweging plaats van de voor- en nadelen van de verschillende beleidsopties. De uiteindelijk geformuleerde aanbeveling is het resultaat van het beschikbare bewijs in combinatie met deze overwegingen. Het volgen van deze procedure en het opstellen van de richtlijn in dit 'format' heeft als doel de transparantie van de richtlijn te verhogen. Het biedt ruimte voor een efficiënte discussie tijdens de werkgroepvergaderingen en vergroot bovendien de helderheid voor de gebruiker van de richtlijn.

Patiëntenperspectief

Bij het opstellen van de richtlijn is rekening gehouden met het patiëntenperspectief. In de knelpuntanalyse hebben de Apneu Vereniging en de Stichting Kind en Ziekenhuis eigen knelpunten ingebracht. In een telefonische interviewronde werden knelpunten bij individuele patiënten geïnventariseerd (bijlage 3). De conceptrichtlijn is tevens voorgelegd aan de ApneuVereniging en Stichting Kind en Ziekenhuis. Tot slot is in de eindfase in samenwerking met de betrokken patiëntenverenigingen een patiëntenversie van de richtlijn ontwikkeld.

Implementatie en evaluatie

In de verschillende fasen van de ontwikkeling van het concept van de richtlijn is zoveel mogelijk rekening gehouden met de implementeerbaarheid van de richtlijn en de daadwerkelijke uitvoerbaarheid van de aanbevelingen. De richtlijn wordt verspreid onder alle relevante beroepsgroepen en ziekenhuizen. Ook wordt een samenvatting van de richtlijn ter publicatie aangeboden aan het Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde en zal er in

verschillende specifieke vaktijdschriften aandacht worden besteed aan de richtlijn. Daarnaast wordt de integrale tekst van de richtlijn op de CBO-website, de betrokken beroepsverenigingen en de patiëntenverenigingen geplaatst.

Juridische betekenis van richtlijnen

Richtlijnen zijn geen wettelijke voorschriften, maar wetenschappelijk onderbouwde en breed gedragen inzichten en aanbevelingen waaraan zorgverleners zouden moeten voldoen om kwalitatief goede zorg te verlenen. Aangezien richtlijnen uitgaan van 'gemiddelde patiënten', kunnen zorgverleners in individuele gevallen zo nodig afwijken van de aanbevelingen in de richtlijn. Afwijken van richtlijnen is, als de situatie van de patiënt dat vereist, soms zelfs noodzakelijk. Wanneer van de richtlijn wordt afgeweken, moet dit echter beargumenteerd, gedocumenteerd en, waar nodig, in overleg met de patiënt worden gedaan.

Herziening

Uiterlijk in 2017 wordt door de Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-halsgebied, na raadpleging van of op advies van andere aan de richtlijn participerende verenigingen, bepaald of deze richtlijn nog actueel is. Zonodig wordt een nieuwe werkgroep geïnstalleerd om (delen van) de richtlijn te herzien. De geldigheid van de richtlijn komt eerder te vervallen indien nieuwe ontwikkelingen aanleiding zijn een herzieningstraject te starten.

Tabel 1.: Indeling van methodologische kwaliteit van individuele studies

	Interventie	Diagnostisch accuratesse onderzoek	Schade of bijwerkingen, etiologie, prognose*
A1	Systematische review van tenminste twee onafhankelijk van elkaar uitgevoerde onderzoeken van A2-niveau		
A2	Gerandomiseerd dubbelblind vergelijkend klinisch onderzoek van goede kwaliteit van voldoende omvang	Onderzoek ten opzichte van een referentietest (een 'gouden standaard') met tevoren gedefinieerde afkapwaarden en onafhankelijke beoordeling van de resultaten van test en gouden standaard, betreffende een voldoende grote serie van opeenvolgende patiënten die allen de index- en referentietest hebben gehad	Prospectief cohort onderzoek van voldoende omvang en follow-up, waarbij adequaat gecontroleerd is voor 'confounding' en selectieve follow-up voldoende is uitgesloten.
B	Vergelijkend onderzoek, maar niet met alle kenmerken als genoemd onder A2 (hieronder valt ook patiëntcontrole onderzoek, cohort-onderzoek)	Onderzoek ten opzichte van een referentietest, maar niet met alle kenmerken die onder A2 zijn genoemd	Prospectief cohort onderzoek, maar niet met alle kenmerken als genoemd onder A2 of retrospectief cohort onderzoek of patiëntcontrole onderzoek
C	Niet-vergelijkend onderzoek		
D	Mening van deskundigen		

* Deze classificatie is alleen van toepassing in situaties waarin om ethische of andere redenen gecontroleerde trials niet mogelijk zijn. Zijn die wel mogelijk dan geldt de classificatie voor interventies.

Niveau van conclusies

	Conclusie gebaseerd op
1	Onderzoek van niveau A1 of tenminste 2 onafhankelijk van elkaar uitgevoerde onderzoeken van niveau A2, met consistent resultaat
2	1 onderzoek van niveau A2 of tenminste 2 onafhankelijk van elkaar uitgevoerde onderzoeken van niveau B
3	1 onderzoek van niveau B of C
4	Mening van deskundigen

HOOFDSTUK 2: SPECIFIEKE INLEIDING EN DEFINITIES

2.1. Wat is de definitie van OSAS bij kinderen?

Inleiding

OSAS bij kinderen heeft lang bestaan voordat het als klinische entiteit herkend werd. In 1889 publiceerde Hill een artikel waarin hij de symptomen van OSAS bij kinderen beschreef. Het duurde tot 1976 toen Guilleminault een case serie beschreef van 8 kinderen met slaap apneu syndroom. Brouillette en Loughlin suggereerden in 1996 dat OSAS onderdeel is van een spectrum van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen (SDB: Sleep Disordered Breathing), stoornissen gerelateerd aan een bovenste luchtweg obstructie. Dit spectrum gaat in een continuüm van afwezigheid van snurken en klachten, naar in het andere uiterste OSAS. Onderdelen van dit spectrum zijn:

- Habitueel snurken (PS): snurken, een hoorbare ademhaling veroorzaakt door een turbulente luchtstroom door de bovenste luchtwegen, zonder obstructieve apneus, zonder arousals tijdens de slaap of een verstoorde gaswisseling.
- Upper Airway Resistance Syndrome (UARS): verstoring van de slaap zonder apneu, hypopneu of hypoxemie.
- Obstructieve hypoventilatie (OH): verstoring van de slaap met apneu en hypopneu zonder desaturatie.
- Obstructief Slaap Apneu Syndroom (OSAS): een ernstig klinisch beeld met onbehandeld op lange termijn orgaanschade door ernstige luchtwegobstructie en hypoxemie.

In alle genoemde gevallen is snurken het meest kenmerkende symptoom. De kliniek van OSAS bij kinderen wijkt nadrukkelijk af van de kliniek bij volwassenen en de diagnose wordt gesteld op klachten in combinatie met polysomnografische bevindingen.

Centrale apneus en het centraal hypoventilatiesyndroom vallen nadrukkelijk buiten deze richtlijn en worden hier niet besproken.

De werkgroep heeft besloten de kinderen met OSAS in 4 groepen in te delen. Deze indeling is gemaakt op basis van de onderliggende aandoening van het kind of oorzakelijke factor die het risicoprofiel voor chirurgische- en niet-chirurgische therapie beïnvloedt en bepaalt of kinderen in de 2^e of 3^e lijn behandeld dienen te worden. Deze indeling zal in de diverse hoofdstukken in de richtlijn consequent gehanteerd worden:

1. Kinderen met (een verdenking op) OSAS zonder comorbiditeit.
2. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en obesitas.
3. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en milde comorbiditeit. Bij deze kinderen is er sprake van milde comorbiditeit, zoals bijvoorbeeld astma en CHD (Congestive Heart Disease).
4. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en ernstige comorbiditeit. Deze groep kinderen heeft ernstige syndromale of neurologische onderliggende aandoeningen. Kinderen met het syndroom van Down worden ook tot deze groep gerekend gezien de

prevalentie van aanverwante aandoeningen en de lokale anatomische variaties die een rol kunnen spelen bij een eventuele operatie.

De gradatie van OSAS bij kinderen kan o.a. worden ingedeeld aan de hand van de apneu-hypopneu index (AHI) waarbij ook het klachtenpatroon van belang is. Dit wordt nader uitgewerkt in hoofdstuk 3.

Samenvatting van de literatuur

Voor de definitie van OSAS bij kinderen wordt in de literatuur gebruik gemaakt van de definitie die de American Thoracic Society publiceerde in 1996 en van de definitie van de American Academy of Sleep Medicine uit 2005. De American Thoracic Society definieerde in een consensusbijeenkomst standaarden en indicaties voor cardiopulmonale slaapstudies bij kinderen. Hier werd bepaald dat OSAS bij kinderen een slaap gerelateerde ademhalingsstoornis is, die gekarakteriseerd wordt door een langdurige partiële bovenste luchtweg obstructie (obstructieve hypopneu) en/of door een intermitterende complete obstructie (obstructieve apneu) die de normale ademhaling gedurende slaap en het normale slaappatroon verstoort. OSAS is geassocieerd met symptomen van (habituëel) snurken, slaapstoornissen en gedrags- en leerproblemen. Complicaties omvatten groeistoornissen, neurologische stoornissen en in ernstige gevallen een cor pulmonale.

The American Academy of Sleep Medicine definieert OSAS als herhaalde episodes van bovenste luchtwegobstructie gedurende slaap, vaak geassocieerd met een daling in de zuurstofsaturatie.

Het klachtenpatroon bij het jonge kind is veel subtieler dan bij volwassenen. De diagnose bij het kind is dan ook moeilijker.

OSAS (Obstructief Slaap Apneu Syndroom) bij kinderen is een slaap gerelateerde ademhalingsstoornis die gekarakteriseerd wordt door een partiële bovenste luchtweg obstructie en/of door een intermitterende complete obstructie, die de normale ademhaling gedurende slaap en het normale slaappatroon verstoort. Vaak is er sprake van een daling in de zuurstofsaturatie.

Literatuurlijst

- American Academy of Pediatrics. Clinical practice guideline: diagnosis and management of childhood pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109:704-712.
- American Academy of Sleep Medicine. International classification of Sleep disorders 2nd ed.: Diagnostic and Coding manual, American Academy of Sleep Medicine. Westchester IL 2005.
- American Thoracic Society. Standards and indications for cardiopulmonary sleep studies in children. *Am J Respir Crit Care Med* 1996;153:866-878.
- Guilleminault C, Eldridge FL, Simmons FB, Dement WC. Sleep apnea in eight children. *Pediatrics* 1976;58:23-31.
- Hill W. On some causes of backwardness and stupidity in children. *BMJ* 1889;2:771-2.
- Kirk V, Kahm A, Brouillette RT. Diagnostic approach to obstructive sleep apnea in children. *Sleep Medicine Review* 1998;2(4):255-269.
- Schechter MS. Technical report: Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109(4):e69.

2.2. Wat is de incidentie en prevalentie van snurken en OSAS bij kinderen?

Inleiding

Dit hoofdstuk behandelt de epidemiologie van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen bij kinderen (sleep disordered breathing) variërend van habitueel snurken tot pediatrisch OSAS.

De nadruk zal hier liggen op de incidentie en prevalentie van habitueel snurken en OSAS bij gezonde kinderen gescreend in de normale populatie.

Met behulp van de MESH termen: “pediatric, OSAS, incidence en prevalence, sleep disordered breathing” werd een search verricht naar artikelen gepubliceerd tussen 1994 en 2009. Op basis van de titel en abstracts werden 13 artikelen geïnccludeerd en hieronder samengevat.

De incidentie en prevalentie van aandoeningen waarbij frequent OSAS voorkomt zijn weergegeven in een prevalentie tabel 2.2.1; aangepast naar “ Working party on sleep physiology and respiratory control disorders in Childhood”, september 2009.

De indeling van deze tabel volgt de in deze richtlijn afgesproken indeling:

1. Kinderen met (een verdenking op) OSAS zonder comorbiditeit
2. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en obesitas
3. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en milde comorbiditeit
4. Kinderen met (een verdenking op) OSAS en ernstige comorbiditeit

Tabel 2.2.1

Prevalentie van OSAS kinderen			
<i>Aandoening</i>	<i>Prevalentie</i>	<i>Prevalentie van OSAS</i>	<i>Referentie</i>
1: Kinderen met OSAS zonder comorbiditeit			
Gezonde kinderen		1-4%	Anuntaseree, Bixler, Lumeng
2: Kinderen met OSAS en obesitas			
Kinderen met obesitas Kinderen met morbide obesitas		13% 37-46 %	Chay, Working party on Sleep Physiology and Respiratory Control Disorders in Childhood”, (WSPRCC) september 2009.
3: Kinderen met OSAS en milde comorbiditeit			

Hiervan waren geen incidentie en prevalentie gegevens te benoemen.

4: Kinderen met OSAS en ernstige comorbiditeit

Down syndroom	1/625	58 %	WSPRCC september 2009
Neuromusculair	1/3000	42%	WSPRCC september 2009
Craniofaciale syndromen	1/7000	Variabel	WSPRCC september 2009
Achondroplasie	1/25.000	48%	WSPRCC, september 2009
Mucopolysaccharidosen	1/40.000	>90%	WSPRCC september 2009
Prader-Willi syndroom	1/52.000	25-75%	WSPRCC, september 2009

Samenvatting van de literatuur

In de meta-analyse van Lumeng (2008) wordt een samenvatting van 48 artikelen gegeven die op verschillende wijze (hetero-anamnese van ouders, PSG, lichamelijk onderzoek) kijken naar de epidemiologie van pediatrische slaap gerelateerde stoornissen in de algemene gezonde pediatrische populatie tussen 1 en 18 jaar. Dit betekent dat er gekeken werd naar het hele spectrum van slaapgerelateerde stoornissen van habitueel snurken tot OSAS.

Habitueel snurken wordt omschreven als dagelijks snurken zonder obstructieve apneus of frequente arousels. De door ouders vermelde prevalentie van habitueel snurken was geschat 7,45%. De door ouders gerapporteerde prevalentie van geobserveerde apneus was tussen de 0,2 tot 4%; ouders schatten alleen op basis van anamnese de prevalentie van slaapgerelateerde ademhalingsstoornissen tussen de 4 en 11%.

De meta-analyse van Lumeng omvat 9 studies die de AHI als uitkomstmaat gebruiken. Afhankelijk van de definitie van wat een afwijkende AHI is, varieerde de prevalentie van OSAS tussen de 1 en 4%. Lumeng vond geen demografische factoren in de prevalentie van OSAS. De incidentie van snurken was bij pre-puberale jongens hoger .

In een onderzoek van Kuehni (2008) werden 6811 Europese kinderen gevolgd in de leeftijd van 1 tot 4 jaar en bij deze kinderen werd specifiek gekeken naar de prevalentie en ernst van habitueel snurken en de mogelijke hiermee samenhangende risicofactoren.

In deze groep kinderen blijkt 60% de afgelopen 12 maanden een periode te hebben gesnurkt. Ongeveer 7,9% heeft last van dagelijks snurken en 0,9 % van de kinderen heeft in het afgelopen jaar naast habitueel snurken ook hetero-anamnestic last van slaap stoornissen. Het habituele snurken verdubbelt van 6,6% in het eerste levensjaar jaar tot 13,0% op 4-jarige leeftijd. Snurken correleerde met lagere sociaal-economische status, rokende ouders en verkeersdrukke. Bij ongeveer 1/3 van deze kinderen was er sprake van uiteindelijk vermijdbare of mogelijk behandelbare symptomen zoals een bestaande atopie, virale bovenste luchtweg en omgevingsinvloeden.

In een observationele studie (Ali 1994) werd bij kinderen op twee momenten de prevalentie van habitueel snurken gemeten: op 4-5 jarige leeftijd en op 7-jarige leeftijd. Uit deze studie

bleek dat de prevalentie op beide momenten ongeveer 12% was. Ongeveer 50% van de kinderen had snurklachten op beide studie momenten.

Schlaud (2004) vond bij Duitse kinderen, van 8-10 jaar dezelfde prevalenties. In een studie onder adolescenten was de prevalentie van habitueel snurken rond de 6% (Johnson 2006).

Lofstrand (2007) concludeerde dat kinderen die op 4 jaar habitueel snurken en daarbij geen chirurgische behandeling, zoals een adenotonsillectomie ondergaan, op 6-jarige leeftijd nog steeds snurken.

In een oudere groep van 1605 kinderen (7-13 jaar) werd door Sahin (2009) gekeken naar de prevalentie van voornamelijk habitueel snurken en de relatie met dag en nacht symptomen, schoolprestaties en gedragsproblemen. In 38,9 % van de kinderen was er in het afgelopen jaar minstens een episode geweest van snurken. In 3,5% van de kinderen was er sprake van habitueel snurken. Kinderen die dagelijks snurkten hadden meer dag en nacht symptomen hetgeen correleerde met het mannelijk geslacht en een leeftijd van 7-8jr in deze onderzoeksgroep.

In een 2-jarige follow-up cohortstudie bij Thaise kinderen van een qua leeftijd soortgelijke groep (7 jaar) als in de studie van Sahin keek Anuntasaree (2005) naar de verandering van snurklachten. Bij aanvang van de studie was in de groep 7-jarigen (n=1008); 8,5 % habitueel snurker; 0,69% van alle kinderen had een OSAS.

Na 2 jaar nam de incidentie van habitueel snurken af naar 6,9%. De incidentie van OSAS was op 9 jarige leeftijd rond de 1,3%. Kinderen met een milde OSAS (niet gespecificeerd naar AHI) bij aanvang van de studie, ontwikkelden, zonder ingestelde behandeling, een ernstiger OSAS (AHI tussen de 1,5 en 9,2).

Bixler (2009) en Sogut (2005) beschrijven de prevalentie van OSAS bij kinderen op de basisschool. In de studie van Bixler ondergingen 700 kinderen (5-12 jaar) op basis van een vragenlijst een volledig polysomnogram, KNO en longonderzoek. De prevalentie van OSAS (AHI > 5) was 1,2 %.

In de studie van Sogut bij 954 kinderen in de leeftijd van 3-11 jaar was de prevalentie van OSAS 1,3 % (AHI>3); de incidentie van habitueel snurken was 3,3%. Met name afwijkingen in de neus, zoals allergische rhinitis, correleerden positief met milde OSAS. Snurken en buikomvang correleerden positief met alle vormen van OSAS.

In een onderzoek onder ouders van kinderen, in zowel rurale als stedelijke gebieden, bestudeerde Ekici (2008) 12270 kinderen. In de rurale gebieden was de incidentie van geobserveerde apneus en snurken significant hoger dan in stedelijke gebieden; Ook Spilsbury (2006) concludeert dat een lage socio-economische status de prevalentie van pediatrie OSAS positief beïnvloedt.

De prevalentie van OSAS in kinderen (Chay 2000) met obesitas is aanzienlijk hoger en bedraagt ongeveer 13%.

De Miguel Diez (2003) keek in een niet geselecteerde groep kinderen met het syndroom van Down (n=108) naar het voorkomen OSAS. De prevalentie van OSAS, bij een AHI >3, was in de totale groep 54,6% van de kinderen. De hoogste prevalentie was aanwezig bij jongens (64,7%); en een leeftijd onder de 8 jaar. Tonsillaire hyperplasie correleerde positief bij kinderen met het syndroom van Down met een hogere AHI. In een soortgelijke prospectieve cohort studie van Shott (2006) werden bij 56 kinderen met het syndroom van Down en een leeftijd tussen de 4 maanden en 5 jaar een polysomnografie verricht. Bij 57% van de kinderen was de AHI afwijkend (AHI>1). Bij een additionele 23% van de kinderen

was er een verhoogde arousal index. Bij kinderen met een failure to thrive (FTT) werd in het verleden een OSAS aangemerkt als een mogelijke etiologische factor. In een studie van Stone (2009) bij 63 kinderen met een FTT bleek echter dat de incidentie van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen bij deze kinderen 5,5 % was en derhalve niet significant hoger was dan de incidentie in de gezonde pediatrische populatie.

Overige overwegingen

De meeste epidemiologische studies waren van voldoende omvang om een betrouwbare prevalentie van zowel habitueel snurken als OSAS te beschrijven. Er werd zoveel mogelijk gezocht naar studies die een PSG verrichtten en derhalve een AHI als uitkomstmaat hadden. Studies die alleen uitgingen van door ouders gerapporteerde apneus werden geëxcludeerd van de search.

Er werden relatief weinig data gevonden in de groep kinderen van 4 tot 6 jaar, waar juist de incidentie van adenotonsillaire hypertrofie op zijn hoogst is. Twee onderzoeken (Kuehni 2008, Bixler 2009) beschrijven groepen van kinderen rond deze piekleeftijd en vermelden daarbij incidenties van habitueel snurken van rond de 12%. Opvallend is dat juist deze kinderen blijven snurken, wanneer er geen adenotonsillectomie rond deze leeftijd verricht wordt. In de groep kinderen vanaf 7 jaar, na de piekincidentie van de adeno-tonsillaire hypertrofie, is de geschatte incidentie van habitueel snurken tussen de 6-8%. Incidentie en prevalentie cijfers van habitueel snurken bij kinderen zijn in Nederland niet bekend.

In de leeftijdscategorie van 3-5 jaar presenteren de meeste kinderen zich bij de KNO arts met klachten van snurken en het vermoeden op een obstructief slaap-apneu syndroom. Waarschijnlijk ligt de incidentie van snurken en een overlap UARS-OSAS in deze groep kinderen hoger aangezien de epidemiologische vragenlijsten selecteren op basis van (habitueel) dagelijks snurken. Daarnaast excludeerden de meeste epidemiologische studies hypoventilatie syndromen en ook upper airway resistance syndromes (UARS) van hun analyses. Kinderen met een mogelijk OSAS waar de familie geen dagelijks snurken rapporteert werden zodoende uit studies geëxcludeerd. Een bijkomende factor is ook dat de meeste ouders onderrapporteren als het de frequentie van het aantal apneus bij hun kinderen betreft.

Naast de kinderen zonder comorbiditeit met een OSAS (verdenking) zijn de andere grootste groepen de kinderen met syndroom van Down en kinderen met morbide obesitas.

Aanbevelingen

In de groep kinderen met OSAS zonder comorbiditeit; die het meeste worden gezien in de Keel-Neus-Oorheelkundige praktijk met chronische adenotonsillitis klachten is er waarschijnlijk onderrapportage van klachten. De kinderen met syndroom van Down en obesitas daarentegen kenmerken zich door een hoge prevalentie van OSAS.

In de toekomst zal de behandelend specialist die met kinderen met OSAS te maken heeft op de hoogte moeten blijven van de diagnostische ontwikkelingen zodat onderrapportage zoveel mogelijk vermeden kan worden. Daarbij is hantering van een uniforme definitie van OSAS en de afkapwaardes van de AHI van groot belang om data met elkaar te kunnen vergelijken.

De prevalentie van middels PSG (polysomnografie) bevestigde pediatrie OSAS varieert bij gezonde kinderen zonder comorbiditeit, tussen de 1 en 4%.

De prevalentie van habitueel snurken ligt in de leeftijd van 4-6 jaar rond de 12%.

De prevalentie van OSAS bij kinderen met obesitas bedraagt ongeveer 13%.

Er zijn aanwijzingen dat de prevalentie van OSAS bij kinderen met het syndroom van Down (vnl. bij jongens en kinderen < 8 jaar) meer dan 50% is.

In de groep kinderen met een ernstige comorbiditeit zoals achondroplasie, neuromusculaire aandoeningen en mucopolysacharidosen varieert de prevalentie van een OSAS tussen 42 en ruim 90%.

Literatuurlijst

- Ali NJ, Pitson DJ, Stradling JR. Snoring, sleep disturbances, and behavioural in 4-5 year old. Arch Dis Child. 1993;68:360-6
- Ali NJ, Pitson DJ, Stradling JR. Natural history of snoring and related behavioural problems between te ages of 4 and 7 years. Arch Dis Chil. 1994;71:74-6
- Anuntaseree W, Kuasirikul S, Suntornlohanakul S. Natural history of snoring and obstructive sleep apnea in Thai school-age children. Pediatric Pulmonology 2005, 39(5): 415-420.
- Banabilh SM, Asha'ari ZA, Hamid SS. Prevalence of snoring and craniofacial features in Malaysian children from hospital-based medical clinic population. Sleep & Breathing 2008, 12(3): 269-274.
- Bixler EO, Vgontzas AN, Lin HM, Liao D, Calhoun S, Vela-Bueno A et al. Sleep disordered breathing in children in a general population sample: prevalence and risk factors. Sleep 2009, 32(6): 731-736.
- Chay OM, Goh A, Abisheganaden J, Tang J, Lim WH, Chan YH et al. Obstructive sleep apnea syndrome in obese Singapore children. Pediatric Pulmonol 2000 ; 29 :284-290.
- de Miguel-Diez J, Villa-Asensi JR, Alvarez-Sala JL. Prevalence of sleep-disordered breathing in children with Down syndrome: polygraphic findings in 108 children. Sleep 2003, 26(8): 1006-1009.
- Ekici M, Ekici A, Keles H, Akin A, Karlidag A, Tunckol M et al. Risk factors and correlates of snoring and observed apnea. Sleep Medicine 2008, 9(3): 290-296.
- Johnson EO, Roth T. An epidemiological study of sleep-disordered breathing symptoms among adolescents. Sleep.2006;29:135-42
- Kuehni CE, Strippoli MP, Chauliac ES, Silverman M. Snoring in preschool children: prevalence, severity and risk factors. European Respiratory Journal 2008, 31(2): 326-333.
- Lofstrand-Tidestrom B, Hultcrantz E. The development of snoring and sleep related breathing distress from 4 to 6 years in a cohort of Swedish children. International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology 2007, 71(7): 1025-1033.

- Lumeng JC, Chervin RD. Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. Proceedings of the American Thoracic Society 2008, 5(2): 242-252.
- Sahin U, Ozturk O, Ozturk M, Songur N, Bircan A, Akkaya A. Habitual snoring in primary school children: Prevalence and association with sleep-related disorders and school performance. Medical Principles and Practice 2009, 18(6): 458-465.
- Schlaud M, Urschitz MS, Urschitz-Duprat PM, Poets CF, The German Study on sleep disordered breathing in primary school children: epidemiological approach, representiveness of study sample, and preliminary screening results. Pediatric and Perinatal Epidemiology. 2004;18:431-40
- Shott SR, Amin R, Chini B, Heubi C, Hotze S, Akers R. Obstructive sleep apnea: Should all children with Down syndrome be tested?. Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery 2006, 132(4): 432-436.
- Sogut A, Altin R, Uzun L, Ugur MB, Tomac N, Acun C et al. Prevalence of obstructive sleep apnea syndrome and associated symptoms in 3--11-year-old Turkish children. Pediatric Pulmonology 2005, 39(3): 251-256.
- Spilsbury JC, Storfer-Isser A, Kirchner HL, Nelson L, Rosen CL, Drotar D et al. Neighbourhood disadvantage as a risk factor for pediatric obstructive sleep apnaea. J. Pediatr. 2006;149:432-7.
- Stone RS, Spiegel JH. Prevalence of obstructive sleep disturbance in children with failure to thrive. Journal of otolaryngology - head & neck surgery = Le Journal d'oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale 2009, 38(5): 573-579.
- Weijerman ME, van Furth AM, Vonk Noordegraaf A, et al. Prevalence, neonatal characteristics, and first-year mortality of Down syndrome: a national study. J Pediatr 2008;152(1):15-9.

HOOFDSTUK 3: SIGNALERING EN DIAGNOSTIEK VAN OSAS BIJ KINDEREN

3.1. Wanneer is screening van een kind op OSAS zinvol?

Inleiding

Dit hoofdstuk behandelt de vraag wanneer screening op OSAS door middel van vragenlijsten of onderzoek bij kinderen geïndiceerd is. Met andere woorden wanneer is het zinvol om kinderen zonder klachten te onderzoeken om OSAS op het spoor te komen in de veronderstelling dat vroegtijdige behandeling lange termijn complicaties kan voorkomen. Zowel voor de groep gezonde kinderen als de groep kinderen met een verhoogd risico is er geen literatuur gevonden die deze vraag eenduidig beantwoordt. Dit lijkt te worden veroorzaakt door de beperkte toepassing van de gouden standaard test PSG in combinatie met het ontbreken van andere (klinische) testen met een hoge sensitiviteit en specificiteit (Bianchi 2009) zoals beschreven in hoofdstuk 3. Daarnaast is er geen hard bewijs dat vroeg opsporen van OSAS bij kinderen leidt tot gezondheidswinst op lange termijn.

Samenvatting van de literatuur

Wanneer is screening op OSAS bij (gezonde) kinderen zonder comorbiditeit zinvol?

Er is geen literatuur die aantoont dat screening, in welke vorm dan ook, op OSAS bij gezonde kinderen zinvol is.

Wanneer is screening op OSAS bij kinderen met obesitas zinvol?

In tegenstelling tot het bepalen van overgewicht bij volwassenen is er bij kinderen geen vaste waarde van de BMI, waarboven er wordt gesproken van overgewicht of obesitas. Voor het stellen van de diagnose obesitas wordt geadviseerd bij een gewicht naar lengte > 1 standaarddeviatie volgens de groeidiagrammen de BMI te bepalen. Indien de waarde van de BMI meer is dan de afkapwaarde voor obesitas is er sprake van obesitas. Zie voor de definitie van obesitas bijlage 5 in deze richtlijn. De prevalentie van OSAS (AHI > 5) bij kinderen met een morbide obesitas ($> 180\%$ van het ideale lichaamsgewicht) bedraagt 13% (hoofdstuk 2.2, Chay 2000). In een cohortstudie van 399 kinderen (2-18 jaar) is obesitas (BMI > 28), de meest significante risicofactor voor OSAS (AHI > 10) met een odds ratio van 4,69 (95%CI 1,59-14,15) (Redline 1999) Uit een recente review waarin Kohler et al de studies die de relatie tussen kinderen met obesitas en slaapgerelateerde ademhalingsstoornissen bestuderen blijkt dat er veel verschillende definities worden gehanteerd voor obesitas. De percentages middels PSG vastgestelde OSAS (OAHI ≥ 5) variëren van 13 tot 91%. Evenals bij volwassenen zijn er ook bij kinderen met obesitas en OSAS aanwijzingen voor cardiovasculaire veranderingen en het metabool syndroom/insuline resistentie (Jacobs 1997, Arens 2010). De behandeling van OSAS bij kinderen vermindert de insulineresistentie (Gozal 2008). Bij volwassenen is aangetoond dat cardiovasculaire en metabole effecten van OSAS omkeerbaar zijn bij behandeling van de OSAS (Arens 2010).

Wanneer is screening op OSAS bij kinderen met milde comorbiditeit zinvol?

Een cohortstudie bij 907 Amerikaanse kinderen (8-11 jaar) toonde geen significant verschil in het voorkomen van middels PSG bevestigde OSAS (AHI > 5/hr of OAI > 1/hr) bij kinderen met of zonder astma (Sulit 2005). Uit hetzelfde cohort toonde een deelstudie bij 364 kinderen (2-18 jaar) wel significant verschil (15% vs 7%) in het voorkomen van middels PSG bevestigde OSAS (AHI > 10/hr) bij kinderen met astma vs. kinderen zonder astma (Redline 1999).

Wanneer is screening op OSAS bij kinderen met een ernstige comorbiditeit zinvol?

Er zijn geen studies gevonden die het effect van een interventie gericht op het reduceren van OSAS bij kinderen met het syndroom van Down onderzoeken in relatie tot lange termijn effecten.

De prevalentie van OSAS bij kinderen met het syndroom van Down onder de leeftijd van 8 jaar is 58% (hfdstuk 2.2). Het merendeel van de ouders van kinderen met OSAS rapporteert geen slaapproblemen (Shott 2006). Kinderen met het syndroom van Down hebben een verhoogd risico op pulmonale hypertensie met name als er een hartafwijking bestaat (Jacobs 1996, Clapp 1990). Er zijn aanwijzingen dat het opheffen van OSAS leidt tot vermindering van de pulmonale bloeddruk (Jacobs 1996, 1997).

Conclusies

Niveau 4	Het is niet aangetoond dat screening op OSAS bij gezonde kinderen zonder klachten gezondheidswinst oplevert. <i>Mening van de werkgroep</i>
Niveau 4	Het is niet aangetoond dat screening op OSAS bij kinderen met obesitas zonder klachten gezondheidswinst oplevert. <i>Mening van de werkgroep</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat behandeling van OSAS bij kinderen de insuline resistentie vermindert. <i>C Gozal 2008</i>
Niveau 4	Het is niet aangetoond dat screening op OSAS bij kinderen met milde comorbiditeit zonder klachten gezondheidswinst oplevert. <i>Mening van de werkgroep</i>

Niveau 3

Er zijn aanwijzingen dat screening op OSAS bij kinderen met een ernstige comorbiditeit (met een verhoogde prevalentie van OSAS) zonder klachten gezondheidswinst oplevert.

C Jacobs 1997

Overwegingen*Screening op OSAS bij (gezonde) kinderen zonder comorbiditeit*

Omdat vrijwel alle kinderen met OSAS snurken is te overwegen om te screenen op OSAS door het actief vragen naar snurken tijdens reguliere jeugdgezondheidszorg bezoeken (Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. American Academy of Pediatrics 2002). Bij kinderen die snurken dient verdere evaluatie op OSAS plaats te vinden door aanvullende anamnese en lichamelijk onderzoek. Indien hierbij geen bijkomende afwijkingen worden gevonden en snurken dus het enige symptoom is bestaat er onvoldoende bewijs dat verdere screening door middel van een PSG geïndiceerd is (Working Party on Sleep Physiology and Respiratory Control Disorders in Childhood 2009).

Screening op OSAS bij kinderen met obesitas

Er is geen literatuur die aantoonst dat screening, in welke vorm dan ook, op OSAS bij kinderen met obesitas zinvol is.

Op basis van de verhoogde prevalentie en de aanwijzingen voor cardiovasculaire en metabole effecten van OSAS, die reversibel lijken bij behandeling concludeert de werkgroep desondanks dat screening op OSAS bij kinderen met obesitas middels aanvullende anamnese en lichamelijk onderzoek dient plaats te vinden in het kader van reguliere jeugdgezondheidszorg bezoeken. In twijfelgevallen kan een PSG in een gespecialiseerd centrum gedaan worden. Bij kinderen met morbide obesitas dient screening middels PSG laagdrempelig te worden overwogen.

Screening op OSAS bij kinderen met milde comorbiditeit zoals astma

Uit de literatuur wordt onvoldoende duidelijk dat er een mogelijk verband bestaat tussen astma en OSAS. Op basis van deze beperkte gegevens uit de literatuur is er onvoldoende onderbouwing om kinderen astma uitgebreider dan gezonde kinderen te screenen.

Screening op OSAS bij kinderen met ernstige comorbiditeit en screening bij het syndroom van Down

Voor de groep kinderen met een verhoogd risico op OSAS op basis van een toegenomen prevalentie kan de vraag of screening zinvol is worden verfijnd. Op basis van een (sterk) verhoogde prevalentie van OSAS, de heterogeniteit van de onderliggende diagnoses en de moeilijkheid om OSAS bij kinderen met ernstige comorbiditeit vast te stellen is de werkgroep van mening dat deze groep kinderen moeten worden verwezen naar (gespecialiseerde) tweede of derde lijns zorg om screening te verrichten, ook als deze kinderen met ernstige comorbiditeit asymptomatisch zijn.

Op basis van de sterk verhoogde prevalentie van OSAS, de moeilijke herkenning van symptomen en omdat er aanwijzingen zijn voor een mogelijk gunstig effect van therapeutische interventie is de werkgroep van mening dat kinderen met het syndroom van Down om de 1 tot 2 jaar gescreend moeten worden op de symptomen van OSAS door gerichte anamnese en lichamelijk onderzoek conform het stroomdiagram. Bij persisterende symptomen na adenotonsillectomie of onduidelijke symptomen (zoals vermoeidheid) zonder duidelijke oorzaak dient laagdrempelig een polysomnografie verricht te worden.

Aanbevelingen

De werkgroep is van mening dat screening op OSAS in het kader van reguliere jeudgezondheidszorg bij (gezonde) kinderen zonder comorbiditeit is aan te bevelen door actief te vragen naar de aanwezigheid van de 4 belangrijkste symptomen van OSAS: frequent snurken, stokkende ademhaling in slaap, onrustige slaap en gedrags- of concentratieproblemen of slaperigheid overdag.

De werkgroep is van mening dat bij kinderen met obesitas (zie bijlage 5, tabel 'Criteria signalering overgewicht en obesitas bij jongens en meisjes') screening op OSAS in het kader van reguliere jeudgezondheidszorg is aan te bevelen door volledige anamnese en lichamelijk onderzoek gericht op klachten en symptomen van OSAS.

De werkgroep is van mening dat kinderen met morbide obesitas (BMI > 35 met geassocieerde morbiditeit of indien de BMI > 40) verwezen moeten worden naar de tweede lijn (kinderarts) voor screening op OSAS waarbij laagdrempelig een PSG moet worden overwogen.

Op basis van de sterk verhoogde prevalentie van OSAS, de moeilijke herkenning van symptomen en omdat er aanwijzingen zijn voor een mogelijk gunstig effect van therapeutische interventie is de werkgroep van mening dat kinderen met het syndroom van Down om de 1 tot 2 jaar gescreend moeten worden op de symptomen van OSAS door gerichte anamnese en lichamelijk onderzoek conform het stroomdiagram. Bij persisterende symptomen na adenotonsillectomie of onduidelijke symptomen (zoals vermoeidheid) zonder duidelijke oorzaak dient laagdrempelig een polysomnografie verricht te worden.

De werkgroep is van mening dat kinderen met ernstige comorbiditeit die een (sterk) verhoogd risico hebben op OSAS verwezen moeten worden naar (een gespecialiseerd centrum) voor screening middels PSG.

Literatuur

- Arens R, Muzumdar H. Childhood obesity and obstructive sleep apnea syndrome. *J Appl Physiol.* 2010 Feb;108(2):436-44.
- Bianchi MT. Screening for Obstructive Sleep Apnea: Bayes Weighs. *The open sleep journal* 2009; 56-9.
- Chay OM, Goh A, Abisheganaden J, Tang J, Lim WH, Chan YH, Wee MK, Johan A, John AB, Cheng HK, Lin M, Chee T, Rajan U, Wang S, Machin D. Obstructive sleep apnea syndrome in obese Singapore children. *Pediatr Pulmonol.* 2000 Apr;29(4):284-90.

- Clapp S, Perry BL, Farooki ZQ, Jackson WL, Karpawich PP, Hakimi M, et al. Down's syndrome, complete atrioventricular canal, and pulmonary vascular obstructive disease. *Journal of Thoracic & Cardiovascular Surgery* 1990;100:115-21.
- Gozal D, Capdevila OS, Kheirandish-Gozal L. Metabolic alterations and systemic inflammation in obstructive sleep apnea among nonobese and obese prepubertal children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2008 May 15;177(10):1142-9.
- Jacobs IN, Gray RF, Todd NW. Upper airway obstruction in children with Down syndrome. *Archives of Otolaryngology – Head & Neck Surgery* 1996;122:945-50.
- Jacobs IN, Teague WG, Bland JW, Jr. Pulmonary vascular complications of chronic airway obstruction in children. *Archives of Otolaryngology – Head & Neck Surgery* 1997;123:700-4.
- Redline S, Tishler PV, Schluchter M, Aylor J, Clark K, Graham G. Risk factors for sleep-disordered breathing in children. Associations with obesity, race, and respiratory problems. *Am J Respir Crit Care Med*. 1999 May;159(5 Pt 1):1527-32.
- Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. American Academy of Pediatrics. Clinical practice guideline: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics*. 2002 Apr;109(4):704-12.
- Shott SR, Amin R, Chini B, Heubi C, Hotze S, Akers R. Obstructive sleep apnea: Should all children with Down syndrome be tested? *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2006 Apr;132(4):432-6.
- Suli LG, Storfer-Isser A, Rosen CL, Kirchner HL, Redline S. Associations of obesity, sleep-disordered breathing and wheezing in children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2005 Mar 15;171(6):659-64
- Thieren M, Stijns-Cailteux M, Tremouroux-Wattiez M, Jaumin P, Kestens-Servaye Y, Moulin D, et al. [Congenital heart diseases and obstructive pulmonary vascular diseases in Down's syndrome. Apropos of 142 children with trisomy 21]. *Archives des Maladies du Coeur et des Vaisseaux* 1988;81:655-61.
- Working Party on Sleep Physiology and Respiratory Control Disorders in Childhood of the Royal College of Paediatrics and Child Health. Standards for services for children with disorders of sleep physiology. Report September 2009. http://www.rcpch.ac.uk/sites/default/files/asset_library/Research/Clinical%20Effectiveness/Endorsed%20guidelines/Sleep%20Physiology%20Disorders%20%28RCPCH%29/Report%20TextC.pdf

3.2. Wanneer is verwijzing naar de tweede lijn noodzakelijk en naar wie wordt verwezen?

Inleiding

OSAS bij kinderen is niet zeldzaam (zie hoofdstuk 2.2) en kan onbehandeld leiden tot medische en ontwikkelingsgerelateerde problemen (zie Hoofdstuk 1). Herkenning van de symptomen van OSAS door behandelaars in de eerste lijn is belangrijk, zodat adequate verwijzing voor verdere diagnostiek en behandeling in de tweede of derde lijn kan plaatsvinden.

De eerstelijns behandelaar dient op de hoogte te zijn van:

- De symptomen die kunnen wijzen op OSAS en die een indicatie vormen voor verwijzing.
- De groepen kinderen met verhoogde prevalentie van OSAS.

- Het specialisme waarnaar verwezen moet worden: tweedelijns KNO-arts, tweedelijns kinderarts of derdelijns behandelaar.

1) Symptomen die kunnen wijzen op OSAS en die een indicatie vormen voor verwijzing

Er bestaan geen goede gevalideerde vragenlijsten met voldoende specificiteit en sensitiviteit (zie hoofdstuk 3.3) om OSAS bij kinderen aan te tonen dan wel uit te sluiten. Echter de onderstaande symptomen vormen een leidraad om de diagnose “verdenking OSAS” te stellen. Bij kinderen met een verdenking OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de tweede of derde lijn voor verder onderzoek en behandeling.

Belangrijkste symptomen in anamnese:

- Frequent snurken of zwaar ademen
- Stokkende ademhaling of stoppen met ademen tijdens slaap
- Onrustig slapen
- Gedrag- of concentratieproblemen of slaperigheid overdag

Overige symptomen in anamnese:

- Abnormale slaaphouding (hoofd in extensie)
- Overmatig transpireren tijdens slaap
- Bedplassen (primaire of secundaire enuresis nocturna)
- Mondademhaling overdag en 's nachts (habituëel mondademen)
- Ochtend hoofdpijn

Symptomen bij lichamelijk onderzoek

- Vergrote tonsillen, open mondademhaling
- Failure to thrive

2) De groepen kinderen met verhoogde prevalentie van OSAS

Hiervoor wordt verwezen naar Hoofdstuk 2.2 tabel 2.2.1 (prevalentie van OSAS) De volgende categorieën werden hierbij onderscheiden:

- Kinderen zonder comorbiditeit ('gezonde kinderen')
- Kinderen met milde comorbiditeit
- Kinderen met obesitas
- Kinderen met ernstige comorbiditeit

3) Het specialisme waarnaar verwezen moet worden (tweedelijns KNO-arts, tweedelijns kinderarts of derdelijns behandelaar)

Voor een optimaal verwijspatroon is het belangrijk onderscheid te maken tussen de verschillende categorieën kinderen zoals in Hoofdstuk 2.2. tabel 2.2.1 en hierboven genoemd.

Kinderen zonder comorbiditeit en verdenking op OSAS

Bij deze kinderen berust OSAS meestal op adenotonsillaire hypertrofie. In dit geval zal een adenotonsillectomie (ATE) de klachten van OSAS in 60-80% verbeteren (zie hoofdstuk 4.1 Chirurgische therapie van OSAS bij kinderen). De primaire verwijzing dient plaats te vinden naar de KNO-arts verbonden aan een ziekenhuis met operatieve mogelijkheden bij kinderen

(zie CBO richtlijn ZATT 2007). Bij deze kinderen is verder onderzoek (zoals polysomnografie) niet geïndiceerd tenzij de klachten na ATE persisteren of om de ernst van OSAS vast te stellen wanneer het lichamelijk onderzoek niet in overeenstemming is met de klachten.

Kinderen met obesitas en verdenking op OSAS

Bij kinderen met obesitas is adenotonsillaire hypertrofie slechts een van de oorzaken van OSAS. Alhoewel ATE een verbetering van OSAS kan geven, is er in een hoger percentage sprake van persisterende OSAS na ATE. Ook zijn er aanwijzingen dat de BMI toeneemt aansluitend aan de ATE (zie hoofdstuk 4). Additionele behandelingsstrategieën gericht op de behandeling van obesitas zijn van groter belang dan ATE alleen. Primaire verwijzing zal daarom moeten plaatsvinden naar de tweedelijns kinderarts die in eerste instantie zal trachten door middel van gewichtsreductie een verbetering van de OSAS te verkrijgen. Bij onvoldoende effect van gewichtsreductie kan ATE als additionele behandeling worden overwogen en kan de patiënt worden doorverwezen naar de KNO-arts. Bij kinderen met obesitas en verdenking OSAS wordt op basis van de prevalentie het verrichten van een PSG geadviseerd.

Kinderen met milde comorbiditeit en verdenking op OSAS

Bij deze kinderen is adenotonsillaire hypertrofie (evenals bij kinderen zonder comorbiditeit) de meest voorkomende oorzaak van OSAS. Primaire verwijzing naar een KNO-arts verbonden aan een ziekenhuis met operatieve mogelijkheden bij kinderen (zie CBO richtlijn ZATT 2007) is hier eveneens geïndiceerd. Echter op grond van de comorbiditeit is er meestal sprake van een verhoogd perioperatief risico (zie hoofdstuk 6). Preoperatief dient dit risico ingeschat te worden door de anesthesist en is interne consultatie van de kinderarts vaak noodzakelijk. Bij deze kinderen is verder onderzoek (zoals polysomnografie) alleen geïndiceerd wanneer de klachten na ATE persisteren of om de ernst van OSAS vast te stellen wanneer een adenotonsillectomie relatief gecontraïndiceerd is.

Kinderen met ernstige comorbiditeit en verdenking op OSAS

Bij kinderen met ernstige comorbiditeit is er meestal sprake van multipele en complexe afwijkingen op verschillende niveaus in het KNO gebied (multilevel problematiek). Hoewel een ATE ook bij deze groep kinderen een verbetering van OSAS klachten kan geven, vraagt dit een zorgvuldige afweging van voor- en nadelen en risico's. Aangezien deze kinderen meestal bekend zijn in de tweede- en/of derde lijn, wordt geadviseerd deze kinderen bij vermoeden op OSAS primair te verwijzen naar de hoofdbehandelaar c.q. de specialist die de coördinerende functie vervuld van de specifieke multidisciplinaire behandelteams. Dit zal vaak de kinderarts zijn. Vervolgens kan secundaire verwijzing naar de KNO-arts plaatsvinden. Bij deze kinderen is een polysomnografie altijd geïndiceerd.

Conclusies

Niveau 4	Bij kinderen met klachten van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de tweede of derde lijn voor verder onderzoek en behandeling. <i>D Mening van de werkgroep</i>
-----------------	--

Niveau 4	<p>Bij kinderen zonder comorbiditeit met klachten van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de KNO-arts, aangezien ATE meestal de behandeling van keuze is.</p> <p><i>D Mening van de werkgroep</i></p>
Niveau 4	<p>Bij kinderen met obesitas en klachten van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de kinderarts, aangezien gewichtsreductie meestal de behandeling van keuze is.</p> <p><i>D Mening van de werkgroep</i></p>
Niveau 4	<p>Bij kinderen met milde comorbiditeit en klachten van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de KNO-arts, aangezien ATE meestal de behandeling van keuze is.</p> <p><i>D Mening van de werkgroep</i></p>
Niveau 4	<p>Bij kinderen met ernstige comorbiditeit en klachten van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de hoofdbehandelaar of het behandelteam in de tweede of derde lijn.</p> <p><i>D Mening van de werkgroep</i></p>

Overige overwegingen

In die gevallen waarin de OSAS primair wordt veroorzaakt door adenotonsillaire hypertrofie bij verder gezonde kinderen, kan de primaire behandeling (meestal een adenotonsillectomie) door de KNO-arts worden gedaan. In alle overige gevallen zal een optimale behandeling bestaan uit een samenwerking tussen verschillende specialismen (kinderarts, KNO-arts met belangstelling voor OSAS en expertise bij kinderen en anesthesioloog eventueel aangevuld met andere specialismen zoals plastische chirurgie, kinderneurologie en kaakchirurgie) al dan niet georganiseerd in specifieke multidisciplinaire behandelteams.

Aanbevelingen

Bij kinderen die op grond van anamnese of lichamelijk onderzoek worden verdacht van OSAS wordt geadviseerd te verwijzen naar de tweede of derde lijn voor verder onderzoek en eventueel behandeling.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van geen of slechts milde comorbiditeit wordt geadviseerd te verwijzen naar de KNO-arts, aangezien adenotonsillectomie meestal de behandeling van keuze is.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van obesitas wordt geadviseerd te verwijzen naar de kinderarts aangezien gewichtsreductie meestal de initiële behandeling is.

Indien er bij kinderen met verdenking op OSAS sprake is van ernstige comorbiditeit wordt geadviseerd te verwijzen naar de hoofdbehandelaar of het behandelteam in de tweede of derde lijn.

Literatuur

- Richtlijn Diagnostiek en behandeling van het obstructieve slaap apneu syndroom bij volwassenen. CBO 2009.
- Richtlijn Ziekten van Adenoïd en Tonsillen in de Tweede lijn. CBO 2007.
- Robb PI, Bew S, Kubba H, Murphy N, Primhak R, Rollin AM, Tremlett M. Tonsillectomy and adenoidectomy in children with sleep-related breathing disorders: consensus statement of a UK multidisciplinary working party. *Ann R Coll Surg Engl* 2009; 91: 371–373.
- Standards for Services for Children with Disorders of Sleep Physiology: Report of the Working Party on Sleep Physiology and Respiratory Control Disorders. *Childhood*, September 2009.

3.3. De waarde van diagnostische instrumenten, zoals anamnese, lichamelijk onderzoek en vragenlijsten bij de diagnostiek van OSAS bij kinderen

Inleiding

Kinderen met OSAS kunnen zich met verschillende symptomen presenteren. Vrijwel alle kinderen met OSAS snurken (Brouillette 1984, Muzumdar 2008, American Academy of Pediatrics 2002). Andere nachtelijke symptomen zijn cyanose, onrustige ademhaling en apneus, mondademhaling, enuresis, overmatig zweten en een onnatuurlijke slaaphouding. Ouders maken zich vaak ongerust over het slaapgedrag van hun kind. Symptomen overdag zijn vermoeidheid, 'intrusive naps', mondademhaling en leer- en gedragsproblemen (Rosen 1999, Carroll 1995, Nixon 2002, Sterni 2003). Kinderen met OSAS presenteren zich met andere klachten dan volwassenen (Muzumdar 2008, Nixon 2005, Sterni 2003); in tegenstelling tot volwassenen komt OSAS bij zowel jongens als meisjes voor en staat overmatige slaperigheid overdag veel minder op de voorgrond. Adenotonsillaire hypertrofie is de meest voorkomende oorzaak van OSAS bij kinderen. Voor de wetenschappelijk onderbouwing van de uitgangsvraag in welke mate anamnese, beschikbare klinische vragenlijsten en lichamelijk onderzoek daadwerkelijk betrouwbaar zijn in het stellen van de diagnose OSAS bij kinderen is een literatuursearch verricht.

Samenvatting van de literatuur

Met behulp van verschillende zoektermen werden 555 artikelen gescreend. Hiervan zijn 32 artikelen uitgebreider bekeken en zijn uiteindelijk 20 artikelen voor deze vraagstelling gebruikt.

De gevonden wetenschappelijk studies zijn met name cohortstudies en niet-systematische reviews. Er zijn twee systematische reviews (Schechter 2002, Brietzke 2004) en één gerandomiseerde prospectieve trial gevonden (Goldstein 2004). Daarnaast is een niet gerandomiseerde prospectieve studie van Rudnick (2007) naar gedrag van kinderen met OSAS in combinatie met obesitas geïnccludeerd. In alle bruikbare studies voor deze vraagstelling werd de diagnose OSAS door polysomnografie vastgesteld met als uitzondering een studie van Constantin (2010). In deze studie werd de diagnose OSAS met behulp van pulsoxymetrie vastgesteld.

Kinderen met afwijkende anatomie, met het syndroom van Down of neurologische aandoeningen zijn veelal uitgesloten in deze studies. Onderstaande resultaten hebben met name betrekking op kinderen met OSAS zonder comorbiditeit.

3.3.1. Anamnese en lichamelijk onderzoek

Het meest recente systematische review naar klachten en hun relatie met OSAS bij kinderen is van Brietzke et al. (2004). Inclusiecriteria voor deze systematische review waren artikelen met als primaire uitkomst de evaluatie van anamnese en lichamelijk onderzoek (LO) in vergelijking met nachtelijke multikanaals polysomnografie (PSG). Onderzoeken waarbij puls-oxy-metrie of radiodiagnostiek werden gebruikt, werden uitgesloten. Zoekcriteria werden gelimiteerd tot kinderen van 0 tot 18 jaar en Engelstalige artikelen. De gevonden artikelen die voldeden aan de criteria bestonden uit 6 prospectieve cohortstudies, 4 retrospectieve case series, 1 retrospectieve cross-sectionele studie en 1 case control studie. De auteurs corrigeerden voor heterogeniteit in methodologie van de onderzochte studies en vonden een consistente eindconclusie. Uit elf van de in totaal 12 artikelen concludeerden zij dat anamnese en/of lichamelijk onderzoek onbetrouwbaar zijn voor het stellen van de diagnose OSAS in vergelijking met polysomnografie. In deze review berekenden Brietzke et al. uit 10 van de 12 artikelen dat de gemiddelde sensitiviteit en specificiteit van de vier meest voorkomende symptomen bij kinderen met OSAS te weten nachtelijk snurken, vastgestelde apneus, mondademhaling en overmatige slaperigheid overdag, niet boven de 65% kwam (Brietzke 2004). Van de overige 2 artikelen waren onvoldoende data beschikbaar om de PVV (Positive Predictive Value) te kunnen berekenen. De positief voorspellende waarde van anamnese en LO (met name tonsilgrootte) varieerde van 30,5 % tot 95,7% (gemiddeld 55,8%).

In de systematic review van Schechter (2002) werden 2115 artikelen gevonden waarvan er 113 geschikt bleken te zijn voor verdere analyse. De literatuursearch voor deze studie betrof de periode 1966-1999 met een update tot 2000. Alleen Engelstalige artikelen werden geïnccludeerd. De gevonden artikelen betroffen case-series en cohort studies. De kinderleeftijd lag tussen de 2 en 18 jaar. De auteurs concluderen dat het niet mogelijk is om habitueel snurken te onderscheiden van OSAS op basis van anamnese en/of lichamelijk onderzoek.

Lichamelijk onderzoek

Het belangrijkste pathofysiologisch mechanisme bij kinderen met OSAS is obstructie van de bovenste luchtwegen door hypertrofie van het adenoïd en de tonsillen. Alhoewel de tonsillen en in mindere mate het adenoid goed toegankelijk zijn voor inspectie tijdens het lichamelijk onderzoek is er geen betrouwbare correlatie tussen de grootte van de tonsillen en de aanwezigheid van OSAS. De sensitiviteit en specificiteit van de tonsilgrootte groter dan graad 3 of 4 volgens de classificatie van Friedman (Friedman 2002) varieert in de systematic review van Brietzke (2004) van 12-93% tot respectievelijk 35-89% voor de specificiteit.

Naast adenotonsillaire hypertrofie wordt obesitas beschouwd als een significante factor voor bovenste luchtwegobstructie in kinderen. Dat blijkt uit de volgende studies:

In een retrospectieve studie van Kohler (2008) onder 190 Australische kinderen bleek obesitas een licht significante factor te zijn voor OSAS ($p < 0,05$).

Gozal et al. (2009) vergeleek in een cohortstudie 50 kinderen zonder obesitas met 50 kinderen met obesitas die allen verdacht werden voor OSAS vanwege habitueel snurken en adenotonsillaire hypertrofie. Bij alle kinderen werd nachtelijke PSG verricht gevolgd door een Multiple Sleep Latency Test de dag erop. Hij vond dat kinderen met obesitas en OSAS een verhoogd risico hebben op overmatige slaperigheid overdag in vergelijking met kinderen zonder obesitas met OSAS, ongeacht de ernst van de OSAS.

3.3.2. Vragenlijsten voor OSAS bij kinderen

Er zijn verschillende gestructureerde pediatrische vragenlijsten ontwikkeld om de clinicus te helpen in het stellen van de diagnose OSAS. Voorbeelden zijn: de Brouillette OSA score (Brouillette 1984), de Pediatric Sleep Questionnaire (Chervin 2000), de OSA-18 vragenlijst (Franco 2000) en in een recent Chinees onderzoek de Honk Kong Children Sleep Questionnaire (HK-CSQ) (Li, 2006).

In de systematic review van Schechter et al. (2002) werd de betrouwbaarheid van enkele vragenlijsten onderzocht. Van de twaalf studies die elk verschillende niet nader benoemde vragenlijsten gebruikten waren er vier die de vragenlijst van Brouillette hanteerden. Deze in 1984 ontwikkelde vragenlijst had destijds een hoge voorspellende waarde voor het stellen van OSAS bij kinderen met adenotonsillaire hypertrofie (PPV 95,7%). Uit gepoolde data van de vier studies met de vragenlijst van Brouillette (Brouillette 1984, Caroll 1995, Rosen 1999, Brouillette 2000) vond Schechter (2002) een PPV van 65,3% en een NPV van 45,7%. Het gebruik van deze vragenlijst zou derhalve leiden tot een grote hoeveelheid vals-positieve en vals-negatieve resultaten met de diagnose OSAS. De overige 8 studies met niet bij name genoemde vragenlijsten die door Schechter werden geëvalueerd bleken niet betrouwbaar te kunnen worden geïnterpreteerd vanwege het feit dat de uitkomsten niet vergeleken werden met PSG of doordat geen betrouwbare voorspellende criteria werden ontwikkeld.

Chervin et al. (2007) beschreven de resultaten van een retrospectief longitudinaal onderzoek (n = 105, leeftijd 5 -12 jaar) met als doel de door hem ontwikkelde pediatrische vragenlijst (Pediatric Sleep Questionnaire:

<http://www.ibridgenetwork.org/umich/sleep-related-breathing-disorder-scale>) verder te valideren en om de succeskans van adenotonsillectomie te voorspellen. Deze vragenlijst werd vergeleken met de uitkomsten van polysomnografie voor en 1 jaar na klinisch geïndiceerde adenotonsillectomie (n = 78) of andere chirurgie (n = 27). Van de klinisch geïndiceerde ATE was 91% verdacht voor OSAS. Een AHI gelijk of meer dan 1 werd als afwijkend beschouwd. Van de 78 patiënten die een adenotonsillectomie ondergingen voldeden er 40 aan de PSG-criteria voor OSAS. De vragenlijst bevat 22 symptoom items over snurkfrequentie, snurkvolume, geobserveerde apneus, bemoeilijkte ademhaling tijdens de slaap, vermoeidheid overdag, concentratieverlies of hyperactief gedrag of andere symptomen. Antwoorden waren ja = 1, nee = 0 en weet niet 'missing'. Het gemiddelde van de 'nonmissing' antwoorden was de score waarbij een afkapwaarde van 0,33 werd gehanteerd voor het stellen van de diagnose OSAS. Naast de vragenlijst werden ook gedrag- en cognitieve vragenlijsten afgenomen bij de ouders en een allertheidstest bij de kinderen.

Logistische regressie toonde aan dat een toename van het resultaat van de vragenlijst met 1 standaarddeviatie leidde tot een driemaal verhoogd risico op PSG-bewezen OSAS (odds ratio 2,80; 95% CI 1,68-4,68). De sensitiviteit en specificiteit waren respectievelijk 78% en 72%.

Sproson et al. (2009) hebben de sensitiviteit en specificiteit van de klinische diagnose OSAS bij kinderen bepaald in vergelijking met PSG. De klinische diagnose OSAS werd hier bepaald door middel van de Pediatric Sleep Questionnaire van Chervin et al. (2000) en bleek in deze studie niet betrouwbaar. In deze prospectieve cohortstudie van 2005 tot 2007 werden bij 76 kinderen PSG afgenomen. Een AHI van > 5 werd beschouwd als een significante OSAS. Bij 13 kinderen (43%) met klinische verdenking op OSAS werd een significante OSAS vastgesteld en in 6 kinderen (19%) werd dit tevens vastgesteld zonder dat er klinische verdenking op OSAS bestond. Sproson (2009) concludeert dat de Pediatric Sleep Questionnaire van Chervin et al. (2000) onvoldoende sensitief en specifiek is. De sensitiviteit van de klinische diagnose OSAS was 68,4% en de specificiteit was 59,5%.

Constantin et al. (2010) evalueerde in een cross-sectionele studie de OSA-18 Quality-of-Life Questionnaire die ontwikkeld is door Franco (2000). In de studie werden bij 334 kinderen met de verdenking op OSAS de sensitiviteit en negatief voorspellende waarden van de OSA-18 vragenlijst voor detectie van een abnormale puls-oximetriescore berekend. De resultaten van de nachtelijke pulsoximetrie metingen werden geïnterpreteerd met de McGill-oximetrie score (MOS) ontwikkeld door Nixon (Nixon 2004). Abnormale pulsoximetrie scores werden beschouwd als milde tot ernstige OSAS en hadden een positief voorspellende waarde van 97% (Brouillette 2000). Van de 334 deelnemende kinderen bleek de sensitiviteit van de OSA-18 vragenlijst 40% te zijn en de negatief voorspellende waarde voor een abnormale pulsoximetrie uitslag 73%. De auteurs concluderen dat de OSA-18 vragenlijst een abnormale pulsoximetrie niet voldoende kan voorspellen en derhalve ook geen uitsluitel geeft of er sprake is van matige of ernstige OSAS. De OSA-18 vragenlijst kan niet worden gebruikt als vervanger van objectieve metingen. Wel kan de vragenlijst inzicht geven in andere dimensies van de aandoening namelijk de kwaliteit van leven, bijvoorbeeld emotionele stoornissen en effect van de klachten van het kind op de ouders. De auteurs wijzen erop dat de OSA-18 vragenlijst vergeleken is met de pulsoximetrie als standaard referentie in plaats van de polysomnografie. Zij stellen dat op basis van eerder onderzoek dit alleen zou leiden tot een lagere negatief voorspellende waarde van de OSA-18 en dat de eindconclusie niet zou veranderen.

In een recent onderzoek verricht onder Chinese kinderen in Hong Kong werd een nieuwe vragenlijst ontwikkeld en gevalideerd (Li 2006), de Hong Kong Children Sleep Questionnaire (HK-CSQ). Deze 54-items bevattende vragenlijst werd afgenomen bij 229 kinderen in de leeftijd van 5-15 jaar waarvan 101 kinderen zich presenteerden met klinische verschijnselen van OSAS. De andere kinderen dienden als controlegroep en hadden geen klinische klachten passend bij OSAS. De lijst bevatte vragen omtrent slaapproblematiek gedurende het voorliggende jaar. Alle kinderen ondergingen nachtelijke polysomnografie. Uit multivariate logistische regressie bleek dat de symptomen nachtelijke mondademhaling, nachtzweeten en snurken het meest significant waren in het voorspellen van OSAS met een obstructieve apneu index (OAI) ≥ 1 . De PPV van deze drie symptomen bleek 61,3% en de NPV 89%.

Conclusies

Niveau 1	Het is aangetoond dat anamnese en lichamelijk onderzoek onbetrouwbaar zijn voor het stellen van de diagnose OSAS bij kinderen <i>A1 Brietzke 2004</i> <i>A2 Schechter 2002</i>
Niveau 1	Het is aannemelijk dat de mate van tonsilgrootte bij lichamelijk onderzoek slecht correleert voor het stellen van de diagnose OSAS bij kinderen. <i>A1 Brietzke 2004</i>
Niveau 2	Het is aannemelijk dat vragenlijsten onbetrouwbaar zijn voor het vaststellen van de diagnose OSAS bij kinderen. <i>A2 Schechter 2002</i> <i>B Constantin 2010, Sproson 2009, Chervin 2007, Li 2006</i>
Niveau 2	Het is aannemelijk dat snurken het meest voorkomende symptoom is bij kinderen met OSAS maar het is niet mogelijk hiermee onderscheid te maken tussen habitueel snurken en OSAS. <i>A2 Schechter 2002</i> <i>C Carroll 1995</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat obesitas een significante maar zwakke voorspeller is voor OSAS bij kinderen. <i>C Kohler 2008, Gozal 2009</i> <i>C Redline 1999</i>

Overige overwegingen

De werkgroep realiseert zich dat de clinicus practicus, blijkens de hierboven geschetste inzichten, onvoldoende kan vertrouwen op anamnese en lichamelijk onderzoek om de diagnose OSAS bij kinderen te kunnen stellen. Ditzelfde geldt voor het gebruik van eventueel aanvullende vragenlijsten. De nachtelijke multikanaals polysomnografie blijft tot nu toe de gouden standaard voor het vaststellen van de diagnose OSAS bij kinderen. De huidige praktijk leert dat de KNO-arts deze aanvullende PSG echter niet of nauwelijks aanvraagt. Dit roept de vraag op of er mogelijk overbehandeling ontstaat als een kind zonder co-morbiditeit met verdenking OSAS een ATE ondergaat.

Desalniettemin zijn er overwegingen om toch op basis van alleen anamnese en lichamelijk onderzoek de diagnose OSAS te overwegen.

Brietzke et al. (2004) stelt dat ondanks de lage sensitiviteit en specificiteit van anamnese en lichamelijk onderzoek de klinische beoordeling van de KNO-arts zeer belangrijk blijft als het gaat om de indicatiestelling tot chirurgisch ingrijpen, te weten de adenotonsillectomie.

Goldstein (2004) bevestigt dit in een prospectieve gerandomiseerde gecontroleerde studie, geblindeerd voor de onderzoekers. Uit deze studie bleek dat kinderen met de klinische verdenking OSAS maar met een negatieve uitkomst uit de PSG, minder klachten hadden na een adenotonsillectomie en een betere kwaliteit-van-leven-score dan kinderen met dezelfde uitkomst die geen adenotonsillectomie ondergingen. De auteurs geven als mogelijke reden hiervoor dat de kinderen in deze studie zouden lijden aan het upper airway resistance syndrome, een slaap gerelateerde obstructieve aandoening die vaak gemist wordt door standaard PSG.

Meerdere auteurs concluderen dat de noodzaak bestaat tot het ontwikkelen van een alternatieve adequate screeningstest met gevalideerde klinische uitkomstmaten die de PSG kan vervangen (Brietzke 2004, Constantin 2010) of een non-invasieve betrouwbare test die het gehele spectrum van de slaapgerelateerde ademhalingsstoornissen omvat.

De beschikbare vragenlijsten voor OSAS bij kinderen blijken onbetrouwbaar voor de individuele patiënt. De uit 22 vragen bestaande Pediatric Sleep Questionnaire door Chervin ontwikkeld in 2000 voldoet volgens dezelfde onderzoeksgroep alleen voor onderzoeksdoeleinden (Chervin 2007). Ga voor de voor de vragenlijst naar: <http://www.ibridgenetwork.org/umich/sleep-related-breathing-disorder-scale>

Aanbevelingen

De werkgroep benadrukt dat anamnese en lichamelijk onderzoek bij een kind zonder comorbiditeit onvoldoende betrouwbaar zijn voor het stellen van de diagnose OSAS.

De werkgroep realiseert zich dat polysomnografie niet overal beschikbaar is en is van mening dat de arts de diagnose OSAS dan zal moeten overwegen op basis van anamnese en lichamelijk onderzoek.

De werkgroep benadrukt dat de behandelend arts zich zal moeten realiseren dat de in de literatuur beschikbare vragenlijsten onvoldoende betrouwbaar zijn om de diagnose OSAS te stellen.

In geval van kinderen zonder comorbiditeit adviseert de werkgroep dan om de vier meest voorkomende symptomen die kunnen wijzen op OSAS uit te vragen namelijk: snurken, vastgestelde schokkende of stokkende ademhaling, onrustige slaap en overmatige slaperigheid overdag.

De werkgroep is van mening dat de vragenlijst van Chervin* kan worden gebruikt voor onderzoeksdoeleinden bij kinderen die worden verdacht van OSAS.

*<http://www.ibridgenetwork.org/umich/sleep-related-breathing-disorder-scale>

Literatuur

- American academy of pediatrics. Pediatrics 2002;109:704-712.
- Brietzke SE, Katz ES, Roberson DW, Brietzke Scott E, Katz Eliot S, Roberson David W. Can history and physical examination reliably diagnose pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome? A systematic review of the literature. Otolaryngology - Head & Neck Surgery 2004;131(6): 827-832.

- Brouillette R, Hanson D, David R, et al. A diagnostic approach to suspected obstructive sleep apnea in children. *J Pediatr* 1984, 0(105): 10-14.
- Brouillette RTM. Nocturnal pulse oximetry as an abbreviated testing modality for pediatric obstructive sleep apnea. *Pediatrics* 2000;105(2): 405-412.
- Carroll JLM. Inability of clinical history to distinguish primary snoring from obstructive sleep apnea syndrome in children. *Chest* 1995, 108(3): 610-618.
- Chervin RD, Hedger KM, Dillon JE, Pituch KJ. Pediatric Sleep Questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep-disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems. *Sleep Med*. 2000;1:21-32.
- Chervin RD, Weatherly RA, Garetz SL, Ruzicka DL, Giordani BJ, Hodges EK et al. Pediatric sleep questionnaire: prediction of sleep apnea and outcomes. *Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery* 2007, 133(3): 216-222.
- Constantin E, Tewfik TL, Brouillette RT. Can the OSA-18 quality-of-life questionnaire detect obstructive sleep apnea in children?. *Pediatrics* 2010, 125(1): e162-e168.
- Franco RA. Quality of life for children with obstructive sleep apnea. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2000, 0(123): 9-16.
- Friedman M, Ibrahim H, Bass L. Clinical staging for sleep-disordered breathing. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2002;127:13-21
- Goldstein NA, Pugazhendhi V, Rao SM, Weedon J, Campbell TF, Goldman AC et al. Clinical assessment of pediatric obstructive sleep apnea. *Pediatrics* 2004, 114(1): 33-43.
- Gozal D, et al. Obesity and Excessive Daytime Sleepiness in Prepubertal Children With Obstructive Sleep Apnea. *Pediatrics* 2009, 0(123): 13-18.
- Kohler M, et al. Obesity and Risk of Sleep Related Upper Airway Obstruction in Caucasian Children. *Journal of Clinical Sleep Medicine* 2008, 0(4): 129-136.
- Li AM, Cheung A, Chan D, Won E et al. Validation of a questionnaire instrument for prediction of obstructive sleep apnea in Hong Kong Chinese Children. *Pediatr Pulmonol*. 2006;41:1153-1160.
- Michael S Schechter. Technical Report: Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Pediatrics* 2002, 109(4): 1-20.
- Muzumdar H, Arens R, Muzumdar Hiren, Arens Raanan. Diagnostic issues in pediatric obstructive sleep apnea. *Proceedings of the American Thoracic Society* 2008, 5(2): 263-273.
- Nixon GMB. Sleep.8: Paediatric obstructive sleep apnoea. *Thorax* 2005, 60(6): 511-516.
- Nixon GM, Brouillette RT, Nixon Gillian M, Brouillette Robert T. Diagnostic techniques for obstructive sleep apnoea: is polysomnography necessary?. *Paediatric Respiratory Reviews* 2002, 3(1): 18-24.
- Rosen CL. Clinical features of obstructive sleep apnea hypoventilation syndrome in otherwise healthy children. *Pediatr Pulmonol* 1999;27:403-409.
- Sproson EL, Hogan AM, Hill CM. Accuracy of clinical assessment of paediatric obstructive sleep apnoea in two English centres. *The Journal of Laryngology & Otology* 2009, 0(123): 1002-1009.
- Sterni LM, Tunkel DE. Obstructive sleep apnea in children. An update. *Pediatr Clin N Am*. 2003;50:427-443.

3.4. Welke diagnostische instrumenten kunnen gebruikt worden om OSAS bij kinderen aan te tonen en welke waarde hebben deze instrumenten?

Inleiding

Het stellen van de diagnose obstructief slaap apneu syndroom (OSAS) bij kinderen is belangrijk om lange termijn complicaties als elders in deze richtlijn beschreven te

voorkomen. Tevens is het van belang om kinderen zonder OSAS een onnodige interventie te besparen. Voor de diagnose OSAS zijn meerdere, elkaar aanvullende, onderzoekstechnieken beschikbaar. Als gouden standaard bij volwassen OSAS wordt de bewaakte klinische polysomnografie (PSG) beschouwd. Het onderzoek is echter tijdrovend en kostbaar. Klinische PSG kan echter als enige onderzoekstechniek ademhalings- slaapstoornissen kwantificeren en daarmee een inschatting maken van de kans op postoperatieve complicaties. De literatuur werd onderzocht op de opbrengst van preoperatief aanvullend onderzoek voor de diagnose OSAS bij kinderen. Er is veel onderzoek gedaan naar de opbrengst van minder uitgebreide methoden. Dit zal in onderstaand literatuuroverzicht worden behandeld.

Er zijn meerdere typen poly(somno)grafische monitoring beschikbaar.

Type 1: volledig door een laborant of video geobserveerde, in een slaaplaboratorium uitgevoerde polysomnografie.

Type 2: klinische onbewaakte polysomnografie. Evenals bij de volwassen OSAS diagnostiek zijn er zeer weinig literatuurgegevens over de onbewaakte monitoring.

Type 3: portable registratieapparaat waarmee op meerdere kanalen ademhalingsbewegingen (borst- en buikwandbewegingen) en airflow met daarnaast hartfrequentie of ECG en de zuurstofsaturatie worden vastgelegd.

Type 4: portable registratieapparaat waarbij één of enkele parameters worden gebruikt waaronder meestal pulsoximetrie.

Voor de screening op het bestaan van OSAS wordt, naast een klassiek PSG, ook gebruik gemaakt van audio- en video-opnamen in de thuissituatie, een middagslaap PSG en thuis PSG. Naast de klinische en onbewaakte polysomnografie kan ook worden gescreend met polygrafie, zonder EEG registratie. Informatie over de aanwezigheid van slaap en over welk slaapstadium ontbreekt dan. Voor de diagnose OSAS bij kinderen zijn metingen van de luchtstroom, arousals en ademarheid belangrijk. Voor de meting van deze parameters zijn meerdere onderzoeksmodaliteiten beschikbaar welke hierna worden behandeld.

Samenvatting van de literatuur

De literatuur werd onderzocht op de trefwoorden Pediatric OSAS, OSAS in children, sleep disordered breathing (OSAS), polygraphy, polysomnography, en diagnosis. De geselecteerde artikelen zijn reviews, richtlijnen, gerandomiseerde trials en grote (>10) patientenseries.

3.4.1. Polysomnografie

Met klinische PSG is een optimale monitoring van de ademhaling, hartactie, beenbewegingen, slaap en tevens visuele diagnostiek d.m.v. videomonitoring mogelijk. Het is in principe een eenmalig diagnosticum, omdat bij storing de laborant direct kan ingrijpen, er wordt echte slaaptijd gemeten en daarmee kan een nauwkeurige indexberekening worden verricht (o.a. apneu hypopneu index (AHI)). Ook kunnen respiratory effort related arousals (RERA's) worden vastgesteld door middel van arousal detectie in combinatie met

oesofagusdrukmeting. Slaapstoornissen komen vaak gecombineerd voor. Andere slaapstoornissen, m.n. parasomnieën, periodieke beenbewegingen en centraal slaapapneu syndroom (CSAS) kunnen met bewaakte polysomnografie goed worden gediagnosticeerd. De data zijn ook interpreteerbaar bij comorbiditeit (COPD, restrictieve longfunctiestoornissen, hartfalen en obesitas hypoventilatie) omdat er een relatie gelegd kan worden met slaapstadia en extra sensoren kunnen worden toegepast. Polysomnografie blijkt om voornoemde redenen een kosteneffectief onderzoek te zijn en ook omdat er geen vervolgonderzoek meer nodig is en technisch of ander falen wordt voorkomen door mogelijkheden voor interventie tijdens de bewaking. In principe kan een bewaakte PSG worden verricht bij kinderen van alle leeftijden mits er aan bepaalde vastgestelde criteria wordt voldaan met betrekking tot apparatuur en kennis en kunde van het personeel. Klinisch bewaakte PSG bij zowel kinderen als volwassenen wordt in Nederland verricht in slechts enkele centra. De meeste klinieken voor slaap registreren de PSG onbewaakt en/ of verrichten een klinische polygrafie hoewel in enkele klinieken wel de mogelijk bestaat voor een klinisch PSG. De algemene consensus in de literatuur, en ook een breed gedragen aanbeveling van onder andere de Amerikaanse en Nederlandse richtlijnen OSAS, is dat iedere kliniek waar slaaponderzoek wordt verricht in principe over dit type 1 monitoring zou moeten beschikken.

Preoperatieve PSG kan ook nuttig zijn om OSAS juist uit te sluiten en kinderen zonder OSAS een adenotonsillectomie (AT) te besparen. Tevens helpt een PSG om kinderen te identificeren die een grotere kans hebben op OSAS na een AT. In een studie van Tauman (2006) bij 110 kinderen werd aangetoond dat een hoge preoperatieve AHI (>20) was geassocieerd met een verhoogd risico op OSAS na een AT. Slechts 25 % van de onderzochte kinderen had postoperatief een AHI<1, 46% 1<AHI<5, en 29% had een AHI>5. Kinderen met dit verhoogde risico, (waaronder een hoge preoperatieve AHI en een verhoogde BMI), zouden postoperatief beter moeten worden vervolgd zowel door middel van klinisch onderzoek als met een PSG.

Een probleem met het valideren van de verschillende hieronder genoemde vervangende of aanvullende diagnostische technieken is dat de gouden standaard voor volwassenen, het type I PSG, bij kinderen niet goed is gestandaardiseerd wat betreft interpretatie en opbrengst. Het is niet goed bekend of de afkapwaarden voor het wel of niet bestaan van OSAS, de apneu-hypopneu index (AHI), voor kinderen voldoen. Een AHI van 1 wordt bij kinderen beschouwd als cut off punt voor het bestaan van OSAS (zie volgend hoofdstuk). Er is nog onduidelijkheid of dit ook klinisch significant is. Een bijkomend probleem is dat de test-hertest betrouwbaarheid bij kinderen niet goed bekend is (Schechter 2002). Bij volwassenen is dit volgens een studie van Le Bon rond de 90% en waarschijnlijk nog lager (leBon 2000). Een studie bij 46 kinderen van Li (Chest 2004) toonde aan dat er een duidelijk first night effect is bij een eenmalige PSG (geringere slaapefficiëntie, langere inslaaptijd, minder REM slaap t.o.v. de tweede nacht) maar dat er minder apneus in de tweede nacht waren. Gebaseerd op de hoogste AHI zouden bijna 85% van de kinderen correct zijn geïdentificeerd. De gemiste casus hadden volgens de auteurs slechts een borderline OSAS. Een tweede PSG werd daarom niet noodzakelijk geacht gezien de geringe meeropbrengst.

Onbewaakte en/of ambulante polysomnografie (type 2 monitoring) wordt wat betreft diagnostische waarde gepositioneerd tussen klinisch bewaakte PSG en polygrafie. Gezien de mogelijkheid om accuraat echte slaaptijd te meten is het volgens de recente CBO richtlijnen OSAS bij volwassenen (2009) verantwoord om deze methoden bij een verdenking op OSAS te gebruiken. Of dit ook opgaat voor de pediatrische populatie is niet goed onderzocht. De literatuur is schaars wat betreft de opbrengst van deze onderzoeken t.o.v. de type I monitoring. (Clinical practice guideline Pediatrics 2002, Jacob 1995). In een studie van Jacob et al. (1995) werden vergelijkbare resultaten verkregen als met bewaakte PSG, gebruikmakend van plethysmografie, video en polsgolf oximetrie. In een onderzoek van Poels et al. (2003) was de opbrengst van thuismonitoring van adembewegingen samen met hartslag, O2 saturatie en lichaamspositie echter teleurstellend. Het percentage technisch acceptabele metingen bedroeg 75% maar slechts 7 van de 24 onderzoeken (29%) werd geclassificeerd als geslaagd. Een studie van Goodwin (2001) bij 157 kinderen tussen 5 en 12 jaar liet zien dat bij 91% een technisch acceptabel resultaat werd verkregen van de type 2 monitoring. Dit verbeterde tot 97% na een tweede nacht bij 9 kinderen. De meeste technische storingen werden gezien op het kin EMG kanaal en op de thermistor/neusdrukcanule.

Conclusie

Niveau 2	<p>Er zijn aanwijzingen dat onbewaakte of ambulante polysomnografie gebruikt kan worden voor het aantonen van OSAS bij kinderen, mits er geen ernstige comorbiditeit is.</p> <p><i>B Jacob 1995, Poels 2003, Goodwin 2001</i> <i>C AASM 2007, CBO 2009</i></p>
-----------------	---

Voor een PSG onderzoek zijn volgens de AASM manual for the scoring of sleep (2007) de volgende parameters noodzakelijk:

EEG, EOG, kin EMG, been EMG, luchtstroommeting, ademarbeidmeting, O2 saturatie, ECG en lichaamspositiemeting.

De oogbewegingen (elektro-oculografie EOG) worden geregistreerd met elektroden bij de canthus beiderzijds, en zijn een hulpmiddel bij vaststellen rapid eye movement (REM) slaap. Submentale spieractiviteit (elektromyografie EMG) moet worden geregistreerd met elektroden op de m (sub)mentalis of m masseter. Een ECG registratie wordt gedaan met minstens een of bij voorkeur meer afleidingen. Monitoring van de lichaamspositie geschiedt via een sensor of via directe observatie om houdingsafhankelijke ademevents te detecteren. Extremiteten bewegingen worden geregistreerd met EMG elektroden op de spieren voor het aantonen van beenbewegingen bijvoorbeeld periodic leg movements (PLM). Het monitoren van snurken en vastleggen van nachtelijke gedragingen geschiedt door middel van audio en video monitoring meestal met een infrarood camera om de slaap niet te verstoren. (Muzumdar 2008, AASM 2007).

Metingen van luchtstroom, arousals en ademerbeid zijn noodzakelijk om de ernst van OSAS vast te stellen. De meest gangbare registratie modaliteiten worden hierna beschreven.

Arousaldetectie

EEG registratie wordt gebruikt voor de beoordeling van de slaapdiepte, het maken van een hypnogram en het vaststellen van arousals (Bonnet 2007). Het EEG dient volgens het 10-20 systeem geregistreerd te worden met tenminste de elektrodeparen F3-4, C3-4, O1-2. Hiermee kunnen arousals worden vastgesteld zowel visueel als met signaalanalyse methoden zoals spectraalanalyse. Naast de traditionele Rechtschaffen en Kales (R&K) slaapscore zijn recent de AASM richtlijnen voor slaapscore gepubliceerd. Miano (2010) toonde aan dat gebruik van de AASM criteria bij 26 onderzochte kinderen een grotere slaapfragmentatie liet zien dan de R&K criteria (Miano 2010). Arousals worden het beste gedetecteerd met centrale elektroden maar ook frontale elektroden worden aanbevolen om additionele arousals te detecteren (Kaleyas 2006).

Tevens kan in de non REM (NREM) slaap een cyclisch alternerend patroon worden gezien (CAP) Dit bestaat uit periodieke patronen met trage activiteit, K complexen met of zonder alfa ritmes, afgewisseld met EEG activiteit van lage amplitude. Dit is een normale bevinding in de overgang waak- NREM slaap. Een abnormale hoeveelheid CAP slaap wijst op een instabiliteit van de NREM slaap en moeite met bereiken van een dieper slaapstadium. CAP is geassocieerd met activatie en kan leiden tot awakenings en verhoogde sympathische activiteit (Terzano 1996, Bruni 2010). De methodes zijn echter tijdrovend en vereisen specifieke kennis en ervaring in EEG beoordeling en signaalanalyse.

Actigrafie meet bewegingen van een extremitet d.m.v. een accelerometer (bijv. om de pols) om slaap van waak te onderscheiden. Driscoll onderzocht 130 kinderen de arousalindex met PSG en de fragmentatie index met actigrafie. Er bleek een matige overeenkomst, zodat de auteur actigrafie niet geschikt achtte voor de diagnose van OSAS (O'Driscoll 2009).

Conclusies

Niveau 2	Het is aannemelijk dat EEG en cyclisch alternerend patroon (CAP) analyse kunnen worden gebruikt voor arousaldetectie. <i>B Bonnet 2007, Kaleyas 2006, Terzano 1996, Bruni 2009</i>
Niveau 3	Het is aannemelijk dat actigrafie niet geschikt is voor de diagnose van arousals en OSAS bij kinderen <i>B O'Driscoll 2009</i>

De pulse transit time (PTT) is een niet invasieve marker voor de bloeddruk en daarmee indirect voor arousals. Ademevents gaan bij kinderen niet altijd gepaard met evidente EEG arousalfenomenen. De PTT meet de tijd tussen de ECG R golf en de fotoplethysmografisch gemeten aankomst van de polsgolf aan een vinger. Bloeddrukverhoging geassocieerd met bijvoorbeeld een RERA geeft een vermindering van de pulse transit time. In een studie van Brietzke (2007) bij 59 kinderen, onderzocht met PSG en simultaan PTT, was er een hoge

correlatie tussen de met de PTT gemeten arousals en de AHI bij de PSG. De optimale PTT arousal index bedroeg 5,4 events per uur (sensitiviteit 81% en specificiteit 76%). Een nadeel is signaalverlies door verschuiving van de pulsmeter bij bewegingen of onrust. (Katz 2003). De PTT lijkt een goede aanvullende methode voor het aantonen van matig en ernstig OSAS en verbetert de detectie van hypopneus, maar is minder geschikt bij licht OSAS en bij neonaten zoals aangetoond door Rizolli (2009) bij een groep van 8 neonaten met het Pierre Robin syndroom en OSAS. Bij 65% van de apneus was het PTT signaal niet interpreteerbaar.)

Conclusie

Niveau 2	Het is aannemelijk dat de puls transit time geschikt is voor de meting van ademevents. <i>B Brietzke 2007, Katz 2003</i>
-----------------	---

Bij ademevents wordt een toename gezien van sympathische activiteit zich uitend in bloeddrukverhoging en veranderingen in de perifere vasculaire weerstand. Perifere arteriële tonometrie (PAT) meet de perifere arteriële pulsatie volumeveranderingen aan de vinger door middel van een niet-invasieve plethysmografische manometer. Deze methode kan ambulant worden gebruikt en wordt dan meestal gecombineerd met pulsoximetrie en actigrafie. Studies bij volwassenen van Bar bij 102 patiënten simultaan geregistreerd met PSG en PAT waarvan 14 ook met een onbewaakte thuisregistratie en Pillar bij 81 patiënten en 7 controles (2003) toonden aan dat er een goede correlatie is tussen de met PAT en met PSG vastgestelde RDI ($r=0,87/0,88$). PAT werd onderzocht bij 40 kinderen met mild en ernstig OSAS in een studie van Tauman (2004). Arousals gingen wel gepaard met veranderingen in het PAT signaal maar slechts 35 % was gecorreleerd met EEG arousals. PAT werd door de auteurs niet aanbevolen om arousals bij kinderen te diagnosticeren.

Conclusie

Niveau 2	Er zijn aanwijzingen dat perifere arteriële tonometrie (PAT) niet geschikt is voor de ambulante meting van ademevents bij kinderen. <i>B Bar 2003, Pillar 2003</i> <i>C Tauman 2004</i>
-----------------	---

3.4.2. Flow limitation index

Luchtstroom- en ademarbeidmeting

Meting van de luchtstroom voor het vaststellen van luchtstroombeperking (flow limitation) is nodig voor de differentiatie tussen centrale en obstructieve ademevents zoals apneus en hypopneus en de bijbehorende arousals. Er is sprake van inspiratoire luchtstroombeperking als een toename van de intrathoracale negatieve druk zonder toename van de luchtstroom in de bovenste luchtwegen. De meeste sensoren meten de aanwezigheid van luchtstroom en niet de kwantiteit van de luchtstroom (CBO 2009, AASM 2007, Schechter 2002, Muzumdar 2008, Halbower 2007).

Een pneumotachometer wordt beschouwd als de gouden standaard (Muzumdar 2008, Thurnheer 2001) en geeft een kwantitatieve meting van de luchtstroom maar vereist een neus- of full face masker. In een studie van Clark uit 1998 werd bij 7 patiënten deze methode samen met de nasale druktransducer en inductieplethysmografie vergeleken met invasieve meting van de pharynxdruk. De pneumotachometer had de hoogste sensitiviteit (85%) met het minste aantal fout positieven. Thurnheer (2001) vond echter in een studie met 20 patiënten een goede overeenkomst tussen de met een neusdrukcanule en de met pneumotachometer gevonden ademevents.

De thermistor (TH) geeft een kwalitatieve indruk van temperatuurfuctuaties door de ademhaling. Het meet in feite niet de airflow en is daarom minder geschikt voor het vaststellen van hypopneus en RERA's. De nasale druktransducer (NP) geeft een semikwantitatief airflow signaal en kan worden gebruikt bij hypopneus en luchtstroombeperking en RERA's. Het is ook geschikt voor registratie bij kinderen vanaf 2 jaar hoewel de canule zich vaak verplaatst gedurende de registratie of verwijderd wordt door het kind. Een recente studie van Verginis (2010) bij 10 kinderen met een $AHI > 10$ die een tweede PSG ondergingen met zowel thermistor en NP canule liet zien dat de thermistor het aantal obstructieve hypopneus en respiratoire arousals onderschat en dat de nasale druktransducer het aantal obstructieve apneus overschat (t.o.v. de gehanteerde gouden standaard NP en TH tegelijk) en dat de NP canule meer gevoelig bleek voor technische storingen.

Conclusie

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat een thermistor gebruikt kan worden voor het aantonen van apneus. Een nasale druktransducer is naast het aantonen van apneus ook geschikt voor het vaststellen van hypopneus en respiratory effort related arousals (RERA's). Voor een optimale meting wordt het simultane gebruik van beide methoden aanbevolen.</p> <p><i>B Verginis 2010, Thurnheer 2001, Serebrisky 2002, Trang 2002, Matthew 2000</i></p>
-----------------	---

Adembewegingen kunnen worden geregistreerd met thorax en abdomen rekbanden, piezo elektrische banden, thoracale impedantiemeting en inductie plethysmografie (IP) (Martinot 1988). IP wordt gebruikt bij de diagnose van inspiratoire luchtstroombeperking vooral UARS. De methode is gebaseerd op de detectie van volumeveranderingen van thorax en buik gedurende de ademcyclus. De mate van asynchronie tussen borst en buikbewegingen wordt gebruikt om hypopneus aan te tonen. IP is echter minder betrouwbaar zonder recalibratie als er veranderingen zijn in lichaamspositie (Halbower 2007). In een studie van Loube (1999) was de met IP gevonden piek versus gemiddelde inspiratoire flow gemeten net voor een arousal voor UARS patiënten $> 0,13$ en voor controles $< 0,13$. De Sensitiviteit en specificiteit naderde de 100%. Door Erlor et al. (2001) werd IP vergeleken met thoracale impedantiemeting. Bij 52 neonaten werden gemiddeld 19,1 (centrale) apneus per uur gevonden. IP detecteerde 99,5 % van alle apneus en TI 98,9%. Er waren echter meer vals positieve detecties met IP (7,9%) dan met TI meting (4,4%). Beide methoden werden geschikt geacht voor monitoring van ademevents bij neonaten, simultaan gebruik heeft een sensitiviteit van bijna 100% en zeer weinig vals positieve detecties.

Conclusie

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat inductieplethysmografie (IP) en thoracale impedantie meting kunnen worden gebruikt om ademevents bij neonaten te meten. Bij simultaan gebruik van deze methoden is de sensitiviteit en specificiteit hoog. Inductieplethysmografie (IP) geeft echter meer vals positieve detecties en is gevoeliger voor storingen dan de oesofagusdrukmeting.</p> <p><i>B Erler 2001, Loube 1999, Halbower 2007</i></p>
-----------------	--

End tidal CO₂ (etCO₂) meet niet invasief de CO₂ concentratie in de uitademingslucht. Hypo- of apneus veroorzaken een vermindering of verdwijnen van EtCO₂ signaal. Door gevoeligheid voor storingen is deze methode mogelijk onbetrouwbaar. Een andere methode is de transcutane CO₂ meting, welke nauwkeuriger lijkt dan de EtCO₂ methode. Een nadeel is de trage reactietijd waardoor niet per ademteug de CO₂ concentratie kan worden gemeten (Tobias 1997, McBride 2002).

Oesofagus drukmeting (Pes) wordt algemeen beschouwd als de gouden standaard voor het meten van verhoogde respiratoire effort en voor de diagnose van UARS en RERA's. (AASM 2007, CBO 2009, Guilleminault 1996) Er zijn echter weinig slaaplaboratoria die deze techniek gebruiken vanwege het semi-invasieve karakter. Er is een RERA als er een toenemende negatieve druk (-12cm H₂O) wordt gemeten gevolgd door een (micro)arousal. Er is sprake van UARS als er 10 of meer RERA's per uur zijn. Omdat de Pes een semi-invasieve methode is en oncomfortabel kan zijn voor de patiënt en moeilijker lijkt in te brengen bij kinderen zijn er ook andere methoden voor het aantonen van UARS zoals PTT en inductie plethysmografie. In een studie van Katz (2003) werd een redelijke overeenkomst gevonden tussen de ademarbeid parameters gemeten met PTT en met oesophagusdrukmeting (correlatie coëff 0,38 (p<0,05). Er werd echter met de PTT geen verschil gevonden tussen kinderen met UARS en primair snurken. Chervin (2003) toonde aan dat 38 van de 54 onderzochte kinderen van 5-13 jaar de PES meer dan 2 uur tolereerden. Van die 38 kinderen hadden 33 kinderen de PES de hele nacht in.

Conclusie

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat oesofagusdrukmeting zeer betrouwbaar is voor de detectie van flow limitation.</p> <p><i>B Guilleminault 1996, Katz 2003, Chervin 2003</i></p> <p><i>D AASM 2007, CBO 2009</i></p>
-----------------	---

Zuurstofsaturatiemeting (SPO₂) wordt gedaan met pulsoximetrie. Er dient een middelingstijd van minder dan 3 seconden te zijn. Een nadeel is de gevoeligheid voor bewegingsartefacten en dat er kinderen zijn met UARS die geen saturatiedalingen hebben. Brouillette (2002) gebruikte bij 24 patiënten twee verschillende meters waaronder conventionele en bewegingsongevoelige meters. Waar de conventionele meter 73 desaturaties liet zien bij

bewegingsartefacten was dit slechts 9 bij de bewegingsongevoelige meter. In een andere studie onderzocht Brouillette ook de waarde van nachtelijke pulse oximetrie voor het vaststellen van OSA bij kinderen. Een positieve SPO2 had een positieve voorspellende waarde voor OSAS van 97%. Een negatief SPO2 was minder betrouwbaar en kan niet worden gebruikt om OSA uit te sluiten. (Brouillette 2000) In een andere studie (Kirk 2003) was de sensitiviteit voor het aantonen van matig OSAS bij kinderen 67% en de specificiteit 60%. De auteurs concluderen dat oximetrie alleen onvoldoende is voor het aantonen van OSAS bij kinderen.

Conclusies

Niveau 2	Het is aannemelijk dat continue pulsoximetrie een hoge positief voorspellende waarde heeft voor het vaststellen van OSAS bij kinderen met adenotonsillaire hypertrofie. <i>B Brouillette 2000, 2002, Kirk 2003</i>
-----------------	---

Niveau 2	Continue pulsoximetrie lijkt gezien de lage negatief voorspellende waarde en de wisselende bevindingen in de literatuur niet voldoende betrouwbaar voor het aantonen van OSAS bij kinderen. <i>B Brouillette 2000, 2002, Kirk 2003</i>
-----------------	---

Andere screeningsmethoden voor het vaststellen van OSAS

Een variant van de nachtelijke PSG is de PSG bij een middagslaapje (nap PSG). Meerdere studies waaronder een oudere studie van Marcus (1992) en van Saeed (2000) laten een hoge PPV zien van 77-100%, terwijl de NVV slechts 17-49% is. Deze variantstudies lijken dan ook alleen maar nuttig als er een positief resultaat is. Dan hoeft er in principe geen nachtelijke PSG te worden verricht. Een reguliere PSG blijft nodig als de nap PSG negatief is.

Conclusies

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat nap PSG een hoge voorspellende waarde heeft als de uitkomst positief is. <i>C Marcus 1992, Saeed 2000</i>
-----------------	---

Niveau 3	Gezien de lage negatief voorspellende waarde van nap PSG is bij negatieve bevindingen een Type 1 PSG nodig. <i>C Marcus 1992, Saeed 2000</i>
-----------------	---

De nachtelijke audiometing is onderzocht in twee studies (Lamm 1999, Goldstein 1994) Goldstein vond een voorspellende waarde (PPV) van 50% en Lamm 75%. Hun conclusie was dat de audiometing gebruikt kan worden om de aanwezigheid van snurken in de slaap vast te stellen maar niet kan differentiëren tussen gewoon snurken en snurken in het kader

van het upper airway resistance syndroom (UARS) en OSAS. Bij een positieve bevinding zullen de kinderen alsnog een PSG moeten ondergaan, terwijl bij een negatieve bevinding waarschijnlijk geen verder onderzoek meer nodig is.

Nachtelijke videomonitoring werd onderzocht in een studie van Sivan (1996). Een 30 minuten durende nachtelijke videomonitoring werd gescoord op 7 punten en had t.o.v. de gouden standaard PSG een sensitiviteit van 84% en een specificiteit van 64%. Vooral een score van >10 correleerde voor 100% met de PSG, een score <5 was geassocieerd met een normale PSG. In een studie van Chau (2008) was nachtelijke videomonitoring niet beter dan een standaard slaapvragenlijst.

Conclusie

Niveau 2	Het is aannemelijk dat de nachtelijke audiometing onvoldoende is voor het vaststellen van OSAS of UARS. <i>B Lamm 1999, Goldstein 1994</i>
-----------------	---

Tabel 3.4.2.1

arousalmeting	werking, voordelen	nadelen	literatuur
EEG	objectieve arousaldetectie, objectief met signaalanalyse	niet elke ademobstructie gepaard met een arousal, tijdrovend	7, 8, 16, 25, 43
CAP	vaststellen NREM instabiliteit	idem, vereist signaalanalyse	7, 8, 16, 25
PAT	detectie verhoging sympathische activiteit en arousals	niet altijd is er ook een EEG arousal. Betekenis PAT arousal niet vastgesteld, waarschijnlijk niet geschikt bij kinderen	31, 33, 39,
PTT	detectie autonome verandering bij arousal, goede correlatie PTT AHI en PSG AHI	idem, gevoelig voor polsgolfartefacten, grote interindividuele variatie in PTT	10, 17, 27, 29,
luchtstroommeting	werking, voordelen	nadelen	literatuur
Nasal pressure	semikwantitatief, detecteert hypopneus en RERA's	overschat aantal ademevents en gevoeliger voor storing	1, 9, 12, 18,
thermistor	kwalitatieve meting, eenvoudig, weinig storingsgevoelig	minder geschikt voor hypopneus en RERA, onderschatting ademevents	1, 9, 12, 18
pneumotachografie	kwantitatieve luchtstroommeting, hoge sensitiviteiten specificiteit	vereist een neusmasker, minder gevoelig voor lichte tot matige flow limitatie	35, 40, 41

etCO2	niet invasief	minder betrouwbaar dan TC CO2 meting, gevalideerd bij normale longfunctie	19, 20
transcutane CO2	niet invasief	Trage reactietijden, niet geschikt voor breath to breath analyse	19, 20
RIP	detectie volumeveranderingen thorax-buik. Thor-abdominale asynchronie maat voor hypopneus. Hoge sens/spec voor detectie UARS	meer vals positieve detecties, noodzaak kalibreren, gevoelig voor storing	6, 21, 22, 41
pulsoximeter	Middeling met interval <3 sec. sensitiviteit hoog specificiteit laag maar tegenstrijdige resultaten in verschillende studies	invloed door beweging, omgevingslicht, methemoglobine, carboxihemoglobine, sikkelcelanemie, slechte plaatsing	11, 15, 30
ademarbeid / ademhaling	werking, voordelen	nadelen	literatuur
PES	gouden standaard	semi-invasief, oncomfortabel, meer awakenings, moeilijker bij kinderen in te brengen.	28, 37, 42, 45, 46
thoracale impedantie pneumografie	detectie impedantie-verandering tijdens respiratie, kwalitatief, eenvoudig, goede sensitiviteit.	gevoelig voor hartslagartefact	6, 22 ,
piezo elektrische banden	kwalitatieve meting, eenvoudig	overschatting paradoxale ademhaling, niet te kalibreren, niet aanbevolen door AASM	35, 46
Nachtelijke audiometing	kwalitatieve meting, eenvoudig, detecteert de aanwezigheid van snurken	geen differentiatie tussen benigne snurken en OSAS	47, 48
nachtelijke videomonitoring	Eenvoudig, kwalitatief, redelijke sensitiviteit	matige specificiteit	3, 13

Afkortingen Tabel 3.4.2.1

CAP:	cyclisch alternerend patroon tijdens de slaap
EEG:	electroencefalogram
etCO2:	end tidal CO2
IP:	inductie plethysmografie
PAT:	perifere arteriele tonometrie
PES:	oesofagus druk
PTT:	pulse transit Time

Overige overwegingen

Veel onderzoek dat bij volwassenen voor detectie van OSAS wordt gebruikt kan bij kinderen niet gebruikt worden omdat de uitkomsten kunnen variëren en omdat de testen belastend kunnen zijn voor het kind. Type 1 PSG wordt spaarzaam gebruikt gezien de kosten, inspanningen en personele eisen. Alternatieven zijn de onbewaakte PSG en de ambulante P(S)G meting.

Aanbevelingen

De klinisch bewaakte PSG type 1 wordt beschouwd als de gouden standaard voor de detectie van OSAS bij kinderen. PSG type 1 dient standaard te omvatten EEG, elektroden paren F3-4, C3-4, O1-2), EOG, kin EMG, been EMG, luchtstroommeting, ademarbeidmeting, O2 saturatie, ECG, videomonitoring en lichaamspositie meting.

Type 1 PSG wordt aangeraden als er anamnestiche verdenking is op OSAS bij kinderen met ernstige comorbiditeit.

Bij kinderen met verdenking op OSAS zonder ernstige comorbiditeit kan worden volstaan met type 3 polygrafie.

De werkgroep is van mening dat type 4 pulsoximetrie niet gebruikt dient te worden om OSAS bij kinderen aan te tonen of uit te sluiten.

Literatuur

- Albert M. Li, Yun Kwok Wing, Agnes Cheung; Dorothy Chan, Crover Ho, Stephen Hui, Tai Fai Fok. Is a 2-Night Polysomnographic Study Necessary in Childhood Sleep-Related Disordered Breathing? CHEST 2004; 126:1467-1472.
- Bar A, Pillar G, Dvir I, Sheffy J, Schnall RP, Lavie P. Evaluation of a portable device based on peripheral arterial tone for unattended home sleep studies. Chest. 2003 Mar;123(3):695-703.
- Bonnet MH, Doghramji K, Roehrs T et al. The scoring of arousal in sleep: reliability, validity and alternatives. J Clin Sleep Med 2007; 3(2):133-145.
- Brietzke SEK. Pulse transit time as a screening test for pediatric sleep-related breathing disorders. Archives of Otolaryngology - Head and Neck Surgery 2007;133[10], 980-984.
- Brouillette RTM. Nocturnal pulse oximetry as an abbreviated testing modality for pediatric obstructive sleep apnea. Pediatrics 2000;105[2], 405-412.
- Brouillette RT, Lavergne J, Leimanis A, et al. Differences in pulse oximetry technology can affect detection of sleepdisordered breathing in children. Anesth Analg 2002; 94:S47-S53
- Bruni O et al. Cyclic alternating pattern: A window into pediatric sleep. Sleep Med (2010), doi:10.1016/j.sleep.2009.10.003.
- Chau KW, Ng DK, Kwok KL, Chow PY, Cheung JM, Leung SY, et al. Application of videotape in the screening of obstructive sleep apnea in children. Sleep Medicine 2008;9[4], 442-445.
- Chervin RD, Ruzicka DL, Wiebelhaus JL, Hegeman GL III, Marriott, DJ, Marcus CL, Giordani BJ, Weatherly RA, Dillon JE. Tolerance of esophageal pressure monitoring during polysomnography in children. Sleep 2003;26:1022-1026.
- Cheuk M; So Lun Lee. Clinical Practice Guideline: Diagnosis and Management of Childhood. Obstructive Sleep Apnea Syndrome. CHEST 2006; 130:1765-1771.

- Clark SA, Wilson CR, Satoh M, Pegelow D, Dempsey JA. Assessment of inspiratory flow limitation invasively and noninvasively during sleep. *AM J RESPIR CRIT CARE MED* 1998;158:713–722.
- Clinical Practice Guideline: Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Section on Pediatric Pulmonology and Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109:704-712.
- Richtlijn 'Diagnostiek en behandeling van het obstructievelaapapneusyndroom bij volwassenen' CBO 2009.
- Epstein MD, Chicoine SA, Hanumara RC. Detection of upper airway resistance syndrome using a nasal cannula/pressure transducer. *Chest* 2000; 117:1073-1077.
- Erler TO. Detection of apneas in infants during sleep: A study comparing thoracic impedance and inductive plethysmography. *Sleep and Hypnosis* 2001; 3[2], 62-67.
- Flemons WW, Littner MR, Rowley JA, Gay P, Anderson WM, Hudgel DW et al. Home diagnosis of sleep apnea: a systematic review of the literature. An evidence review cosponsored by the American Academy of Sleep Medicine, the American College of Chest Physicians, and the American Thoracic Society. *Chest* 2003, 124(4): 1543-1579.
- Foo JY. Pulse transit time in paediatric respiratory sleep studies. *Med Eng Phys* 2007; 29:17-25.
- Goldstein NA, Sculerati N, Walselben JA, Bhatia N, Friedman DM, Rapoport DM: Clinical diagnosis of pediatric obstructive sleep apnea validated by polysomnography; *Otolaryngol Head Neck Surg.*;1994;111:611-617.
- Guilleminault C, Hyun Lee JH, Chan A. Pediatric Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Arch Pediatr Adolesc Med.* 2005;159:775-785.
- Halbower AC, Ishman SL, McGinley BM. Childhood obstructive sleep-disordered breathing: a clinical update and discussion of technological innovations and challenges. *Chest* 2007, 132(6): 2030-2041.
- Iber C, Ancoli-Israel S, Chesson A, Quan SF, for the American Academy of Sleep Medicine. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events: rules, terminology and technical specifications. Westchester, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2007.
- Jacob SV, Morielli A, Mograss MA, Ducharme FM, Schloss MD, Brouillette RT. Home testing for pediatric obstructive sleep apnea syndrome secondary to adenotonsillar hypertrophy. *Pediatr Pulmonol.* 1995;20:241-252.
- Kaleyias J, Grant M, Darbari F, Ajagbe O, Cepelowicz-Rajter J, Kothare SV, et al. Detection of cortical arousals in children using frontal EEG leads in addition to conventional central leads. *Journal of Clinical Sleep Medicine* 2006; 2[3], 305-308.
- Katz ES, Lutz J, Black C, Marcus CL, Katz ES, Lutz J, et al. Pulse transit time as a measure of arousal and respiratory effort in children with sleep-disordered breathing. *Pediatric Research* 2003;53[4], 580-588.
- Kirk VG, Bohn SG, Flemons WW, Remmers JE. Comparison of home oximetry monitoring with laboratory polysomnography in children. *Chest* 2003, 124(5): 1702-1708.
- Lamm C, Mandel J, Kattan M. Evaluation of home audiotapes as an abbreviated test for obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) in children. *Pediatric Pulmonology* 1999; 27- 4: 267–272.
- Loube DI, Andrada T, Howard RS. Accuracy of respiratory inductive plethysmography for the diagnosis of upper airway resistance syndrome. *Chest* 1999; 115:1333-1337.
- Marcus CL, Keens TG, Ward SL. Comparison of nap and overnight polysomnography in children. *Pediatr Pulmonol.* 1992;13:16-21.
- Martinot-Lagarde P, Sartene R, Mathieu M, et al. What does inductance plethysmography really measure? *J Appl Physiol* 1988; 64:1749-1756.

- Matthew D, Epstein, Sheryl A. Chicoine and R. Choudary Hanumara Detection of Upper Airway Resistance Syndrome Using a Nasal Cannula/Pressure Transducer. *Chest* 2000;117;1073-1077.
- McBride DS Jr, Johnson JO, Tobias JD. Noninvasive carbon dioxide monitoring during neurosurgical procedures in adults: end-tidal versus transcutaneous techniques. *South Med J* 2002; 95:870-874.
- Miano S. Visual scoring of sleep: A comparison between the Rechtschaffen and Kales criteria and the American Academy of Sleep Medicine criteria in a pediatric population with obstructive sleep apnea syndrome. *Clin Neurophysiol* 121:39-42. 2010.
- Muzumdar H, Arens R. Diagnostic Issues in Pediatric Obstructive Sleep Apnea. *Proc Am Thorac Soc Vol 5*. pp 263-273, 2008.
- Nira A. Goldstein, Vasanthi Pugazhendhi, Sudha M. Rao, Jeremy Weedon, Thomas F. Campbell, Andrew C. Goldman, J. Christopher Post, Madu Rao. Clinical Assessment of Pediatric Obstructive Sleep Apnea. *Pediatrics* 2004;114:33- 43.
- O'Driscoll DM, Foster AM, Davey MJ, et al. Can Actigraphy Measure Sleep Fragmentation in Children? *Arch Dis Child* 2009; doi: 10.1136/adc.2009.166561.
- Pang KPB. Paediatric obstructive sleep apnoea: Is a polysomnogram always necessary? *Journal of Laryngology and Otology* 2004; 118[4], 275-278.
- Pepin JL, Delavie N, Pin I, et al. Pulse transit time improves detection of sleep respiratory events and microarousals in children. *Chest* 2005; 127:722-730
- Pillar G, Bar A, Betito M, et al. An automatic ambulatory device for detection of AASM defined arousals from sleep: the WP100. *Sleep Med* 2003; 4:207-212
- Pillar G, Bar A, Shlitner A, et al. Autonomic arousal index: an automated detection based on peripheral arterial tonometry. *Sleep* 2002; 25:543-549.
- Poels, PJP, Schilder AGM, van den Berg, S et al. Evaluation of a New Device for Home Cardiorespiratory Recording in Children. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2003;129:1281-1284.
- Redline S, Budhiraja R, Kapur V, Marcus CL, Mateika JH, Mehra R, Parthasarthy S, Somers VK, Strohl KP, Sulit LG, et al. The scoring of respiratory events in sleep: reliability and validity. *J Clin Sleep Med* 2007;3:169-200
- Richtlijn 'Diagnostiek en behandeling van het obstructievslaapapneusyndroom bij volwassenen' CBO 2009.
- Rizzoli A, Urschitz MS, Sautermeister J, Miano S, Pagani J, Villa MP, et al. Pulse transit time for scoring subcortical arousal in infants with obstructive sleep apnea. *Sleep & Breathing* 2009; 13[2], 137-146.
- Saeed MMK. Should children with suspected obstructive sleep apnea syndrome and normal nap sleep studies have overnight sleep studies? *Chest* 2000; 118[2], 360-365.
- Schechter MS, and the Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. American Academy of Pediatrics. Technical Report: Diagnosis and Management of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Pediatrics* 2002;109(4)
- Serebrisky D, Cordero R, Mandeli J, et al. Assessment of inspiratory flow limitation in children with sleep-disordered breathing by a nasal cannula pressure transducer system. *Pediatr Pulmonol* 2002; 33:380-387.
- Shimrit Uliel, MD; Riva Tauman, Michal Greenfeld, Yakov Sivan. Normal Polysomnographic Respiratory Values in Children and Adolescents. *CHEST* 2004; 125:872-878
- Sivan YK. Screening obstructive sleep apnoea syndrome by home videotape recording in children. *European Respiratory Journal* 1996; 9[10], 2127-2131.
- Tauman R, O'Brien LM, Mast BT, et al. Peripheral arterial tonometry events and electroencephalographic arousals in children. *Sleep* 2004; 27:502-506.

- Terzano MG, Parrino L, Boselli M, et al. Polysomnographic analysis of arousal responses in obstructive sleep apnea syndrome by means of the cyclic alternating pattern. *J Clin Neurophysiol* 1996; 13:145-155.
- Thurnheer R, Xiaobin X, Bloch K. Accuracy of Nasal Cannula Pressure Recordings for Assessment of Ventilation during Sleep. *AJRCCM Vol 164* :1914-1919, 2001.
- Tobias JD, Meyer DJ. Noninvasive monitoring of carbon dioxide during respiratory failure in toddlers and infants: end-tidal versus transcutaneous carbon dioxide. *Anesth Analg* 1997; 85:55-58
- Trang H, Leske V, Gaultier C. Use of nasal cannula for detecting sleep apneas and hypopneas in infants and children. *Am J Respir Crit Care Med* 2002; 166:464-468
- Valerie G. Kirk, Shelly G. Bohn, W. Ward Flemons, John E. Remmers. Comparison of Home Oximetry Monitoring With Laboratory Polysomnography in Children. *CHEST* 2003; 124:1702-1708.
- Verginis N, Davey MJ, Horne RSC. Scoring respiratory events in paediatric patients: Evaluation of nasal pressure and thermistor recordings separately and in combination. *Sleep Medicine* 2010;11:400–405.
- Virkkula P, Silvola J, Maasilta P, et al. Esophageal pressure monitoring in detection of sleep-disordered breathing. *Laryngoscope*. 2002; 112:1264-1270
- Zou D, Grote L, Peker Y, et al. Validation a portable monitoring device for sleep apnea diagnosis in a population based cohort using synchronized home polysomnography. *Sleep* 2006; 29:367-374

3.5. Afkappunten van de apneu-hypopneu index (AHI) en de oxygenatie-desaturatie index (ODI)

Inleiding

Er zijn geen studies gedaan bij kinderen waarin gekeken is naar afkappunten voor OSAS in relatie met pathofysiologische kenmerken of specifieke morbiditeit. De beschreven afkappunten in de literatuur zijn tot stand gekomen aan de hand van consensus meetings of door gerespecteerde onderzoekers in dit veld.

Een aantal artikelen geven richtlijnen voor afkapwaarden voor polysomnografie bij kinderen. Hierbij wordt onderscheid gemaakt in afkapwaarden voor cardiorespiratoire variabelen en afkapwaarden voor neurofysiologische variabelen om OSAS te diagnosticeren. Daarnaast zijn er studies gedaan waarbij normaalwaarden voor polysomnografie zijn vastgesteld.

In 1996 werden door de American Thoracic Society (ATS) voor het eerst indicatierichtlijnen en standaarden opgesteld voor cardiorespiratoire slaapstudies bij kinderen (ATS 1996). In 2002 kwam de American Academy of Pediatrics met een klinisch praktische richtlijn en een technisch rapport met betrekking tot diagnose en behandeling van OSAS bij kinderen (AAP 2002). In de klinische richtlijn wordt een overzicht gegeven van de stand van zaken aangaande diagnose en behandeling van OSAS bij kinderen. Er wordt verwezen naar de richtlijnen van de ATS voor de criteria voor polysomnografie. In de technische richtlijn wordt uitgebreid de methode besproken waarop de klinische richtlijn gebaseerd is. In 2006 werd door de Paediatric Society of New Zealand een "best practice evidence based guideline" gepubliceerd met betrekking tot het beleid bij ademhalingsstoornissen tijdens slaap bij kinderen (PSNZ 2006). In 2007 werd in *Chest* een klinische update gepubliceerd met betrekking tot slaap gerelateerde obstructieve ademhalingsstoornissen bij kinderen (Halbouwer 2007). Tevens werden in 2007 de AASM criteria (American Academy of Sleep

Medicine) voor het beoordelen van slaap en geassocieerde gebeurtenissen gepubliceerd (AASM 2007). Bovenstaande publicaties vormen de basis voor de aanbevelingen die gegeven zullen worden met betrekking tot de afkapwaarden voor polysomnografie bij kinderen.

Traditioneel werden slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen bij kinderen beoordeeld met criteria die bij volwassenen werden gehanteerd. Echter bij kinderen is gebleken dat deze criteria te kort schieten omdat snurken en subtielere ademhalingsstoornissen ook geassocieerd zijn met neuropsychologische stoornissen. Daarnaast kunnen kinderen langdurige periodes hebben van een partiële luchtwegobstructie en deze kunnen, indien niet herkend, een forse onderschatting geven van de apneu-hypopneu index (Halbouwer 2007).

Samenvatting van de literatuur

Afhankelijk van het type van polysomnografie dat is verricht en van de variabelen die gemeten zijn (zie hoofdstuk 3.2) zal er een meer of minder uitgebreide analyse kunnen plaatsvinden.

Cardiorespiratoire variabelen

Het uitlezen van gegevens van een polysomnogram vraagt om specifieke expertise. Vooraf gedefinieerde events worden gescoord. Er wordt onderscheid gemaakt in:

1. AHI: de apneu-hypopneu index, waarbij het aantal apneus en hypopneus per uur worden geteld.
2. ODI: de oxygenation-desaturation index, waarbij het aantal desaturaties per uur worden geteld.

Volgens de AASM criteria worden de volgende definities gehanteerd voor de cardiorespiratoire variabelen.

Obstructieve apneu: de aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.

Centrale apneu: de afwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow of druk met een duur van >20 sec of een kortere apneu waarbij tenminste 2 ademcycli ontbreken en die geassocieerd zijn met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een awakening.

Centrale apneu index: aantal centrale apneus per uur slaap. Centrale apneus die plaatsvinden direct na een zucht, na beweging of na wakker worden niet geïnccludeerd in de index.

Mixed apneu: apneu met een centrale en obstructieve component. Mixed apneus worden geteld bij de obstructieve apneus.

Hypopneu: $\geq 50\%$ afname in de amplitude van het oronasale luchtflow of druk signaal met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een awakening. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.

Obstructieve apneu hypopneu index: het aantal obstructieve apneus, mixed apneus en obstructieve hypopneus gevolgd door een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een awakening per uur slaap.

Oxygenatie desaturatie index: de som van alle desaturaties $\geq 3\%$ per uur.

Hypoventilatie: de AASM stel voor het scoren van hypoventilatie de volgende criteria in de metingen van transcutane of end-tidal CO₂: tenminste 50% van de slaaptijd is de CO₂ waarde >50 mmHg.

Periodiek ademen: indien >3 episodes van centrale apneu >3 sec gescheiden door niet meer dan 20 ademcycli.

Scoringssystemen voor arousal metingen en slaap stadia

Arousals tijdens slaap zijn beschermende reflexen die er voor moeten zorgen dat de luchtweg open gehouden wordt. Arousals worden geïnitieerd door baro- en chemoreceptoren in het lichaam. Frequente arousals leiden tot fragmentatie van de slaap en sympatische activiteit. Arousals die tijdens een polysomnografie worden gezien kunnen geassocieerd zijn met EEG veranderingen, toegenomen luchtflow, stoppen van paradoxale adembewegingen, tachycardie, beweging, verhoging van de bloeddruk en autonome activatie. Bij kinderen echter leidt ongeveer 50% van de obstructieve apneus niet tot een EEG arousal en bij zuigelingen zijn arousals nog zeldzamer (Sheldon 2005).

Conclusies

Niveau 4	<p>Het gebruik van een apneu-hypopneu index en een oxygenatie-desaturatie index wordt aanbevolen om ademhalingsstoornissen tijdens slaap te karakteriseren.</p> <p><i>D AASM 2007</i></p>
Niveau 4	<p>De volgende definities voor apneus worden gehanteerd:</p> <p>Obstructieve apneu: de aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.</p> <p>Centrale apneu: de afwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtflow of druk met een duur van >20 sec of een kortere apneu waarbij tenminste 2 ademcycli ontbreken en die geassocieerd zijn met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een awakening.</p> <p>Hypopneu: $\geq 50\%$ afname in de amplitude van het oronasale luchtflow of druk signaal met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een awakening. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.</p> <p><i>D AASM 2007</i></p>
Niveau 4	<p>Er is sprake van hypoventilatie (transcutaan of end-tidal CO₂), wanneer de CO₂ waarde tenminste 50% van de slaaptijd groter is dan 50 mmHg.</p> <p><i>D AASM 2007</i></p>
Niveau 4	<p>Er is sprake van periodiek ademen bij meer dan 3 episodes van centrale apneu, van meer dan 3 seconden elk, gescheiden door niet meer dan 20 ademcycli.</p> <p><i>D AASM 2007</i></p>

3.6. Normaalwaarden voor de apneu-hypopneu index (AHI) en de oxygenatie-desaturatie index (ODI)

Verhulst et al bestudeerden in 2007 bij een groep van 60 asymptomatische kinderen in de leeftijd van 6-16 jaar (gemiddelde lft 11.7 jr, 28 jongens) normaal waarden voor Europese kinderen. De verkregen data in de studie van Verhulst (2007) werden vergeleken met referentiedata van 4 andere vergelijkbare onderzoeksgroepen (tabel 1) (Marcus 1992, Uliel et al 2004, Traeger et al (2005) en Montgomery-Downs et al (2006).

Het aantal centrale apneus in de studie van Verhulst was 0.85/uur hetgeen vergelijkbaar is met de studies van Uliel (0.45) en Montgomery (0.45) en Traeger (0.29).

Obstructieve apneus zijn zeer ongewoon bij deze leeftijdsgroepen en een normale waarde van een obstructieve apneu index van <1 uur wordt door alle auteurs en door de American Thoracic Society (1996) aanbevolen.

Normatieve data voor het aantal hypopneus zijn relatief zeldzaam, echter in de studie van Verhulst et al werden 431 centrale hypopneus gemeten (geassocieerd met een afname van de amplitude van borst en buiksignalen). Daardoor werd in deze studie een relatief hoge respiratoire disturbance index gemeten (1.98/uur). In deze studie werd echter geen gebruik gemaakt van oesophagus drukmeting of CO₂ monitoring.

Een gemiddelde saturatie van 97% wordt in diverse studies gemeten met als ondergrens een laagste saturatie van 90%. Een oxygenatie desaturatie index variërend van 0.3 tot 0.8/uur wordt in de geciteerde studies gevonden (Verhulst, Marcus, Montgomery-Downs).

Tabel 3.6.1. Polysomnografie bij gezonde kinderen, zonder verdenking op OSAS

	Eerste auteur					
	Marcus en Witmans	Uliel	Traeger	Montgomery-Downs	Verhulst	
Aantal	45	70	66	542	60	
Leeftijd, range, jr	1.1-17.4	1-15	2.5-9.4	3.2-8.6	6-16	
				3-5, n = 173	>6, n = 369	
Hypopneu index, events/uur	0.1 ± 0.1	0	0.3 ± 0.5	0.03 ± 0.07	0.10 ± 0.18	
Apnea index, /uur	0.1 ± 0.5			0.86 ± 0.75	0.5 ± 0.52	
Obstructieve apnea index, events/uur		0.02/0.1 [‡]	0.1 ± 0.03	0.03 ± 0.10	0.05 ± 0.11	0.06 ± 0.16
AHI, events/uur	0.2 ± 0.6		0.4 ± 0.6	0.9 ± 0.78	0.68 ± 0.75	1.98 ± 1.39
Obstructieve AHI, events/uur				0.08 ± 0.16	0.14 ± 0.22	0.08 ± 0.17
%TST Sp _{O2} > 95%				99.6 ± 0.95		
Sp _{O2} nadir, %	96 ± 2	94.6 ± 2.2	92 ± 3	92.7 ± 4.5	92.6 ± 3.6	91.8 ± 2.7
Sp _{O2} laagste waarde, %	92	90	86	84	85	86
ODI, events/uur	0.3 ± 0.7			0.29 ± 0.35	0.47 ± 0.96	0.8 ± 0.9
Pet _{CO2} % TST > 50 mm Hg	0.5 ± 4.0	0.29 ± 0.24		4.0 ± 15.3	2.0 ± 7.1	
Slaap latency, min				24.1 ± 25.6	23 ± 25.3	45.6 ± 29.4
Slaap efficiëntie, %		90.8 ± 6.5	89 ± 8	90 ± 7	89.3 ± 7.5	80.5 ± 8.5
Arousals, events/uur			8.8 ± 3.8	9.3 ± 4.8		6.1 ± 1.8
Respiratoir event gerelateerde arousal events/uur				0.92 ± 2.0		1.2 ± 1.0

Conclusies

Niveau 3	Een apneu-hypopneu index <1 uur wordt als normaal beschouwd.
	<i>C Verhulst 2007, Traeger 2005, Montgomery 2006, Uliel 2004, Marcus en Witmans 1992</i>

Niveau 3	<p>Een gemiddelde saturatie van 97% met als ondergrens een laagste saturatie van 90% kan als normaal beschouwd worden.</p> <p><i>C Verhulst 2007, Traeger 2005, Montgomery 2006, Uliel 2004, Marcus en Witmans 1992</i></p>
-----------------	---

Niveau 3	<p>Een oxygenatie-desaturatie index <1 uur wordt als normaal beschouwd.</p> <p><i>C Verhulst 2007, Traeger 2005, Montgomery 2006, Uliel 2004, Marcus en Witmans 1992</i></p>
-----------------	---

Overige overwegingen

Inzicht in normaalwaarden is voor de kliniek van belang omdat het frequent voorkomt dat een enkel incident al geassocieerd wordt met pathologie. Het voorkomen van zowel een centrale apneu, een obstructieve apneu als een desaturatie komt voor bij ieder gezond kind, het aantal per uur bepaald derhalve of er sprake is van pathologie of niet. De ondergrens voor een saturatie van 90% wordt in bovenstaande studies als normaal aangegeven. In de literatuur wordt bij kinderen slechts sporadisch gebruik gemaakt van de respiratoire disturbance index en deze wordt derhalve in deze richtlijn zoveel mogelijk vermeden.

Aanbevelingen

Het gebruik van de apneu-hypopneu index en de oxygenatie-desaturatie index wordt aanbevolen om ademhalingsstoornissen tijdens slaap te karakteriseren.

De volgende definities voor apneus worden gehanteerd:

Obstructieve apneu: de aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtfLOW. Er ontbreken tenminste 2 ademcycli.

Een obstructieve apneu wordt gedefinieerd indien er bij aanwezigheid van borst en/of buikbewegingen een afwezigheid is van oronasale luchtfLOW met een duur van >2 ademcycli.

Centrale apneu: de afwezigheid van borst en/of buikbewegingen geassocieerd met afwezigheid van oronasale luchtfLOW met een duur van >20 sec of een kortere apneu waarbij tenminste 2 ademcycli ontbreken en die geassocieerd zijn met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een afwakening.

Hypopneu: $\geq 50\%$ afname in de amplitude van het oronasale luchtfLOW of druk signaal met een desaturatie $\geq 3\%$ of een arousal of een afwakening.

Een apneu-hypopneu index <1 uur kan als normaal beschouwd worden.

Een oxygenatie-desaturatie index <1 uur kan als normaal beschouwd worden.

Een gemiddelde saturatie van 97% met als ondergrens een laagste saturatie van 90% kan als normaal beschouwd worden.

3.7. Gradering ernst van OSAS

Zoals al eerder vermeld wordt het gebruik van een apneu-hypopneu index en een oxygenatie-desaturatie index aanbevolen om ademhalingsstoornissen tijdens slaap te karakteriseren. Aanvullend kan bij een type 1 of 2 polysomnografie een arousal index worden bepaald en kan het totaal aantal gebeurtenissen worden uitgedrukt in een "respiratory disturbance index" maar in de praktijk zal dit bij kinderen niet of nauwelijks gebruikt worden omdat het vaststellen van arousals in de diverse leeftijdscategorieën moeilijk kan zijn. Traditioneel zijn veel studies gedaan bij kinderen waarbij gebruik is gemaakt van criteria van OSAS bij volwassenen. Echter, de laatste jaren komt er steeds meer evidentie dat milde vormen van ademhalingsstoornissen tijdens slaap en snurken neuropsychologische consequenties kunnen hebben. Een groot verschil tussen kinderen en volwassenen met OSAS is dat kinderen langere periodes kunnen hebben van partiële luchtweg obstructie tijdens slaap, vaak zonder het optreden van arousals of dalen van de saturatie, maar wel met een verhoging van het kooldioxide gehalte of met een toegenomen ademerarbeid (dit kan gemeten worden met een oesophageale drukmeting). Partiële bovenste luchtweg obstructie leidende tot "Upper airway resistance syndrome" kan onderschat worden indien alleen de AHI gebruikt wordt om OSAS te diagnosticeren.

Het is echter onbekend wat de specifieke morbiditeit is van elke separate respiratoire parameter (AHI, intermitterende hypoxie, hypercapnie of slaap fragmentatie door arousals (Halbouwer et al Chest 2007).

In diverse richtlijnen wordt een onderscheid gemaakt in milde, matige en ernstige OSAS. Een veel gebruikte classificatie voor OSAS werd gegeven door Guilleminault et al in 1995. Voor de classificering gebruikte hij de optelsom van het aantal apneus en hypopneus. In 2004 laat Brietzke et al in een systematisch review bij een geselecteerd aantal artikelen zien welke afkapwaarden gebruikt zijn om OSAS te classificeren. De vraagstelling van het review was of anamnese en lichamelijk onderzoek adequaat obstructief slaap apneu/hypopneu syndroom kunnen diagnosticeren. In 4 studies werd als afkapwaarde een AHI van >1/uur gebruikt (Nieminen P 1997 en 2000, Rosen CL 1999, Carroll JL 1995), in 2 studies werd een AHI van >5/uur gebruikt (Jain et al 2002, Suen JS et al 1995) en in 1 studie een AHI >15/uur (Goldstein et al 1994). In 1 andere studie werd een onderscheid gemaakt tussen al dan niet bestaande ernstige OSAS waarbij een AHI >10/uur werd gehanteerd en/of een saturatie <75%.

In 2005 geeft Sheldon et al in het boek "principles and practice of pediatric sleep medicine" een classificatie zien voor het hele spectrum van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen. Voor de milde, matige en ernstige OSAS worden naast afkapwaarden voor de AHI ook de diepte van desaturatie, de piekwaarde voor de end-tidal CO₂, de slaaptijd dat de CO₂ waarde >50 mm Hg is en het aantal arousal per uur opgenomen. Hierbij worden ook primair snurken en het upper airway resistance syndroom beschreven.

In 2006 wordt in de Nieuw Zeelandse richtlijn voor OSAS bij kinderen ook de diepte van desaturatie gebruikt om de ernst van OSAS te classificeren. In 2009 gebruikt Goroza et al in een studie bij 367 patiënten ook een gecombineerde definitie van AHI en de diepte van desaturaties om de ernst van OSAS te classificeren. De auteurs komen tot de conclusie dat het moeilijk is om de ernst van OSAS te classificeren omdat een ernstige AHI niet altijd samengaat met een ernstige desaturatie en vice versa.

Een combinatie van criteria voor OSAS werd door Rosen et al (1999) gebruikt in een studie bij 326 kinderen zonder onderliggende ziekte die werden verwezen in verband met verdenking op OSAS. Een polysomnogram werd beschouwd als abnormaal indien een of meer criteria afwijkend waren:

- obstructieve apneu index groter/gelijk 1;
- 4% desaturatie episodes van meer >1.5 per uur of SpO2 nadir minder dan 92%;
- hypoventilatie waarbij EtCO2 waarden groter/gelijk 50 mm Hg voor meer dan 9% van de totale slaaptijd, of piek EtCO2 waardes van 55 mm Hg of meer.

Daarnaast kan aanvullend bewijs voor OSAS verkregen worden uit het logboek van de slaap technicus, het bekijken van de slaapvideo en het onderzoek van de registratie zelf waarbij gekeken wordt naar:

- snurken;
- toegenomen ademerarbeid door paradoxe bewegingen van de thorax, sternale intrekkingen of gebruik van hulpademhalingspijpen;
- frequente arousals of awakenings van aan slaap geassocieerd snurken, toegenomen ademerarbeid en partiële obstructies.

Met bovenstaande criteria en na de bevindingen van PSG's werden de kinderen in 5 groepen naarmate van de ernst van OSAS geclassificeerd: 1) niet snurken, 2) snurken, 3) upper airway resistance syndrome 4) obstructief slaap apneu, 5) hypoxemie met obstructief slaap apneu. Bij het upper airway resistance syndroom is er sprake van snurken waarbij er paradoxale borstademhalingen zijn of herhaalde arousals en bewegingen zonder apneu, desaturatie of hypoventilatie.

Tabel 3.7.1 Gradering ernst van OSAS

	Mild	Matig	Ernstig
Guilleminault 1995			
Apneu + hypopneu	1-5 events/uur	5- 24 events/uur	>24 events/uur
Sheldon 2005			
AHI	1-4	5-10	>10
Desaturatie	86-91	76-85	≤75
Piek end tidal CO2	>53	>60	>65
End tidal CO2 %Totale slaapt tijd	10-24	25-49	≥50
Arousals per uur met EEG	>11	>11	>11
Nieuw Zeeland 2006			
Apneu index of	1-4 events/uur	5-9 events/uur	>10 events/uur
Desaturatie in associatie met obstructie	Nadir van 87-91%	Nadir van 76-85%	Nadir van <75%

Hypoventilatie	10-24% totale slaaptijd	25-49% totale slaaptijd	>50% totale slaaptijd
Goroza 2009			
AHI	5-15 events/uur	16-30 events/uur	>30 events/uur
Desaturaties	81-90%	71-80%	<71%

Conclusies

Niveau 3	<p>De ernst van OSAS wordt gegradeerd in 3 categorieën, mild, matig en ernstig.</p> <p><i>C Guilleminault 1995, Sheldon 2005, Goroza 2009</i> <i>D Richtlijn Nieuw Zeeland 2006</i></p>
Niveau 3	<p>Voor een aanvullende classificatie van de ernst van OSAS kan gebruik gemaakt worden van de diepte van desaturaties.</p> <p><i>C Sheldon 2005, Goroza 2009</i> <i>D Richtlijn Nieuw Zeeland 2006</i></p>
Niveau 3	<p>De meest gehanteerde definitie voor milde OSAS is een AHI van 1-5/uur, voor matige OSAS >5-10/uur en voor ernstige OSAS >10/uur.</p> <p><i>C Sheldon 2005</i> <i>D Richtlijn Nieuw Zeeland 2006</i></p>

Overige overwegingen

Om de ernst van OSAS te bepalen kan puur getalsmatig naar de uitslagen van de polysomnografie gekeken worden. Echter afhankelijk van de uitgebreidheid van de polysomnografie zal er meer of minder gerapporteerd kunnen worden. Een indeling waarbij naast de AHI ook gekeken wordt naar de diepte van de desaturaties kan zinvol zijn, echter een milde OSAS kan gepaard gaan met diepe desaturaties en een ernstige OSAS kan gepaard gaan met milde desaturaties. Daarnaast kan bij kinderen sprake zijn van langdurige hypopneus (waardoor er weinig per uur zijn) waarbij er een relatief lage AHI wordt gescoord. Hierbij kan het bepalen van de duur dat de end-tidal of transcutane CO₂ boven de referentie waarde zit behulpzaam zijn. Ook dient in ogenschouw te worden genomen dat bij jonge zuigelingen er sprake is van een periodieke ademhaling die gepaard kan gaan met desaturaties.

Zoals boven vermeld worden in de literatuur verschillende definities gehanteerd voor milde, matige en ernstige OSAS. Er is over het algemeen geen discussie over de definitie van milde OSAS waarbij een AHI van 1-5 wordt gebruikt. Voor de definitie matige en ernstige OSAS worden verschillende definities gebruikt. Guilleminault en Goroza hanteren voor ernstige OSAS resp een AHI >24/uur en >30 uur. Bij Sheldon en in de Nieuw-Zeelandse

richtlijn wordt een AHI >10/uur gehanteerd. In het hoofdstuk waarin in de huidige richtlijn wordt ingegaan op de cardiovasculaire comorbiditeit (zie hoofdstuk 6.1) worden met name veranderingen gerapporteerd bij een AHI >5/uur en een AHI>10 uur. Het is daarom aannemelijk om deze afkappunten te gebruiken voor de definitie van matige en ernstige OSAS.

Bij bepaald groepen syndromale kinderen is het soms niet mogelijk om een nasale flow te meten. Metingen die aanvullende informatie op dat moment kunnen geven zijn detectie van paradoxale bewegingen van thorax en abdomen (X-flow), de pulse transit time en de hartslagvariabiliteit. Er zijn bij kinderen echter nog bijna geen data die de ernst van OSAS met behulp van deze technieken kunnen graderen.

Echter, een diagnose milde, matige of ernstige OSAS wordt uiteindelijk niet alleen genomen op basis van het numerieke AHI getal maar daarbij zal tevens gekeken worden naar:

- ernst van de klinische klachten tijdens slaap;
- ernst van de klinische klachten overdag;
- de diepte van desaturaties;
- de hoogte van het pCO₂ gehalte;
- aanwezigheid cardiovasculaire comorbiditeit.

Aanbevelingen

Aanbevolen wordt om bij kinderen een AHI index van 1-5/uur als mild afwijkend, van >5-10/uur als matig afwijkend en >10/uur als ernstig afwijkend te beschouwen.

De werkgroep is van mening dat voor een definitief oordeel of er sprake is van een milde, matige of ernstige OSAS verder in ogenschouw genomen dient te worden:

- de ernst van de klinische klachten 's nachts en overdag;
- de diepte van desaturaties;
- de hoogte van het capillair, arterieel transcutaan of end-tidal gemeten CO₂ waarde;
- de kwaliteit van slaap;
- het aantal arousals en awakenings;
- de aanwezigheid van cardiovasculaire comorbiditeit.

De werkgroep is van mening dat detectie van paradoxale bewegingen van thorax en abdomen (X-flow), de pulse transit time en de hartslagvariabiliteit in bijzondere gevallen aanvullend gebruikt worden om obstructieve apneus vast te stellen.

Literatuur

- American Thoracic Society Standards and indications for cardiopulmonary sleep studies in children Am J Respir Crit Care Med 1996;153:866-878
- AASM manual for the scoring of sleep and associated events. American Academy of Sleep Medicine 2005.
- Brietzke SE, Katz ES, Roberson DW, Brietzke Scott E, Katz Eliot S, Roberson David W. Can history and physical examination reliably diagnose pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome? A systematic review of the literature. Otolaryngology - Head & Neck Surgery 2004;131(6): 827-832.

- Brouillette RT, Morielli A, Leimanis A, Waters KA, Luciano R, Ducharme FM et al. Nocturnal pulse oximetry as an abbreviated testing modality for pediatric obstructive sleep apnea. *Pediatrics* 2000, 105(2): 405-412.
- Carroll J, McColley SA, Marcus CL et al. Inability of clinical history to distinguish primary snoring from obstructive sleep apnea syndrome, *Chest* 108 (1995), pp. 610–618.
- Goldstein NA, Sculerati N, Walsleben JA et al. Clinical diagnosis of pediatric obstructive sleep apnea validated by polysomnography, *Otolaryngol Head Neck Surg* 111 (1994), pp. 611–617.
- Goroza E, Sagy M, Sagy N, Bock K, Goroza Edmund, Sagy Mayer et al. Severity assessment of obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) in pediatric patients. *Clinical Pediatrics* 2009, 48(5): 528-533.
- Guilleminault C, Pelayo R, Clerk A, Leger D, Bocian RC. Home nasal continuous positive airway pressure in infants with sleep-disordered breathing *J Pediatr* 1995;127:905-912
- Halbower AC, Ishman SL, McGinly BM Childhood obstructive sleep-disordered breathing *Chest* 2007;132:2030-2041.
- Jain A, Sahni JK. Polysomnographic studies in children undergoing adenoidectomy and/or tonsillectomy, *J Laryngol Otol* 116 (2002), pp. 711–715.
- Marcus CL, Omlin KJ, Basinski DJ, Bailey SL, Rachal AB, Von Pechmann WS, Keens TG, Ward SL. Normal polysomnographic values for children and adolescents. *Am Rev Respir Dis* 1992; 146: 1235–1239.
- Montgomery-Downs HE, O'Brien LM, Gulliver TE, Gozal D. Polysomnographic characteristics in normal preschool and early school-aged children. *Pediatrics* 2006; 117: 741–753.
- Montgomery-Downs HE, Crabtree VM, Gozal D. Cognition, sleep and respiration in at-risk children treated for obstructive sleep apnoea. *European Respiratory Journal* 2005, 25(2): 336-342.
- New Zealand Guidelines Group Obstructive sleep apnea syndrome in children 2006
- Nieminen P, Tolonen U, Lopponen H. Snoring and obstructive sleep apnea in children: a 6-month follow-up study, *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 124 (2000), pp. 481–486.
- Rosen CL. Clinical features of obstructive sleep apnea hypoventilation syndrome in otherwise healthy children, *Ped Pulm* 27 (1999), pp. 403–409.
- Suen JS, Arnold JE, Brooks LJ. Adenotonsillectomy for treatment of obstructive sleep apnea in children, *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 121 (1995), pp. 525–530.
- Traeger N, Schultz B, Pollock AN, Mason T, Marcus CL, Arens R. Polysomnographic values in children 2–9 years old: Additional data and review of the literature. *Pediatr Pulmonol* 2005; 40: 22–30.
- Uliel S, Tauman R, Greenfeld M, Sivan Y. Normal polysomnographic respiratory values in children and adolescents. *Chest* 2004; 125: 872–878.
- Verhulst SL, Schrauwen N, Haentjens D, Van Gaal L, De Backer WA, Desager KN et al. Reference values for sleep-related respiratory variables in asymptomatic European children and adolescents. *Pediatric Pulmonology* 2007, 42(2): 159-167.
- Witmans MB, Keens TG, Davidson Ward SL, Marcus CL Obstructive hypopneas in children and adolescents: normal values. *Am J Respir Crit Care Med*. 2003 Dec 15;168(12):1540.

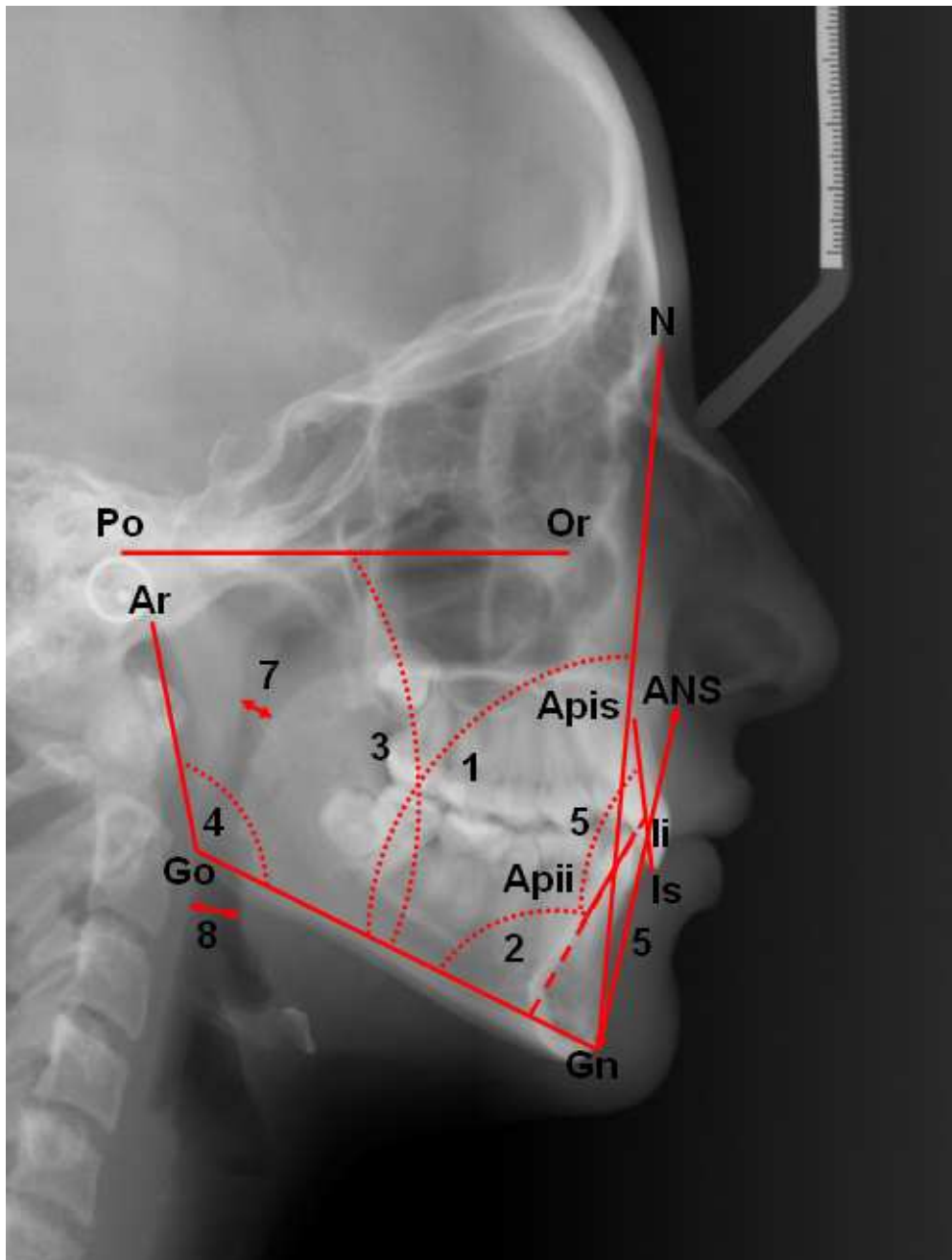
3.8. Diagnose van hypoplasie van middengezicht en/of mandibula van kinderen met OSAS

Inleiding

Hypoplasie van het middengezicht en/of de onderkaak kan aanleiding geven tot obstructies van de bovenste luchtwegen, die OSAS bij kinderen kunnen veroorzaken. Adequate diagnostiek van afwijkingen van de voorachterwaartse en transversale stand van de kaken is

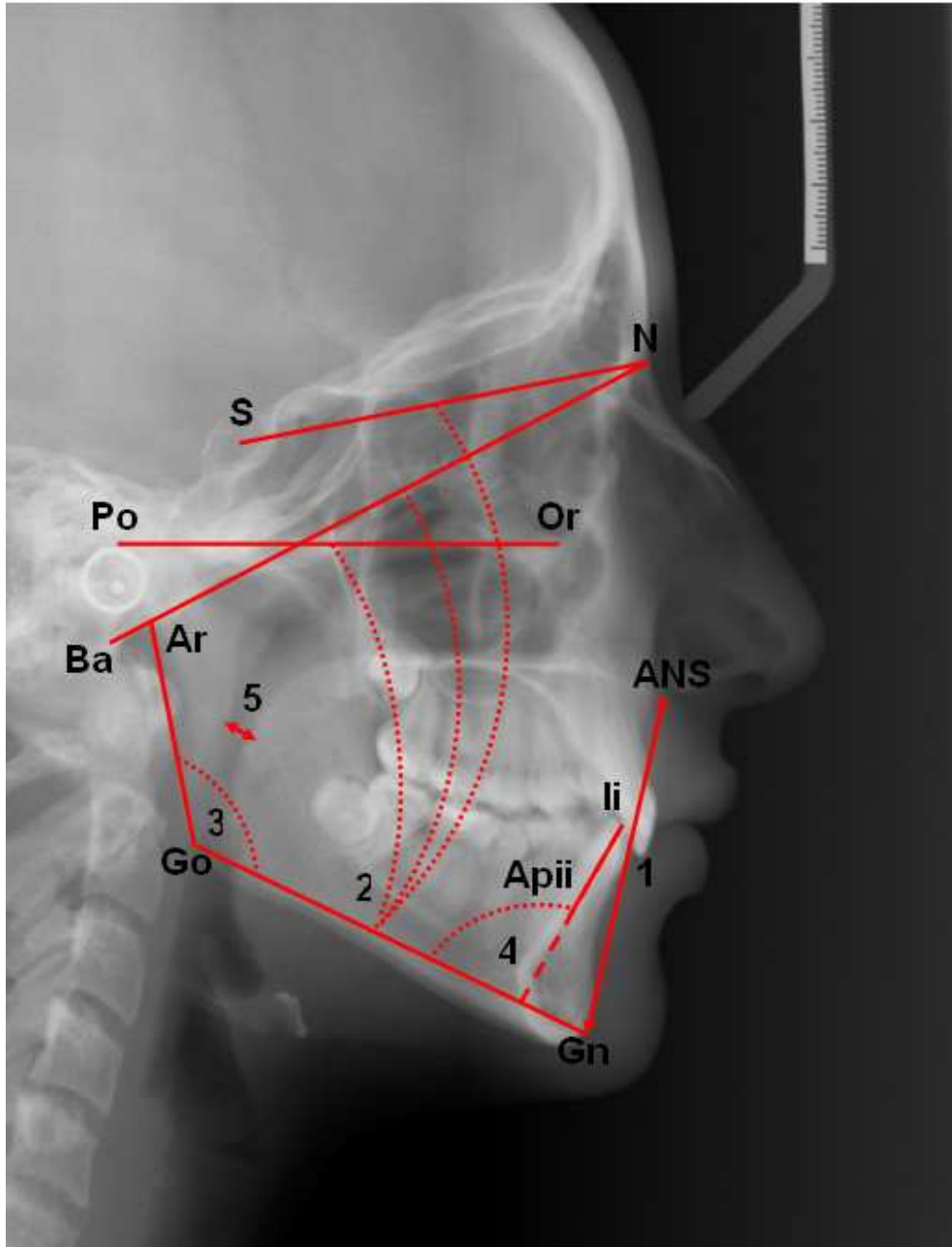
op klinisch en röntgenologisch onderzoek gebaseerd. Er zijn beperkte, niet-gevalideerde, objectieve (anthropometrische) gegevens beschikbaar, die een aanwijzing geven voor hypoplasie van het middengezicht en/of de onderkaak (Van der Haven 1997, Farkas 2003). In deze studies is de relatie tussen hypoplasie van het middengezicht en/of mandibula en OSAS niet onderzocht.

De mate van hypoplasie van middengezicht en/of mandibula kan objectief met behulp van metingen van laterale schedelröntgenfoto's worden vastgesteld. Dit meten van schedelröntgenfoto's wordt cefalometrie genoemd. Op deze laterale schedelröntgenfoto's kunnen tevens de grootte en morfologie van de pharyngeale luchtweg worden onderzocht (zie afbeeldingen 3.8.1 en 3.8.2).



Afb. 3.8.1 Cefalometrische metingen Kawashima et al. (2000).

1. Hoek gezichtsvlak (N-Gn) en mandibulavlak (Go-Gn)
2. Inclinatie onderincisieven (Aii-li/Go-Gn)
3. Mandibulavlakhelling (Go-Gn/Po-Or)
4. Gonionhoek (Ar-Go/Go-Gn)
5. Onderste voorste gelaatshoogte (Gn-ANS)
6. Interincisale hoek (Aii-li/Apis-ls)
7. Nasopharyngeale luchtweg
8. Oropharyngeale luchtweg



Afb. 3.8.2 Significant aan OSAS bij kinderen gerelateerde cefalometrische waarden.

1. Grote onderste voorste gelaatshoogte (Gn-ANS)
2. Grote mandibulavlakhelling (Go-Gn/S-N, Ba-N, Po-Or)
3. Grote gonionhoek (Ar-Go/Go-Gn)
4. Retroclinalie van onderincisieven (Apii-li/Go-Gn)
5. Kleine nasopharyngeale luchtweg

Legenda afb. 3.8.1 en 3.8.2

ANS: Anterior nasal spine (spina nasalis anterior). Meest ventraal gelegen punt van de benige spina nasalis anterior

Apii: Apicale incisor inferius. De apex van de wortel van de meest ventrale centrale onderincisief.

Apis: Apicale incisor superius. De apex van de wortel van de meest ventrale centrale bovenincisief.

- Ar: Articulare. Het snijpunt van de achterrand van de opstijgende tak van de mandibula en de onderrand van de schedelbasis.
- Ba: Basion. Het onderste punt op de voorrand van het foramen magnum.
- Gn: Gnathion. Het punt op de symphysis mandibularis midden tussen het voorste (Pogonion, Pg) en laagste punt van de symphysis mandibularis (Menton, Me).
- Go: Gonion. Het snijpunt van de angulus mandibulae en de bissectrice van de raaklijnen aan de onderrand van de horizontale tak van de mandibula en de achterrand van de opstijgende tak van de mandibula.
- Ii: Incisor inferius. De punt van de kroon van de meest ventrale centrale onderincisief.
- Iu: Incisor superius. De punt van de kroon van de meest ventrale centrale bovenincisief.
- N: Het meest ventraal gelegen punt van de sutura frontonasalis.
- Or: Infra-orbitale. Het onderste punt van de contour van de linker orbitarand.
- PNS: Posterior nasal spine (spina nasalis posterior). Het snijpunt van de verlenging van de achterwand van de fossa pterygopalatina en de neusbodem.
- Po: Porion. Het bovenste punt van de benige porus acusticus externus.
- S: Sella. Het midden van de sella turcica.

Samenvatting van de literatuur

Een literatuursearch werd verricht op de criteria 1) slaapapneu en 2) cefalometrie in de titel. Er werden 112 artikelen gevonden, waarvan er op basis van titel en abstract 17 bruikbaar werden geacht. Studies met aantallen kleiner dan 10 of met kinderen met ernstige comorbiditeit, zoals onder andere Down syndroom, craniofaciale afwijkingen en neurologische aandoeningen, werden geëxcludeerd. Na lezing bleken 4 artikelen geschikt om op te nemen.

In een cefalometrisch onderzoek van Pirilä-Parkkinen (2010) werden 26 kinderen met OSAS vergeleken met een controlegroep van 70 kinderen zonder luchtwegobstructies. In deze studie verschilde de sagittale relatie tussen de boven- en onderkaak (hoek ANB) van kinderen met OSAS significant met die van de controlegroep ($5,7 \pm 2,40$ versus $4,0 \pm 2,1$; $p < 0,01$). Bij kinderen met OSAS zijn de naso- en oropharyngeale luchtweg resp. significant kleiner en groter dan bij kinderen zonder luchtwegobstructies (resp. $p < 0,05$ en $p < 0,01$).

In een studie van Özdemir (2004) werden bij 39 kinderen met OSAS correlaties tussen cefalometrische waarden en de hoogte van de AHI onderzocht. In dit onderzoek waren de schedelbasishoeken (BaSN en BaSPNS), lengte van het mandibulavlak (GnGo), gonionhoek (ArGoGn) en de minimale pharyngeale luchtweg significant negatief met de AHI-score gecorreleerd ($p < 0,001$). De mandibulavlakhelling (BaN-GnGo) en de afstand van os hyoideum tot mandibulavlak waren significant positief met de AHI-score gecorreleerd ($p < 0,001$).

Kawashima (2000) vergeleek in een cefalometrisch onderzoek 15 kinderen met OSAS met een controlegroep van 30 kinderen zonder luchtwegobstructies. In deze studie waren de gezichtsvlak-mandibulavlakhoek en de inclinatie van de onderincisieven bij de kinderen met OSAS in vergelijking met de controlegroep significant kleiner (resp. $p < 0,05$ en $p < 0,001$). De mandibulavlakhelling, gonionhoek, onderste voorste gelaatshoogte en interincisale hoek waren bij de kinderen met OSAS significant groter (resp. $p < 0,01$, $p < 0,001$, $p < 0,001$ en $p < 0,001$). De naso- en oropharyngeale luchtweg bij kinderen met OSAS waren resp.

significant kleiner en groter dan bij de kinderen zonder luchtwegobstructies (resp. $p < 0,05$ en $p < 0,001$).

Zettergren-Wijk (2006) vergeleek cefalometrische dentofaciale variabelen van 17 kinderen met OSAS met die van een controlegroep van 17 kinderen zonder luchtwegobstructies. Zij vonden dat de volgende variabelen bij kinderen met OSAS significant groter waren: mandibulavlakhelling ($p < 0,05$), spinavlakhelling ($p < 0,001$), onderste voorste gelaatshoogte ($p < 0,05$) en voorste gelaatshoogte ratio ($p < 0,05$). Bij de kinderen met OSAS waren de voorste schedelbasislengte ($p < 0,01$), inclinatie van de boven- en onderincisieven (resp. $p < 0,05$ en $p < 0,01$), bovenste en onderste nasopharyngeale luchtweg (resp. $p < 0,001$ en $p < 0,05$), achterste onderste gelaatshoogte ($p < 0,05$) en neusprominentie ($p < 0,05$) significant kleiner.

Conclusie

Niveau 2	Diverse cefalometrische waarden zijn significant aan OSAS bij kinderen gerelateerd. Een grote onderste voorste gelaatshoogte, grote mandibulavlakhelling, grote gonionhoek, retroclinitie van de onderincisieven en een kleine nasopharyngeale luchtweg komen significant vaker voor bij kinderen met OSAS. <i>B Pirilä-Parkkinen 2010, Özdemir 2004, Kawashima 2000, Zettergren-Wijk 2006</i>
-----------------	---

Aanbeveling/conclusie

Aangezien er geen gegevens bekend zijn over de sensitiviteit en specificiteit van cefalometrisch onderzoek als diagnostisch instrument bij het vaststellen of uitsluiten van OSAS, heeft dit onderzoek een beperkte waarde bij de diagnostiek van OSAS.

Literatuur

- Farkas LG, Hreczko TM, Katic MJ, Forrest CR. Proportion indices in the craniofacial regions of 284 healthy North American white children between 1 and 5 years of age. *J Craniofac Surg.* 2003,14(1): 13-28.
- Kawashima S, Niikuni N, Chia-hung L, Takahasi Y, Kohno M, Nakajima I, Akasaka M, Sakata H, Akashi S. Cephalometric comparisons of craniofacial and upper airway structures in young children with obstructive sleep apnea syndrome. *Ear, Nose & Throat Journal* 2000, 79(7): 499-502, 505-6.
- Ozdemir H, Altin R, Söğüt A, Cinar F, Mahmutyazicioğlu K, Kart L, Uzun L, Davşancı H, Gündoğdu S, Tomaç N. Cephalometric evaluation of children with nocturnal sleep-disordered breathing. *Pediatric Radiology* 2004, 34(5): 393-9.
- Pirilä-Parkkinen K, Löppönen H, Nieminen P, Tolonen U, Pirttiniemi P. Cephalometric evaluation of children with nocturnal sleep-disordered breathing. *European Journal of Orthodontics* 2010, Mar 19 [Epub ahead of print].
- Van der Haven I, Mulder JW, van der Wal KG, Hage JJ, de Lange-de Klerk ES, Haumann TJ. The jaw index: new guide defining micrognathia in newborns. *Cleft Palate Craniofac J.* 1997,34(3): 240-1.

- Zettergren-Wijk L, Forsberg CM, Linder-Aronson S. Changes in dentofacial morphology after adeno-/tonsillectomy in young children with obstructive sleep apnoea - a 5-year follow-up study. *European Journal of Orthodontics* 2006, 28(4): 319-26.

HOOFDSTUK 4: CHIRURGISCHE THERAPIE VAN OSAS BIJ KINDEREN EN DE COMPLICATIES/RISICO'S

4.1. ATE

Inleiding

Voor de KNO arts is het op basis van de (hetero) anamnese lastig om de diagnose OSAS bij kinderen definitief te stellen. Bij een vermoeden op OSAS volgt meestal een adenotonsillectomie. Deze ingreep is in de keel-neus-oorheelkundige praktijk de meest verrichte ingreep ter behandeling van een vermoeden op OSAS.

4.1.1. *Bij welke patiënten is behandeling met ATE geïndiceerd?*

Bij deze uitgangsvraag is gekeken naar chirurgische ingrepen in het KNO gebied die kunnen worden verricht bij de behandeling van of bij de sterke verdenking op OSAS bij kinderen.

In deze subvraag is met name gekeken naar de effectiviteit van de adenotonsillectomie bij de behandeling van OSAS en in die groepen waar de incidentie en prevalentie hoger zijn. In de subvraag 2.2 wordt de prevalentie per groep behandeld.

De groepen waarin naar de effectiviteit van de adenotonsillectomie is gekeken zijn:

- a. kinderen met OSAS zonder comorbiditeit;
- b. kinderen met OSAS en obesitas;
- c. kinderen met OSAS en milde comorbiditeit;
- d. kinderen met OSAS en ernstige comorbiditeit, zoals onder andere Down syndroom, craniofaciale afwijkingen, neurologische aandoeningen, Prader-Willi en mucopolysacharidosen.

Samenvatting van de literatuur

Met behulp van MESH termen werd een search verricht naar artikelen in de periode 1994-2009. Op basis van de abstracts werden 40 studies geselecteerd waaronder 4 meta-analyses, die allen gebruikt zijn voor de wetenschappelijke onderbouwing van deze uitgangsvraag. In het merendeel van deze studies werd zowel een pre- als postoperatief polysomnogram gebruikt. Studies met aantallen kleiner dan 10 werden in de regel geëxcludeerd. De meeste studies waren prospectieve cohortonderzoeken. Er werden geen gerandomiseerde trials gevonden die de uitgangsvraag beantwoordden.

Adenotonsillectomie (ATE) bij kinderen met OSAS zonder comorbiditeit

Uit de studies van Nieminen (2002), Ameli (2007) en Mora (2003) blijkt dat een adenotonsillectomie effectiever is in het verhelpen van klachten van snurken en andere OSAS gerelateerde klachten dan een adenotomie alleen.

Nieminen beschrijft 21 kinderen die een AHI hadden die pre-operatief groter was dan twee. Bij 71% (n=15) kinderen had een adenotomie alleen geen effect op de obstructieve symptomen. Bij alle 21 kinderen verdwenen de obstructieve klachten en normaliseerde de AHI (AHI <1) na het ondergaan van een ATE.

Ameli (2007) beschrijft in een prospectief cohortonderzoek 118 kinderen met OSAS (selectie op basis van een OSAS- vragenlijst, algeheel slaaponderzoek, orthodontische en laryngeaal onderzoek). Uit deze studie bleek 80% van de kinderen, onafhankelijk van tonsilgrootte, op basis van een post/operatieve vragenlijst te profiteren van een adenotonsillectomie; 6,8 % bleef snurken zonder apneus en bij 12,7 % bleven OSAS symptomen bestaan.

Soortgelijke bevindingen kwamen naar voren in de studie van Mora (2003) die 40 kinderen beschrijft (2 tot 14 jaar) met tonsillaire hypertrofie en een bewezen OSAS. Alle kinderen ondergingen pre- en post operatief een PSG. In 37 van de kinderen was er een volledige verbetering van de OSAS (AHI < 1,0) na adenotonsillectomie. Bij 3 kinderen werd een partiële verbetering vastgesteld middels polysomnografie. De gemiddelde saturaties stegen van 79% naar 95%. De subjectieve schaal van symptomen daalde van 3,0 naar 0,41.

In de prospectieve studie van Guilleminault (2007) ondergingen 202 kinderen zonder comorbiditeit met een, middels PSG bewezen OSAS, allen een adenotonsillectomie. Bij 46% van de kinderen was de gemiddelde AHI postoperatief groter dan 1 (gemiddelde AHI=3,1). Er was een correlatie tussen persisteren van een afwijkend polysomnogram en Mallampati score 3 en 4; afwijkingen van het septum en grote conchae inferiores waren mogelijk gerelateerd aan de aanwezigheid van een allergie. De auteurs merken op dat het aantal adipeuze kinderen zeer klein was. Tevens werden verschillende chirurgische technieken al dan niet gecombineerd en door verschillende chirurgen toegepast.

Brooks (1998) keek in een prospectieve studie (n=33) naar de relatie tussen de gemeten grootte van het adenoid en het aantal en duur van de apneus. Een correlatie ($p < 0,01$) tussen het aantal apneus en grootte van het adenoid en tonsillen was afwezig. Een correlatie tussen de duur van de apneus en de grootte van het adenoid was wel aanwezig.

Shintani (1998) (n=134) vond in een vergelijking tussen een adenotomie en/of tonsillectomie en de apneu-hypopneu index een significante verbetering van het aantal apneus voor zowel de adenotomie als de tonsillectomie als de combinatie van beide ingrepen.

Qua techniek zijn er aanwijzingen dat er geen significant verschil was in de postoperatieve AHI wanneer de tonsillectomie en tonsillotomie met elkaar werden vergeleken; wel was de postoperatieve pijn in de tonsillotomie groep lager (n=29 prospectief case control, de la Chaux 2008).

Greenfeld (2003) beschrijft een groep van 29 kinderen onder de 18 maanden met een bewezen OSAS door een obstruerend adenoid en tonsillen. De OSAS werd geëvalueerd middels een pre-operatief PSG. Alle kinderen ondergingen een ATE. OSAS verdween als de AHI onder de 1 daalde. De groep die pre-operatief klachten had kenmerkte zich meer door een gewichtsafname, ontwikkelingsachterstand, mannelijk geslacht, prematuritas. Bij deze groep trad later in 26% van de kinderen wederom een OSAS syndroom op.

Naast de behandeling van OSAS bij kinderen zijn er meerdere studies die aangeven dat er additionele effecten te verwachten zijn van een adenotonsillectomie:

Een prospectief uitgevoerde studie door Tarasiuk (2004) laat zien blijkt dat na een ATE bij kinderen met OSAS 60% minder opnamen plaats vinden. Meerdere studies bevestigen dat de quality of life op zowel korte (Mitchell 2005, de Serres 2002) als lange termijn (Baldaseri 2007, Mitchell 2006, Diez Montel 2006) verbeteren na een ATE.

Ook neurocognitief functioneren en slaapkarakteristieken verbeteren gemiddeld zo'n 6-10 maanden na de ATE (Friedman 2003). Gedragmatig werden er ook verbeteringen

gevonden aansluitend aan een adenotonsillectomie (Mitchell 2005). Deze verbeteringen waren onafhankelijk van leeftijd, opvoeding, ouderlijk inkomen alsmede AHI. Een adenotonsillectomie heeft ook een positieve invloed op enuresis klachten (Weisbach 2006).

Systematische reviews

Er zijn twee systematische reviews (Brietzke 2006, Friedmann 2009) gevonden die het effect van de adenotonsillectomie op OSAS parameters onderzochten bij kinderen met OSAS zonder comorbiditeit.

Brietzke (2006) deed een systematisch review (PUBMED, EMBASE, Cochrane library 1980-2005) van studies die zowel pre- als postoperatief het effect van de adenotonsillectomie onderzochten op de parameters van OSAS. Inclusiecriteria waren zowel een adenotomie als een tonsillectomie in combinatie met een leeftijd onder de 18 jaar en een pre- en postoperatief verricht PSG. Exclusiecriteria waren craniofaciale syndromen, morbide obesitas en neuromusculaire aandoeningen. Alle 14 studies, met hierin 355 patiënten waren case studies die zich kenmerkten door een grote heterogeniteit in de OSAS criteria die leidden tot een diagnose voor OSAS bij kinderen. Ook waren er verschillende chirurgische technieken gebruikt.

Brietzke concludeerde dat na adenotonsillectomie:

1. een gemiddelde AHI daling van 16,8 naar 2,42 optreedt;
2. de AHI bij 82,9% kleiner dan 1 wordt.

De meta-analyse van Brietzke (2006) impliceert derhalve dat een adenotonsillectomie bij de behandeling van gezonde kinderen met OSAS, nooit de 100% succes haalt, zelfs rekening wanneer rekening gehouden wordt met verschillende definities van OSAS,

In de tweede meta-analyse van Friedman (2009) waren inclusie criteria een leeftijd onder de 20 jaar; een pre- en postoperatief PSG waarbij de preoperatieve PSG afwijkend moest zijn. In deze studie werden wel kinderen met obesitas geïnccludeerd. Craniofaciale en neuromusculaire aandoeningen werden geëxcludeerd. In totaal werden 1079 patiënten geïnccludeerd met een gemiddelde leeftijd van 6,5 jaar en 42 patiënten per geïnccludeerde studie. Het totaal aantal kinderen met een postoperatieve AHI lager dan 1 was 59,8 %; bij een cut-off AHI lager dan 5 was dit 66,3%.

In de studie van Friedman (2009) daalde de AHI bij kinderen met OSAS zonder de hierboven beschreven comorbiditeit met 11,7; bij 73,8% kwam de AHI onder 1,0. Bij kinderen met comorbiditeit daalde de AHI met gemiddeld 22,0; bij 38,7% kwam de postoperatieve AHI onder de 1.

In beide studies werd het verdwijnen van OSAS gedefinieerd door een postoperatieve AHI kleiner dan 1.

Friedman's getallen zijn om twee redenen betrouwbaarder: ze geven een beter beeld van de doorsnede pediatrische populatie, waar reeds 15% van de kinderen obesitas heeft. Daarnaast is de studiepopulatie groter. De slagingspercentages liggen in deze studie ruim 20% lager in vergelijking met de meta-analyse van Brietzke.

In de Cochrane review van Lim (2008) naar de efficiëntie van de verschillende technieken adenotonsillectomie bij de behandeling van OSAS bij kinderen voldeed 1 studie aan de criteria van een randomized controle studie (Coticchia 2006). De inclusiecriteria waren: al

dan niet dubbelblind, A, T, ATE, leeftijd onder de 16 jr; $AHI > 5$. De primaire uitkomstmaat was het aantal apneus en hypopneus per uur. Dit artikel geeft geen evidence voor een daadwerkelijk verschil in AHI's tussen de klassieke "koude" adenotonsillectomie versus de temperatuur gereguleerde radiofrequente adenotonsillectomie.

Er zijn geen studies bekend die vergelijken tussen niets doen en een adenotonsillectomie alleen.

Kinderen met OSAS en obesitas

Inleiding

De incidentie van obesitas bij kinderen neemt de afgelopen 2 decaden toe. Bij kinderen geldt dat een BMI stijging van 1 punt gepaard gaat met 12% meer kans op een OSAS. Kinderen met obesitas en OSAS hebben in vergelijking met kinderen met een normaal gewicht en OSAS vaker een hogere AHI en meer hypopneus alsmede een hoger aantal slaap-arousels en een kortere REM slaap; zij vormen hiermee de kinderen met de ernstigste vormen van OSAS. Over het effect van een adenotonsillectomie in kinderen met obesitas en OSAS zijn geen randomized control studie (RCT's) gevonden. In veel studies ontbreekt het zowel aan follow-up door middel van polysomnografie alsmede een beoordeling van de postoperatieve periode.

Samenvatting van de literatuur

Er werd 1 meta-analyse (Costa 2008) gevonden die slaapparameters beschrijft in kinderen met obesitas en OSAS voor en na adenotonsillectomie. Hierin worden 4 artikelen samenvat (Mitchel 2004, 2007, Shine 2005, O'Brien 2006, Taumann 2006) die ook separaat in de search werden gevonden. De resultaten van deze meta-analyse waren:

1. Na een adenotonsillectomie daalt de AHI gemiddeld met 18,3.
2. Bij 49% van de kinderen bleef de post-operatieve $AHI < 5$; bij 25% beneden de 2, en bij 12% was de postoperatieve AHI lager dan 1. Bij een OSAS definitie met een $AHI < 1$ persisteert de OSAS in 88%.

In een retrospectieve cohort studie (Soulтан 1999) van 45 kinderen, waarvan 17 met obesitas blijkt dat bij 62% van de kinderen er postoperatief een toename van gewicht optreedt. Bij de kinderen met obesitas en morbide obesitas trad in 65% een toename van de BMI op aansluitend aan een ATE.

Kinderen met OSAS en het syndroom van Down en kinderen met ernstige comorbiditeit

Veel studies bij kinderen met het syndroom van Down gaan uit van resultaten op basis van heteroanamnese van de ouders. In de search werden veel artikelen gevonden met kleine patiënten aantallen ($n < 10$). Vier studies voldeden aan de criteria van de zoekstrategie zoals eerder beschreven.

Uit een retrospectieve studie van Jacobs (1996) waarbij meerdere vormen van chirurgie werden vergeleken bij 55 kinderen met het syndroom van Down en OSAS, bleek dat bij 50% de OSAS verbeterde na een tonsillectomie, adenotomie of beiden. Vier kinderen werden tracheotomie afhankelijk.

In een studie van Lefaivre (1999) met 7 kinderen waren de subjectief gemeten resultaten beter (100% succes) na uitgebreide multilevel-chirurgie.

In een retrospectieve studie van Bower (1995) met 16 kinderen blijkt dat bij 69% van de kinderen met het syndroom van Down en OSAS verbetering optrad na adenotonsillectomie. Postoperatief had 25% een nachtelijke observatie na de ingreep in het ziekenhuis nodig.

In een retrospectief opgezette studie van Merrel (2007) werden kinderen met het syndroom van Down verdeeld in twee groepen.

In de 1e groep (n=21; ingreep adenotonsillectomie) had 48% van de kinderen postoperatief nog een verhoogde AHI (67% inclusief hypoxemie en hypercapnie). In de 2e groep (n=16; adenotonsillectomie met laterale pharyngoplastiek) was dit 63% (75% inclusief hypoxie en hypercapnie). Na de adenotonsillectomie heeft 33% van de kinderen met het syndroom van Down een normaal PSG (ook rekening houdende met de hypoxemie en hypercapnie). Als alleen naar de AHI zou worden gekeken normaliseert de AHI in 52% van de kinderen met het syndroom van Down die een ATE ondergingen. Een laterale pharyngoplastiek geeft hierin geen verbetering vergeleken met de standaard ATE.

Door Marcus (1991) werd ook pre- als postoperatief een PSG verricht bij kinderen met Down syndroom die een ATE (n=8) ondergingen. Bij 38% (n=3) van de kinderen waarbij een adenotonsillectomie werd verricht normaliseerde het polysomnogram.

In een groep van 27 kinderen met Down syndroom met een persisterend OSAS na adenotonsillectomie blijkt in vergelijking met gezonde kinderen dat er een verschil in grootte aanwezig is van de tongtonsillen (33%) (Donnelly 2003). In ongeveer 63% van de kinderen bleek er ook sprake te zijn van recidief of residu adenoid weefsel.

Kinderen met neurologische aandoeningen

Er zijn ter beantwoording van de uitgangsvraag geen gerandomiseerde of meta-analyses gevonden, maar slechts patiënt controle of cohortstudies en case series. De vier studies die werden gevonden hadden als criterium de kans om een tracheotomie te voorkomen en niet het succespercentage van de adenotonsillectomie. In de meeste studies was het beoordelen van de postoperatieve resultaten subjectief en werd geen standaard PSG verricht.

In een prospectief opgezette studie (n=27) van Magardino (1999) verbeterden in ongeveer 84% van de gevallen de OSAS klachten, na een mediane follow-up van 34 maanden, na het verrichten van een adenotonsillectomie met of zonder uvulectomie. Deze cijfers komen overeen met de cijfers in de populatie gezonde kinderen met een OSAS; de verbetering van de OSAS klachten werd overigens wel gedefinieerd als het percentage kinderen dat geen tracheotomie kreeg.

In de studie van Kosko (1995) blijkt dat 80% van de kinderen “opknapt” na een adenotonsillectomie in combinatie met een verhemelte ingreep. Deze verbetering werd subjectief gemeten; bij twee patiënten vond postoperatief een PSG plaats.

Ook de studie van Kerschner (2002) toont goede resultaten (n=15). Bij 87% wordt een tracheotomie voorkomen (bij kinderen met een hersenbeschadiging) door middel van een UPPP. Bij 50% van deze kinderen vond een PSG postoperatief plaats. Meestal werd de verbetering gerapporteerd op basis van subjectieve kenmerken en verbetering van postoperatieve saturaties. Bij ongeveer 25% van de kinderen bleek uiteindelijk een extra ingreep nodig om het luchtwegprobleem te behandelen.

De enige studie die gebruik maakt van zowel een pre- als postoperatief PSG is de studie van Cohen (1997) bij kinderen (n=18) met een hersenbeschadiging. In al deze kinderen vond "agressieve multi-level" chirurgie plaats ten einde een tracheotomie te voorkomen. Bij een follow-up duur van mediaan 30 maanden kon bij 83% van de kinderen een tracheotomie worden voorkomen.

Kinderen met craniofaciale en syndromale aandoeningen

In een reeds eerder gerefereerde studie van Shintani (1997) blijkt er een positieve correlatie te bestaan tussen de groep kinderen die slecht respondeert op een adenotonsillectomie en een onderontwikkelde mandibula en maxilla.

In Crouzon, Apert, Pfeiffer en Saethre-Chatzen syndroom is met name de deformatie van het middengezicht en de maxillaire hypoplasie verantwoordelijk voor de vernauwing van de nasopharyngeale luchtweg. De mandibulaire hypoplasie bij Treacher Collins, Goldenhar en Pierre Robin geeft een hypopharyngeale obstructie. De gerapporteerde incidentie van OSAS in deze syndromen varieert tussen de 12,5 % (Pierre Robin) tot 40% in Apert, Crouzon en Pfeiffer syndroom. In mucopolysacharidosen is de incidentie rond de 90%.

De enige studie die het effect beschrijft van alleen een adenotonsillectomie op OSAS bij syndromale craniosynostosis is die van Amonoo-Koufi (2009). Van 25 kinderen in deze studie waren er zowel pre- als postoperatief slaapegegevens aanwezig. Alhoewel er geen registratie van het aantal apneus was, werd als criterium in deze studie de afname van het aantal saturatie dips gehanteerd (criterium > 4 %).

Bij 60% van de kinderen verbeterde deze parameter significant. De gemiddelde ademfrequentie, saturaties en polsslag veranderden niet significant na een adenotonsillectomie.

Een case studie van Pavone (2005) naar de effecten van een ATE op OSAS bij Prader Willi syndroom toonde bij alle kinderen een significante vermindering aan van de apneuhypopneu index ($p < 0,009$). De auteurs vermelden niet of later CPAP nodig was. Wel was de incidentie van postoperatieve complicaties (met name reintubatie) uitermate hoog met 80%.

Alhoewel OSAS zeer frequent aanwezig is bij mucopolysacharidosen werden er in de literatuur geen artikelen gevonden over het nut van een adenotonsillectomie bij deze aandoening.

Conclusies

Adenotonsillectomie in kinderen met OSAS zonder comorbiditeit

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat de AHI daalt bij alle patiënten die een adenotonsillectomie ondergaan. <i>C Brietzke 2006, Mitchell 2003, 2004, 2007</i>
-----------------	--

Niveau 2	<p>Er zijn aanwijzingen dat bij 60-80 % van kinderen met OSAS zonder comorbiditeit die een adenotonsillectomie ondergaan de postoperatieve AHI lager dan 1 wordt.</p> <p><i>B Mitchell 2003, 2004, 2007, Friedmann 2009</i> <i>C Brietzke 2006, Guilleminault 2007</i></p>
-----------------	---

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat er geen correlatie bestaat tussen de grootte van het adenoid en het aantal apneus bij gezonde kinderen zonder comorbiditeit.</p> <p><i>C Brooks 1998</i></p>
-----------------	--

Adenotonsillectomie bij kinderen met obesitas en OSAS

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat OSAS in 55-76% persisteert bij kinderen met adipositas die een adenotonsillectomie ondergaan.</p> <p><i>C Costa 2009, Tauman 2006, O'Brien 2006, Mitchell 2004, Kelly 2004</i></p>
-----------------	--

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat bij 65% van de kinderen met obesitas en morbide obesitas een toename van de BMI optreed aansluitend aan een adenotonsillectomie.</p> <p><i>C Sulttan 1998</i></p>
-----------------	---

Adenotonsillectomie bij kinderen met OSAS en het syndroom van Down syndroom of met ernstige comorbiditeit

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat OSAS bij 37-52% van de kinderen met Down syndroom na een adenotonsillectomie verdwijnt.</p> <p><i>C Merrel 2007</i></p>
-----------------	---

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat bij kinderen met het syndroom van Down multi-level obstructies een belangrijke rol spelen. Vooral de tongbasis en tongtonsillen lijken hier een belangrijke rol te spelen.</p> <p><i>C Donnelly 2003, 2004</i></p>
-----------------	--

Niveau 3	<p>Uitgebreide multi-level chirurgie in mentaal geretardeerde kinderen met OSAS kan in 75-87% een tracheotomie of additionele luchtwegingreep voorkomen.</p> <p><i>C Cohen 1997, Kerschner 2002</i></p>
-----------------	---

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat een adenotonsillectomie met of zonder uvulectomie bij mentaal geretardeerde kinderen in 80-85% een tracheotomie kan voorkomen. <i>C Kosko 1995, Magardino 1999</i>
-----------------	--

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat bij kinderen met craniosynostosis syndromen en OSAS een adenotonsillectomie in 60% nachtelijke saturatie dips vermindert. <i>C Amonoo-Koufi 2009</i>
-----------------	--

Overige overwegingen

De bevindingen die gevonden werden in de literatuur komen overeen met de algemene opvatting dat bij verdenking op een obstructief slaap-apneu syndroom de 1e keus van behandeling vaak een adenotonsillectomie is. Of deze behandeling ook daadwerkelijk moet worden uitgevoerd is afhankelijk van de inschatting van de behandelend KNO-arts. Het zou verhelderend zijn wanneer er onderzoek verricht zou worden naar het natuurlijk beloop van OSAS bij kinderen zonder comorbiditeit, zodat wellicht in de toekomst duidelijk wordt bij welke kinderen deze ingreep noodzakelijk is om pathologie op de lange termijn te voorkomen. Toch lijkt bij een relatief groot percentage kinderen (20-46%) die anamnestic worden verdacht van een obstructief slaap apneu syndroom, postoperatief nog soortgelijke klachten aanwezig. Vooral voor kinderen met Down syndroom en adipeuze kinderen lijkt dit duidelijker aanwezig.

Bij kinderen met OSAS zonder comorbiditeit lijkt het aandeel van neusobstructie (deviërend septum, allergie, forse conchae inferiores) bij het persisteren postoperatieve polysomnografische afwijkingen een mogelijk belangrijke factor te zijn.

De KNO-arts dient zich te realiseren dat bij een postoperatieve controle de (hetero)anamnese onbetrouwbaar is. Juist hiervoor is er in de toekomst behoefte aan het ontwikkelen van een goed, eenvoudig postoperatief polysomnogram of topische diagnostiek (bijvoorbeeld pre-operatief of door middel van slaapnasopharyngoscopie) van het snurkprobleem.

Alle auteurs suggereren dat bij gezonde kinderen een postoperatief PSG moet worden verricht bij kinderen die niet verbeteren na een adenotonsillectomie. Bij kinderen met adipositas, craniofaciale aandoeningen, neuromusculaire aandoeningen of het Down syndroom zou er zowel een pre- als postoperatief PSG moeten plaatsvinden.

Bij de craniofaciale syndromen is de behandeling van OSAS vaak noodzakelijk op meerdere niveaus in de luchtweg, waarbij het effect van een adenotonsillectomie alleen in de regel lager is (Hoeve 2002).

Additionele behandelingsstrategieën dienen, reeds in de preoperatieve fase, gericht te zijn op de behandeling van eventueel aanwezig overgewicht.

Er is duidelijke behoefte aan gerandomiseerde trials die onderzoeken in hoeverre kinderen preoperatief kunnen worden gescreend op de aanwezigheid van OSAS. Deze overwegingen gelden met name voor kinderen met het syndroom van Down en kinderen met adipositas. Tevens dient er meer nadruk te zijn op het uitsluiten van pathologie in de neus en het

aantonen van een mogelijke allergie. Het gestandaardiseerd toepassen van de Mallampati score zou mogelijk als een goed preoperatief diagnosticum ook bij kinderen kunnen worden toegepast. Het lijkt erop dat deze classificatie met name geschikt is bij kinderen met adipositas.

Deze cijfers benadrukken dat preoperatief een inschatting gemaakt moet worden welke kinderen met obesitas tot de groep van 12-25% van de kinderen behoren, die een positief effect kunnen ondervinden van een ATE en bij welke groep kinderen altijd een postoperatief PSG geïndiceerd is. Voor het groeiende probleem van obesitas zal het belangrijk worden om gestructureerd de mogelijkheid te kunnen bieden tot een diagnostisch traject voor OSAS.

In het in 2010 verschenen artikel van Bhattacharjee wordt inmiddels getracht deze vraag te beantwoorden middels een multicenter retrospectieve studie die 578 kinderen includeerde, waarbij allen een adenotonsillectomie ondergingen inclusief een pre- en postoperatief polysomnogram. Van deze groep kinderen had 50,6% obesitas (>95th percentiel BMI). De auteurs constateren dat bij 27,2% van de kinderen de AHI lager werd dan 1. Bij 21,6% van de kinderen was de AHI groter dan 5. Een verhoogde postoperatieve AHI van meer dan 5 correleerde significant ($p < 0.001$) met een leeftijd ouder dan 7 en de BMI; een minder duidelijke correlatie was aanwezig bij astma en een hoge preoperatieve AHI bij kinderen zonder obesitas. De auteurs concluderen derhalve dat bij kinderen met OSAS die een adenotonsillectomie ondergaan oudere kinderen, kinderen met obesitas, kinderen zonder obesitas met astma en bij kinderen met preoperatief ernstig OSAS een postoperatief polysomnogram geïndiceerd moet zijn.

Aanbevelingen

Bij kinderen met OSAS zonder comorbiditeit is een (adeno)tonsillectomie (ATE) de eerste keus om de slaapperelateerde klachten te verminderen.

De KNO-arts zal zich bij de postoperatieve controle moeten vergewissen of de OSAS symptomatologie verbeterd is.

Behoudens de groep kinderen met OSAS zonder comorbiditeit zal er speciale aandacht moeten zijn voor de groep kinderen met obesitas, het syndroom van Down en bij oudere kinderen.

Bij gezonde kinderen met OSAS die ondanks een (adeno)tonsillectomie klachten blijven houden, dient een verbeterde postoperatieve screening ontwikkeld te worden. Ook dient er aandacht te zijn voor de rol van de neus en de onder- en bovenkaak bij kinderen die zowel anamnestic of middels een postoperatief polysomnogram persisterende OSAS blijven houden.

Literatuur

- Ameli F, Brocchetti F, Semino L, Fibbi A, Ameli Franco, Brocchetti Fabio et al. Adenotonsillectomy in obstructive sleep apnea syndrome. Proposal of a surgical decision-taking algorithm. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2007, 71(5): 729-734.
- Amonoo-Kuofi K, Phillips SP, Randhawa PS, Lane R, Wyatt ME, Leighton SE et al. Adenotonsillectomy for sleep-disordered breathing in children with syndromic craniosynostosis. *Journal of Craniofacial Surgery* 2009, 20(6): 1978-1980.

- Bhattacharjee R, Kheirandish-Gozal L, Spruyt K, Mitchell R, Promchiarak J, Simakajornboon N, Kaditis AG et al. Adenotonsillectomy outcomes in treatment of obstructive sleep apnea in children. *Am J. Respir Crit Care Med*: 2010, 182:676-683.
- Baldassari CMM. Pediatric obstructive sleep apnea and quality of life: A meta-analysis. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2008, 138(3): 265-273.
- Bower CM, Richmond D, Bower CM, Richmond D. Tonsillectomy and adenoidectomy in patients with Down syndrome. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 1995, 33(2): 141-148.
- Brietzke SEG. The effectiveness of tonsillectomy and adenoidectomy in the treatment of pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome: A meta-analysis. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2006, 134(6): 979-984.
- Brooks LJ, Stephens BM, Bacevice AM, Brooks LJ, Stephens BM, Bacevice AM. Adenoid size is related to severity but not the number of episodes of obstructive apnea in children. *Journal of Pediatrics* 1998, 132(4): 682-686.
- Cohen SR, Lefaivre JF, Burstein FD, Simms C, Kattos AV, Scott PH et al. Surgical treatment of obstructive sleep apnea in neurologically compromised patients. *Plastic & Reconstructive Surgery* 1997, 99(3): 638-646.
- Costa DJ, Mitchell R, Costa Dary J, Mitchell Ron. Adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in obese children: a meta-analysis. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 2009, 140(4): 455-460.
- Coticchia JM, Yun RD, Nelson L, Koempel J, Coticchia James M, Yun Romy D et al. Temperature-controlled radiofrequency treatment of tonsillar hypertrophy for reduction of upper airway obstruction in pediatric patients. *Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery* 2006, 132(4): 425-430.
- Dayyat E, Kheirandish-Gozal L, Sans Capdevila O, Maarafeya MM, Gozal D, Dayyat Ehab et al. Obstructive sleep apnea in children: relative contributions of body mass index and adenotonsillar hypertrophy. *Chest* 2009, 136(1): 137-144.
- De la Chaux, Klemens C, Patscheider M, Reichel O, Dreher A. Tonsillotomy in the treatment of obstructive sleep apnea syndrome in children: Polysomnographic results *Int. J. of Pediatric Otorhinolaryngol*: 2008; 72, 1411—1417.
- De Serres LM, Derkay C, Sie K, Biavati M, Jones J, Tunkel D et al. Impact of adenotonsillectomy on quality of life in children with obstructive sleep disorders. *Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery* 2002, 128(5): 489-496.
- Diez-Montiel A, de Diego JI, Prim MP, Martin-Martinez MA, Perez-Fernandez E, Rabanal I et al. Quality of life after surgical treatment of children with obstructive sleep apnea: long-term results. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2006, 70(9): 1575-1579.
- Donnelly LFS. Causes of persistent obstructive sleep apnea despite previous tonsillectomy and adenoidectomy in children with down syndrome as depicted on static and dynamic cine MRI. *American Journal of Roentgenology* 2004, 183(1): 175-181.
- Friedman BC, Hendeles-Amitai, A , Kozminsky, Leiberman, A, Friger M, Tarasiuk A, Tal A. Adenotonsillectomy Improves Neurocognitive Function in Children with Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Sleep*; 2003; 26, 8, 999-1004.
- Friedman M, Wilson M, Lin HC, Chang HW, Friedman Michael, Wilson Meghan et al. Updated systematic review of tonsillectomy and adenoidectomy for treatment of pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 2009, 140(6): 800-808.
- Greenfeld M, Tauman R, Derowe A, Sivan Y, Greenfeld Michal, Tauman Riva et al. Obstructive sleep apnea syndrome due to adenotonsillar hypertrophy in infants. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2003, 67(10): 1055-1060.

- Guilleminault C, Huang YS, Glamann C, Li K, Chan A, Guilleminault Christian et al. Adenotonsillectomy and obstructive sleep apnea in children: a prospective survey. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 2007, 136(2): 169-175.
- Hoeve H Pijpers M, Joosten K. OSAS in craniofacial syndromes : an unsolved problem. *International Journal of pediatric otorhinolaryngology* 2003;67S1; S111-S113.
- Hultcrantz E, Linder A, Markstrom A, Hultcrantz E, Linder A, Markstrom A. Tonsillectomy or tonsillotomy?--A randomized study comparing postoperative pain and long-term effects. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 1999, 51(3): 171-176.
- Jacobs IN, Gray RF, Wendell Todd N. Upper Airway Obstruction in Children with Down Syndrome. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 1996;122:945-950
- Kerschner JE, Lynch JB, Kleiner H, Flanary VA, Rice TB, Kerschner Joseph E et al. Uvulopalatopharyngoplasty with tonsillectomy and adenoidectomy as a treatment for obstructive sleep apnea in neurologically impaired children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2002, 62(3): 229-235.
- Kosko JR, Derkay CS. Uvulopalatopharyngoplasty: treatment of obstructive sleep apnea in neurologically impaired pediatric patients. *International Journal of Pediatric patients* 1995;32;241-246.
- Lim J, McKean M, Lim J, McKean M. Adenotonsillectomy for obstructive sleep apnoea in children. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2003,(1).
- Magardino TM, Tom LW Surgical Management of Obstructive Sleep Apnea in Children With Cerebral Palsy. *Laryngoscope*, 1999;109, 1611-1615.
- Marcus CL, Keens TG, Bautista, DB. Obstructive sleep apne u in children with Down syndrome. *Pediatric* 1991, 88, 132 pp 121-123.
- Merrel JA, Shott SR. OSAS in Down syndrome: T&A versus T&A plus lateral pharyngoplasty *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* (2007) 71, 1197—1203.
- Mitchell RBK. Adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in obese children. *Otolaryngology Head and Neck Surgery* 2004, 131(1): 104-108.
- Mitchell RBK. Long-term changes in behavior after adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea syndrome in children. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2006, 134(3): 374-378.
- Mitchell RBK. Outcome of adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in obese and normal-weight children. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2007, 137(1): 43-48.
- Mitchell RBK. Quality of life after adenotonsillectomy for SDB in children. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2005, 133(4): 569-572.
- Mitchell RB, Kelly J. Child Behavior after Adenotonsillectomy for Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Laryngoscope* 2005;115:2051-2055
- Mitchell RB, Kelly J. Behavioral changes in children with mild sleep-disordered breathing or obstructive sleep apnea after adenotonsillectomy. *Laryngoscope* 2007, 117(9): 1685-1688.
- Mitchell RB, Kelly J. Outcome of adenotonsillectomy for severe obstructive sleep apnea in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2004, 68(11): 1375-1379.
- R. Mora, A. Salami, F.M. Passali, F. Mora, M.P. Cordone, S. Ottoboni, M. Barbieri. OSAS in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* (2003) 67S1, S229—S231
- Nieminen P, Lopponen T, Tolonen U, Lanning P, Knip M, Lopponen H et al. Growth and biochemical markers of growth in children with snoring and obstructive sleep apnea. *Pediatrics* 2002, 109(4): 0-0.
- O'Brien LM, Sitha S, Baur LA, Waters KA. Obesity increases the risk for persisting obstructive sleep apnea after treatment in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* : 2006; 70, 1555—1560.
- Pavone M, Paglietti MG, Petrone A, Crino A, De Vincentiis GC, Cutrera R et al. Adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in children with Prader-Willi syndrome. *Pediatric Pulmonology* 2006, 41(1): 74-79.

- Shine NP, Lannigan FJ, Coates HL, Wilson A, Shine Neville P, Lannigan Francis J et al. Adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in obese children: effects on respiratory parameters and clinical outcome. Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery 2006, 132(10): 1123-1127.
- Shintani T, Asakura K, Kataura A, Shintani T, Asakura K, Kataura A. Evaluation of the role of adenotonsillar hypertrophy and facial morphology in children with obstructive sleep apnea. Orl; Journal of Oto-Rhino-Laryngology & its Related Specialties 1997, 59(5): 286-291.
- Soultan, Z, Wadowski S, Rao M, Kravath RE Effect of Treating Obstructive Sleep Apnea by Tonsillectomy and/or Adenoidectomy on Obesity in Children. Arch Pediatr Adolesc Med. 1999;153:33-37
- Tarasiuk A, Simon T, Tal A, Reuveni H, Tarasiuk Ariel, Simon Tzahit et al. Adenotonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome reduces health care utilization. Pediatrics 2004, 113(2): 351-356.
- Tauman R, Gulliver TE, Krishna J, Montgomery-Downs HE, O'Brien LM, Ivanenko A et al. Persistence of obstructive sleep apnea syndrome in children after adenotonsillectomy. Journal of Pediatrics 2006, 149(6): 803-808.
- Weisbach A, Leiberman A, Tariasuk A, Goldbart A, Tal A. Adenotonsillectomy improves enuresis in children with obstructive sleep apnea syndrome. Int J. Pediatr. Otorhinolaryngol. 2006;70:135-6.

4.2. Osteotomie en distractie van de maxilla en de mandibula

4.2.1. Bij welke patiënten is behandeling met osteotomie geïndiceerd?

Inleiding

Craniofaciale en maxillofaciale deformiteiten worden geacht aanleiding te kunnen zijn voor het obstructief apneu syndroom bij kinderen. Na adequate diagnostiek kan een dergelijke ontwikkelingsstoornis, meestal een aangeboren of verworven hypoplasie, als oorzaak worden aangemerkt voor de obstructie. Chirurgische behandeling van de benige afwijkingen met een osteotomie/distractie kan gewenst zijn als de obstructie (sub)acut nadelig blijkt voor de ademhalingsfunctie en/of de verdere ontwikkeling van het kind. Een veel voorkomende indicatie is het voorkomen of opheffen van een tracheotomie.

Een literatuursearch tot 1-1-2010 is verricht op de criteria OSAS/osteotomy met 1) apneu in de titel 2) bijwerkingen en complicaties 3) systematic reviews en RCT 4) indicatie 5) uitkomstmaten.

Er werden 227 artikelen beoordeeld. Hiervan werden 49 bruikbaar geacht op basis van titel en abstract. Exclusie vond plaats op basis van niet relevant (niet gerelateerd aan OSAS, of niet gerelateerd aan kinderen of niet gerelateerd aan osteotomie/distractie), jaartal van het artikel (artikelen ouder dan 10 jaar werden zeer kritisch bekeken vanwege de slechts recent beschikbare osteotomie/distractie methode), case-reports (uitsluitend bijzondere indicaties of nieuwe ontwikkelingen werden geïnccludeerd), reviews in lokale literatuur zonder onderzoeksresultaten. Na lezing bleken 23 artikelen relevant om op te nemen in de studie. Het relatief grote aantal case-reports en de afwezigheid van clinical trials weerspiegelt het zeer smalle indicatiegebied voor osteotomie en/of distractie.

Voor de therapiekeuze distractie/osteotomie komen 2 anatomische lokalisaties in aanmerking: het middengezicht enerzijds en de onderkaak anderzijds. Afhankelijk van de anatomische afwijking die aan de OSAS ten grondslag ligt zal voor één van beide structuren, of beide in het geval van meerdere anatomische lokalisaties voor obstructie, worden gekozen om te behandelen. Bij osteotomieën wordt een directe standcorrectie (verlenging in dit geval) van een botdeel uitgevoerd, bij distractie vindt de verlenging gradueel plaats na een osteotomie.

De keuze voor distractie of klassieke osteotomieën bij (jonge) kinderen lijkt beslecht. Dankzij de lagere morbiditeit, kortere operatieduur, geringere noodzaak voor bottransplantaten lijkt er sinds de jaren negentig een voorkeur voor distractie te bestaan.

Samenvatting van de literatuur

Middengezicht

Graag wordt op voorhand verwezen naar de richtlijn behandeling van syndromale craniosynostose (CBO 2009). Hierin wordt een hoge prevalentie beschreven van kinderen met syndromale craniosynostose. Deze prevalentie is het hoogst bij patiënten met het syndroom van Apert, Crouzon en Pfeiffer (range 24-67%). Voorts bleek aannemelijk dat een Le Fort III operatie of een monobloc procedure verbetering geeft van de bovenste luchtwegproblematiek. Een relevante aanbeveling in relatie tot de vraag in dit hoofdstuk is: Een Le Fort III operatie of monobloc advancement dient bij kinderen met een syndromale craniosynostose en ernstige OSAS met ademhalingsondersteuning, overwogen te worden ter behandeling van de ademhalingsproblemen.

Fearon (2005) publiceerde over Le Fort III distractie bij syndromale craniosynostose patiënten. Het betrof 51 patiënten (gemiddeld 8 jaar) met verschillende diagnoses: 25 Syndroom van Apert, 9 Syndroom van Crouzon, 4 Syndroom van Pfeiffer en 3 verschillende. Van de 4 patiënten met een reeds aanwezige tracheotomie kon deze na de distractie worden opgeheven. Bij de overige patiënten verbeterde de polysomnografische metingen: AHI 24->11 ($p=0,004$), minimum O₂ saturatie 81->89%. De patiënten hadden 5 jaar follow-up waarin de stabiliteit goed bleek, maar geen aanvullende groei werd gerapporteerd.

Flores (2009) onderzocht bij 20 kinderen de veranderingen in de luchtweg na le Fort III distractie. Standaard PSG werd verricht. De ernst werd met RDI geclassificeerd. Bij 10 kinderen was sprake van ernstige problemen, 2 kinderen hadden een tracheostoma. Waarvan er één niet kon worden gedecannuleerd (t.g.v. een stenose). Bij slechts 3 van de 8 kinderen kon een PSG postoperatief worden gemaakt met significante verbeteringen.

Cedars (1999) onderzoeken de uitkomsten van middengezichtsdistractie (n=14). Bij alle patiënten was OSAS geëlimineerd en bij 1 van de 2 tracheotomiepatiënten kon worden gedecannuleerd.

Chin (1997) beschreef 9 patiënten met een Le Fort III distractie. Bij 4 was sprake van OSAS, welke geheel opgeheven was na distractie.

Nelson (2008) rapporteerde de resultaten van een onderzoek naar de effecten van middengezichtsdistractie bij patiënten (n=25) met OSAS en syndromale coronale synostose. Bij 18 patiënten waarbij een Le Fort III distractie werd uitgevoerd was sprake van luchtwegobstructie vooraf. Gemiddelde leeftijd was 10,4 +/-4,2 jaar. Bij 5 van de 6 patiënten

kon worden gedecannuleerd. De RDI daalde van 33,4 naar 12,6 (significant?). Bij 6 van de 9 patiënten kon worden gestopt met continue of bilevel PAP.

Xu (2009) beoordeelde de resultaten van middengezichtsdistraction als behandeling van hoge luchtweg obstructie. Het betrof 11 patiënten, die een le Fort III ondergingen. Pre- en postoperatieve bevindingen gaven een significante verbetering te zien. Met CT scans werd een significante toename van de luchtwegdoorsnede gedemonstreerd.

Bannink et al (2010) hebben een retrospectieve studie uitgevoerd bij 11 patienten met syndromale craniosynostose en waarbij sprake was van matige of ernstige OSAS met afhankelijkheid van zuurstoftoediening, CPAP of tracheotomie. Pre- en post-operatieve polysomnografie, endoscopie en volume metingen op CT-scans laten bij 6 patienten goede uitkomsten zien ten aanzien van de ademhaling, bij 5 patienten bleek middengezichtsventralisatie onvoldoende resultaat te geven. Hierbij werd pharyngeale collaps als oorzaak genoemd.

Nout et al (2010) onderzochten de veranderingen in luchtwegvolume bij 19 patienten met syndromale le Fort 3 ventralisatie (18 met distraction, 1 patient met een traditionele osteotomie). Een significante volumetoename (op CT scans) in de regio's nasopharynx/neusgangen en oropharynx/hypopharynx kon worden aangetoond. Bij 4 patienten met middengezichtsventralisatie en OSAS bleek een positieve invloed van de chirurgie op op afname van de obstructieve slaap apneu indicatoren.

Nout et al (2012) laten bij 9 patienten met syndromale craniosynostose zien dat toename van het volume van de hoge luchtwegen kunnen worden bewerkstelligd. Hietoe werden polysomnografie en volumemetingen op CT verricht. Bij de le Fort 3 ventralisatie waren deze positieve effecten beter waarneembaar dan bij de monobloc ventralisatie.

Onderkaak

Vermindering van hoge luchtwegobstructie met mandibulaire distraction bij jonge kinderen was het onderwerp van onderzoek van Lin (2006). Vijf kinderen met craniofaciale aandoeningen ondergingen mandibulaire distraction met een follow-up periode van minimaal 12 maanden. Drie van de vijf kinderen waren genezen, met PSG gedocumenteerd. Eén kind had snurken zonder apneu en bij 1 kind was sprake van een mislukking.

Bell (2001) onderzocht in een retrospectieve studie de resultaten van mandibulaverlenging (diverse technieken met osteotomieën, zonder distraction) bij 8 kinderen (2-17 jr), 5 waren tracheotomie kandidaten, 3 patiënten hadden een tracheostoma in situ. Endoscopie (om obstructie te lokaliseren) en polysomnografie zijn in alle gevallen uitgevoerd. Decannulering en het vermijden van tracheotomie waren de uitkomstparameters. Twee van de drie getracheotomeerde patiënten konden worden gedecannuleerd en toonden geen symptomen van OSAS meer. Twee van de vijf overige patiënten toonden geen OSAS symptomen meer. Bij de overige vier patiënten bleek of geen voldoende resultaat of slechts een tijdelijke (<6 maanden) verbetering. De oorzaak voor mislukking werd toegeschreven aan neuromusculaire adaptatie, cerebrale parese en syndroom van Down. Bronchoscopie werd als belangrijkste diagnostische modaliteit genoemd.

In een retrospectieve studie van Cohen (1999) werd onderzoek gedaan naar alternatieven voor tracheotomie. Er waren 29 patiënten kandidaat voor tracheotomie (met niet succesvolle

niet-chirurgische behandeling), 5 patiënten hadden reeds een tracheotomie. Het behandelprotocol bestond uit een simultaan uitgevoerde skeletale expansie en weke delen chirurgie (reductie). Bij 90,4% werd een tracheostomie vermeden en bij 4 van de 5 getracheotomeerde patiënten werd het tracheostoma opgeheven. Complicaties traden met name op bij patiënten met cerebrale parese.

In een retrospectieve studie van James (1997) werd het effect van mandibulaire reconstructie (osteotomieën) op obstructief slaap-apneu onderzocht bij kinderen. Agressieve onderkaakchirurgie (osteotomieën met bottransplantaten) werden uitgevoerd bij mandibulaire hypoplasie bij 25 patiënten met tracheostoma. Bij 20 patiënten werd decannulatie bereikt. Onderscheid in succes bleek vooral in de diagnose (hemifaciale microsomie, temporomandibulaire ankylose en Pierre Robin sequentie 100%; Treacher Collins syndroom 75%, Nager syndroom 60%. In een gemengde restgroep was er succes bij slechts 1 van de 3 patiënten. De chirurgie was voor het 2e levensjaar en na het 4e jaar significant meer succesvol dan tussen het 2e en 4e levensjaar.

Door Wittenborn (2004) werd een retrospectieve studie verricht naar distractie voor ernstige micrognathie en OSAS en de noodzaak voor tracheotomie. In een onderzoek in 2 centra werd 17 kinderen externe mandibulaire distractie uitgevoerd. De kinderen waren 5-120 dagen oud. 14 van de 17 patiënten werden succesvol gedetubeerd. Slechts 10 patiënten ondergingen postoperatief PSG, bij slechts 3 bleek een genormaliseerd beeld.

Anantanayanan (2007) rapporteert over een retrospectief onderzoek naar mandibulaire distractie bij 3 kinderen met retrognathie ten gevolge van temporomandibulaire ankylose. De nachtelijk saturatie metingen (post-operatief gemiddeld 94,66) laten een significante verbetering zien. De incidentie van snurken neemt af. PSG werd niet uitgevoerd.

In een retrospectieve studie van Burstein (2005) naar de gevolgen van distractie bij micrognathie bij Pierre Robin sequentie bij 20 kinderen (leeftijd 7 dagen – 11 maanden, gemiddelde leeftijd 3 maanden), kon bij 14 van de 14 kinderen een tracheotomie worden voorkomen en bij 5 van 6 kinderen kon worden gedecannuleerd.

Cohen (1998) presenteerde de resultaten van een onderzoek naar mandibulaire distractie in de behandeling van hoge luchtweg obstructie bij kinderen (gem. leeftijd 4 jaar, 8 maanden, range: 14 weken – 12 jaar, 8 maanden) met craniofaciale deformiteiten. Het betrof 16 kinderen met ernstige, medisch refractaire, slaap-apneu. 8 patiënten waren tracheotomie kandidaten en 8 patiënten hadden een tracheostoma. Bij 7 van de 8 patiënten kon het tracheostoma worden opgeheven. Zeven van de acht kinderen zonder tracheostoma toonden significante verbeteringen in polysomnografie (RDI 7,1 à 1,7; laagste O2 meting: 0,70 à 0,89).

Denny (2001) onderzocht onderkaakdistracties bij zeer jonge kinderen met ernstige luchtwegobstructie. Het betrof 10 patiënten (3 maanden – 8 jaar) met micrognathie (6 Pierre Robin sequentie, 2 Treacher Collins syndroom, 2 Nager syndroom). Bij 3 patiënten was een tracheostoma in situ, de overige 7 bleken afwijkende polysomnografie of bewezen herhaalde apneu's te hebben. De Pierre Robin patiënten waren alle 6 postoperatief asymptomatisch, 1 Treacher Collins patiënt is succesvol gedecannuleerd. Beide patiënten met syndroom van Nager werden gedecannuleerd. De tweede Treacher Collins patiënt bleek niet succesvol behandeld vanwege te vroege botconsolidatie.

In een retrospectief onderzoek, kijkt Fearon (2001) naar de verschillen tussen osteotomie en distractie op Le Fort III niveau. Zijdelings wordt OSAS aangeduid. 22 kinderen (gemiddeld

6,5 jaar oud) werden onderzocht. 10 patiënten ondergingen een klassieke Le Fort III osteotomie en 12 een Le Fort III distractie. Met distractie bleek significant meer ventralisatie van het middengezicht te bewerkstelligen. Distractie wordt hierom beter in staat geacht om slaap-apneu te behandelen.

Looby (2009) rapporteert de resultaten van een luchtweg analyse na bilaterale distractie van de mandibula bij jonge kinderen met luchtweg obstructie. Bij 17 kinderen (gemiddelde 105 dagen) die mandibulaire distractie (gemiddeld 18,1 mm verlenging) ondergingen werd pre- en postoperatief CT, PSG en voedingsanalyse's uitgevoerd. De diameter van de oropharynx werd vergroot van 41,5 naar 127,8 mm, de AHI daalde van gemiddeld 10,57 naar 2,21 en de minimum O₂ saturatie steeg van 83% naar 90%. Alle patiënten konden oraal worden gevoed na 3,5 maanden na de operatie.

Monasterio (2001, 2004) onderzocht slikstoornissen bij Pierre Robin sequentie en de correctie hiervan met distractie. Het betrof 15 kinderen met Pierre Robin sequentie, bij alle patiënten waren apneus waargenomen, bij 83% was sprake van gastro-oesophagale reflux. De gemiddelde laagste O₂ saturatie was pre-operatief 72% en postoperatief 93%. De AI was pre-operatief 18,3 en HI 8,5. Beiden normaliseerden postoperatief.

Morovic (2000) demonstreerde 7 patiënten met luchtweg obstructie, die werden behandeld met mandibulaire distractie. Bij PSG lijkt een verbetering op te treden.

Rachmiel (2005) onderzocht 12 patiënten (12 maanden – 7 jaar) met OSAS. Zij werden met bilaterale distractie van de mandibula behandeld. De AHI index en O₂ saturatie verbeterden significant.

Ow (2008) verrichte een meta-analyse naar de klinische toepassingen en de functionele resultaten van mandibula distractie over de periode 1966-2006. Demografische gegevens, primaire diagnose, distractor type, chirurgische techniek, distractie protocol, esthetisch resultaat en de functionele luchtweg resultaten werden gescoord. Er werden 178 artikelen gevonden met 1185 patiënten met een onderkaakdistractie (539 unilateraal, 646 bilateraal). Bilaterale distractie van de mandibula bleek in 91,3% van de gevallen een (dreigende) tracheotomie te kunnen voorkomen. Bij patiënten met een bestaande tracheotomie kon bij 78,4% worden gedecannuleerd na distractie. Patiënten met symptomen van slaap apneu waren bij volwassenen in 100% van de gevallen en bij kinderen in 97,0% van deze klachten verlost na distractie van de onderkaak. De volgende verbeteringen werden in verschillende studies gerapporteerd: I. Verbetering in O₂ saturatie: 137 casus. II. Verbetering van het luchtweg volume: 44 casus. III. Vermindering van gastro-oesophagale reflux: 15 casus. Conclusie: clinical trials zijn noodzakelijk om de toepassingen te valideren en de lange-termijn resultaten bij OSAS te onderzoeken.

Genecov (2009) beschreef de resultaten van een onderzoek naar de klinische toepassing van distractie voor luchtweg obstructie. Het betrof patiënten met ernstige OSAS waarbij 26 patiënten tracheotomie kandidaat waren en 41 patiënten een tracheostoma hadden. Een tracheostoma werd voorkomen bij 25 van 26 patiënten (96%); preventie van tracheotomie werd bereikt bij 63 van 67 patiënten (94%). Significante verbeteringen werden aangetoond ten aanzien van de orale voedselinname.

Miller (2007) beschreef de distractie van de mandibula met een inwendige gekromde distractor. Twaalf jonge kinderen met micrognathie leeftijd 9 dagen – 8 maanden werden

succesvol behandeld met een interne distractor. Zes patiënten hadden zowel pre- als postoperatief PSG, met significante verbetering.

Steinbacher (2005) beschreef de uitkomsten van een studie naar mandibulaire advancement met distractie bij tracheotomie afhankelijke kinderen met micrognathie. O2 saturatie steeg gemiddeld van 76% naar 98%, follow-up was gemiddeld 3,2 jaar. Vier van de vijf patiënten konden succesvol worden gedecannuleerd.

Mandell (2004) publiceerde de resultaten van een onderzoek naar mandibulaire distractie voor micrognathie en ernstige hoge luchtweg obstructie. Het betrof: A. 8 patiënten met Pierre Robin sequentie zonder tracheotomie, B. 6 oudere micrognaten zonder tracheotomie, C. 12 met complexe craniofaciale deformiteiten, met tracheotomie. In groep A. werd bij 7 van de 8 patiënten een tracheostoma voorkomen (83%), in groep B was bij 5 van de 6 patiënten OSAS verdwenen (83%); C Bij 2 van de 12 patiënten kon worden gedecannuleerd. Williams (1999) beschreef de resultaten van bilaterale distractie van de onderkaak bij tracheotomie afhankelijke patiënten met mandibulaire hypoplasie. Het betrof 4 patiënten van gemiddeld 2,7 jaar. Allen werden succesvol gedecannuleerd.

Januszkiewicz (1997) publiceerde de uitkomsten van een onderzoek naar leeftijd gerelateerde slaap-apneu onderzoek bij kinderen. Hierbij werd ondermeer een chirurgische expansie van het skelet uitgevoerd met osteotomieën. Het betrof 55 kinderen. Er werden 3 groepen gekozen: A. <12 maanden, B. >12 maanden en <36 maanden. C. >36 maanden. Conclusies: Slagingskansen lager en chirurgie lastiger in groep A. In groep B: significante verbetering in RDI, AI en O2 spanning. In groep C. Uitsluitend significante verbetering van de RDI.

Conclusies

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat mandibulaire distractie osteogenese succesvol kan zijn in de preventie van een tracheotomie bij kinderen met een onderontwikkelde mandibula en ernstige OSAS.</p> <p><i>C Wittenborn 2004</i> <i>D Burstein 2005, Denny 2001, Ow 2008, Genecov 2009</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat mandibulaire distractie osteogenese succesvol kan zijn in het kunnen opheffen van een tracheotomie bij kinderen met een onderontwikkelde mandibula en ernstige OSAS.</p> <p><i>C Wittenborn 2004</i> <i>D Burstein 2005, Ow 2008, Genecov 2009</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat mandibulaire distractie osteogenese succesvol kan zijn in de behandeling van ernstige OSAS bij kinderen.</p> <p><i>C Wittenborn 2004</i> <i>D Ow 2008, Genecov 2009</i></p>

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat een Le Fort III advancement met distractie succesvol kan zijn bij de behandeling van OSAS en syndromale middengezichtshypoplasieën bij kinderen.</p> <p><i>C Bannink 2010, Nout 2010, 2012</i> <i>D Cedars 1999, Chin 1997, Fearon 2005, Flores 2001, 2009,</i> <i>D Lin 2006, Nelson 2008, Xu 2009</i></p>
Niveau 4	<p>De werkgroep is van mening dat distractie van het middengezicht op Le Fort III nivo voordelen biedt (morbiditeit, haalbare ventralisatie, geen bottransplantaten) ten opzichte van een klassieke le Fort III osteotomie in de behandeling van syndromale middengezichtshypoplasieën en OSAS bij kinderen.</p> <p><i>D Chin 1997, Fearon 2001</i></p>
Niveau 4	<p>De indicatie voor middengezichtsdistractie bij kinderen met OSAS (tengevolge van obstructie in het betreffende gebied), lijkt gelegen in de combinatie van ernstige OSAS met dreigende of vanwege de OSAS reeds uitgevoerde tracheotomie en een hypoplasie van het middengezicht.</p> <p><i>D Cedars 1999, Chin 1997, Fearon 2005, Flores 2009</i> <i>D Nelson 2008, Xu 2009</i></p>
Niveau 3	<p>De indicatie voor distractie osteogenese bij kinderen met OSAS (tengevolge van obstructie in het betreffende gebied) lijkt gelegen in de combinatie van ernstige OSAS met dreigende of vanwege de OSAS reeds uitgevoerde tracheotomie en een hypoplasie van de onderkaak.</p> <p><i>C Wittenborn, 2004</i> <i>D Anantanayanan 2007, Burstein 2005, Cohen 1998</i> <i>D Denny 2001, Fearon 2001, Genecov 2009, Januskiewics 1997</i> <i>D Looby 2009, Miller 2007, Monasterio 2001, 2004, Morovic 2000</i> <i>D Ow 2008, Rachmiel 2005, Steinbacher 2005, Williams 1999</i></p>
Niveau 4	<p>Er is onvoldoende bewijs voor het succesvol toepassen van distractie osteogenese bij andere dan aangetoonde hypoplasieën bij kinderen met OSAS (met name bij het syndroom van Down, centraal slaap-apneu syndroom en cerebrale stoornissen is de werkzaamheid van distractie niet aangetoond).</p> <p><i>D Mening van de werkgroep</i></p>

Overige overwegingen

Voor het antwoord op de vraag wanneer een osteotomie of distractie is geïndiceerd bij kinderen met OSAS zijn geen RCT's voorhanden. Systematische reviews zijn evenmin uitgevoerd. Een enkele meta-analyse van de literatuur over mandibuladistractie vermeldt zijdelings de gevolgen bij de behandeling van OSAS bij kinderen.

Casuïstiek en case-series zijn in overdaad voorhanden. De gebruikte literatuur is een excerpt van deze case-reports.

Voor de werkgroep komt uit deze casuïstiek duidelijk naar voren dat distractie een waardevolle modaliteit is in de behandeling van kinderen met OSAS en anatomische hypoplasieën in het aangezichtsskelet, vooral in situaties waarin een tracheotomie onafwendbaar lijkt of reeds aanwezig is.

Een klassieke osteotomie, d.w.z. zonder distractie vergt in de meeste gevallen een langere OK-duur, veelal een aanvullende (bot)donoroperatie, meer bloedverlies en daarmee grotere kans op bloedtransfusies.

Risico's en complicaties van een osteotomie met distractie zijn afhankelijk van de anatomische lokatie. Bij middengezichtsdistractionen is het afhankelijk van het gebruik van ofwel interne, danwel externe distractie. Bloedingen en infecties worden nauwelijks gerapporteerd. Technische problemen, zoals het los of defect raken van een distractor of een foutieve vector, komen vaker voor. Bij distractie bij craniofaciale aandoeningen zijn incidentele, potentieel lethale, complicaties beschreven. Bij distractionen in de onderkaak komen tandkiembeschadigingen en letsels van de nervus alveolaris inferior voor. Op basis van de heterogene literatuur zijn hiervoor geen apriori risico's te berekenen. De kwaliteit van het bot van het viscerocranium lijkt bij pasgeborenen van andere kwaliteit dan bij oudere kinderen (bijv na het derde levensjaar). Distractie is hierdoor betrouwbaarder uit te voeren op oudere leeftijd.

Aanbevelingen

Bij kinderen met (syndromale) middengezichtshypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie geïndiceerd lijkt, kan distractie van het hypoplastische middengezicht op Le Fort III niveau worden toegepast.

Bij kinderen met (syndromale) middengezichtshypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie is aangelegd, kan distractie van het hypoplastische middengezicht op Le Fort III niveau worden toegepast om de tracheotomie op te heffen.

Bij kinderen met mandibulaire hypoplasie en ernstige OSAS, waarbij een tracheotomie geïndiceerd lijkt, is distractie van de mandibula te overwegen. De voorkeursleeftijd hiervoor is mogelijk na het derde levensjaar.

Bij zuigelingen met mandibulaire hypoplasie en ernstige OSAS, eventueel met een tracheotomie, kan een distractie van de mandibula worden overwogen.

Literatuur

- Anantanarayanan P, Narayanan V, Manikandhan R, Kumar D. Primary mandibular distraction for management of nocturnal desaturations secondary to temporomandibular joint (TMJ) ankylosis. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2008, 72(3): 385-389.
- Bannink N, Nout E, Wolvius EB, Hoeve HLJ, Joosten KF, Mathijssen IMJ. Obstructive sleep apnea in children with syndromic craniosynostosis: long-term respiratory outcome of midface advancement. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2010, 39(2): 115-21.
- Burstein FD, Williams JK. Mandibular distraction osteogenesis in Pierre Robin sequence: Application of a new internal single-stage resorbable device. *Plastic and Reconstructive Surgery* 2005, 115(1): 61-67.
- Bel RB, Turvey TA. Skeletal advancement for the treatment of obstructive sleep apnea in children. *Cleft Palate Craniofac J*, 2001, 38(2): 147-54
- Cedars MG, Linck DL, Chin M, Toth BA. Advancement of the midface using distraction techniques. *Plastic & Reconstructive Surgery* 1999, 103(2): 429-441.
- Chin M, Toth BA. Le Fort III advancement with gradual distraction using internal devices. *Plastic and Reconstructive Surgery* 1997, 100(4): 819-832.
- Cohen SR, Burstein FD, Williams JK. The role of distraction osteogenesis in the management of craniofacial disorders. *Annals of the Academy of Medicine, Singapore* 1999, 28(5): 728-738.
- Cohen SR, Simms C, Burstein FD. Mandibular distraction osteogenesis in the treatment of upper airway obstruction in children with craniofacial deformities. *Plastic & Reconstructive Surgery* 1998, 101(2): 312-318.
- Denny AD, Talisman R, Hanson PR, Recinos RF. Mandibular distraction osteogenesis in very young patients to correct airway obstruction. *Plastic & Reconstructive Surgery* 2001, 108(2): 302-311.
- Fearon JA. Halo distraction of the Le Fort III in syndromic craniosynostosis: a long-term assessment. *Plastic & Reconstructive Surgery* 2005, 115(6): 1524-1536.
- Fearon JA. The Le Fort III osteotomy: to distract or not to distract?. *Plastic & Reconstructive Surgery* 2001, 107(5): 1091-1103.
- Flores RL, Shetye PR, Zeitler D, Bernstein J, Wang E, Grayson BH et al. Airway changes following Le Fort III distraction osteogenesis for syndromic craniosynostosis: a clinical and cephalometric study. *Plastic & Reconstructive Surgery* 2009, 124(2): 590-601.
- Genecov DG, Barcelo CR, Steinberg D, Trone T, Sperry E. Clinical experience with the application of distraction osteogenesis for airway obstruction. *Journal of Craniofacial Surgery* 2009, 20(0): 1817-1821.
- James D, Ma L. Mandibular reconstruction in children with obstructive sleep apnea due to micrognathia. *Plastic & Reconstructive Surgery* 1997, 100(5): 1131-1137.
- Januszkiewicz JS, Cohen SR, Burstein FD, Simms C. Age-related outcomes of sleep apnea surgery in infants and children. *Annals of Plastic Surgery* 1997, 38(5): 465-477.
- Kuhle S, Urschitz MS, Eitner S, Poets CF. Interventions for obstructive sleep apnea in children: a systematic review. *Sleep Medicine Reviews* 2009, 13(2): 123-131.
- Lin SY, Halbower AC, Tunkel DE, Vanderkolk C. Relief of upper airway obstruction with mandibular distraction surgery: Long-term quantitative results in young children. *Archives of Otolaryngology -- Head & Neck Surgery* 2006, 132(4): 437-441.
- Looby JF, Schendel SA, Lorenz HP, Hopkins EM, Aizenbud D. Airway analysis: with bilateral distraction of the infant mandible. *Journal of Craniofacial Surgery* 2009, 20(5): 1341-1346.
- Miller JJ, Kahn D, Lorenz HP, Schendel SA. Infant mandibular distraction with an internal curvilinear device. *Journal of Craniofacial Surgery* 2007, 18(6): 1403-1407.
- Monasterio FO, Drucker M, Molina F, Ysunza A. Distraction osteogenesis in Pierre Robin sequence and related respiratory problems in children. *Journal of Craniofacial Surgery* 2002, 13(1): 79-83.

- Monasterio FO, Molina F, Berlanga F, Lopez ME, Ahumada H, Takenaga RH et al. Swallowing disorders in Pierre Robin sequence: its correction by distraction. *Journal of Craniofacial Surgery* 2004, 15(6): 934-941.
- Morovic CG, Monasterio L. Distraction osteogenesis for obstructive apneas in patients with congenital craniofacial malformations. *Plastic & Reconstructive Surgery* 2000, 105(7): 2324-2330.
- Nelson TE, Mulliken JB, Padwa BL. Effect of midfacial distraction on the obstructed airway in patients with syndromic bilateral coronal synostosis. *Journal of Oral & Maxillofacial Surgery* 2008, 66(11): 2318-2321.
- Nout E, Bouw FP, Veenland JF, Hop WCJ, van der Wal KGH, Mathijssen IMJ, Wolvius EB. *Plast Reconstr Surg* 2101, 126(2): 564-71
- Nout E, Bannink N, Koudstaal MJ, Veenland JF, Joosten KF, Poublon RM, van der Wal KG, Mathijssen IM, Wolvius EB. Upper airway changes in syndromic craniosynostosis patients following medface or monbloc advancement: correlation between volume changes and respiratory outcome. *J Craniomaxillofac Surg* 2012, 40(3): 209-14.
- Ow ATC, Cheung LK. Meta-analysis of mandibular distraction osteogenesis: Clinical applications and functional outcomes. *Plastic and Reconstructive Surgery* 2008, 121(3): 54-69.
- Rachmiel A, Aizenbud D, Pillar G, Srouji S, Peled M. Bilateral mandibular distraction for patients with compromised airway analyzed by three-dimensional CT. *International Journal of Oral & Maxillofacial Surgery* 2005, 34(1): 9-18.
- Williams JK, Maull D, Grayson BH, Longaker MT, McCarthy JG. Early decannulation with bilateral mandibular distraction for tracheostomy-dependent patients. *Plastic and Reconstructive Surgery* 1999, 103(1): 48-59.
- Wittenborn W, Panchal J, Marsh JL, Sekar KC, Gurley J. Neonatal distraction surgery for micrognathia reduces obstructive apnea and the need for tracheotomy. *Journal of Craniofacial Surgery* 2004, 15(4): 623-630.
- Xu H, Yu Z, Mu X. The assessment of midface distraction osteogenesis in treatment of upper airway obstruction. *Journal of Craniofacial Surgery* 2009, 20(0): 1876-1881.
- Zim S. Treatment of upper airway obstruction in infants with micrognathia using mandibular distraction osteogenesis. *Facial Plastic Surgery* 2007, 23(2): 107-112.

4.3. Tracheotomie

Inleiding

Een tracheotomie voor ernstig OSAS zal beperkt geïndiceerd zijn, gezien de belasting voor het kind en de verzorgers. Een tracheotomie zal soms echter onontkoombaar zijn bij pasgeboren zuigelingen met ernstig OSAS en een anatomische afwijking zoals bijvoorbeeld het Pierre Robin syndroom of een syndromale craniofaciale synostosis.

4.3.1. Bij welke patiënten is behandeling met tracheotomie geïndiceerd?

De tracheotomie kan tijdelijk zijn in afwachting van een chirurgische ingreep om de luchtweg te vergroten. Bij enkele kinderen zal het nodig zijn om langdurig een tracheotomie te behouden. Bij het gezonde oudere kind zal een tracheotomie bijna nooit nodig zijn omdat er alternatieve methoden zijn om de OSAS te behandelen. Voor een aantal risicogroepen is een tracheotomie de enige behandeling om een ernstig OSAS te behandelen. Het betreft meestal kinderen met ernstige neurologische stoornissen (vaak met slikstoornissen), kinderen met stapelingsziekten (zoals mucopolysaccharidosen) en kinderen met goedaardige of kwaadaardige tumoren in het KNO gebied.

Samenvatting van de literatuur

In de literatuur werden twee studies gevonden die bij syndromale aandoeningen de effecten van de tracheotomie beschrijven. Er werden geen studies gevonden bij kinderen met OSAS die de effecten van de tracheotomie op parameters van het PSG beschrijven.

De literatuur beschrijft met name kinderen bij wie chirurgische ingrepen gelijktijdig op meerdere anatomische obstructie niveaus plaatsvonden. Het doel van deze multi-level chirurgie is om aan een tracheotomie te ontkomen (Cohen 1999a). Bij 29 kinderen die in aanmerking kwamen om een tracheotomie te ondergaan was deze ingreep na uitgebreid operatief ingrijpen (UPPP, osteotomieën, palatum en neuschirurgie, al dan niet gecombineerd) in 90,4% van de patiënten niet nodig. De groep kinderen waarin deze ingreep plaatsvond zijn met name kinderen met multipele congenitale malformaties in het aangezicht, kinderen met Down syndroom en kinderen met neurologische afwijkingen. Over resultaten van tracheotomie bij OSAS en gezonde kinderen werden geen publicaties gevonden, omdat deze ingreep, zoals eerder gemeld, in deze groep kinderen bijna nooit plaats vindt.

In de tweede studie van Cohen (1999b) wordt het verschil bestudeerd in de quality of life (QOL) tussen een kleine groep kinderen die een tracheotomie onderging en een groep kinderen waarbij op meerdere niveaus chirurgisch werd ingegrepen met als doel om aan de tracheotomie te ontkomen. Op 95% van de items uit de vragenlijst scoorden de tracheotomie groep slechter.

Conclusie

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat chirurgische interventies die gelijktijdig op meerdere obstructie niveaus worden verricht bij kinderen met OSAS en ernstige comorbiditeit in 80-90% bij deze kinderen een permanente tracheotomie kunnen voorkomen. <i>C Cohen 1999a, Cohen 1999b</i>
-----------------	---

Overige overwegingen

De tracheotomie is een effectieve en soms noodzakelijke behandeling van OSAS. De morbiditeit en acceptatie bij ouders is dusdanig dat een tracheotomie alleen moet worden overwogen als andere behandelingen falen of als er sprake is van een situatie die dient als een overbrugging in de behandeling.

Aanbevelingen

Een tracheotomie bij kinderen met een OSAS dient met de grootste terughoudendheid te worden toegepast. Voor kinderen in bepaalde risicogroepen, bijvoorbeeld de jonge zuigeling met ernstige aanvullende pathologie, is een tracheotomie voor ernstig OSAS soms de enige of tijdelijke behandeloptie.

Bij kinderen met OSAS en ernstige comorbiditeit dient steeds te worden afgewogen of de tracheotomie de kwaliteit van leven verbetert.

Literatuur

- Cohen SRL. Airway disorders in hemifacial microsomia. *Plastic and Reconstructive Surgery* 1999, 103(1): 27-33.
- Cohen SR. Craniofacial distraction with a modular internal distraction system: evolution of design and surgical techniques. *Plastic & Reconstructive Surgery* 1999, 103(6): 1592-1607.

HOOFDSTUK 5: NIET-CHIRURGISCHE THERAPIE

5.1. Bij welke patiënten is orthodontische apparatuur geïndiceerd?

Inleiding

In 2009 werden mandibulaire repositieapparaten (MRA's) in de Nederlandse richtlijn 'Richtlijn Diagnostiek en behandeling van het obstructief slaapapneu syndroom bij volwassenen' aanbevolen als eerste behandeloptie bij lichte en matige vormen van OSAS bij volwassenen (Kwaliteitsinstituut voor de Gezondheidszorg CBO 2009). Deze uitneembare orthodontische apparaten houden de onderkaak tijdens de slaap in een voorwaartse stand. Door de hiermee samenhangende verplaatsingen van de tong en faryngeale structuren wordt de luchtwegdoorgankelijkheid vergroot. Ook in buitenlandse richtlijnen worden MRA's primair geïndiceerd geacht voor de behandeling van lichte en matige vormen van OSAS bij volwassenen (Epstein 2009, Fleetham 2006, Kushida 2006, Laitinen 2003, Randerath 2006, Schwarting 2007, SIGN 2006). Vrijwel al deze richtlijnen beperken zich in hun aanbevelingen met betrekking tot MRA's echter uitsluitend tot de behandeling van volwassen OSAS-patiënten. Alleen in de Finse richtlijn worden orthodontische behandelingen van OSAS bij kinderen ter preventie van slaapapneu aanbevolen (Laitinen, 2003). Orthodontische apparaten als behandelingsmogelijkheid van slaapapneu bij kinderen worden in de Amerikaanse pediatrie OSAS-richtlijn niet vermeld (Schechter 2002, Section on Pediatric Pulmonology 2002). In de Nieuw-Zeelandse pediatrie OSAS-richtlijn wordt geconcludeerd dat er nog onvoldoende bewijs is om orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen aan te bevelen (Paediatric Society of New Zealand 2005).

Bij deze uitgangsvraag is onderzocht wanneer MRA's en andere orthodontische beugels bij de behandeling van kinderen met OSAS geïndiceerd zijn.

Samenvatting van de literatuur

Er is beperkte literatuur beschikbaar over de effecten en neveneffecten van MRA's en andere orthodontische behandelingen van OSAS bij kinderen. De patiëntenaantallen zijn over het algemeen klein. De grens voor inclusie in het literatuuronderzoek werd (arbitrair) op tenminste 10 onderzochte kinderen gesteld. Eén van de in dit hoofdstuk gevonden studies betrof een Cochrane systematisch review specifiek gericht op de effectiviteit van behandelingen van OSAS met orthodontische apparaten bij kinderen (Carvalho 2007). Daarnaast werd één systematisch review over de effectiviteit van behandelingen van OSAS bij kinderen gevonden, waarin tevens die van orthodontische apparaten werd onderzocht (Kuhle 2009). Verder werden er één gerandomiseerde parallelle trial (Villa 2002), één cross-over trial (Buchenau 2007) en negen patiëntenseries (Bacher 2010, Cozza 2004a, 2004b, Pirelli 2004, Pirelli 2005, Villa 2007, 2011, Miano 2009) gevonden.

In totaal zijn 13 studies gebruikt als uitgangspunt voor de wetenschappelijke onderbouwing van de uitgangsvraag. In al deze studies werd OSAS door middel van polysomnografie vastgesteld. De gemiddelde apneu-hypopneu index (AHI) in de studies varieerde van $5,8 \pm$

6,8 tot $17,4 \pm 21,00$. De leeftijd van de kinderen varieerde van 4 tot 13 jaar, met uitzondering van die in een cross-over trial en een patiëntenserie bij baby's met Robin-sequentie die 0 tot 60 dagen oud waren. De follow-up periode van de studies varieerde van vier weken tot één jaar, uitgezonderd de cross-over trial waarin gehemelteplaatjes na een periode van minimaal 36 uur werden gewisseld. De kinderen vertoonden geen obesitas. In de studies werden door orthodontisten drie verschillende orthodontische behandelingstechnieken gebruikt: MRA (5 studies), 'rapid maxillary expansion' (RME) (6 studies) en 'Pre-Epiglottic Baton Plate' (PEBP) (2 studies).

Bij RME wordt de bovenkaak ter plaatse van de intermaxillaire suture met een vastzittend orthodontisch apparaat in korte tijd kaakorthopedisch verbreed. In een systematisch review naar het effect van RME op de dimensies van de nasale luchtweg worden echter vraagtekens geplaatst bij de klinische betekenis van deze luchtwegveranderingen en wordt RME-behandeling van OSAS bij kinderen zonder orthodontische behandelingsindicatie afgeraden (Gordon 2009).

PEBP is een uitneembaar kunsthar gehemelteplaatje met een dorsale extensie, die de tong naar voren houdt (Buchenau 2007). Het plaatje kan worden gebruikt om de luchtweg bij baby's met Robin-sequentie te vergroten.

In deze studies en bij de bespreking ervan wordt de Angle classificatie gebruikt. Deze classificatie van malocclusies is gebaseerd op de sagittale occlusie tussen de tandbogen en de sagittale verhouding tussen de kaken. De termen Klasse I, II en III hebben hierop betrekking. Bij een Klasse I-malocclusie is er een normale voor-achterwaartse verhouding tussen het onder- en bovengebit en de onder- en bovenkaak. Bij een Klasse II-malocclusie is er een disto-occlusie van de tandbogen en meestal een distorelatie van de onder- en bovenkaak. Bij een Klasse III-malocclusie is er een mesio-occlusie van de tandbogen en meestal een mesiorelatie van de onder- en bovenkaak.

MRA

Uit een Cochrane systematisch review, waarin slechts één randomised controlled trial van 32 kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie en OSAS kon worden geïnccludeerd (Villa, 2002), bleek dat de AHI tijdens behandeling met een monobloc MRA gemiddeld significant afneemt van $7,1 \pm 4,6$ tot $2,6 \pm 2,2$ (Carvalho 2007)*. Risk ratio's (RR's) met 95% betrouwbaarheidsinterval (BI) toonden significante verschillen ten gunste van de MRA-behandeling aan met betrekking tot de volgende parameters: AHI (RR=0,39; 95% BI 0,20 tot 0,76; $p=0,006$) en door de ouders gerapporteerde mondademhaling overdag (RR=0,16; 95% BI 0,04 tot 0,59; $p=0,006$), verstopte neus overdag (RR=0,18; 95% BI 0,05 tot 0,69; $p=0,01$), snurken 's nachts (RR=0,18; 95% BI 0,06 tot 0,55; $p=0,003$), onrustige slaap 's nachts (RR=0,21; 95% BI 0,05 tot 0,84; $p=0,03$). In een systematisch review van Kuhle (2009)* kon ook enkel dezelfde trial van Villa (2002) als enige MRA-studie worden geïnccludeerd. In dit review werden eveneens significante verschillen in het voordeel van MRA-behandeling ten gunste van de volgende door de ouders gerapporteerde items beschreven: snurken (RR=0,18; 95% BI 0,06 tot 0,55), apneus (RR=0,37; 95% BI 0,15 tot 0,90), slaperigheid overdag (RR=0,64; 95% BI 0,11 tot 3,78). In het onderzoek van Villa (2002) zelf werden

volgens antwoorden van de ouders in een gemodificeerde versie van de vragenlijst van Brouillette (1984) de volgende significante verbeteringen gedurende de nacht tijdens MRA-therapie geconstateerd: snurken (92,9% naar 14,3%; $p < 0,001$), apneus (85,7% naar 28,6%; $p = 0,008$), onrustige slaap (92,9% naar 14,3%; $p < 0,001$). De volgende verbeteringen gedurende de dag werden gerapporteerd: slaperigheid (78,6% naar 14,3%; $p = 0,002$), prikkelbaarheid (85,7% naar 14,3%; $p < 0,001$), vermoeidheid (78,6% naar 14,3%; $p = 0,002$), dorst in de ochtend (71,4% naar 7,1%; $p = 0,002$), mondademhaling (92,9% naar 14,3%; $p < 0,001$), verstopte neus (92,9% naar 14,3%; $p < 0,001$). Als nadeel van de behandeling met het MRA werd vermeld dat 26% van de kinderen de therapie staakte.

In een in 2 verschillende tijdschriften gepubliceerde patiëntenserie van Cozza (2004a,b) werden de effecten van MRA-therapie nagegaan bij een groep van 20 kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie en OSAS, die met een monobloc MRA werden behandeld. Gemiddeld trad er een significante afname van de AHI op van $7,88 \pm 1,81$ naar $3,66 \pm 1,70$ ($p = 0,0003$). De Epworth sleepiness scale (ESS) verbeterde van $15,2 \pm 4,9$ naar $7,1 \pm 2,0$. In deze studie werden als enige nadelige bijwerkingen van een MRA aangegeven een tijdelijke hypersalivatie en ongemak bij het ontwaken gedurende een paar dagen.

RME

Een patiëntenserie van 31 kinderen met een smalle bovenkaak en OSAS toonde aan dat de AHI gemiddeld afnam van $12,18 \pm 2,6$ naar $0,4 \pm 1,1$ (Pirelli 2004). In een patiëntenserie bij 42 kinderen met een smalle bovenkaak en OSAS werd na RME een significante verbetering van de AHI van $12,7 \pm 2,5$ naar $0,5 \pm 1,2$ gevonden (Pirelli 2005). Uit een patiëntenserie van Miano (2009) met in totaal 22 kinderen bleek dat de AHI van 9 kinderen met een smalle bovenkaak en OSAS, die met RME waren behandeld, gemiddeld significant verbeterde van $17,4 \pm 21,00$ naar $5,4 \pm 6,25$ ($p < 0,02$). In een follow-up patiëntenserie van Villa (2007) bij 14 kinderen met een malocclusie (smalle bovenkaak met diepe beet, grote sagittale overbeet of kruisbeet) en OSAS werd vastgesteld dat 1 jaar na RME de volgende door de ouders in een vragenlijst gerapporteerde verschijnselen gemiddeld significant verbeterd waren: snurken 's nachts ($p = 0,03$), apneus 's nachts ($p = 0,001$), slaperigheid overdag ($p = 0,04$), vermoeidheid overdag ($p = 0,03$) en mondademhaling overdag ($p = 0,001$). De AHI was 1 jaar na RME gemiddeld significant afgenomen van $5,8 \pm 6,8$ naar $1,5 \pm 1,6$ ($p = 0,005$). In een patiëntenserie van Pirelli (2010) bij 60 kinderen met een smalle bovenkaak en OSAS verbeterde de AHI 1 maand na RME en 4 maanden na verwijdering van het orthodontisch apparaat gemiddeld significant van $16,3 \pm 2,5$ naar respectievelijk $8,3 \pm 2,3$ ($p = 0,000$) en $0,8 \pm 1,3$ ($p = 0,000$). Het verschil tussen de AHI 1 maand na RME en 4 maanden na verwijdering van het apparaat was eveneens significant ($p = 0,046$). Een follow-up patiëntenserie van Villa (2011) bij 10 kinderen met een malocclusie (hoog en smal palatum, diepe beet, grote sagittale overbeet of kruisbeet) en OSAS liet zien dat de AHI na 1 jaar behandeling met RME en 2 jaar daarna gemiddeld significant van $6,3 \pm 4,7$ tot respectievelijk $2,4 \pm 2,0$ ($p = 0,05$) en $2,3 \pm 1,7$ ($p = 0,05$) verbeterd was. Het verschil tussen de AHI na 1 jaar behandeling met RME en 2 jaar daarna was niet significant. Vergeleken met de uitgangssituatie waren de volgende door de ouders in een vragenlijst gerapporteerde verschijnselen 2 jaar na de behandeling gemiddeld significant verbeterd: snurken 's nachts ($p = 0,016$), apneus 's nachts ($p = 0,002$), slaperigheid overdag ($p = 0,007$), mondademhaling overdag ($p = 0,05$) en tonsillaire hypertrofie (0,03).

In al deze studies werden geen nadelige bijwerkingen van de RME gezien, behalve in de trial van Villa (2007) waarin bij 18,75% van de patiënten breuk van de apparatuur optrad. Deze kon echter in alle gevallen binnen een week gerepareerd worden.

PEBP

Uit een cross-over trial van Buchenau (2007) bij 11 baby's met Robin-sequentie en een apneu index van meer dan 3 bleek dat de apneu index na 36 uur behandeling met een PEBP in vergelijking met een gehemelteplaatje zonder een dorsale extensie gemiddeld veranderde van beginwaarde 13,8 (95% BI 7,5 tot 25,4) in respectievelijk 3,9 (95% BI 1,6 tot 9,5) en 14,8 (95% BI 5,4 tot 41,0). Het verschil tussen de relatieve veranderingen in de apneu index van -71% (95% BI -84 tot -49) bij PEBP's en +8% (95% BI -52 tot 142) bij plaatjes zonder extensie was significant ($p=0,004$). In een patiëntenserie van Bacher (2010) bij 15 baby's met Robin-sequentie en een apneu index van meer dan 3 was de apneu index bij behandeling met een PEBP gemiddeld van beginwaarde 17,2 (95% BI 11,1 tot 26,7) bij ontslag uit het ziekenhuis na gemiddeld 23 dagen (19-71) verlaagd naar 3,8 (95% BI 2,2 tot 6,6; $p<0,001$) tot 1,2 (95% BI 0,7 tot 2,2; $p<0,001$) 3 maanden daarna.

Drukplekjes door de gehemelteplaatjes in het harde en zachte gehemelte werden als enig nadelige neveneffect van de PEBP gezien. Deze verbeterden echter na het afronden van de randen of het inkorten van de dorsale extensie van de PEBP. Tijdens de drie maand durende behandelperiode was het bij de meeste baby's nodig om de PEBP door een grotere versie te vervangen.

Conclusies

Niveau 2	Het is aannemelijk dat behandeling met een MRA bij kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie en OSAS een significante verbetering van de AHI geeft. <i>A2 Villa 2002, Carvalho 2007, Kuhle 2009*</i> <i>C Cozza 2004a,b</i>
-----------------	--

*zie tekst samenvatting van de literatuur.

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat tijdelijke hypersalivatie, kortstondig ongemak en staking van de therapie door kinderen met OSAS de meest voorkomende problemen bij behandeling met een MRA zijn.</p> <p><i>A2 Villa 2002, Carvalho 2007, Kuhle 2009*</i> <i>C Cozza 2004a,b</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat behandeling met RME bij kinderen met een smalle bovenkaak en OSAS een significante verbetering van de AHI geeft.</p> <p><i>C Pirelli 2004, 2005, 2010, Villa 2007, 2011, Miano 2009</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat een repareerbare breuk van de apparatuur het meest voorkomende probleem bij behandeling van kinderen met OSAS en een RME is.</p> <p><i>C Villa 2007</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat behandeling met een PEBP bij baby's met Robin-sequentie en apneu index >3 een significante verbetering van de apneu index geeft.</p> <p><i>A2 Buchenau 2007</i> <i>C Bacher 2010</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat tijdelijke drukplekjes het meest voorkomende probleem bij de behandeling van baby's met Robin-sequentie met een PEBP zijn.</p> <p><i>A2 Buchenau 2007</i> <i>C Bacher 2010</i></p>

Overige overwegingen

Op basis van het voorgaande zijn er aanwijzingen dat orthodontische behandelingen van kinderen met orthodontische afwijkingen en OSAS een verbetering van de AHI kan geven. Afgezien van de matige compliantie bij het dragen van MRA's in de trial van Villa (2002) werden er weinig nadelige effecten van orthodontische behandelingen gezien. In de hierboven beschreven studies bij kinderen wordt geen melding gemaakt van gevoelige kaken, gevoelige tanden, droge mond, gevoelig tandvlees, tandenknarsen en uit de mond vallen van de apparatuur tijdens de slaap, bijwerkingen die bij MRA-therapie bij volwassenen wel geconstateerd zijn (Kwaliteitsinstituut voor de Gezondheidszorg CBO 2009). Het aantal studies is echter beperkt, van korte duur en betreft merendeels kleine patiëntenseries. Door deze tekortkomingen lijken orthodontische behandelingen derhalve niet geïndiceerd als primaire therapie voor OSAS bij kinderen.

Er zijn voor de orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen drie verschillende behandelingstechnieken beschreven: MRA, RME en PEBP. In de studies hebben orthodontisten deze technieken op grond van de orthodontische diagnose en de te verwachten orthodontische effecten van de apparatuur selectief bij patiëntencategorieën met verschillende orthodontische afwijkingen toegepast. MRA's zijn gebruikt bij kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie, een behandeling die in de orthodontie ook bij kinderen zonder OSAS gangbaar is voor de correctie van deze orthodontische afwijking. Kinderen met een smalle bovenkaak werden met RME behandeld, eveneens een gebruikelijke orthodontische therapie bij kinderen met een smalle bovenkaak zonder OSAS. De baby's met Robin-sequentie werden met een PEBP behandeld. Dergelijke orthodontische gehemelteplaatjes met een dorsale extensie behoren tot de behandelingsmodaliteiten om bij baby's met Robin-sequentie de tong naar voren te houden en de luchtweg vrij te houden (Bütow 2009). De multidisciplinaire diagnostiek, behandeling en nazorg ten behoeve van baby's met Robin-sequentie worden door orthodontisten vrijwel altijd in teamverband door werkgroepen voor patiënten met schisis en/of andere craniofaciale afwijkingen uitgevoerd.

De bij kinderen met OSAS gebruikte MRA's zijn dezelfde beugels die door orthodontisten tijdens orthodontische behandelingen met functionele apparatuur worden gebruikt bij kinderen met malocclusies, die geen OSAS hebben. Ook de RME die bij kinderen voor de behandeling van OSAS wordt gebruikt, is dezelfde behandelingstechniek die door orthodontisten bij behandelingen van malocclusies bij kinderen zonder OSAS wordt aangewend. Men dient er derhalve rekening mee te houden dat behandelingen met MRA's en RME ook bij kinderen met OSAS tijdens de groeiperiode aanzienlijke veranderingen van de stand van het gebit en de kaken tot gevolg kunnen hebben. Orthodontische behandelingen met MRA's leiden bij 7 tot 9 jaar oude kinderen gedurende een anderhalf jaar lange behandelingstijd gemiddeld tot een significante afname van de sagittale overbeet van 4,04 mm (Harrison 2007). Tevens treedt er een significante verandering van de sagittale relatie tussen de boven- en onderkaak op. Tot uitdrukking gebracht met de röntgencefalometrische meting van de hoek ANB (punt A, nasion, punt B) bedraagt de verandering gemiddeld $-1,35^\circ$ (Harrison 2007). Bij een orthodontische behandeling met RME worden het bovengebit en de bovenkaak met een snelheid van 0,5 mm per dag verbreed (Harrison 2001). Afhankelijk van de wijze waarop de apparatuur wordt bijgesteld kunnen ook andere orthodontische effecten optreden.

Op grond van de hierboven beschreven te verwachten orthodontische effecten bestaat bij kinderen met OSAS zonder malocclusie, een Angle Klasse I of Klasse III-malocclusie het risico dat een behandeling met een MRA de sagittale overbeet en de sagittale relatie tussen de boven- en onderkaak nadelig beïnvloedt. RME kan bij kinderen met OSAS zonder malocclusie of een relatief brede bovenkaak een nadelig orthodontisch effect op de transversale occlusie hebben. MRA en RME zijn derhalve bij deze specifieke patiëntencategorieën doorgaans gecontra-indiceerd.

Vanwege de veranderingen van de stand van het gebit en de kaken wordt het orthodontische behandelplan bij kinderen met malocclusies zonder OSAS door de ortho-

dontist na een uitgebreid onderzoek op basis van een orthodontische diagnose opgesteld. Hierbij wordt naast aspecten als mondhygiëne, conditie van gebitselementen, radices, parodontium en kaakgewrichten ook met de orthodontische afwijkingen, gebitsontwikkeling, kaakgroei, de mogelijkheden, beperkingen en draagtijd van de apparatuur, de timing, behandelduur, frequentie van behandelingen en controles, retentieprocedures, dentofaciale esthetiek en de motivatie, coöperatie en wensen van de patiënt en ouders rekening gehouden. Een uitgebreid orthodontisch onderzoek bij kinderen met malocclusies zonder OSAS omvat naast anamnese en klinisch onderzoek op z'n minst ook beoordeling van gebitsmodellen, orthopantomogram en laterale schedelröntgenfoto. Gezien de orthodontische veranderingen van de stand van gebit en kaken, gebitsontwikkeling en kaakgroei tijdens behandelingen met MRA's en RME is het wenselijk dat ook bij de behandeling van OSAS bij kinderen met een orthodontisch apparaat er van tevoren een behandelplan wordt opgesteld, dat op uitgebreid onderzoek is gefundeerd. Een dergelijke behandeling dient regelmatig te worden gecontroleerd en op grond van gebitsontwikkeling, kaakgroei, orthodontische (neven)effecten, mondhygiëne en compliantie te worden bijgesteld. Afhankelijk van het behandelingsverloop dient de orthodontische apparatuur op de juiste momenten te worden veranderd of vervangen. Daarnaast moet ook het effect van een behandeling van OSAS bij kinderen met een orthodontisch apparaat op basis van klachten, parameters bij (poly)somnografie en risicovermindering op langere termijn van OSAS worden geëvalueerd.

Samenvattend moet een orthodontische therapie van OSAS bij kinderen aan de hand van de orthodontische behandelingsvoortgang en de OSAS-symptomen op deskundige wijze door de orthodontist worden bijgesteld.

Op grond van het bovenstaande kan een orthodontische behandeling van OSAS als secundaire interventie in aanmerking komen voor kinderen, bij wie ook vanwege een malocclusie orthodontische behandeling wenselijk is. Orthodontische behandelingen van OSAS met MRA en RME kunnen worden geïndiceerd bij kinderen met respectievelijk een Angle Klasse II-malocclusie en een smalle bovenkaak. Deze orthodontische behandelingen kunnen worden overwogen in geval van contra-indicatie of onvoldoende effect van adenotonsillectomie of andere therapieën of acceptatieproblemen met deze behandelingen. Behandeling met een PEBP kan bij baby's met Robin-sequentie worden overwogen.

Ten slotte wordt volledigheidshalve nog opgemerkt dat een orthodontische behandeling ook geïndiceerd kan zijn bij de behandeling van OSAS bij kinderen met osteotomieën of osteodistractietechnieken.

Aanbevelingen

Orthodontische behandelingen zijn niet geïndiceerd als primaire behandeling van OSAS bij kinderen.

Een MRA (mandibulaire repositie apparaat) kan als secundaire interventie worden overwogen bij de behandeling van OSAS bij kinderen met een Angle Klasse II-malocclusie en een leeftijd van 5 jaar of ouder.

RME ('rapid maxillary expansion') kan als secundaire interventie worden overwogen bij de behandeling van OSAS bij kinderen met een smalle bovenkaak en een leeftijd van 5 jaar of ouder.

Er is weinig bewijs dat PEBP's ('Pre-Epiglottic Baton Plates') een plaats hebben in de behandeling van baby's met Robin-sequentie en een apneu index >3. Het verdient aanbeveling om hierover meer wetenschappelijke onderzoeksgegevens te verkrijgen.

Het verdient aanbeveling om voorafgaande aan een behandeling van OSAS bij kinderen met een MRA of RME eerst een uitgebreid orthodontisch onderzoek uit te voeren en een behandelingsplan op te stellen.

De gebitsontwikkeling, kaakgroei, (neven)effecten van de apparatuur, mondhygiëne en compliantie tijdens een orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen dienen met regelmatige intervallen door de orthodontist te worden gecontroleerd en indien nodig moeten apparatuur en behandelingsplan op grond van bevindingen tijdig worden bijgesteld.

Het effect van een orthodontische behandeling van OSAS bij kinderen moet door een multidisciplinair team met (poly)somnografie worden gecontroleerd.

Literatuur

- Bacher M, Sautermeister J, Urschitz MS, Buchenau W, Arand J, Poets CF. An oral appliance with velar extension for treatment of obstructive sleep apnea in infants with the Pierre Robin sequence. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal* 2010, 0(0): 0-0.
- Brouillette R, Hanson D, David R, Klemka L, Szatkowski A, Fernbach S et al. A diagnostic approach to suspected obstructive sleep apnea in children. *Journal of Pediatrics* 1984, 105(1): 10-14.
- Buchenau W, Urschitz MS, Sautermeister J, Bacher M, Herberts T, Arand J et al. A randomized clinical trial of a new orthodontic appliance to improve upper airway obstruction in infants with Pierre Robin sequence. *Journal of Pediatrics* 2007, 151(2): 145-149.
- Butow KW, Hoogendijk CF, Zwahlen RA. Pierre Robin sequence: appearances and 25 years of experience with an innovative treatment protocol. *Journal of Pediatric Surgery* 2009, 44(11): 2112-2118.
- Carvalho FR, Lentini-Oliveira D, Machado MA, Prado GF, Prado LB, Saconato H et al. Oral appliances and functional orthopaedic appliances for obstructive sleep apnoea in children. *Cochrane Database of Systematic Reviews* 2007.
- Cozza P, Gatto R, Ballanti F, Prete L. Management of obstructive sleep apnoea in children with modified monobloc appliances. *European Journal of Paediatric Dentistry* 2004, 5(1): 24-29.
- Cozza P, Polimeni A, Ballanti F. A modified monobloc for the treatment of obstructive sleep apnoea in paediatric patients. *European Journal of Orthodontics* 2004, 26(5): 523-530.
- Epstein LJ, Kristo D, Strollo PJ Jr, Friedman N, Malhotra A, Patil SP et al. Clinical guideline for the evaluation, management and long-term care of obstructive sleep apnea in adults. *Journal of Clinical Sleep Medicine* 2009, 5(3): 263-276.
- Fleetham J, Ayas N, Bradley D, Ferguson K, Fitzpatrick M, George C et al. Canadian Thoracic Society guidelines: diagnosis and treatment of sleep disordered breathing in adults. *Canadian Respiratory Journal* 2006, 13(7): 387-392.

- Gordon JM, Rosenblatt M, Witmans M, Carey JP, Heo G, Major PW et al. Rapid palatal expansion effects on nasal airway dimensions as measured by acoustic rhinometry. A systematic review. *Angle Orthodontist* 2009, 79(5): 1000-1007.
- Harrison JE, Ashby D. Orthodontic treatment for posterior crossbites. *The Cochrane Database of Systematic Reviews* 2001.
- Harrison JE, O'Brien KD, Worthington HV. Orthodontic treatment for prominent upper front teeth in children. *The Cochrane Database of Systematic Reviews* 2007.
- Kuhle S, Urschitz MS, Eitner S, Poets CF, Kuhle Stefan, Urschitz Michael S et al. Interventions for obstructive sleep apnea in children: a systematic review. *Sleep Medicine Reviews* 2009, 13(2): 123-131.
- Kushida CA, Morgenthaler TI, Littner MR, Alessi CA, Bailey D, Coleman J Jr et al. Practice parameters for the treatment of snoring and Obstructive Sleep Apnea with oral appliances: an update for 2005. *Sleep* 2006, 29(2): 240-243.
- Kwaliteitsinstituut voor de Gezondheidszorg CBO. Richtlijn Diagnostiek en behandeling van het obstructief slaapapneu syndroom bij volwassenen. 's-Hertogenbosch: Nederlandse Vereniging van Artsen voor Longziekten en Tuberculose; 2009
- Laitinen LA, Anttalainen U, Pietinalho A, Hamalainen P, Koskela K, Expert Advisory Group. Sleep apnoea: Finnish National guidelines for prevention and treatment 2002-2012. *Respiratory Medicine* 2003, 97(4): 337-365.
- Miano S, Rizzoli A, Evangelisti M, Bruni O, Ferri R, Pagani J et al. NREM sleep instability changes following rapid maxillary expansion in children with obstructive apnea sleep syndrome. *Sleep Medicine* 2009, 10(4): 471-478.
- Paediatric Society of New Zealand. Assessment of sleep-disordered breathing in childhood. New Zealand: Paediatric Society of New Zealand; 2005
- Pirelli P, Saponara M, Attanasio G. Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS) and rhinotubular dysfunction in children: therapeutic effects of RME therapy. *Progress in Orthodontics* 2005, 6(1): 48-61.
- Pirelli P, Saponara M, Guilleminault C. Rapid maxillary expansion in children with obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep* 2004, 27(4): 761-766.
- Pirelli P, Saponara M, De Rosa C, Fanucci E. Orthodontics and obstructive sleep apnea in children. *Medical Clinics of North America* 2010, 94(3): 517-529.
- Randerath W, Bauer M, Blau A, Fietze I, Galetke W, Hein H. Stellenwert der nicht-nCPAP-Verfahren in der Therapie des obstructiven Schlafapnoe-Syndroms. Relevance of Non-CPAP Treatment Options in the Therapy of the Obstructive Sleep Apnoea Syndrome. *Somnologie* 2006, 10(2): 67-98.
- Schechter MS, Section on Pediatric Pulmonology Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Technical report: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002, 109(4): 0-0.
- Schwarting S, Huebers U, Heise M, Schlieper J, Hauschild A. Position paper on the use of mandibular advancement devices in adults with sleep-related breathing disorders. A position paper of the German Society of Dental Sleep Medicine (Deutsche Gesellschaft Zahnärztliche Schlafmedizin, DGZS). *Sleep & Breathing* 2007, 11(2): 125-126.
- Scottish Intercollegiate Guidelines Network (SIGN). Management of obstructive sleep apnoea/hypopnoea syndrome in adults. A national clinical guideline. Edinburgh: NHSScotland; 2006
- Section on Pediatric Pulmonology Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome American Academy of Pediatrics. Clinical practice guideline: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002, 109(4): 704-712.
- Villa MP, Bernkopf E, Pagani J, Broia V, Montesano M, Ronchetti R et al. Randomized controlled study of an oral jaw-positioning appliance for the treatment of obstructive sleep

- apnea in children with malocclusion. American Journal of Respiratory & Critical Care Medicine 2002, 165(1): 123-127.
- Villa MP, Malagola C, Pagani J, Montesano M, Rizzoli A, Guilleminault C et al. Rapid maxillary expansion in children with obstructive sleep apnea syndrome: 12-month follow-up. Sleep Medicine 2007, 8(2): 128-134.
 - Villa MP, Rizzoli A, Miano S, Malagola C. Efficacy of rapid maxillary expansion in children with obstructive sleep apnea syndrome: 36 months of follow-up. Sleep & Breathing 2011, 15(2): 179-184.

5.2. CPAP/BIPAP

Inleiding

Respiratoire ondersteuning door middel van non-invasieve beademing met continuous positive airway pressure, CPAP of bilevel positive airway pressure, BIPAP is een geaccepteerde behandeling bij kinderen met een ernstige vorm van OSAS. Succespercentages van 80-90% zijn gerapporteerd.

In 1981 werd CPAP (Continuous Positive Airway Pressure) geïntroduceerd als behandeling voor OSAS (richtlijn OSAS volwassenen). Het CPAP apparaat blaast kamerlucht met hoge druk in de bovenste luchtweg via de neus (en eventueel via de mond). Door deze positieve druk in de bovenste luchtweg wordt collaps van de bovenste luchtweg en dus obstructieve apneus en hypopneus voorkomen.

5.2.1. Bij welke patiënten is behandeling met CPAP/BIPAP geïndiceerd?

Samenvatting van de literatuur

Bij volwassenen zijn er diverse systematische reviews, meta-analyses en gerandomiseerde gecontroleerde studies gepubliceerd over de werkzaamheid van CPAP bij patiënten met OSAS (zie richtlijn OSAS bij volwassenen). Bij volwassenen is CPAP de gouden standaard voor de behandeling van ernstig OSAS. Bij matig ernstig OSAS is CPAP een van de behandelopties. Bij lichte OSAS is CPAP-therapie in principe niet geïndiceerd. CPAP verbetert de AHI evenals de symptomen en geeft een vermindering van vasculaire morbiditeit en mortaliteit.

Bij kinderen zijn er geen gerandomiseerde trials gedaan die vormen van respiratoire ondersteuning vergelijken met andere vormen van therapie of placebo. Er zijn echter wel een aantal observationele studies gedaan waarin een effect wordt gezien van respiratoire ondersteuning op klachten van OSAS.

De eerste 3 studies waarbij bij grotere aantallen kinderen het gebruik van CPAP werd beschreven dateren allen uit 1995 (Waters, Guilleminault en Marcus).

Waters et al (1995) beschrijven in een studie 80 kinderen (<16 jaar) die nasale CPAP gedurende 15 maanden (gemiddeld) kregen. De gemiddelde leeftijd van de kinderen die met CPAP behandeld werden was 5,7, range 12 dagen to 15,3 jaar. 71% waren jongens. Redenen voor de OSAS waren onder andere bij 43% een structureel abnormale bovenste luchtweg en bij 19% een functioneel abnormale bovenste luchtweg. De gemiddelde druk die werd gegeven was 7,9 cm H₂O. Van de 80 kinderen was het bij 10 kinderen niet mogelijk om CPAP succesvol te starten. Bij 1 kind werd de CPAP therapie gestopt omdat de medische conditie verslechterde. Bij de 69 succesvol behandelde kinderen verdwenen de

symptomen van OSAS. De respiratory disturbance index zakte van 27.3 naar 2.6. Acht kinderen waarbij CPAP werd gestart overleden als gevolg van de onderliggende ziekte (longziekte, chromosomale afwijking en stofwisselingsziekte).

Guilleminault et al beschrijven de ervaringen met CPAP die thuis werden toegediend bij een groep van 74 zuigelingen. De gemiddelde leeftijd was 24 ± 9 weken, het jongste kind was 9 weken. De reden voor CPAP therapie was bij 23% een Apparent Life Threatening Event (ALTE), bij 11% failure to thrive en bij de overige 66% een abnormaal ademhalingspatroon tijdens slaap. Van de 74 onderzochte zuigelingen hadden er 57 (77%) een craniofaciale afwijking. Met behulp van polysomnografie werd de apneu-hypopneu index bepaald: 42% >25 events/uur, 38% 11-25 events/uur, 9% 5-10 events/uur en 11% <5 events/uur. Na start van de CPAP bleek dat het bij 3 kinderen niet mogelijk was de therapie goed in te stellen en werd er bij 1 van deze 3 kinderen BIPAP geprobeerd. Dit kind overleed echter als gevolg van cardiorespiratoire complicaties. Guilleminault et al beschrijven van de overige kinderen dat de therapie succesvol werd toegepast, maar beschrijven echter niet op welke klinische gronden de therapie als succesvol werd beschouwd.

Marcus et al (1995) onderzocht retrospectief de veiligheid en de effectiviteit van CPAP als behandeling voor kinderen met OSAS. Aan de hand van een vragenlijst werd aan 9 academische centra gevraagd hun bevindingen op te schrijven. In totaal werden data van 94 kinderen verkregen, 3% was < 1jaar, 29% 1-5 jaar, 36% 6-12 jaar en 32% 13-19 jaar. CPAP werd als behandeling toegepast indien bij een kind waarbij een ATE niet succesvol was geweest of niet geïndiceerd, symptomen persisteerden van onder andere slaperigheid overdag, slechte groei of pulmonale hypertensie en daarnaast afwijkingen gezien werden bij polysomnografisch onderzoek (obstructieve apneu, desaturaties en hypercapnie). Indicatie voor CPAP waren; OSAS geassocieerd met obesitas (27%), craniofaciale anomalie (25%), idiopathische OSAS na ATE (17%) en trisomie 21 (13%). CPAP was effectief bij 81 kinderen (86%). De mediane druk die nodig was 8 cm H₂O (range, 4 to 20 cm H₂O). De langste duur van CPAP gebruik was 4 jaren.

Naast deze 3 studies zijn er in 1995 nog 2 studies gepubliceerd waarbij in beide studies 4 kinderen werd beschreven die werden behandeld met CPAP. Rains (1995) evalueerde de effectiviteit van gedragstechnieken om CPAP toe te kunnen passen. Na training accepteerde alle 4 de kinderen de therapie en verbeterde het polysomnogram en tijdens follow-up de klinische klachten.

Tirosh et al (1995) behandelde 4 jongens met CPAP in de leeftijd van 6-16 jaar gediagnosticeerd met een ontwikkelingsstoornis en OSAS. CPAP behandeling liet na een follow-up periode van 12-48 maanden een verbetering zien van het klinisch beeld; verbetering slaap kwaliteit en dagelijkse arousals, afname van in de frequentie van convulsies en periodes van pneumonie.

Na 1995 zijn er 3 studies gepubliceerd waarbij bij een kleiner aantal kinderen met OSAS gekeken is naar het effect van non-invasieve respiratoire ondersteuning (8, 18 en 21 kinderen bij resp McNamara 1999, Downey 2000 en Marcus 1995).

McNamara et al (1999) onderzocht het apneu en arousal patroon bij 8 zuigelingen met OSAS voor en tijdens CPAP therapie en vergeleek de gemeten waarden met 8 gematchte zuigelingen met OSAS en met 8 zuigelingen zonder OSAS. De zuigelingen waren verwezen in verband met een ALTE of omdat er in de familie een kind was met wiegendood. Bij de zuigelingen met OSAS werd vastgesteld dat de meerderheid van centrale en obstructieve

apneus werden beëindigd na een arousal. Bij alle zuigelingen met OSAS was het aantal spontane arousals tijdens REM slaap afgenomen, tijdens CPAP therapie nam het aantal spontane arousals toe tot normaal. Tijdens CPAP therapie daalde het aantal obstructieve apneus van 22.2/uur naar 0.3/uur. De auteurs concludeerden dat behandeling met CPAP effectief is bij zuigelingen met OSAS. Tevens werd geconcludeerd dat de arousal respons bij zuigelingen met OSAS mogelijk onderdrukt is en dat behandeling met CPAP de normale arousal respons weer voor een deel terugkomt.

Downey et al (2000) onderzochten retrospectief de effectiviteit van CPAP bij een groep van 18 kinderen < 2 jaar die met OSAS gediagnosticeerd waren. 11 kinderen waren < 1 jaar. Bij 6 van de 18 kinderen was een tracheotomie in situ en werd geprobeerd met nasale CPAP de OSAS te behandelen. Bij 2 van de 6 kinderen was dit succesvol. Bij alle 18 kinderen was het mogelijk een polysomnografie te verrichten zonder en met CPAP. Met CPAP werd onder andere een significant lagere apneu index en aantal awakenings gevonden.

Marcus et al (2005) onderzocht bij 29 kinderen met OSAS (gemiddelde leeftijd 10 jaar) het verschil in het gebruik van CPAP en BIPAP. De studie werd dubbel blind en gerandomiseerd uitgevoerd. Kinderen in de leeftijd 2-16 jaar werden geïnccludeerd, kinderen met Down syndroom werden ge-excludeerd. De oorzaak voor OSAS was obesitas (n=19; 65%), idiopatisch na adenotonsillectomie (n=5; 17%), craniofaciale anomalie (n=3; 10%) en overig n=2. Na 6 maanden respiratoire ondersteuning bleken zowel CPAP als BIPAP zeer effectief te zijn met een reductie van de apneu-hypopneu index van 27 ± 32 naar 3 ± 5 /uur en een verbetering van de laagste saturatie van $77 \pm 17\%$ naar $89 \pm 6\%$.

CPAP of BIPAP bij kinderen met craniofaciale aandoeningen

Respiratoire ondersteuning door middel van non-invasieve beademing met CPAP of BIPAP is een geaccepteerde behandeling bij kinderen. Echter bij kinderen met craniofaciale afwijkingen in het gelaat kan het moeilijk zijn om een juiste neus-mond kap te vinden. Tevens kunnen anatomische vernauwingen van de nasopharynx een instelling met CPAP of BIPAP bemoeilijken.

In 3 recente studies werd behandeling van respiratoire problemen met CPAP of BIPAP beschreven (Nelson 2008, Witherow 2008, Bannink 2010). In totaal werden bij 17 van de 46 kinderen met respiratoire problemen deze behandeling beschreven. Na een Le Fort III operatie of monobloc kon bij 8 van de 17 kinderen de ondersteuning gestopt worden (47%). Eerder in 1996 beschreven Gonzalez bij een groep van 8 kinderen (lft 2.2-15 jr) de mogelijkheden van CPAP om OSAS te behandelen bij kinderen met syndromale craniosynostose. Bij 5 van de 8 kinderen was de behandeling succesvol. Van de overige 3 kinderen tolereerde één het systeem niet, een tweede trok zich terug uit de studie, en had het derde kind een complete blokkade van de bovenste luchtweg door een vergroot adenoid.

Conclusies

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat CPAP een effectieve behandeling is voor zuigelingen en oudere kinderen met OSAS. <i>C Waters 1995, Guilleminault 1995, Marcus 1995, McNamara 1999, Downey 2000, Marcus 2005</i>
-----------------	---

Niveau 3	CPAP en of BIPAP zijn even effectief in de behandeling van OSAS bij kinderen > 2 jaar. <i>C Marcus 2005</i>
-----------------	--

Niveau 3	CPAP en/of BIPAP kan een effectieve behandeling zijn voor OSAS bij kinderen met een craniofaciale aandoening. <i>C Gonzalez 1996, Nelson 2008, Witherow 2008, Bannink 2010</i>
-----------------	---

Overige overwegingen

De indicatie voor non-invasieve beademing middels CPAP of BIPAP zal individueel afgewogen moeten worden en afhankelijk van zijn van onderstaande zaken:

- de onderliggende ziekte en leeftijd van het kind;
- de ernst van de klachten 's nachts en overdag;
- de apneu/hypopneu index in relatie met de diepte van de desaturaties;
- indien adenotonsillectomie niet geïndiceerd (meer) is;
- indien zuurstof toediening geen of nauwelijks verbetering geeft;
- er tekenen zijn van een chronisch respiratoire insufficiëntie, bepaald middels nachtelijke CO₂ verhoging (capillair, arterieel of transcutaan gemeten);
- er tekenen zijn van rechter ventrikel hypertrofie, decompensatio cordis of pulmonale hypertensie.

BIPAP wordt vaak gebruikt bij kinderen waarbij het niet lukt de OSAS te behandelen met CPAP als gevolg van discomfort of slechte compliantie (Liner en Marcus 2006).

Om CPAP of BIPAP therapie succesvol te kunnen toepassen is het van belang een aantal praktische zaken goed geregeld te hebben:

- kennis van de neusmondmaskers die gebruikt kunnen worden bij kinderen met verschillende leeftijden en vaak een afwijkend aangezicht;
- kennis van de gevolgen van het langdurig gebruik van neus-mond maskers;
- kennis van de diverse beademingsmachines die thuis gebruikt kunnen worden;
- mogelijkheden tot frequente evaluatie van het klinisch beeld met behulp van polysomnografie.

Het klinisch beeld van OSAS kan veranderen in de loop van jaren of tijdens de seizoenen. De duur die noodzakelijk is om OSAS te behandelen is bij bijna geen enkel kind vooraf vast te stellen maar dient regelmatig geëvalueerd te worden (minimaal 1x per jaar) (AAP 2002).

Bovenstaande overwegingen geven de noodzaak aan om behandeling van OSAS met CPAP en BIPAP te centreren in gespecialiseerde centra waar een multidisciplinair team is dat zich bezig houdt met ademhalingsondersteuning bij kinderen. Geadviseerd wordt om laagdrempeling contact te zoeken met de centra voor thuisbeademing.

Aanbevelingen

De behandeling van OSAS bij kinderen met CPAP (Continuous Positive Airway Pressure) of BIPAP (Bilevel Positive Airway Pressure) dient overwogen te worden indien er sprake is van ernstige OSAS of matige OSAS waarbij ernstige klachten bestaan na falen van een adenotonsillectomie en/of medicamenteuze therapie.

Het instellen van CPAP of BIPAP bij kinderen met OSAS dient in centra met expertise te geschieden met ervaring in deze vormen van ademhalingsondersteuning en bij voorkeur in overleg met de centra voor thuisbeademing.

Bij kinderen met OSAS die met CPAP of BIPAP worden behandeld verdient het aanbeveling regelmatig (minimaal 1x per jaar) het klinisch beeld te evalueren teneinde vast te kunnen stellen of CPAP of BIPAP nog geïndiceerd is.

Het instellen van CPAP of BIPAP bij kinderen met OSAS dient plaats te vinden in gespecialiseerde centra voor thuisbeademing bij kinderen.

Literatuur

- American Academy of Pediatrics Clinical practice guideline: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome Pediatrics 2002;109:704-712
- American Academy of Pediatrics Technical report: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome Pediatrics 2002;109:1-2.
- Bannink N, Nout E, Wolvius EB, Hoeve HL, Joosten KF, Mathijssen IM. Obstructive sleep apnea in children with syndromic craniosynostosis: long-term respiratory outcome of midface advancement. Int. J. Oral Maxillofac. Surg. 39: 115-21, 2010.
- Clinical practice guideline: diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. Pediatrics 2002; 109:704.
- Downey R, 3rd, Perkin, RM, MacQuarrie, J. Nasal continuous positive airway pressure use in children with obstructive sleep apnea younger than 2 years of age. Chest 2000; 117:1608.
- Gonzalez S, Hayward R, Jones B, Lane R. Upper airway obstruction and raised intracranial pressure in children with craniosynostosis. Eur. Respir. J. 10: 367-75, 1997.
- Guilleminault, C, Pelayo, R, Clerk, A, et al. Home nasal continuous positive airway pressure in infants with sleep-disordered breathing. J Pediatr 1995; 127:905.
- Indications and standards for use of nasal continuous positive airway pressure (CPAP) in sleep apnea syndromes. American Thoracic Society. Official statement adopted March 1994. Am J Respir Crit Care Med 1994; 150:1738.
- Liner LH and Marcus CL Ventilatory management of sleep-disordered breathing in children. Curr Opin Pediatr 2006;18:272-276.
- Marcus, CL, Ward, SL, Mallory, GB, et al. Use of nasal continuous positive airway pressure as treatment of childhood obstructive sleep apnea. J Pediatr 1995; 127:88.
- McNamara, F, Sullivan, CE. Obstructive sleep apnea in infants and its management with nasal continuous positive airway pressure. Chest 1999; 116:10.
- Marcus, CL, Rosen, G, Ward, SL, et al. Adherence to and effectiveness of positive airway pressure therapy in children with obstructive sleep apnea. Pediatrics 2006; 117:e442.
- Nelson TE, Mulliken JB, Padwa BL. Effect of midfacial distraction on the obstructed airway in patients with syndromic bilateral coronal synostosis. J. Oral Maxillofac. Surg. 66: 2318-2321, 2008.

- Rains JC Treatment of obstructive sleep apnea in pediatric patients. Behavioral intervention for compliance with nasal continuous positive airway pressure Clin Pediatr (Phila). 1995 Oct;34(10):535-41.
- Tirosh E, Tal Y, Jaffe M CPAP treatment of obstructive sleep apnoea and neurodevelopmental deficits Acta Paediatr. 1995 Jul;84(7):791-4.
- Waters, KA, Everett, FM, Bruderer, JW, Sullivan, CE. Obstructive sleep apnea: the use of nasal CPAP in 80 children. Am J Respir Crit Care Med 1995; 152:780.
- Witherow H, Dunaway D, Evans R, Nischal KK, Shipster C, Pereira V, Hearst D, White M, Jones BM, Hayward R. Functional outcomes in monobloc advancement by distraction using the rigid external distractor device. Plast. Reconstr. Surg. 121: 1311-1322, 2008.

5.3. Bij welke kinderen is medicamenteuze behandeling van OSAS geïndiceerd?

Inleiding

De prevalentie van OSAS bij kinderen bedraagt ongeveer 1% en is het hoogst tussen het tweede en zesde jaar. Vaak is er sprake van adenotonsillaire hypertrofie. De 1^e behandeling van OSAS bij kinderen is derhalve vaak een adenotonsillectomie.

Meerdere medicamenteuze behandelingen zijn voorgesteld als (mede) behandeling van een OSAS bij kinderen. Systemische behandeling met corticosteroiden geeft geen verandering van OSAS parameters (Brouillette 2001). Enkele studies rapporteerden over een effect van nasale corticosteroiden op de grootte van het adenoïd bij kinderen boven de 5 jaar maar onderzochten niet specifiek naar OSAS parameters (Demain 1995).

Andere studies toonden aan dat er een hoge concentraties aan inflammatoire mediators in de uitademingslucht van kinderen met OSAS zitten (Goldbart 2006) Ook heeft het lymfatische adenotonsillaire weefsel een hoge concentratie aan α -glucocorticoïd receptoren (Goldbart 2005).

Echter alle deze bovengenoemde en ook soortgelijke studies waren niet gerandomiseerd. Vaak betrof het kinderen met ernstig OSAS.

Samenvatting van de literatuur

Met behulp van MESH termen werd een search verricht naar artikelen in de periode 1994-2009. Er werd gezocht naar randomized control trials die het effect van anti-inflammatoire medicatie op de apneu-hypopneu index onderzochten bij gezonde kinderen tussen de 1 en 18 jaar die geen recente (korter dan 1 jaar) adenotonsillectomie hadden ondergaan. De AHI moest meer dan 1 zijn.

Er werden drie randomized controlled trials gevonden alsmede werd een recente Cochrane review gepubliceerd (Kuhle 2011), die deze drie studies beschrijft.

Brouillette (2001) bestudeerde in 2001 25 kinderen met een leeftijd tussen de 1 en 10 jaar met een polysomnografisch bewezen OSAS. Na randomisatie werden 13 kinderen 6 weken behandeld met Fluticason neusspray; 12 kinderen kregen een placebo. In de eerste groep daalde de AHI van 10.7 (\pm 2.6) naar 5.8 (\pm 2.2). In de placebo groep steeg de AHI (10.9) na

6 weken naar 13.1 (\pm 3.9). Er werd geen significante afname gevonden van adenoïd en tonsillaire hypertrofie.

Goldbart (2009) verrichtte een dubbel-blind placebo gecontroleerde studie (n=30) naar het effect van leukotrieën receptor antagonisten (montelukast) op de behandeling van OSAS bij kinderen zonder obesitas tussen de 2 en 8 jaar die geen adenotonsillectomie hadden ondergaan. De duur van de behandeling was 12 weken. In de montelukast groep daalde de AHI significant met gemiddeld 3.7 (\pm 1.6) voor start van de behandeling naar 1.9 (\pm 1.0). Ook was er in deze groep een significante afname van het adenoïd. Effecten op de tonsilgrootte werden niet bestudeerd.

Kheirandish–Gozal (2008) verrichtte de grootste studie (dubbel blind, cross-over gerandomiseerde trial) naar het effect van een nasaal corticosteroïd (budenoside) bij 62 gezonde kinderen tussen de 6 en 12 jaar met een polysomnografisch bewezen OSAS. Drieënveertig kinderen doorliepen het gehele protocol na de 'wash out' periode van 2 weken.

Uiteindelijk kregen 48 kinderen een behandeling met nasale corticosteroïden. De duur van de behandeling was 6 weken met een intranasaal corticosteroïd.

Van de 48 kinderen die een behandeling kregen daalde de AHI gemiddeld van 3.7 (\pm 0.3) naar 1.3 (\pm 0.2). Ook was er een significante afname van het adenoïd. De auteurs merkten ook op dat na stoppen van het nasale corticosteroïd gedurende 8 weken geen significante verandering van de AHI optrad. Ook de Cochrane review concludeert dat intranasale steroïden een kortdurend effect kunnen hebben op de AHI. Data die werden geïncludeerd betroffen echter alleen studie resultaten op korte termijn. Aanvullende randomized control studies zijn nodig om resultaten te evalueren voor het gebruik van nasale steroïden op de lange termijn. Voor orale leukotrieën is onvoldoende bewijs voor een effect op de AHI.

Conclusies

Niveau 2	Er zijn aanwijzingen dat door behandeling met anti-inflammatoire medicatie de grootte van het adenoïd afneemt. <i>B Demain 1995, Kheirandish-Gozal 2008, Goldbart 2009</i>
-----------------	---

Niveau 3	Er is weinig bewijs dat nasale inhalatie corticosteroïden een belangrijke plaats hebben in de langdurige behandeling van een mild of matig pediatrisch OSAS. <i>B Kuhle 2011</i>
-----------------	---

Overige overwegingen

De studies die werden gevonden excluseren kinderen met een ernstig OSAS en zijn klein. Hierdoor was een subgroep indeling niet mogelijk. Met name kinderen met een allergische rhinitis of astma kunnen significant beter reageren op nasale inhalatie corticosteroïden dan andere kinderen.

Bij nagenoeg alle kinderen daalde de AHI tijdens de medicamenteuze behandeling niet onder de 1, zodat een (aanvullende) vervolg behandeling vaak noodzakelijk is. Een ander nadeel is de korte duur van de behandeling, zonder een lange termijn follow up. Tevens is er nog steeds veel discussie over de lange termijn neven effecten van nasale corticosteroïden bij de jongste kinderen. Voor een positief effect van orale leukotrieën is onvoldoende bewijs.

Bij kinderen waarbij sprake is van een milde tot matige OSAS kan de ernst van de OSAS wisselen afhankelijk van intercurrente bovenste luchtweginfecties. Nasale corticosteroïden (al dan niet in combinatie met decongestiva) tijdens een episode van luchtweginfectie kunnen kortdurend vermindering van klachten geven.

Resumerend zou een kortdurende behandeling bij die kinderen met een mild OSAS kortdurend, voor het instellen van andere behandelingen te overwegen zijn. Meerdere gerandomiseerde studies met een langere behandelingsduur zijn nodig om het effect van anti-inflammatoire medicatie op de behandeling van OSAS bij kinderen in de toekomst te evalueren.

Aanbevelingen

Een langdurige behandeling (> 3 maanden) met nasale inhalatie corticosteroïden heeft geen plaats bij de behandeling van een mild of matig OSAS bij kinderen.

Een nasaal corticosteroïd kan bij milde OSAS kortdurend gebruikt worden voor een tijdelijke verlichting van klachten.

Literatuur

- Brouillette RT, Manoukian JJ, Ducharme MD, Oudjhane K, Earl LG, Ladan Set al. Efficacy of fluticasoone nasal spray for pediatric sleep apnea. *The Journal of paediatrics* 2001; 136,6, 838-844.
- Demain JG, Goetz DW. Pediatric adenoidal hypertrophy and nasal airway obstruction: reduction with aquais nasal beclomethasone. *Pediatrics* 1995; 95;355-364.
- Goldbart AD, Tai A. Leucotrieen modifier therapy for sleep disordered breathing in children. A double blind placebo controlled study. *Am J Respir Crit med*, 2009, 179, A6344.
- Goldbart AD, Krishna J, Li RC, Serpero LD, Gozal D. Inflammatory mediators in exhaled breath condensate of children with obstructive sleep apnea syndrome. *Chest*. 2006;130(1):143–148.
- Goldbart AD, Veling MC, Goldman JL, Li RC, Brittan KR, Gozal D. Glucocorticoid receptor subunit expression in adenotonsillar tissue of children with obstructive sleep apnea. *Pediatr Res*. 2005;57(2):232–236.
- Kheirandish-Gozal, Gozal D. Intranasal budenoside treatment with mild obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2008, 122;8;149-155.
- Kuhle S, Urschitz MS. Anti-inflammatory medications for obstructive sleep apnea in children (Review). *The Cochrane collaboration* 2011.

5.4. Zuurstoftherapie voor behandeling van OSAS bij kinderen

De mechanismen waarbij zuurstoftherapie OSAS kan beïnvloeden zijn niet onderzocht bij kinderen. Zuurstoftherapie zou een gunstig effect kunnen hebben op de slaaparchitectuur en op het functioneren van het spierstelsel.

Zuurstoftherapie moet niet gezien worden als 1^e lijns therapie bij kinderen met OSAS. Deze therapie kan echter wel als overbrugging gebruikt worden voordat er chirurgische therapie kan plaatsvinden. Zuurstoftherapie kan wel gebruikt worden als palliatieve therapie bij kinderen waarbij chirurgische interventie of ademhalingsondersteuning niet geïndiceerd is zoals bijvoorbeeld bij kinderen met een ernstige psychomotore retardatie.

Aanbevelingen (expert opinion)

Zuurstoftherapie bij kinderen met OSAS kan als tijdelijke therapie gebruikt worden ter overbrugging van de periode tot aan een chirurgische ingreep.

Zuurstoftherapie bij OSAS kan als palliatieve therapie gebruikt worden bij kinderen waarbij er een contra-indicatie is voor chirurgische interventie of ademhalingsondersteuning.

HOOFDSTUK 6: PRE- EN POSTOPERATIEF TRAJECT BIJ INGREPEN ONDER ALGEGHELE ANESTHESIE BIJ KINDEREN MET OSAS

6.1. Aanvullend preoperatief onderzoek

Welk aanvullend preoperatief onderzoek is nodig wanneer patiënten met OSAS anesthesie ondergaan?

Inleiding

De anesthesioloog en de snijdende specialist zijn samen verantwoordelijk voor de preoperatieve zorg. Het doel van het anesthesiologische deel van de preoperatieve zorg is het optimaal en veilig laten verlopen van de anesthesie bij de voorgenomen ingreep. Het anesthesiologische deel van de preoperatieve zorg omvat de beoordeling van de gezondheidstoestand en optimaliseren van de conditie van de patiënt, door anamnese en lichamelijk onderzoek, zonodig aangevuld met bijvoorbeeld een gerichte consultaanvraag. Op basis van de verzamelde gegevens wordt een risico-inschatting t.a.v. de voorgenomen ingreep gemaakt en een perioperatief behandelplan opgesteld (NVA verenigingsstandpunt 2004).

Bij de beoordeling van de gezondheidstoestand van kinderen met OSAS dienen de volgende vragen beantwoord te worden: hoe ernstig is de OSAS bij het kind (zie hoofdstuk 3) en zijn er cardiovasculaire gevolgen, zoals systemische hypertensie en ventrikelhypertrofie aan te tonen bij kinderen met OSAS? Een belangrijke oorzaak van OSAS bij kinderen is hypertrofie van het adenoïd en de tonsillen. Daarnaast zijn er tal van medische aandoeningen, zoals obesitas, syndroom van Down, neuromusculaire aandoeningen, craniofaciale afwijkingen, die geassocieerd zijn met een verhoogde incidentie van OSAS. Deze aandoeningen komen ter sprake in hoofdstuk 2.2 van deze richtlijn. Voor het opstellen van een perioperatief behandelplan moeten er enkele specifieke anesthesiologische aspecten in kaart gebracht worden: zijn er aanwijzingen voor moeilijkheden met de kapbeademing en/of intubatie tijdens de inleiding van de anesthesie of zijn er in de direct postoperatieve fase respiratoire problemen te verwachten? Sedativa kunnen een ademwegobstructie veroorzaken door de afname van spiertonus, terwijl er in sommige gevallen ook een vernauwde bovenste luchtweg aanwezig is. Is het veilig kinderen met OSAS voorafgaand aan een ingreep sedativa te geven? Opioïden hebben een deprimerend effect op de centrale ademhalingsregulatie. Is het veilig om bij deze kinderen postoperatief opioïden toe te dienen? In hoofdstuk 6.2 van deze richtlijn worden de complicaties die zich kunnen voordoen na ontslag van de recovery besproken. Kan het kind de ingreep in dagbehandeling ondergaan of is er een klinische opname noodzakelijk, met eventueel een verlengde recovery periode of zelfs opname op de kinder intensive care (zie hoofdstuk 6.3).

Samenvatting van de literatuur

Cardiovasculaire co-morbiditeit

Er zijn diverse studies gepubliceerd die de cardiovasculaire gevolgen van OSAS bij kinderen beschrijven. Echter, de patiëntenaantallen zijn over het algemeen klein. De grens voor inclusie in het literatuuronderzoek werd op tenminste 10 onderzochte kinderen gesteld. Alleen de studies die de cardiovasculaire gevolgen van OSAS onderzochten, die in de perioperatieve periode van belang kunnen zijn, zijn meegenomen. In totaal zijn vijf studies gebruikt als uitgangspunt voor de wetenschappelijke onderbouwing van dit onderdeel van de uitgangsvraag. Ng publiceerde in 2005 een systematische review naar de cardiovasculaire gevolgen van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen bij kinderen. Hierin worden 10 studies (1990-2004) met in totaal 591 kinderen (van 1 - 18 jaar, zonder belangrijke comorbiditeit) met OSAS (door middel van PSG bevestigd) beschreven. Dezelfde onderzoeksgroep publiceerde in 2008 een systematische review over hetzelfde onderwerp (Kwok 2008). Hierbij werd de database van Medline van 1970 - 2008 onderzocht. De bevindingen van beide systematische reviews worden hier beschreven, uitgangspunt is de review van Kwok 2008. Drie andere studies, verschenen na de systematische review van Kwok, zijn een cohort onderzoek naar de associatie tussen mate van bloeddrukverhoging en de ernst van de OSAS bij kinderen (Bixler 2008), een community based onderzoek naar de cardiale re-modellering en disfunctie bij kinderen met OSAS (Chan 2009) en een patiënt controle onderzoek naar de baroreflex bij kinderen met OSAS (McConnel 2009). In deze 3 studies werd de diagnose OSAS door middel van polysomnografie bevestigd.

Bloeddruk

De gevolgen van OSAS op de bloeddruk zijn complex. Kwok beschrijft een meta-analyse naar het risico op systemische hypertensie (gedefinieerd als een systolische of diastolische bloeddruk > 95^{ste} percentiel) bij OSAS (Kwok 2008). Voor deze meta-analyse werden 7 primaire studies (n = 653) geselecteerd. Het betrof hier alleen patiënt controle, cohort of epidemiologische studies. Studies bij kinderen in de leeftijd van 1 - 18 jaar werden geïnccludeerd, studies bij kinderen met belangrijke comorbiditeit, zoals Down syndroom, werden geëxcludeerd. De diagnose OSAS werd in alle gevallen bevestigd met PSG, gezonde kinderen mochten geen snurkers zijn. In 3 van deze 7 studies werd gebruik gemaakt van 24 uur ambulante bloeddrukmeting, i.p.v. office based bloeddruk meting. Ambulante bloeddruk meting correleert beter met eind-orgaan falen (Mancia 2003). De gecombineerd odds ratio werd berekend op 3.15 (95% BI 2.01 - 4.93).

Kinderen met obesitas met hypertensie hebben een significant hogere incidentie van OSAS (AHI > 1.5) dan de normotensieve kinderen met obesitas (64 versus 29%) (Reade 2004, geselecteerd in review van Kwok 2008). Maar ook omgekeerd: kinderen met obesitas met een AHI > 5 hebben een hogere incidentie van hypertensie dan kinderen met obesitas met een AHI ≤ 5 (54 versus 20%) (Leung 2006, geselecteerd in review van Kwok 2008). Bij meting van de bloeddruk gedurende 24 uur werd deze relatie tussen de hoogte van de AHI en hypertensie ook voor kinderen zonder obesitas gevonden (Amin 2008, geselecteerd in review van Kwok 2008). In dit patiënt controle onderzoek (n = 125) werd bij kinderen tussen de 7 - 13 jaar, die een AHI > 5 hadden tweemaal zo frequent (22.4% van de metingen) een

systolische bloeddruk > 95^{ste} percentiel gemeten dan bij kinderen met een AHI < 1 (10.4% van de metingen). Zes procent van de gezonde controles, 15% van de kinderen met een AHI tussen 1.1 - 5 en 29% van de kinderen met een AHI ≥ 5, hadden een gemiddelde 24 uur systolische bloeddruk > 95^{ste} percentiel. Bixler bevestigde in een prospectief, cohort onderzoek (n = 700; 183 kinderen met OSAS, leeftijd 5 - 12 jaar) de relatie tussen systolische bloeddruk in rust en de ernst van de OSAS (Bixler 2008). Bij een AHI ≥ 1, AHI ≥ 3 en een AHI ≥ 5 werd een stijging van de systolische bloeddruk in rust gemeten van respectievelijk 2.9 mmHg, 7.1 mmHg en 12.9 mmHg. Deze relatie tussen bloeddruk en OSAS bleef significant na correctie voor leeftijd, geslacht, ras, BMI en taille omvang. Onduidelijk blijft wat oorzaak en gevolg is, of dat beiden (hypertensie en OSAS) samenhangen met een derde gemeenschappelijke factor?

In een patiënt controle onderzoek van Amin (n = 60, leeftijd 5 - 17 jaar) werd een verminderde fysiologische nachtelijke daling van de bloeddruk geregistreerd bij patiënten met OSAS (Amin 2004, geselecteerd in review van Ng 2005 en Kwok 2008). De ratio dag / nacht systolische bloeddruk was 0.88 ± 0.04 , 0.90 ± 0.04 en 0.93 ± 0.07 voor kinderen met respectievelijk een AHI < 1, AHI 1 - 5 en een AHI > 5. In een patiënt controle onderzoek met 23 kinderen, werd bij 29% van de kinderen met een AHI > 10 een afwezige nachtelijke bloeddrukdaling gevonden (Kohyama 2003, geselecteerd in review van Ng 2005). Het risico op nachtelijke hypertensie kon worden vastgesteld bij kinderen met een AHI > 5. De gecombineerde odds ratio voor systolische en diastolische (nachtelijke) hypertensie is respectievelijk 3.9 (95% BI 1.4 - 10.5) en 3.5 (95% BI 1.4 - 8.1).

McConnel verrichtte een prospectief, patiënt controle onderzoek (n = 169, leeftijd 7 -13 jaar) naar de gevoeligheid van de baroreflex systeem in kinderen met OSAS (bevestigd met PSG) (McConnel 2009). De baroreflex is een homeostatische mechanisme voor het behoud van bloeddruk. Het voorziet in een negatieve feedback loop waarin een verhoogde bloeddruk reflexmatig de hartslag en dus de bloeddruk laten dalen, bij een verlaagde bloeddruk zal reflexmatig de hartslag en dus de bloeddruk stijgen. De gevoeligheid van het baroreflex systeem wordt berekend door veranderingen in het RR interval op het ECG te koppelen aan veranderingen in bloeddruk. Alle kinderen ondergingen een echocardiografie en PSG met continue bloeddrukmeting (middels vingerplethysmografie). De gevoeligheid van het baroreflex systeem gedurende de slaap neemt af bij kinderen met OSAS (Obstructie Index > 1), bij gezonde kinderen (OI < 1) neemt deze juist toe. Door de afname van de gevoeligheid van het baroreflex systeem, neemt de variabiliteit in bloeddruk gedurende de slaap toe, deze variatie in bloeddruk correleert met toename in linker ventrikel mass index (LVMI). De linker ventrikel massa (LVM weergegeven in gram) wordt berekend met behulp van de formule van Devereux, hierbij wordt zowel de posterieure wand, het linker ventrikel eind diastolisch volume als het ventrikelseptum echografisch 'gewogen'. De LVM is de meest accurate manier om de aan- of afwezigheid van linker ventrikel hypertrofie (LVH) vast te stellen. Om patiënten van verschillende afmetingen te kunnen vergelijken wordt de LVMI berekend: LVM (in grammen) gedeeld door de lengte van de patiënt (tot de macht 2.7).

Ventrikel structuur

Aangezien hypertensie een complicatie is van OSAS, is ook onderzoek verricht naar het voorkomen van ventrikel hypertrofie bij kinderen met OSAS. Hypertrofie van de linker en/of rechter ventrikel werd bij 4 van de 33 kinderen met hypertrofie van het adenoïd en de

tonsillen en klinische verdenking van OSAS, aangetoond in een patiënt controle onderzoek (n = 66, leeftijd 3 – 10 jaar)(Görür 2001, geselecteerd in review van Kwok 2008). Vier patiënten hadden een afwijkend ECG (rechter asdeviatie, RVH en rechter atrium belasting), bij 2 van deze 4 patiënten werd op de thoraxfoto een cardiomegalie gezien. Significante verschillen werden gevonden in rechter ventrikel wanddikte 1.6 ± 0.3 cm versus 1.4 ± 0.2 ; linker ventrikel eind diastolisch diameter (LVEDD) van 3.6 ± 0.5 cm versus 3.3 ± 0.4 en het inter-ventriculair septum (IVS) van 6.8 ± 1.4 mm versus 6.1 ± 1.1 mm. Postoperatief waren de echografische bevindingen in de groep verdacht voor OSAS gelijk aan de bevindingen in de controle groep. In een patiënt controle studie (n = 47, leeftijd 2 - 18 jaar) werd de hartgrootte bij kinderen met OSAS (door PSG bevestigd) onderzocht (Amin 2002, geselecteerd in review van Ng 2005). De LV mass index en de wanddikte waren groter in de groep met OSAS (bevestigd door PSG) t.o.v. kinderen met primair snurken. De volgende verschillen werden gevonden: LV mass index van 36.8 ± 10.8 (p= 0.012) versus 30.1 ± 6.5 en een relatieve wanddikte van 0.347 ± 0.07 versus 0.28 ± 0.05 (p = 0.001). Een AHI ≥ 10 was geassocieerd met RV afmeting $> 95^{\text{ste}}$ percentiel (odds ratio 6.7 95% BI 1.4 - 32) en een LV massa index $> 95^{\text{ste}}$ percentiel (odds ratio 11.2 95% BI 1.9 - 64). In een andere patiënt controle onderzoek (n = 125, leeftijd 7 -13 jaar) werd deze toename in relatieve wanddikte bevestigd, bovendien werd gevonden dat de verschillende bloeddruk parameters voorspellers waren voor de veranderingen van de relatieve wanddikte (Amin 2008, geselecteerd in review van Kwok).

Ventrikel functie

Voordat er klinische symptomen zijn van cardiale betrokkenheid bij kinderen met een klinische diagnose van OSAS, kan disfunctioneren van de ventrikels aangetoond met behulp van radionucleaire ventrikulografie (Tal 1988, geselecteerd in review van Kwok 2008). Afname van RV ejectiefractie (minder dan 35%, bij 10 van de 27 patiënten) en stoornissen in de wandbeweging werd gevonden (bij 18 van de 27 patiënten), welke verbeterde na ATE.

Bestudering van het patroon van vulling van de LV is een methode om de diastolische functie te meten. In een patiënt controle onderzoek (n = 63) correleerde een afname van de E/A ratio (E = vroege diastolische LV vulling; A = actieve late diastolische LV vulling) met de ernst van de OSAS (Amin 2005, geselecteerd in review van Kwok 2008). De E / A ratio bij kinderen met een AHI < 1 , een AHI 1-5 of een AHI > 5 was respectievelijk: 2.16 ± 0.4 , 2.0 ± 0.4 en 1.78 ± 0.3 (gemiddelde \pm standaard deviatie). Echter, beoordelen van de diastolische functie van de LV met slechts één parameter is mogelijk niet afdoende. Bij geen van de kinderen was er sprake van klinische verschijnselen van hartfalen.

In een prospectieve, community based onderzoek (n = 101, leeftijd 6 - 13 jaar) werd onderzoek verricht naar de cardiale disfunctie bij kinderen met OSAS (Chan 2009). Kinderen met OSAS (AHI ≥ 1) hadden t.o.v. controle groep (AHI < 1): een grotere RV systolische volume index (0.25 ± 0.07 ml/m versus 0.18 ± 0.08). Kinderen met een AHI < 1 , een AHI tussen 1 - 5 en een AHI > 5 hadden een RV ejectiefractie van respectievelijk: 59.3 ± 11.0 , 52.4 ± 12.3 en 48.7 ± 11.9 (%). De RV myocardiale performance index wordt berekend door de isovolemische contractie en relaxatietijd te delen door de ejectietijd en is een maat voor de RV functie. De RV myocardiale performance index neemt toe naarmate de AHI hoger is en was respectievelijk: 0.32 ± 0.090 ; 0.36 ± 0.09 en 0.46 ± 0.14 . Toename in de RV myocardiale performance index bij kinderen met hypertrofie van het adenoïd / tonsillen en

klinische verdenking OSAS, werd ook gevonden in een ander patiënt controle onderzoek (n = 42) (Duman 2008). De RV functie, uitgedrukt in RV MPI, verbeterde postoperatief. In de studie van Chan werd ook de LV onderzocht (Chan 2009). De functie van de LV werd benaderd door berekening van de E/e' ratio. De E/e' ratio wordt berekend door de vroege piek snelheid over de mitralisklep (E) te delen door e' (is de mitralisklep annulus vroege piek snelheid). De E/e' ratio is een maat voor de LV vullingsdruk en neemt toe naarmate de AHI hoger is, deze was respectievelijk: 9.1 ± 1.8 ; 9.3 ± 1.4 en 10.4 ± 2.1 , bij kinderen met een AHI van respectievelijk <1 , tussen 1 – 5 en > 5 . Er konden geen significante verschillen in LV ejectiefractie en LV systolische volume index worden aangetoond. Bij verbetering van de OSAS (afname AHI $> 50\%$), trad na 6 maanden verbetering op van deze RV en LV disfuncties (RV MPI, IVSI en E/e' ratio).

Ondanks het feit dat verschillende studies ventrikeldisfunctie hebben vastgesteld bij kinderen met OSAS is het optreden van hartfalen zeldzaam. In een retrospectieve studie van 271 kinderen met slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen bevond zich slechts 1 kind met een congenitale hartafwijking die preoperatief symptomen van hartfalen vertoonde (James 2003, geselecteerd in review van Kwok 2008). In een patiënt controle onderzoek (n = 63) werden er geen klinische verschijnselen van hartfalen waargenomen (Amin 2005, geselecteerd in review van Kwok 2008). Ook in een community based onderzoek (n = 101) werden geen klinische verschijnselen van ventrikel disfunctie aangetoond (Chan 2009). In een patiënt controle onderzoek (n = 42) werd de mean pulmonale arterie druk (mPAP) berekend met behulp van 2D echografie van het hart (Duman 2008). De mPAP was hoger bij kinderen met hypertrofie van het adenoïd / tonsillen (graad 3 en 4) en klinische verdenking OSAS ten opzichte van gezonde controles, de mPAP bedroeg respectievelijk 23.8 ± 6.0 en 15.4 ± 4.7 mmHg ($p < 0.005$). Ook bij deze kinderen waren er geen klinische verschijnselen van ventrikel disfunctie.

Sympathische activiteit

Twee studies (totaal 34 kinderen) onderzochten de sympathische activiteit door meting van de variatie van de hartfrequentie (Baharav 1999, Aljadeff 1997, geselecteerd in review van Ng 2005 en Kwok 2008). Beoordelen van de variabiliteit van de hartfrequentie wordt door de Task Force of European Society of Cardiology en North American Society of Pacing Electrophysiology geaccepteerd als een betrouwbare methode om de sympathisch en vagale systeem van het hart te analyseren. Uitgangspunt hierbij is dat hartfrequenties in de lage range sympathische activiteit weergeven en hartfrequenties in de hoge range vagale activiteit. Zeven kinderen met OSAS (apneu index 19.5 ± 5.1) hadden een toegenomen beat-to-beat variatie bij lage hartfrequenties en een verminderde variatie in hartfrequentie bij de hogere hartfrequenties t.o.v. 7 gezonde kinderen (Aljadeff 1997). Bij 10 kinderen met OSAS (vastgesteld met PSG) traden vaker perioden met lage hartfrequenties gedurende de slaap op t.o.v. 10 gezonde kinderen (Baharev 1999). In een patiënt controle onderzoek (n = 57) werd de sympathische activiteit op een non-invasieve manier gemeten door middel van perifere arteriele tonometrie (PAT) (O'Brien 2005). Verandering in sympathische activiteit werd gemeten in wakkere toestand: tijdens diep zuchten, bij dompelen van 1 hand in ijswater en tijdens de herstelfase. Kinderen met OSAS (AHI > 5) hadden een toegenomen sympathische vasculaire reactiviteit ten opzichte van kinderen zonder OSAS (AHI < 1), ook herstelden de sympathische reactiviteit bij kinderen met OSAS trager.

Conclusies

Niveau 1	<p>Kinderen met (vastgestelde) OSAS hebben een verhoogd risico op systemische hypertensie (gedefinieerd als een systolische of diastolische bloeddruk > 95^{ste} percentiel).</p> <p>De gecombineerd odds ratio is 3.15 (95% BI 2.01 - 4.93).</p> <p><i>A2 Ng 2005, Kwok 2008</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat bij kinderen met obesitas (gedefinieerd als een BMI > 95^{ste} percentiel) de incidentie van hypertensie toe neemt met de ernst van de OSAS.</p> <p><i>B Reade 2004, Leung 2006</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat bij kinderen met (vastgestelde) OSAS een verminderde fysiologische nachtelijke daling van de bloeddruk optreedt.</p> <p><i>B Kohyama 2003, Amin 2004</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met OSAS waarvan de AHI > 5 een verhoogd risico op nachtelijke systolische of diastolische hypertensie (gedefinieerd als een bloeddruk > 95^{ste} percentiel) hebben. De gecombineerde odds ratio is respectievelijk 3.9 (95% BI 1.4 - 10.5) en 3.5 (95% BI 1.4 - 8.1).</p> <p><i>B Kohyama 2003</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat de gevoeligheid van de baroreflex afneemt bij kinderen met (vastgestelde) OSAS gedurende de slaap. Als gevolg daarvan neemt de variabiliteit in de bloeddruk gedurende de slaap toe bij kinderen met OSAS.</p> <p><i>B McConnel 2009</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat bij kinderen met (vastgestelde) OSAS afwijkingen in de structuur van RV en LV optreden. Deze structurele afwijkingen kunnen worden aangetoond met echocardiografie (toename in LV mass index, relatieve wanddikte).</p> <p><i>B Amin 2002, Chan 2009</i></p>

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat bij kinderen met een klinische verdenking van OSAS afwijkingen in de structuur van RV en LV kunnen optreden. Deze structurele afwijkingen kunnen (bij 12%) worden aangetoond met: een thoraxfoto (cardiomegalie) of een ECG (rechter asdeviatie, RVH, rechter atrium belasting).</p> <p><i>B Görür 2001</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat OSAS (AHI \geq 10) geassocieerd is met RVH (RV afmeting > 95ste percentiel) en LVH (LV massa index > 95ste percentiel). De odds ratio is respectievelijk 6.7 (95% BI 1.4 - 32) en 11.2 (95% BI 1.9 - 64).</p> <p><i>B Amin 2002</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat er bij kinderen met (vastgestelde) OSAS subklinische veranderingen in de RV en LV functie optreden. Deze functionele afwijkingen zijn: afname RV ejectiefraction, wandbewegingsstoornissen, afname E / A ratio, grotere RV systolische volume index, een grotere RV myocardiële performance index en toename van E / e' ratio.</p> <p><i>B Amin 2005, Duman 2008, Chan 2009</i> <i>C Tal 1988</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat klinische verschijnselen van hartfalen zelden worden waargenomen bij kinderen met (vastgestelde) OSAS.</p> <p><i>B Amin 2005, Duman 2008, Chan 2009</i> <i>C James 2003</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat kinderen met (vastgestelde) OSAS een toegenomen sympathische activiteit hebben.</p> <p><i>B Aljadeff 1997, Baharev 1999, O'Brien 2005</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat de ernst van de OSAS positief correleert met de stijging van de systolische bloeddruk bij kinderen tussen de 5 - 13 jaar. Zelfs na correctie voor leeftijd, geslacht, ras, BMI en taille omvang.</p> <p><i>B Amin 2008, Bixler 2008</i></p>

Perioperatief beleid

Er zijn slechts enkele studies die zich richten op de specifiek anesthesiologische problemen van kinderen met OSAS. Daarnaast zijn er meerdere reviews en Practice Guidelines

verschenen. De American Society of Anesthesiologists publiceerde in 2006 een Practice Guideline betreffende het perioperatieve management van patiënten met OSAS (ASA 2006), deze richtlijn richtte zich zowel op kinderen (vanaf 1 jaar) als volwassenen. In een meer recente review komen alle relevante kinderanesthesiologische aspecten aan bod (Schwengel 2009). Op het gebied van luchtwegmanagement is er een Practice Guideline verschenen, deze richt zich echter niet specifiek op kinderen (ASA 2003). Nargozian publiceerde in 2004 een review over de problemen in het perioperatief luchtwegmanagement bij kinderen met craniofaciale afwijkingen, welke frequent met OSAS gepaard gaan (Nargozian 2004). De grens voor inclusie in het literatuuronderzoek werd op tenminste 10 onderzochte kinderen gesteld. Case reports werden niet meegenomen als uitgangspunt voor de wetenschappelijke onderbouwing van dit onderdeel van de uitgangsvraag.

Sedativa

Kinderen die een operatie moeten ondergaan zijn vaak angstig in de periode direct voorafgaand aan de ingreep. Dit kan zijn angst voor de scheiding van de ouders, angst voor het onbekende, angst voor pijn of mutilatie en / of angst voor verlies van controle. Om deze angsten te verlichten kan bij kinderen een sedativum, bijvoorbeeld Midazolam, toegediend worden. Van sedativa is aangetoond dat zij de spiertonus van de bovenste luchtwegen verlagen, dit kan zelfs leiden tot ademwegobstructie, ook in de postoperatieve fase. Patiënten met OSAS redden zich gedurende obstructieve periode door arousels. Sedativa of resterende anesthetica onderdrukken mogelijk deze arousels. Er zijn slechts 2 studies die de veiligheid van sedativa in de preoperatieve fase onderzochten bij kinderen met slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen (Francis 2006, Cultrara 2002), in beide studies werd geen gebruik gemaakt van een controle groep.

In een prospectieve, observationele studie (n = 70) kregen kinderen (1 - 12 jaar) voorafgaand aan een adenotonsillectomie ivm slaap gerelateerde ademhalingsstoornis (klinische diagnose, bij 40% van de patiënten met PSG vastgestelde OSAS), Midazolam toegediend (gemiddelde dosis 0.4 mg / kg oraal) (Francis 2006). Kinderen met ernstige OSAS (in deze studie gedefinieerd als een respiratoire distress index of RDI > 40), neuromusculaire aandoeningen of craniofaciale afwijkingen werden geëxcludeerd. Pulsoximetrie werd toegepast tot ontslag uit het ziekenhuis (49% van de kinderen werd postoperatief gepland opgenomen). Bij slechts 2 kinderen (2.9%) trad een respiratoire complicatie op. Een overigens gezonde jongen van 16 maanden (preoperatief RDI = 39.4 en desaturaties tot 74%) viel direct na toediening van de Midazolam in slaap en had een saturatie van 77%. Deze desaturatie herstelde spontaan binnen 5 seconden. Een overigens gezonde jongen van 2 jaar (preoperatief RDI = 17.6 en desaturaties tot 82%) ontwikkelde een bovenste luchtwegobstructie met desaturatie tot 80% direct na detubatie. Herstel trad op na toepassen van de *jaw thrust* manoeuvre en plaatsen van een nasopharyngeale tube. Deze obstructie was waarschijnlijk het gevolg van meerdere factoren. Deze observaties worden ook gedaan bij kinderen die een ATE ondergaan zonder dat er sprake is van slaapgerelateerde ademhalingsstoornissen.

In een retrospectieve studie (n = 65) kregen kinderen (gemiddelde leeftijd 4.7 ± 2.3 jaar) voorafgaand aan een adenotomie en / of tonsillectomie, Midazolam toegediend (gemiddelde dosis 0.4 mg / kg oraal) (Cultrara 2002). De diagnose OSAS werd op klinische gronden

gesteld (89%) of op basis van pulsoximetrie of PSG. In deze groep bevonden zich 12 kinderen met comorbiditeit zoals Apert syndroom (n = 1), herseninfarcten (n = 2) of astma (n = 5). Alle kinderen werden postoperatief gedurende 23 uur geobserveerd en gemonitord met pulsoximetrie. Bij geen van de kinderen was er sprake van luchtwegobstructie, hypoventilatie, desaturatie, bradycardie of aanhoudende slaperigheid. Echter, selectie bias is in deze retrospectieve studie niet uit te sluiten: kregen alleen die patiënten Midazolam waarbij dit veilig verondersteld werd?

Opioïden

In de laatste decennia is er steeds meer aandacht voor pijnmanagement bij kinderen. Niet alleen in de literatuur zijn vele onderzoeken gepubliceerd, ook wetenschappelijke verenigingen onderkennen het belang van herkenning van pijn bij kinderen van verschillende leeftijden, pijnpreventie en pijnbestrijding (NVA Richtlijn Postoperatieve Pijnbehandeling 2003, NVK Richtlijn Pijnmeting en behandeling van pijn bij Kinderen 2008). Voor informatie over het gebruik van analgetica bij kinderen kan het kinderformularium geraadpleegd worden (www.kinderformularium.nl). Het kinderformularium is erkend als richtlijn door de Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde (NVK) en de Nederlandse Vereniging van Ziekenhuis Apothekers (NVZA). In de postoperatieve fase wordt bij kinderen veelvuldig gebruik gemaakt van Paracetamol en NSAID's (zoals Diclofenac en Ibuprofen). Van de opioïden is morfine het opioïd van keuze voor kinderen. Opioïden hebben echter een centraal deprimerend effect op de ademhaling. Toediening van opioïden in de postoperatieve fase bij patiënten met OSAS zou mogelijk gepaard gaan met een verhoogd risico op respiratoire complicaties. Er zijn 2 studies die de effecten van sterk werkende opioïden, fentanyl en morfine, bij kinderen met slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen beschrijven (Brown 2006 en Waters 2002). Er is daarnaast 1 RCT die de veiligheid van morfine vergelijkt met tramadol, een zwak werkende opioïd met mogelijk minder respiratoire depressie (Hullet 2006).

In een patiënt controle onderzoek (n =36) werden kinderen met OSAS (n = 13, leeftijd 4.0 ± 2.2 jaar, apneu index 29.4 ± 18 / uur) vergeleken met kinderen zonder OSAS of snurken (n=23) (Waters 2002). De kinderen met OSAS hadden een hogere incidentie van apneu na toediening van Fentanyl 0.5 microgram / kg intraveneus tijdens algehele anesthesie in vergelijking met kinderen zonder OSAS of snurken (6 vs. 1 kind, of 46 vs. 4%). Kinderen met OSAS zijn waarschijnlijk ook gevoeliger voor de analgetische effecten van opioïden (Brown 2006). In deze prospectieve studie ondergingen kinderen een adenotonsillectomie. De verdenking OSAS werd gesteld op basis van nachtelijke oximetrie, bij 4 van de 22 onderzochte kinderen vond ook PSG plaats. De postoperatieve pijn werd bestreden met paracetamol, morfine werd toegediend totdat een acceptabele pijnscore werd bereikt. Kinderen waarbij preoperatief een laagste saturatie van < 85% werd gemeten was de totale morfine dosis gehalveerd t.o.v. van kinderen waarbij preoperatief een laagste saturatie van $\geq 85\%$ gemeten werd. Hullet verrichte een RCT (n = 66) bij kinderen (1 - 8 jaar) die ivm klinische verdenking OSAS een ATE ondergingen (Hullet 2006). Er waren minder episodes van desaturatie (< 94%) in de tramadol groep in de eerste 3 uur postoperatief. Er werden geen significante verschillen gevonden in sedatie- of pijnscores tussen de groepen.

Luchtwegmanagement

Er zijn 7 studies die de perioperatieve luchtwegproblemen bij kinderen met OSAS beschrijven. Hiervan zijn er 5 patiënt controle studies (Riaz 2009, Sanders 2006, Waters 2002, Brown 2003 en Schroeder 2009) en 2 cohort studies (Ye 2009 en Wilson 2002). Met uitzondering van de kinderen in de controle groep in de studie van Brown ondergingen alle kinderen een adenotonsillectomie. De diagnose OSAS werd gesteld door middel van PSG (klinisch of ambulant verricht), oximetrie of op basis van klinische verschijnselen.

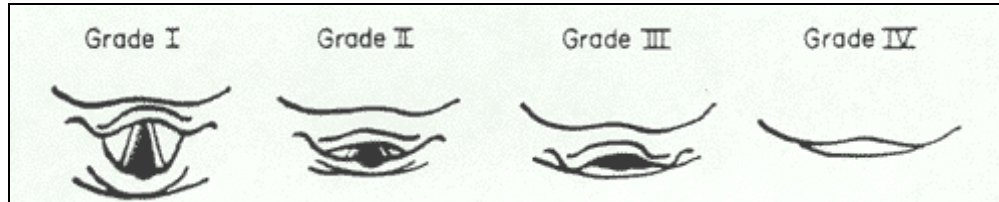
Sanders vergelijkt in een studie kinderen die een ATE ivm OSAS ($n = 61$) met kinderen die een ATE ondergingen ivm een tonsillitis ($n = 21$) (Sanders 2006). OSAS werd gedefinieerd als een $RDI \geq 2$ bij PSG. In de groep kinderen (leeftijd 2 - 16 jaar) met OSAS traden meer respiratoire problemen op (5.7 vs. 2.9, $p < 0.0001$) in de perioperatieve periode. Dit betrof ademwegobstructie en desaturatie ($SaO_2 < 92\%$) tijdens de inleiding van de algehele anesthesie, het inhouden van de adem en desaturaties tijdens de uitleiding. De kinderen met OSAS hadden vaker een Cormack Lehane score ≥ 2 (16 / 61 vs. 1 / 21, $p < 0.05$). De Cormack Lehane score (van 1 t/m 4) geeft de zichtbaarheid van stembanden, arytenoïden en epiglottis aan tijdens laryngoscopie en correleert positief met de moeilijkheidsgraad van de endotracheale intubatie (zie figuur nummer 6.1.1). Riaz bevestigde deze bevindingen in zijn studie ($n = 60$) (Riaz 2009). Tijdens de inleiding van de algehele anesthesie traden frequenter desaturaties ($< 95\%$) op bij de kinderen met OSAS (vastgesteld met PSG) in vergelijking met de controle groep (33.3 vs. 6.6%). Ook tijdens de uitleiding traden frequenter desaturaties op in de OSAS-groep (43.3 vs. 6.6%). De endotracheale intubatie was moeilijker in de OSAS-groep (16.6 vs. 3.3%). Echter, welke problemen er precies waren met de intubatie of hoeveel intubatiepogingen nodig waren wordt niet vermeld in deze studie. Kinderen met comorbiditeit, zoals craniofaciale afwijkingen, werden geëxcludeerd in beide studies. In beide studies werd peroperatief gebruik gemaakt van opioïden, de kinderen in de groep van Sanders kregen bovendien preoperatief oraal Midazolam (0.33 mg / kg oraal).

In het onderzoek van Waters werd het ademminuutvolume bij spontaan ademende kinderen onder algehele anesthesie ($n = 37$) gemeten (Waters 2002). Hierbij werd gebruik gemaakt van een gestandaardiseerde anesthesietechniek bestaande uit zuurstof / lachgas en Halothaan. Na het inbrengen van een endotracheale tube of larynxmasker was het ademminuutvolume verminderd in de OSAS-groep (115.5 ± 56.9 vs. 158.7 ± 81.6 ml / kg / min), ondanks een verhoogd end-tidal gemeten CO_2 (49.3 vs. 42.1 mmHg). In zowel de OSAS-groep (vastgesteld met PSG) als de controle groep zaten kinderen met comorbiditeit, de kinderen in de OSAS-groep ondergingen een ATE, de kinderen in de controle groep ondergingen diverse operaties (o.a. herniotomie, buisjes plaatsen, hydrocele correctie).

In een retrospectieve studie werd gekeken naar de complicaties die optraden bij kinderen ($n = 70$) die een spoed ATE ondergingen ivm ernstige OSAS (Schroeder 2009). Ernstige OSAS werd in deze studie gedefinieerd als een $RDI > 25$ bij PSG. Alle kinderen werden postoperatief opgenomen op de intensive care. In de groep kinderen ($n = 17$) die geïntubeerd bleef na de ingreep, traden meer complicaties op dan in de groep kinderen die op de operatiekamer gedetubeerd werden (47 vs. 2%). Het is onduidelijk in deze retrospectieve studie waarom besloten werd kinderen wel of niet geïntubeerd te laten na de ingreep. Wel bleven kinderen jonger dan 3 jaar en kinderen met een hogere ASA klasse tgv

comorbiditeit vaker geïntubeerd. De PSG uitslag was niet gerelateerd aan de postoperatieve intubatie status. Complicaties die optraden waren pneumonie, mucus pluggen waarvoor bronchoscopie noodzakelijk was, postobstructie longoedeem en cardiopulmonaal arrest.

Figuur nummer 6.1.1 Gradering van moeilijke laryngoscopie volgens Cormack & Lehane



Graad I: de glottis is zichtbaar

Graad II: alleen posterieure deel glottis is zichtbaar

Graad III: alleen epiglottis is zichtbaar

Graad IV: epiglottis en glottis zijn niet zichtbaar

Verkoeverkamer

Er zijn 5 studies die een verhoogde incidentie van respiratoire problemen gedurende het verblijf in de verkoeverkamer beschrijven bij kinderen met OSAS in vergelijking met kinderen zonder OSAS. De respiratoire problemen die gemeld worden zijn allemaal van dien aard dat een interventie noodzakelijk geacht werd. De interventies bestonden uit: het toedienen van extra zuurstof, inbrengen van een oro- of nasopharyngeale luchtweg, masker / ballonbeademing, reïntubatie of overplaatsing naar een pediatrie intensive care unit. Sanders vond in zijn patiënt controle onderzoek (61 kinderen met OSAS vs. 21 kinderen met tonsillitis) een incidentie van respiratoire complicaties in de verkoeverkamer van 28 vs. 5% (Sanders 2006). Een kind uit de OSAS groep (OSAS gedefinieerd als een RDI ≥ 2) werd gereïntubeerd ivm met een nabloeding en heroperatie. Een verdere onderverdeling naar incidentie van verschillende interventies wordt niet beschreven in deze studie. Riaz vond in zijn patiënt controle onderzoek ($n = 60$) dat kinderen met OSAS frequenter zuurstof nodig hadden ivm een saturatie $< 95\%$ (63.3 vs. 10%) en een oropharyngeale luchtweg ivm luchtwegobstructie (20 vs 0%) (Riaz 2009). In de OSAS groep werd 1 kind gereïntubeerd in de verkoeverkamer, er wordt geen melding gemaakt over de reden hiervoor of de verdere afloop. In beide studies (Sanders 2006 en Riaz 2009) werden kinderen met comorbiditeit geëxcludeerd.

In een retrospectief onderzoek van Brown wordt een hogere incidentie van postoperatieve respiratoire complicaties beschreven bij kinderen die een spoed ATE ($n = 54$) ondergingen in vergelijking met kinderen die electief een ATE ondergingen ($n = 44$) (Brown 2003). In beide groepen werd de diagnose OSAS met PSG (AHI > 1) of pulsoximetrie (3 clusters van saturaties $< 90\%$) of een capillaire koolzuurspanning (> 50 mmHg) of een geobserveerde bovenste luchtwegobstructie met saturatie $< 90\%$ of op klinische gronden gesteld. Een spoed ATE was een ATE die werd verricht tijdens dezelfde opname als dat de diagnose (verdenking) OSAS werd gesteld. Bij 33 kinderen uit de spoed ATE groep versus 16 kinderen uit de electieve ATE groep, was een beperkte interventie in de verkoeverkamer noodzakelijk, meestal bestaande uit zuurstoftoediening en / of herpositionering van het kind om de luchtweg vrij te maken. Bij 11 kinderen uit de spoed ATE groep versus 3 kinderen uit

de controle groep was de beoordeling / behandeling door een arts noodzakelijk (= major interventie), bij 6 kinderen uit de spoed ATE groep bestond de interventie uit reïntubatie. Risicofactoren voor respiratoire complicaties waren een additionele medische aandoening en een preoperatief dieptepunt in de saturatie van < 80%. In 2 retrospectieve studies werden respectievelijk 163 en 321 kinderen bestudeerd die een ATE hadden ondergaan ivm OSAS (Wilson 2002 en Ye 2009). Wilson vond een incidentie van respiratoire complicaties van 21%, bij 5 kinderen was een masker / ballon beademing noodzakelijk in de Verkoeverkamer (Wilson 2002). Kinderen < 2 jaar, kinderen met comorbiditeit, een preoperatieve AHI > 5 of een laagst gemeten zuurstofsaturatie < 80% waren at risk. Ye vond een incidentie van respiratoire complicaties waarbij een interventie noodzakelijk was van 11.2% (36 kinderen) bij verder gezonde kinderen die een ATE ondergingen (Ye 2009). De medische interventies bestonden uit het plaatsen van een oro- of nasopharyngeale luchtweg (n = 29), toepassen van CPAP (n = 6) en endotracheale intubatie en beademing bij 1 patiënt. In ruim 60% van de gevallen werd de medische interventie verricht in de verkoeverkamer. In de groep waarbij een medische interventie noodzakelijk was de gemiddelde leeftijd lager (5.9 vs. 8.3 jaar p = 0.014), zaten meer kinderen met obesitas (BMI > 95the percentiel gecorrigeerd voor leeftijd en geslacht) (11 vs. 3.9% p = 0.039), kinderen met een hogere preoperatieve AHI (24.7 ± 14.5 vs. 18.2 ± 10.9, p = 0.039) en kinderen met ernstige OSAS (in deze studie gedefinieerd als een AHI ≥ 20) 52.8 vs. 37.9% p = 0.006).

Conclusies

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat Midazolam als premedicatie bij kinderen met slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen, zonder ernstige comorbiditeit, niet leidt tot meer complicaties dan bij kinderen zonder slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen. <i>C Francis 2006, Cultrara 2002</i>
Niveau 2	Het is aannemelijk dat kinderen met (vastgestelde) OSAS gevoeliger zijn voor de ademhalingsdeprimerende effecten van opioïden in vergelijking met kinderen zonder OSAS. <i>B Brown 2006, Waters 2002</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat het gebruik van Tramadol in de postoperatieve fase leidt tot minder episodes van desaturatie dan Morfine bij kinderen met slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen. <i>B Hullet 2006</i>

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat kinderen met (vastgestelde) OSAS vaker een bovenste luchtwegobstructie hebben en frequenter desatureren bij zowel de inleiding als de uitleiding van de algehele anesthesie in vergelijking met kinderen zonder OSAS.</p> <p><i>B Sanders 2006, Riaz 2009</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat kinderen met (vastgestelde) OSAS vaker een Cormack Lehane score ≥ 2 hebben en moeilijker te intuberen zijn in vergelijking met kinderen zonder OSAS.</p> <p><i>B Sanders 2006, Riaz 2009</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met (vastgestelde) OSAS onder algehele anesthesie een gedeprimeerde ademhaling hebben in vergelijking met kinderen zonder OSAS.</p> <p><i>B Waters 2002</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat bij kinderen met (verdenking op of vastgestelde) OSAS frequenter luchtweg- en ademhalingsproblemen optreden tijdens het verblijf op de verkoeverkamer.</p> <p>Het is aannemelijk dat bij jongere kinderen (leeftijd < 2 jaar), kinderen met comorbiditeit (waaronder obesitas) of OSAS met een AHI > 5 of laagste preoperatieve saturatie < 80% en kinderen waarbij een spoed ATE* wordt verricht frequenter luchtweg- en ademhalingsproblemen optreden tijdens het verblijf op de verkoeverkamer (*ATE verricht tijdens dezelfde opname als het stellen van de diagnose OSAS).</p> <p><i>B Brown 2003, Sanders 2006, Riaz 2009</i> <i>C Wilson 2002, Ye 2009</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat het electief geïntubeerd laten van kinderen met (vastgestelde) OSAS (RDI > 25), tot meer complicaties leidt dan het detuberen van deze kinderen direct in aansluiting van een ATE.</p> <p><i>C Schroeder 2009</i></p>

Overige overwegingen

In Nederland zullen kinderen met een verdenking op OSAS en die voor een operatieve ingreep zoals een adenotonsillectomie in aanmerking komen, in veel gevallen geen polysomnografie ondergaan. Anamnestic zijn er een aantal aspecten die een klinische verdenking op OSAS kunnen versterken, deze zijn echter weinig specifiek.

De gouden standaard voor het beoordelen van de RV functie is contrast ventriculografie, dit wordt in de Nederlandse praktijk zelden toegepast. Ventriculografie is een invasieve techniek waarbij wordt verondersteld dat de RV een geometrische vorm heeft om zodoende het RV volume te berekenen. MRI en 3-dimensionale transthoracale echocardiografie zijn gevalideerde technieken voor het bepalen van het RV volume en ejectiefractie, maar in de dagelijkse klinische praktijk door onder andere de hoge kosten nauwelijks toepasbaar. Transthoracale 2-dimensionale echocardiografie wordt wel gebruikt voor de evaluatie van de RV systolische functie. De myocardiale performance index (= Tei-index) is echter beperkt bruikbaar in het segment van de lage drukken (pieksystolische druk < 40 mmHg) zoals meestal in de RV aanwezig is. De E / e' ratio geeft inderdaad statistisch significante verschillen, maar deze verschillen zijn kleiner dan de standaard meetfout en variabiliteit van deze meting, bovendien zijn de berekende waarden sterk afhankelijk van de ademhaling en preload. Een Electrocardiogram heeft bij het vaststellen van rechter ventrikel structuur een beperkte sensitiviteit en specificiteit. Er zijn geen specifieke biomarkers voor pulmonale hypertensie. Bij anamnese kan er een verdenking op pulmonale hypertensie ontstaan bij de volgende aspecten: moeheid, afname inspanningstolerantie, kortademigheid.

Aanbeveling(en)

Bij kinderen met aandoeningen waarbij een hoge prevalentie van slaap gerelateerde ademhalingsstoornissen of OSAS voorkomt (zie tabel 2.2.1, hoofdstuk 2.2), dient tijdens de preoperatieve screening gevraagd te worden naar de belangrijkste symptomen van OSAS:

- frequent snurken;
- stoppen of stokken met ademen tijdens de slaap;
- onrustige slaap;
- gedrags- en concentratie problemen of slaperigheid overdag.

Het verdient aanbeveling bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS tijdens het preoperatieve onderzoek de bloeddruk non-invasief te meten.

Het verdient aanbeveling kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS bij wie tijdens het preoperatieve onderzoek hypertensie wordt gemeten of er een klinische verdenking op cardiale comorbiditeit is, te verwijzen naar een kinderarts.

Indien men het gebruik van sedativa zou overwegen bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS, zonder comorbiditeit, kan Midazolam voorgeschreven worden.

De werkgroep is van mening dat bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS die een adeno / tonsillectomie ondergaan intubatie overwogen moet worden tijdens de ingreep, zeker indien er sprake is van comorbiditeit.

Bij het gebruik van opioïden bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS is voorzichtigheid geboden in verband met een hogere gevoeligheid op de ademhaling.

Bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS waarbij opioïden overwogen worden in de postoperatieve fase, gaat de voorkeur uit naar zwakwerkende opioïden zoals Tramadol.

Het verdient aanbeveling bij kinderen met (een verdenking op of vastgestelde) OSAS rekening te houden met een verhoogde kans op luchtwegproblematiek in de perioperatieve periode.

Literatuur

- Aljadeff G, Gozal D, Schechtman VL, Burrell B, Harper RM, Ward SL. Heart rate variability in children with obstructive sleep apnea. *Sleep* 1997, 20(0): 151-157.
- American Society of Anesthesiologists. Practice guidelines for management of the difficult airway. *Anesthesiology* 2003, 98(0): 1269-1277.
- American Society of Anesthesiologists. Practice guidelines for the perioperative management of patients with obstructive sleep apnea. *Anesthesiology* 2006, 104(0): 1081-1093.
- Amin RS, Carroll JL, Jeffries JL, Grone C, Bean JA, Chini B. Twenty-four-hour ambulatory blood pressure in children with sleep-disordered breathing. *Am J Respir Crit Care Med* 2004, 169(0): 950-956.
- Amin RS, Kimball TR, Bean JA, Jeffries JL, Willging JP, Cotton RT et al. Left ventricular hypertrophy and abnormal ventricular geometry in children and adolescents with obstructive sleep apnea. *American Journal of Respiratory & Critical Care Medicine* 2002, 165(10): 1395-1399.
- Amin RS, Kimball TR, Kalra M, Jeffries JL, Carroll JL, Bean JA et al. Left ventricular function in children with sleep-disordered breathing. *American Journal of Cardiology* 2005, 95(6): 801-804.
- Amin R, Somers VK, McConnell K, Willging P, Myer C, Sherman M et al. Activity-adjusted 24-hour ambulatory blood pressure and cardiac remodeling in children with sleep disordered breathing. *Hypertension* 2008, 51(1): 84-91.
- Baharav A, Kotagal S, Rubin BK, Pratt J, Akselrod S. Autonomic cardiovascular control in children with obstructive sleep apnea. *Clin Auton Res* 1999, 9(0): 345-351.
- Bixler EO, Vgontzas AN, Lin HM, Liao D, Calhoun S, Fedok F et al. Blood pressure associated with sleep-disordered breathing in a population sample of children. *Hypertension* 2008, 52(5): 841-846.
- Brown KA, Laferrière A, Lakheeram I, Ravé Moss I. Recurrent hypoxemia in children is associated with increased analgesic sensitivity to opiates. *Anesthesiology* 2006, 105(0): 665-669.
- Brown KA, Morin I, Hickey C, Manoukian JJ, Nixon GM, Brouillette RT. An analysis of risk factors associated with postoperative respiratory morbidity. *Anesthesiology* 2003, 99(3) : 586-95.
- Chan JY, Li AM, Au CT, Lo AF, Ng SK, Abdullah VJ et al. Cardiac remodelling and dysfunction in children with obstructive sleep apnoea: a community based study. *Thorax* 2009, 64(3): 233-239.
- Cultrara A, Bennett GH, Lazar C, Bernstein J, Goldstein N. Preoperative sedation in pediatric patients with sleep-disordered breathing. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2002, 66(3): 243-246.
- Duman D, Naiboglu B, Esen HS, Toros SZ, Demirtunc R. Impaired right ventricular function in adenotonsillar hypertrophy. *Int J Cardiovasc Imaging* 2008, 24(0): 261-267.
- Francis A, Eltaki K, Bash T, Cortes S, Mojdehi K, Goldstein NA. The safety of preoperative sedation in children with sleep-disordered breathing. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2006, 70(9): 1517-1521.

- Görür K, Döven O, Ünal M, Akkus N, Özcan C. Preoperative and postoperative cardiac and clinical findings of patients with adenotonsillar hypertrophy. *Int J Ped Otorhinolaryngology* 2001, 59(0): 41-46.
- Hullet BJ, Chambers NA, Pascoe EM, Johnson C. Tramadol vs morphine during adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in children. *Pediatric Anesthesia* 2006, 16(0): 648-653.
- James AL, Runciman M, Burton MJ, Freeland AP. Investigation of cardiac function in children with suspected obstructive sleep apnea. *Journal of Otolaryngology* 2003, 32(3): 151-154.
- Kohyama J, Ohinata JS, Hasegawa T. Blood pressure in sleep disordered breathing. *ARCh Dis Child* 2003, 88(0): 139-142.
- Kwok KL, Ng DK, Chan CH. Cardiovascular changes in children with snoring and obstructive sleep apnoea. *Annals of the Academy of Medicine, Singapore* 2008, 37(8): 715-721.
- Leung LC, Ng DK, Lau MW, Chan CH, Kwok KL, Chow PY et al. Twenty-four-hour ambulatory BP in snoring children with obstructive sleep apnea syndrome. *Chest* 2006, 130(4): 1009-1017.
- Mancia G, Parati G. The role of blood pressure variability in end-organ damage. *J Hypertens* 2003, 21(0): 0-0.
- McConnell K, Somers VK, Kimball T, Daniels S, VanDyke R, Fenchel M et al. Baroreflex gain in children with obstructive sleep apnea. *American Journal of Respiratory & Critical Care Medicine* 2009, 180(1): 42-48.
- Nargoizian C. The airway in patients with craniofacial abnormalities. *Pediatric Anesthesia* 2004, 14(0): 53-59.
- Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie - Verenigingsstandpunten: www.anesthesiologie.nl/verenigingsstandpunten (16-06-2010).
- Ng DK, Chan C, Chow AS, Chow P, Kwok K. Childhood sleep-disordered breathing and its implications for cardiac and vascular diseases. *Journal of Paediatrics & Child Health* 2005, 41(12): 640-646.
- Nederlands Kenniscentrum voor Farmacotherapie bij Kinderen - Kinderformularium: www.kinderformularium.nl (16-06-2010).
- O'Brien PE, Dixon JB, Brown W, Schachter LM, Chapman L, Burn AJ et al. The laparoscopic adjustable gastric band (Lap-Band): a prospective study of medium-term effects on weight, health and quality of life. *Obesity Surgery* 2002, 12(5): 652-660.
- Reade EP, Whaley C, Lin JJ, McKenney DW, Lee D, Perkin R. Hypopnea in pediatric patients with obesity hypertension. *Pediatr Nephrol* 2004, 19(0): 1014-1020.
- Riaz A, Malik HS, Fazal N, Saeed M, Naeem S. Anaesthetic risks in children with obstructive sleep apnea syndrome undergoing adenotonsillectomy. *Jcpsp, Journal of the College of Physicians & Surgeons - Pakistan* 2009, 19(2): 73-76.
- Richtlijn Pijnmeting en behandeling van pijn bij kinderen . Nederlandse vereniging voor Kindergeneeskunde (2008)
- Richtlijn Postoperatieve pijnbehandeling . Nederlandse vereniging voor Anesthesiologie (2003)
- Sanders JC, King MA, Mitchell RB, Kelly JP. Perioperative complications of adenotonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome. *Anesthesia & Analgesia* 2006, 103(5): 1115-1121.
- Schroeder Jr, JW, Anstead AS, Wong H. Complications in children who electively remain intubated after adenotonsillectomy for severe Obstructive Sleep Apnea. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2009, 73(8): 1095-1099.
- Schwengel DA, Sterni LM, Tunkel DE, Heitmiller ES. Perioperative management of children with obstructive sleep apnea. *Anesthesia & Analgesia* 2009, 109(1): 60-75.
- Tal A, Leiberman A, Margulis G, Sofer S. Ventricular dysfunction in children with obstructive sleep apnea: radionuclide assessment. *Pediatr Pulmonol* 1988, 4(0): 139-143.

- Waters KA, McBrien F, Stewart P, Hinder M, Wharton S. Effects of OSA, inhalational anesthesia, and fentanyl on the airway and ventilation of children. *J Appl Physiol* 2002, 92(0): 1987-1994.
- Wilson K, Lakheeram I, Morielli A, Brouillette R, Brown K. Can assessment for obstructive sleep apnea help predict postadenotonsillectomy respiratory complications?. *Anesthesiology* 2002, 96(2): 313-322.
- Ye J, Liu H, Zhang G, Huang Z, Huang P, Li Y. Postoperative respiratory complications of adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea syndrome in older children: prevalence, risk factors, and impact on clinical outcome. *Journal of otolaryngology - head & neck surgery = Le Journal d'oto-rhino-laryngologie et de chirurgie cervico-faciale* 2009, 38(1): 49-58.

6.2. Peri- en postoperatieve chirurgische complicaties

Inleiding

Bij een anamnestiche verdenking op OSAS bij een kind volgt in de Nederlandse situatie meestal een (adeno)tonsillectomie. In 60-70% van alle kinderen, zonder comorbiditeit, worden hierbij zonder voorafgaande diagnostiek de klachten adequaat behandeld. Zowel de keel-neus-oorarts als anesthesist zijn, in Nederland, verantwoordelijk voor de pre-, peri- en postoperatieve zorg. De keel-neus-oorarts maakt in zijn spreekkamer bij het kind dat hij/zij verdenkt van een OSAS een risico inschatting en geeft dit zo nodig aan in de verwijzing naar de anaesthesist op het pre-operatieve spreekuur.

In dit hoofdstuk zullen vier voor de algemene praktijk belangrijke vragen worden behandeld:

1. Geeft adenotonsillectomie in het geval van verdenking op OSAS bij kinderen (of middels polysomnografie bewezen) meer chirurgische complicaties?
2. Moet er door de keel-neus-oorarts specifiek onderzoek bij voor OSAS verdachte kinderen worden aangevraagd, die een adenotonsillectomie ondergaan?
3. Zijn er pre-operatief te bepalen chirurgische risico groepen? Is in bepaalde groepen een adenotonsillectomie moeilijker?
4. Is een adenotonsillectomie een veilige procedure in de huidige setting in Nederland (dagbehandeling) of dient deze ingreep in een specifieke voor te bepalen setting te worden verricht bij bepaalde risicogroepen? Deze vraag wordt separaat besproken in paragraaf 6.3.

Samenvatting van de literatuur

In dit hoofdstuk wordt vanuit de zorg van de keel-neus-oorarts gekeken naar de mogelijke operatieve complicaties rondom de behandeling van kinderen met OSAS bij wie een adenotonsillectomie wordt verricht.

De literatuursearch had als trefwoorden: adenotonsillectomy, surgical, pediatric, complications and OSAS. Betreffende de overige ingrepen die bij OSAS bij OSAS bij kinderen kunnen worden verricht zoals tracheotomie, uvulo-palato-pharyngoplastiek (UPPP), craniofaciale chirurgie middels osteotomieën en tongbasis chirurgie werden geen studies van goede kwaliteit gevonden.

Er werden diverse studies gevonden die de peri- en postoperatieve complicaties onderzochten van een adenotonsillectomie bij kinderen. De patiënten aantallen van deze studies zijn echter in het algemeen klein en de studies maken geen duidelijk onderscheid

tussen een verdenking op OSAS en een polysomnografisch bewezen OSAS. Randomized controlled studies werden niet gevonden.

Studies met aantallen kleiner dan 10 patiënten werden uit deze samenvatting van de literatuur studie geëxcludeerd. De case reports die rapporteren over incidentie van complicaties werden in dit hoofdstuk ook buiten beschouwing gelaten.

Geeft een adenotonsillectomie bij verdenking op OSAS bij kinderen of polysomnografisch bewezen OSAS meer chirurgische complicaties?

De meest frequente chirurgische complicatie na een adenotonsillectomie is de nabloeding. De ZATT richtlijn vermeldt dat de kans op een nabloeding bij kinderen met of zonder een bewezen OSAS 1-4% is. In de literatuursearch werden geen artikelen gevonden die vermelden dat de nabloedingskans bij een kind met OSAS hoger is.

In de literatuur search werden 4 studies (Chang 2004, Chang 2008, Koltai 2003, Chimona 2008) gevonden die het effect onderzochten van de chirurgische techniek (traditionele subcapsulaire electrocoagulatie tonsillectomie, intracapsulaire of subcapsulaire coblatie, tonsillectomie, thermal welding tonsillectomie) op de het optreden van chirurgische complicaties bij kinderen met OSAS (al dan niet middels PSG bewezen).

In twee studies keek Chang naar zowel de techniek (coblatie versus conventionele electrocoagulatie; prospectief gerandomiseerd, n=101, 2004) als middels een dubbelblind gerandomiseerde studie naar het verschil tussen een intracapsulaire en subcapsulaire tonsillectomie met behulp van coblatie techniek bij kinderen met OSAS en slaap gerelateerde stoornissen (n=69, 2008). In beide studies werd gekeken naar postoperatieve parameters als pijn, dehydratie, misselijkheid en braken alsmede ook heropnamen en postoperatieve complicaties zoals nabloedingen. Het enige significante verschil werd gevonden bij het optreden van postoperatieve pijn. Deze was op de 1e en 2e dag onafhankelijk van de ingreep, maar bij de intracapsulaire tonsillectomie en bij de coblatie tonsillectomie minder op de 5e en 6e dag. Gecorreleerd voor leeftijd bleek dat de kinderen ouder dan 9 jaar significant minder pijnklachten hadden na een coblatie adenotonsillectomie. Koltai (2003) keek naar het verschil op OSAS parameters tussen de tonsillotomie (partiële tonsillectomie) en de conventionele tonsillectomie in een retrospectieve case studie in 350 kinderen met anamnestic obstructie klachten en tevens slaap gerelateerde klachten (restless legs, bedplassen, slaperigheid overdag en nachtelijke onrust). De ouders hadden vervolgens de keuze voor het type ingreep; de groep die een tonsillotomie onderging bestond uit 243 kinderen. Tussen de groepen was er geen significant verschil tussen de direct optredende postoperatieve complicaties zoals kans op nabloeding en opname wegens dehydratie. Er was ook geen verschil in de effectiviteit van de behandeling van de obstructieve slaap gerelateerde klachten. Het afnemen van de postoperatieve pijn en herstel naar de algehele dagelijkse activiteiten verbeterde wel significant sneller in de tonsillotomie geopereerde groep.

In een studie van Chimona (2008) werden drie chirurgische technieken in 90 patiënten met elkaar vergeleken. Bij 68 van de 90 patiënten was er sprake van een verdenking op OSAS. Alhoewel de auteurs uiteindelijk de resultaten niet uitsplitsten voor OSAS patiënten, was er alleen voor de postoperatieve pijn een significant verschil ($p < 0,001$) ten nadele van de cold

knife tonsillectomie. Wat betreft de directe postoperatieve complicaties werd geen significantie gevonden.

Er werden twee studies gevonden bij kinderen met bewezen OSAS die de aanwezigheid van postoperatieve complicaties onderzochten (Slovik 2003, Werle 2003). In de studie van Slovik (2003) ondergingen 35 kinderen met comorbiditeit een adenotonsillectomie; alle kinderen werden 1 nacht postoperatief bewaakt. Postoperatieve complicaties traden in 20% van de kinderen op waarvan 70% op de leeftijd onder 1 jaar. In 2 kinderen trad een nabloeding op (5,7%); drie kinderen moesten worden heropgenomen wegens dehydratie. Bij 2 kinderen waren er postoperatieve respiratoire complicaties.

Werle (2003) keek eveneens naar een groep van 82 kinderen onder de leeftijd van 2 jaar met comorbiditeit (50%) die een adenotonsillectomie ondergingen. In 54% van de kinderen was de indicatie OSAS in 12% van de kinderen een combinatie van OSAS en recidiverende tonsillitiden. De opname duur varieerde tussen de 4 uur en 16 dagen. Echter een grote groep kinderen was hierbij al opgenomen wegens comorbiditeit.

Het totale nabloedingspercentage was 4% en was in deze studie alleen aanwezig in kinderen die preoperatief OSAS hadden.

Bij 7% van alle kinderen was er additioneel aansluitend aan de adenotonsillectomie een luchtwegbehandeling nodig. Twee kinderen ontwikkelden een pneumonie.

Moet er door de keel-neus-oorarts specifiek pre-operatief onderzoek worden aangevraagd bij een adenotonsillectomie bij voor OSAS verdachte kinderen?

De adviezen betreffende het pre-operatief onderzoek dat dient te worden verricht bij een adenotonsillectomie is weergegeven in de reeds eerder genoemde ZATT richtlijn. Hierin staat dat er bij de indicatiestelling voor een adenotonsillectomie bij kinderen zonder comorbiditeit, die eventueel van OSAS worden verdacht, geen verder laboratorium onderzoek in de zin van een pre/operatief Hb of kruisserum hoeft te worden bepaald. Indien er sprake is van comorbiditeit dient de diagnostiek op indicatie uitgebreid te worden.

Zijn er pre-operatief te bepalen chirurgische risicogroepen? Of is in bepaalde groepen de chirurgische ingreep adenotonsillectomie moeilijker?

In de literatuur werd geen evidence gevonden dat de adenotonsillectomie puur als ingreep moeilijker is bij bewezen OSAS of bij verdenking op OSAS. Wel dient de KNO-arts op de hoogte te zijn van patiëntengroepen waarin de peri- en postoperatieve morbiditeit aansluitend aan een adenotonsillectomie hoger zal zijn (zie tabel 6.2.1).

Tabel 6.2.1: aandoeningen met een hogere incidentie van OSAS

Achondroplasie
Apert syndroom
Beckwith Wiedemann
CVA
Choanaal atresie
Schizis
Crouzon syndroom
Down syndroom
Hypothyreoidie
Mucopolysaccharidosen
Obesitas
Pierre Robin syndroom
Prader Willi syndroom
Sickle cell anemie
Treacher Colins syndroom

Is een adenotonsillectomie een veilige procedure in de huidige setting (dagbehandeling) of dient deze ingreep in een specifieke voor te bepalen setting te worden verricht?

In de huidige search die werd verricht werd geen literatuur gevonden die duidelijke, op evidence gebaseerde, uitspraken kan doen over de uiteindelijke veiligheid van de adenotonsillectomie in dagbehandeling bij kinderen met een al dan niet bewezen OSAS.

Er werden meerdere studies gevonden die een uitspraak doen over risicofactoren die met name de postoperatieve morbiditeit verhogen en daarmee indirect een reden zijn tot verlengde duur van opname. Deze studies worden besproken in paragraaf 6.3.

Conclusies

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat de intra-capsulaire coblatie tonsillectomie bij kinderen met OSAS minder postoperatieve pijn geeft op de 5 ^e en 6 ^e postoperatieve dag. Er zijn aanwijzingen dat er geen significant verschil is betreffende nabloeding, misselijkheid en onverwachte opnamen. <i>C Chang 2004, 2008, Koltai 2003</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat er geen significante verschillen bestaan tussen het type ingreep (tonsillotomie/tonsillectomie) en de uiteindelijke effectiviteit van de OSAS behandeling en de direct optredende postoperatieve pijn. <i>C Chimona 2008</i>

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat het aantal nabloedingen bij gezonde kinderen met OSAS niet significant hoger is. Wel zijn er aanwijzingen dat het aantal postoperatieve respiratoire complicaties hoger ligt.</p> <p><i>C Ahmad 2010, Holzmann 2000</i></p>
-----------------	---

Overige overwegingen

De overwegingen die hier besproken worden betreffen de minor en major complicaties van de chirurgische behandeling. In Nederland ondergaan de meeste kinderen in dagbehandeling een adenotonsillectomie. Het advies van de in 2005 opgestelde ZATT (ziekte van adenoid en tonsillen) richtlijn is dat deze ingreep in dagbehandeling veilig is. In dit advies werd rekening gehouden met een nabloedingsrisico in 2-4% van de kinderen, die met name optreedt in de eerste drie uren na de ingreep. Na een observatieduur van 8 uur is de nabloedingskans zeer klein. Wel zijn er soms additionele redenen om een adenotonsillectomie niet in dagbehandeling te verrichten. Te denken valt hierbij aan: een belaste pre-operatieve status, een additionele ingreep, grote reisafstand danwel een voorkeur van de ouders voor opname, een zwak sociaal netwerk.

De ZATT richtlijn doet geen strikte uitspraak over het al dan niet verrichten van een adenotonsillectomie in dagbehandeling bij kinderen die worden verdacht van een obstructief slaap apneu syndroom. Wel is het zo dat er in deze ZATT richtlijn studies zaten waarin een substantieel aantal van de kinderen voldeed aan de OSAS criteria.

Uit onderzoek blijkt dat in 8% van de kinderen die een adenotonsillectomie ondergaan er sprake is van comorbiditeit. Waarschijnlijk zal dit percentage voor kinderen met een verdenking op OSAS bij kinderen hoger zijn. In de regel volgt in de Nederlandse situatie verwijzing naar het pre-operatieve spreekuur van de anesthesist. Daarnaast wordt van de verwijzer verwacht dat hij/zij op de hoogte is van ziektebeelden die gepaard kunnen gaan met een hoger risico op een OSAS (zie tabel 6.2.1).

De comorbiditeit en derhalve de ASA klasse, zijn een sterk bepalende factor voor het optreden van postoperatieve respiratoire complicaties. Tevens speelt naast een leeftijd (< 2 jaar) ook het tijdstip van de operatie op de dag een rol. Een specifieke leeftijdsgrens betreffende welke kinderen in dagbehandeling geopereerd kunnen worden is moeilijk te geven.

Er werden weinig gegevens gevonden in de literatuur betreffende chirurgische complicaties in de behandeling van een OSAS bij kinderen. Veel behandelingen zijn incidenteel en derhalve zijn gerapporteerde complicaties zeldzaam en betreft het vaak casuïstiek.

Andere complicaties die optreden bij een adenotonsillectomie die het meest frequent tot heropname kunnen leiden en waar de KNO arts zich van dient te vergewissen zijn een slechte intake na de ingreep, postoperatieve pijn, koorts en direct postoperatieve desaturaties.

In een in 2007 gepubliceerde (niet evidence based) richtlijn van de Oostenrijkse KNO vereniging, opgesteld wegens het overlijden van 6 kinderen aansluitend aan een adenotonsillectomie, werden geen aanwijzingen gevonden dat het hier om kinderen handelde met een vooraf bewezen OSAS. De genoemde Oostenrijkse case studies zijn niet

naar voren gekomen in onze zoekstrategie. Uit de literatuur blijkt dat er geen verschil is in postoperatieve complicaties (zoals nabloedingen) tussen de tonsillotomie en de tonsillectomie. Dit werd in de Oostenrijkse richtlijn wel geopperd. Een op evidence gebaseerde onderbouwing in de Oostenrijkse richtlijn ontbreekt derhalve.

In de Nederlandse situatie wordt een adenotonsillectomie meestal verricht boven de leeftijd van 2 jaar. Een reden hiervoor is ondermeer dat er onder deze leeftijd een groter risico is op postoperatieve complicaties. Er zijn ook auteurs die menen dat er onder de leeftijd van drie jaar een grotere kans bestaat op het ontstaan van respiratoire complicaties. Zij adviseren derhalve in dat geval een nachtelijke opname.

Voor kinderen met een bewezen OSAS heeft dit zijn weerslag gekregen in de richtlijnen opgesteld door Amerikaanse Associatie van kinderartsen en het consensus verslag van de Royal College of Surgeons. Beide richtlijnen geven aan dat er geen evidence werd gevonden en dat uitspraken met name zijn gebaseerd op expert opinions.

Aanbeveling

Bij de tonsillectomie worden geen grote verschillen in uitkomst gevonden tussen de verschillende operatietechnieken. Een specifieke techniek kan derhalve niet worden aanbevolen.

Literatuur

- Bhattacharyya N. Evaluation of post-tonsillectomy bleeding in the adult population. *Ear, Nose, & Throat Journal* 2001, 80(8): 544-549.
- Chang KW. Intracapsular versus subcapsular coblation tonsillectomy. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 2008, 138(2): 153-157.
- Chang KW. Randomized controlled trial of Coblation versus electrocautery tonsillectomy. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2005, 132(2): 273-280.
- Chimona T, Proimos E, Mamoulakis C, Tzanakakis M, Skoulakis CE, Papadakis CE. Multiparametric comparison of cold knife tonsillectomy, radiofrequency excision and thermal welding tonsillectomy in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2008, 72(9): 1431-1436.
- de la Chaux R, Klemens C, Patscheider M, Reichel O, Dreher A. Tonsillotomy in the treatment of obstructive sleep apnea syndrome in children: polysomnographic results. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2008, 72(9): 1411-1417.
- Koltai PJ, Solares CA, Koempel JA, Hirose K, Abelson TI, Krakovitz PR et al. Intracapsular tonsillar reduction (partial tonsillectomy): reviving a historical procedure for obstructive sleep disordered breathing in children. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 2003, 129(5): 532-538.
- Osterreichischen Gellsellschaft fur Hals-Nasen-Ohren Heilkunde, kopf und halschirurgie und Kinder und Jugendheilkunde. Gemeinsame empfehlung zur Entfernung der Gaumenmandeln. 9 nov 2007.
- Truy E, Merad F, Robin P, Fantino B, Morgon A. Failures in outpatient tonsillectomy policy in children: a retrospective study in 311 children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 1994, 29(1): 33-42.
- Richtlijn Ziekten van Adenoïd en Tonsillen in de Tweede lijn (2007) Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied .

6.3. Dagbehandeling versus klinische opname

Welke factoren bepalen de keuze tussen dagbehandeling of klinische setting van de operatieve ingreep?

Inleiding

Eind jaren 80 van de vorige eeuw is de eerste afdeling dagbehandeling geopend. Sindsdien is er een enorme toename in het uitvoeren van diagnostisch onderzoek en/of therapeutische ingreep met ontslag op dezelfde dag. Een aantal economische en zorginhoudelijke redenen lagen hieraan ten grondslag, zoals efficiëntere besteding van middelen en hogere tevredenheid bij patiënt en ouders. De Nederlandse vereniging voor dagbehandeling en kortverblijf (NVDK) heeft in 2007 een strategisch beleidsplan opgesteld (www.nvdk.nl/BeleidsplanNVDK.pdf). De missie van de NVDK is het ontwikkelen en bevorderen van kwalitatief hoogwaardige patiëntenzorg in dagbehandeling en kortverblijf. Binnen dit beleidsplan wordt uitgegaan van de NEN 7500, gepubliceerd door het Nederlandse Normalisatie-instituut in 2006. De NEN 7500:2006 Zorg in dagverpleging bij chirurgische ingrepen, stelt eisen voor het totale zorgproces dagbehandeling en kan als prestatie-instrument worden gebruikt door instellingen waar dagbehandeling voorkomt. Door de korte opnameduur van de patiënt in dagbehandeling verlegt de verpleegkundige haar aandacht meer naar het verrichten van technische handelingen en het geven van voorlichting. Het verzorgen en begeleiden van de patiënt verschuift meer naar de achtergrond. Ter ondersteuning van het verpleegkundig primair proces op de dagbehandeling werden door de NVDK hulpmiddelen ontwikkeld waarmee op gestructureerde wijze invulling gegeven kan worden aan het primair proces. Deze hulpmiddelen zijn samengevat in het Model primair proces dagbehandeling (NVDK 2010), hierin zijn verpleegkundige selectiecriteria voor opname en ontslagcriteria opgenomen. Ontslagcriteria zijn onder andere dat er bij wondcontrole geen bijzonderheden zijn, dat postoperatieve pijn en misselijkheid acceptabel zijn en er voldoende orale intake mogelijk is. De Sectie Kinderanesthesiologie (SKA) van de Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie heeft selectiecriteria voor dagbehandeling bij kinderen vastgesteld (www.nva-ska.org). Er zijn 2 patiëntgebonden criteria: ASA (American Society of Anesthesiologists, classificatie (zie figuur 6.3.1) en leeftijd. Alleen kinderen met een ASA-klasse I, II en geselecteerde patiënten van klasse III, indien ziekte goed onder controle is, komen in aanmerking voor dagbehandeling. A term geboren kinderen (zwangerschapsduur van tenminste 37 weken) die ouder zijn dan 3 maanden en met een gewicht vanaf 5 kg en kinderen geboren bij een zwangerschapsduur < 37 weken, die ouder zijn dan 60 weken postconceptie komen in aanmerking voor dagbehandeling. Daarnaast zijn er criteria wat betreft de ingreep (geschatte duur minder dan 2 uur, geen intrathoracale, intracraniale of grote intra-abdominale ingrepen, minimaal bloedverlies, minimaal risico op postoperatieve complicaties en een adequate pijnbestrijding) en de thuissituatie van het kind (ouders moeten het pre- en postoperatieve beleid begrijpen en het uit kunnen voeren, reistijd niet meer dan 1 uur bij bloedige ingrepen).

Er zijn 2 richtlijnen verschenen waarin wordt ingegaan op de vraag of een patiënt met OSAS in dagbehandeling geopereerd kan worden: American Academy of Pediatrics 2002 en de American Society of Anesthesiologists 2006. Eén van de aanbevelingen van de AAP is om hoog risico patiënten in een klinische setting te opereren (AAP 2002). Tot deze categorie

patiënten behoren zuigelingen en patiënten met: craniofaciale afwijkingen, syndroom van Down, neuromusculaire aandoeningen, chronische longziekten, sikkcel ziekte, centraal hypoventilatie syndromen en genetische / metabole / stapelingsziekten. In de ASA richtlijn worden een aantal factoren genoemd die van invloed zijn op de keuze dagbehandeling of klinische setting (ASA 2006). Deze factoren zijn: ernst van de OSAS, type chirurgie (oppervlakkige versus luchtweg en/of grote chirurgische ingrepen), type anesthesie (lokaal of regionaal versus algehele anesthesie), postoperatieve pijnbehandeling waarbij opioïden geïndiceerd zijn, comorbiditeit, leeftijd van de patiënt en de mogelijkheden in de thuissituatie (kan de patiënt thuis geobserveerd worden).

Figuur nummer 6.3.1 American Society of Anesthesiologists classificatie

ASA klasse 1 gezonde patiënt
ASA klasse 2 patiënt met milde systemische ziekte
ASA klasse 3 patiënt met ernstige systemische ziekte
ASA klasse 4 patiënt met ernstige systemische ziekte, welke chronisch levensbedreigend is
ASA klasse 5 patiënt is moribund en zal naar verwachting niet overleven zonder operatie
ASA klasse 6 patiënt is hersendood, organen worden uitgenomen voor donatie

Samenvatting van de literatuur

Patiëntselectie

Er zijn diverse studies gepubliceerd die de impact van OSAS op het ondergaan van een ingreep in dagbehandeling beschrijven. Echter, in alle studies worden alleen kinderen beschreven die een (A)TE ondergingen. Bovendien wordt de diagnose OSAS in de studies op uiteenlopende gesteld, door middel van anamnese, lichamelijk onderzoek, klinische observatie, oximetrie en / of PSG. In hoofdstuk 3 worden de problemen rond het stellen van de diagnose op basis van klinische criteria beschreven. Kinderen met ernstige OSAS hebben een hoger risico op het optreden van postoperatieve complicaties (zie hoofdstuk 6.2). Selectie van kinderen die een ingreep in een klinische setting moeten ondergaan is noodzakelijk. Er zijn in totaal 1 systematische review en 8 studies gebruikt als uitgangspunt voor de wetenschappelijke onderbouwing van dit onderdeel van de uitgangsvraag.

Leeftijd

In een systematische review werd gekeken naar de veiligheid van tonsillectomie bij kinderen in dagbehandeling (Brigger 2006). Hierbij werden de data van 16 geselecteerde artikelen (n = 6698) uit de literatuur van 1966 tot en met 2004 gepooled. De kans op complicaties binnen 24 uur bij kinderen met een verdenking op OSAS (n = 4686) was 9.8%, bij kinderen zonder verdenking op OSAS was deze kans 6.5%. Deze complicaties bestonden uit nabloedingen, ademwegproblemen, dehydratie, braken en matige controle van de pijn. Ongeplande opnames van kinderen na ATE was voor kinderen met OSAS 9.2%, bij kinderen zonder OSAS 5.9%. Indien bij kinderen met OSAS een onderverdeling gemaakt wordt in kinderen ouder dan 3 jaar vs. kinderen tot en met de leeftijd van 3 jaar dan zijn de risico's op complicaties 2.3 vs. 10.7% en ongeplande opnames 1.8 vs. 9.4%. Wanneer de kinderen jonger dan 3 jaar geanalyseerd worden is er geen verschil meer wat betreft complicaties en ongeplande opnames tussen de groepen met en zonder OSAS.

In 2 aanvullende retrospectieve studies werd de invloed van de leeftijd op het postoperatieve beloop na A(TE) (Rothschild 1994 en Biavati 1997) onderzocht. In beide studies werd de diagnose OSAS aan de hand van klinische criteria gesteld: toename van snurken, apneus of hypopneus met arousels. Biavati (n = 355) analyseerde de risicofactoren voor een gecompliceerd postoperatief beloop bij kinderen die een adenotomie of tonsillectomie ondergingen in verband met OSAS (Biavati 1997). Er waren 13 (3.7%) ongeplande opnames ivm luchtwegproblemen, misselijkheid en braken of slechte orale intake. Bij 11 (3%) kinderen vond heropname plaats, bij geen van deze kinderen was er sprake van desaturaties, apneus of hypoxaemie. Ook in deze studie was een leeftijd van ≤ 3 jaar geassocieerd met een gecompliceerd postoperatief beloop. Rothschild (n = 153) analyseerde de postoperatieve complicaties bij kinderen die een tonsillectomie ondergingen (Rothschild 1994). Ook hier was de tijd tot orale intake (26.5 vs. 16.5 uur p = 0.004) en de tijd tot ontslag (58.9 vs. 31.5 uur p = 0.001) langer bij de groep kinderen jonger dan 4 jaar in vergelijking met de kinderen van 4 jaar en ouder, ongeacht de indicatie voor de tonsillectomie. In de OSAS groep traden bij kinderen jonger dan 4 jaar frequenter respiratoire complicaties op zoals stridor en ernstige nachtelijke desaturaties dan bij oudere kinderen met OSAS (11 vs. 5%).

Comorbiditeit

In de hierboven genoemde studie van Biavati (n = 355) werden behalve de leeftijd van ≤ 3 jaar ook andere factoren geassocieerd met een gecompliceerd postoperatief beloop na A of TE in verband met OSAS. Deze risicofactoren zijn: cerebrale parese, epilepsie, congenitale hartaandoeningen (deze worden niet nader gespecificeerd) en prematuriteit (Biavati 1997).

In een retrospectieve studie vergeleek Brown het postoperatieve beloop bij kinderen die een spoed ATE ondergingen (n = 54) met het beloop bij kinderen die een electieve ATE ondergingen (n = 44) (Brown 2003). In beide groepen werd de diagnose OSAS met PSG (AHI > 1) of pulsoximetrie (3 clusters van saturaties < 90%) of een capillaire koolzuurspanning (> 50 mmHg) of een geobserveerde bovenste luchtwegobstructie met saturatie < 90% of op klinische gronden gesteld. Een spoed ATE was een ATE die werd verricht tijdens dezelfde opname als dat de diagnose (verdenking) OSAS werd gesteld. Bij 11 kinderen in de studiegroep trad een gecompliceerd postoperatief beloop op waarvoor reïntubatie, beademing, opname op de intensive care of toediening van adrenaline of ventolin. Bij 7 van de 11 kinderen was sprake van comorbiditeit, bij alle zeven kinderen betrof het de luchtwegen: astma, recente bovenste luchtweginfectie, laryngomalacie, bronchopulmonale dysplasie, stembandparese of subglottische stenose. De odds ratio voor een gecompliceerd postoperatief beloop indien kinderen een aanvullende medische aandoening hebben werd berekend op 8.15 (95% BI 1.81 - 36.7).

In een retrospectieve studie werd het postoperatieve beloop beschreven van kinderen (n = 37) die een A en / of een TE ondergingen in verband met OSAS (Rosen 1994). De diagnose OSAS werd door middel van PSG gesteld. De volgende medische aandoeningen waren geassocieerd met een gecompliceerd postoperatief beloop waardoor de opnameduur verlengd was: craniofaciale afwijkingen vooral die aandoeningen waarbij er sprake was van midfaciale hypoplasie of micro / retrognatie, failure to thrive, hypotonie, cor pulmonale, morbide obesitas en brandwonden van de luchtwegen in de voorgeschiedenis.

Goldstein vergeleek het postoperatieve beloop en complicaties na een A(TE) bij kinderen met het syndroom van Down (n = 87) met het postoperatieve beloop en complicaties bij

kinderen in een controle groep (n = 64) (Goldstein 1998). Bij kinderen met het syndroom van Down was er vaker sprake van comorbiditeit dan in de controle groep, bij 48 vs. 2% van de kinderen was er sprake van een congenitale hartaandoening (42 versus 1 kind). De congenitale hartafwijkingen waren onder andere Ventrikel of Atrium Septum Defect (respectievelijk bij 29 en 26 kinderen), pulmonale hypertensie (10 kinderen), open Ductus Arteriosus / Foramen Ovale (4 en 2 kinderen), pulmonaal stenose (4) of combinaties van afwijkingen. Onduidelijk is in hoeverre de hartafwijking gecorrigeerd was op het moment dat de kinderen een A(TE) ondergingen. Ook werd bij deze kinderen vaker de diagnose (verdenking op) OSAS of bovenste ademwegobstructie, al dan niet in combinatie met recidiverende tonsillitis, gesteld dan in de controle groep (94 vs. 56%). Bij 7 kinderen (8%) met het syndroom van Down en bij 1(2%) kind in de controle groep werd een PSG verricht. De opnameduur was verlengd in de groep van kinderen met het syndroom van Down in vergelijking met de kinderen in de controle groep (1.6 vs. 0.8 dagen p = 0.001). Ontslag op dezelfde dag was mogelijk bij respectievelijk 5 en 34% van de kinderen. Intensive care opname was noodzakelijk bij 25% van de kinderen uit de Down groep, geen van de kinderen in de controle groep werd opgenomen op de intensive care. In een retrospectieve studie werd het postoperatieve beloop na A(TE) geanalyseerd bij 16 kinderen met het syndroom van Down (Bower 1995). De diagnose OSAS werd op basis van klinische criteria gesteld. Bij 11 van de 16 kinderen was er ook sprake van een congenitale hartaandoening. Twee kinderen (beide 3 jaar oud) konden dezelfde dag ontslagen worden. Tien patiënten gingen postoperatief naar een verpleegafdeling. Bij 4 van de 16 kinderen was opname op de intensive care noodzakelijk ivm ernstige ademwegobstructie en desaturaties. Tien van de 16 kinderen kreeg extra zuurstof toegediend om de saturatie > 90% te houden. De laagste saturatie gedurende de eerste nacht was gemiddeld 63%.

Ernst OSAS

In de eerder genoemde studie van Rosen werd het postoperatieve beloop beschreven van kinderen (n = 37) die een A en / of een TE ondergingen in verband met OSAS (Rosen 1994). De diagnose OSAS werd door middel van PSG gesteld. Uit deze studie kwam naar voren dat naast het hebben van comorbiditeit ook de ernst van de OSAS van invloed is op het postoperatieve beloop. De kinderen die een gecompliceerd postoperatief beloop hadden waardoor de opnameduur verlengd was hadden een hogere RDI dan kinderen die een ongecompliceerd postoperatief beloop hadden (gemiddelde RDI 67 met een standaard deviatie 44 vs. 32 met een standaard deviatie 19). Ook hadden deze kinderen die postoperatief complicaties kregen, preoperatief een lager dieptepunt in de saturatie (gemiddeld 42 (SD 29) vs. 81%(SD 12)).

In een observationele studie werd het postoperatieve beloop beschreven bij 114 kinderen die een adenotomie of een tonsillectomie ondergingen (Holzmann 2000). Deze studie was opgezet om factoren te benoemen die van invloed zijn op de keuze op het uitvoeren van deze ingrepen in dagbehandeling of in een klinische setting. Milde ademwegobstructie werd in deze studie gedefinieerd als snurken, ernstige ademwegobstructie werd gedefinieerd als 20 - 30 episodes van desaturaties > 7 seconden gedurende de slaap, gemeten met ambulante pulsoximetrie. Ontslag 8 uur na de operatieve ingreep was niet mogelijk bij 7% van de kinderen met milde ademwegobstructie, 33% van de kinderen met ernstige

ademwegobstructie en bij 75% van de kinderen die behalve ernstige ademwegobstructie ook chronische of recidiverende infecties (OMA of tonsillitis) hadden.

In de hierboven eerder genoemde studie van Brown werd het postoperatieve beloop bij kinderen die een spoed ATE ondergingen (n = 54) vergeleken met het beloop bij kinderen die een electieve ATE ondergingen (n = 44) (Brown 2003). In beide groepen werd de diagnose OSAS met PSG (AHI > 1) of pulsoximetrie (3 clusters van saturaties < 90%) of een capillaire koolzuurspanning (> 50 mmHg) of een geobserveerde bovenste luchtweg-obstructie met saturatie < 90% of op klinische gronden gesteld. De OSAS bij de kinderen in de studiegroep was ernstiger dan de OSAS bij de kinderen in de controle groep, de laagste preoperatieve saturatie was respectievelijk 76.4 ± 11.1 en $86.0 \pm 6.5\%$. In de studiegroep zaten meer kinderen met een preoperatieve saturatie < 80% dan in de controle groep (57.4 vs. 15.9%). Bij de kinderen in de studiegroep trad frequenter een gecompliceerd postoperatief beloop waarvoor reïntubatie, beademing, opname op de intensive care of toediening van adrenaline of ventolin noodzakelijk was dan in de controle groep (20.3 vs. 6%). Bij geen van de kinderen in de controle groep was reïntubatie noodzakelijk.

Mitchell verrichtte een observationele studie bij kinderen (n = 20) jonger dan 3 jaar die een ATE ondergingen (Mitchell 2005). Bij alle kinderen was sprake van ernstige OSAS, de gemiddelde RDI was preoperatief 34.1. Bij 16 van de 20 kinderen was sprake van aanvullende medische aandoeningen, bij 6 kinderen was zelfs sprake van 4 of meer comorbide aandoeningen. Kinderen ondergingen een tweede PSG binnen 12 maanden na chirurgie, bij 13 van de 20 kinderen was sprake van persisterende OSAS (RDI ≥ 5), met een gemiddelde RDI van 12.2.

Conclusies

Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat het verrichten van een (A)TE in dagbehandeling in verband met een (verdenking op) OSAS veilig is bij kinderen, zonder aanvullende comorbiditeit, ouder dan 3 jaar.</p> <p><i>A2 Brigger 2006</i></p>
Niveau 2	<p>Het is aannemelijk dat bij kinderen tot en met de leeftijd van 3 jaar die een (A)TE ondergaan ivm (verdenking op) OSAS meer postoperatieve complicaties voorkomen en dat de kans op een ongeplande klinische opname groter is dan bij kinderen ouder dan 3 jaar die een (A)TE ivm (verdenking op) OSAS ondergaan.</p> <p><i>A2 Brigger 2006</i> <i>C Rothschild 1994, Biavati 1997</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat prematuur geboren kinderen (geboorte bij een zwangerschapsduur < 37 weken) en kinderen met cerebrale parese of epilepsie een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop na een A of TE.</p> <p><i>C Biavati 1997</i></p>

Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met (verdenking op) OSAS en een congenitale hartaandoening een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop.</p> <p><i>B Goldstein 1998</i> <i>C Biavati 1997</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat het verrichten van een (A)TE bij patiënten met het syndroom van Down geassocieerd is met een gecompliceerd postoperatief beloop en een verlengde opnameduur.</p> <p><i>B Goldstein 1998</i> <i>C Bower 1995</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met (verdenking op of vastgestelde) OSAS en een aanvullende medische aandoening van de luchtwegen, een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop na een ATE.</p> <p><i>B Brown 2003</i> <i>C Rosen 1994</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met (vastgestelde) OSAS en een craniofaciale afwijking, hypotonie, failure to thrive, cor pulmonale of morbide obesitas een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop na een A en / of TE.</p> <p><i>C Rosen 1994</i></p>
Niveau 3	<p>Er zijn aanwijzingen dat kinderen met OSAS (met een preoperatief dieptepunt in saturatie < 80% of een RDI > 60 of ernstige ademwegobstructies (20 - 30 episodes van desaturaties > 7 seconden gedurende de slaap) een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop.</p> <p><i>B Brown 2003</i> <i>C Rosen 1994, Holzmann 2000</i></p>

Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat bij kinderen met (verdenking op) OSAS die chronische of recidiverende infecties hebben (OMA of tonsillitis) ontslag uit het ziekenhuis, 8 uur na een A of TE, niet mogelijk is. <i>C Holzmann 2000</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat kinderen die een spoed ATE* ondergaan in verband met (vastgestelde of verdenking op) OSAS een grotere kans hebben op een gecompliceerd postoperatief beloop. (*ATE verricht tijdens dezelfde opname als het stellen van de diagnose OSAS) <i>B Brown 2003</i>
Niveau 3	Er zijn aanwijzingen dat bij kinderen met OSAS (preoperatieve RDI > 20) en aanvullende medische aandoeningen er een hoge incidentie (65%) is van persisterende OSAS (RDI ≥ 5) na een ATE. <i>C Mitchell 2005</i>

Overige overwegingen

In Nederland wordt een tonsillectomie volgens de dissectietechniek of de guillotine techniek, ook wel Sludertechniek genoemd, uitgevoerd. In de rest van de wereld wordt vrijwel uitsluitend de dissectietechniek gebruikt. In de literatuur wordt dan ook bijna uitsluitend het postoperatieve beloop na een dissectietonsillectomie beschreven, hierdoor zijn de gevonden uitkomsten mogelijk niet zondermeer toepasbaar op de Nederlandse situatie.

In enkele studies die hier beschreven staan wordt de ernst van de OSAS weergegeven in een zogenaamde respiratoire distress index (RDI). De RDI is de som van alle respiratoire gebeurtenissen per uur, deze zal dus in de meeste gevallen hoger uitvallen dan een AHI (zie ook hoofdstuk 3.3).

Aanbeveling(en)

Kinderen, zonder verdere comorbiditeit, met verdenking op of vastgestelde milde of matige OSAS die ouder zijn dan 3 jaar kunnen veilig een (A)TE ondergaan in dagbehandeling mits er de mogelijkheid bestaat om in geval van complicaties de dagopname te verlengen tot een nacht klinische bewaakte opname in hetzelfde ziekenhuis.

Kinderen met OSAS die een (A)TE ondergaan worden tenminste klinisch bewaakt gedurende de eerste postoperatieve nacht, indien één of meer van de volgende risicofactoren op een gecompliceerd postoperatief beloop aanwezig zijn:

- Neurologische of neuromusculaire aandoeningen, zoals cerebrale parese, epilepsie of hypotonie
- Syndromale afwijkingen, zoals het syndroom van Down
- Craniofaciale afwijkingen

- Genetische / metabole of stapelingsziekten, zoals mucopolysaccharidose, sikkelcelanemie
- Achondroplasie
- Congenitale hartaandoeningen, cor pulmonale, ECG of echocardiografische afwijkingen, hypertensie
- Aandoeningen van de luchtwegen, zoals bronchopulmonale dysplasie, subglottische stenose, stembandparese, trauma van de luchtweg in de voorgeschiedenis, ernstig astma, laryngomalacie, recente / chronische of recidiverende bovenste luchtweg-infectie
- Failure to thrive
- Morbide obesitas
- Ex-prematuriteit (geboorte bij een zwangerschapsduur < 37 weken) (verdenking)
- Ernstige OSAS
- Spoed adenotonsillectomie*
- Leeftijd jonger dan 3 jaar
- Gewicht onder de 15 kg
- ASA klasse 3 of hoger

Bij kinderen bij wie het verrichten van een spoed adenotonsillectomie wordt overwogen dient een preoperatief onderzoek plaats te vinden en dient de gezondheidstoestand van de patiënt waar mogelijk geoptimaliseerd te worden.

Het lijkt de werkgroep raadzaam om kinderen met een zwak sociaal vangnet of kinderen die verder dan 30 minuten reizen van het ziekenhuis wonen voor een nachtopname in aanmerking te laten komen.

* een adenotonsillectomie tijdens dezelfde opname als het stellen van de diagnose OSAS

Literatuur

- American Society of Anesthesiologists. Practice guidelines for the perioperative management of patients with obstructive sleep apnea. *Anesthesiology* 2006, 104(0): 1081-1093.
- Biavati MJ, Manning SC, Phillips DL. Predictive factors for respiratory complications after tonsillectomy and adenoidectomy in children. *Arch Otolaryngology - Head Neck Surgery* 1997, 123(0): 517-521.
- Bower CM, Richmond D. Tonsillectomy and adenoidectomy in patients with Down syndrome. *International Journal of Pediatric Arch Otorhinolaryngology* 1995, 33(0): 141-148.
- Brigger TM, Brietzke SE. Outpatient tonsillectomy in children: a systematic review. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2006, 135(0): 1-7.
- Brown KA, Morin I, Hickey C, Manoukian JJ, Nixon GM, Brouillette RT. Urgent adenotonsillectomy: an analysis of risk factors associated with postoperative respiratory morbidity. *Anesthesiology* 2003, 99(3): 586-595.
- Farber JM, Schechter MS, Marcus CL. Clinical practice guideline: Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome (multiple letters). *Pediatrics* 2002, 110(6): 1255-1257.
- Goldstein NA, Armfield DR, Kingsley LA, Borland LM, Allen GC, Post JC. Postoperative complications after tonsillectomy and adenoidectomy in children with Down syndrome. *Arch Otolaryngology Head Neck surgery* 1998, 124(0): 171-176.

- Holzmann D, Kaufmann T, Boesch M. On the decision of outpatient adenoidectomy and adenotonsillectomy in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology* 2000, 53(1): 9-16.
- Mitchell RB, Kelly J. Outcome of adenotonsillectomy for obstructive sleep apnea in children under 3 years. *Otolaryngology - Head and Neck Surgery* 2005, 132(0): 681-684.
- Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie, Sectie Kinderanesthesie: www.nva-ska.org
- Nederlandse Vereniging voor Dagbehandeling en Kortverblijf - Beleidsplan: www.nvdk.nl/BeleidsplanNVDK.pdf (16-06-2010).
- NEN 7500. Het zorgproces dagbehandeling bij chirurgische ingrepen. Nederlands Normalisatie-instituut (2006).
- Rosen GM, Muckle RP, Mahowald MW, Goding GS, Ullevig C. Postoperative respiratory compromise in children with obstructive sleep apnea syndrome: can it be anticipated?. *Pediatrics* 1994, 93(5): 784-788.
- Rothschild MA, Catalano P, Biller HF. Ambulatory pediatric tonsillectomy and the identification of high-risk subgroups. *Otolaryngology - Head & Neck Surgery* 1994, 110(2): 203-210.

HOOFDSTUK 7: ORGANISATIE VAN ZORG EN DE ROL VAN DE OUDERS

7.1. Hoe is de organisatie van de zorg rondom kinderen met OSAS geregeld?

Inleiding

Er zijn in de 90 ziekenhuizen in Nederland 78 klinieken (slaap-waakcentra) gespecialiseerd in de diagnose en behandeling van OSAS. Voor zover bekend is geen daarvan gespecialiseerd in behandeling van OSAS bij kinderen. Ook in welke mate bij deze klinieken behandeling van kinderen met OSAS plaatsvindt is onbekend. De zorg voor kinderen met verdenking op OSAS komt meanderend tussen de verschillende zorgverleners en specialisten tot stand. Het is niet goed te achterhalen of en hoeveel multidisciplinaire teams er zijn en welke samenstelling ze hebben. In dit hoofdstuk willen we verkennen welke hulpverleners daarbij welke rol spelen.

De belanghebbenden bij OSAS bij kinderen en hun rol bij diagnostiek en therapie

De ouders hebben een signalerende rol. Zij zullen symptomen moeten herkennen en actie richting huisarts moeten ondernemen. Er is slechts beperkt Amerikaans onderzoek beschikbaar (Strocker 2007). Hieruit bleek dat ouders weliswaar realiseerden dat OSAS bij kinderen een serieus probleem kan zijn, maar weinigen kenden de symptomen, risicogroepen en co-morbiditeit. Minder dan 20% wist dat ATE een geschikte behandeling kon zijn. Er is geen aanleiding om te veronderstellen dat het kennisniveau in Nederland groter zal zijn.

De huisarts is diegene die de werkdiagnose 'verdenking OSAS' moet stellen en daarop gericht moet verwijzen. De kennis over OSAS bij volwassenen is de laatste jaren sterk toegenomen. De kennis en bekendheid van OSAS bij kinderen blijft hier sterk bij achter. Wanneer er in de huisartsen praktijk wel aan OSAS bij kinderen wordt gedacht is soms niet bekend naar wie gericht verwezen moet worden. Voor gericht verwijzen is namelijk bekendheid met de diagnostische en therapeutische mogelijkheden bij OSAS noodzakelijk. Bij kinderen zonder comorbiditeit is een ATE vak de behandeling van keuze en dient naar een KNO-arts verwezen te worden, terwijl bij verdenking op OSAS bij kinderen met (ernstige) comorbiditeit vaak eerst naar de kinderarts verwezen dient te worden.

De kinder- en jeugdarts op het consultatiebureau en de schoolarts zullen alert moeten zijn op symptomen, die kunnen wijzen op OSAS bij kinderen. Op dit moment is er meestal nog onvoldoende bewustzijn van het probleem van het kind met OSAS. In de toekomst zal er op het consultatiebureau bij voorkeur gericht gevraagd worden naar de symptomen van OSAS bij kinderen. Dit kan uitstekend in het bestaande nationale screeningsprogramma van consultatiebureau en schoolartszorg geïntegreerd worden.

De kinderarts zal moeten beschikken over voldoende criteria om de verdenking OSAS te onderbouwen. Waar nodig zal de kinderarts zelf therapie starten, zoals gewichts-

vermindering bij obesitas of nadere diagnostiek verzorgen. In veel gevallen zal er vervolgens worden doorverwezen naar de KNO-arts voor een ATE. De kinderarts behoort dus te weten bij welke indicaties een ATE een oplossing kan zijn voor de OSAS. In andere gevallen zou hij moeten kunnen doorverwijzen naar een slaapkliniek die vertrouwd is met diagnose en behandeling van kinderen met OSAS voor het verrichten van een polysomnogram. In een dergelijke kliniek zijn de juiste diagnostische instrumenten (met name PSG geschikt voor kinderen) aanwezig en is er expertise bij het aanmeten van CPAP/BPAP bij kinderen. De kinderarts heeft ook een rol bij de behandeling van en het onderzoek naar co-morbiditeit.

De kno-arts zal in vele gevallen de diagnose OSAS stellen op het klinisch beeld en in ieder geval moeten bepalen of in dit specifieke geval ATE een geschikte behandeling is. (Zie ook hoofdstuk 8.1 van de ZATT-richtlijn). Op het moment van diagnosestelling van OSAS en/of het stellen van de indicatie tot het verrichten van een ATE is de KNO-arts op de hoogte van co-morbiditeit, die in belangrijke mate het risico van een operatieve ingreep bepaalt. In het geval van relevante co-morbiditeit wordt de patiënt verwezen naar de kinderarts voor analyse. Tevens verdient overleg met de anesthesist over de soort anesthesie en peri- en postoperatieve zorg in het geval van OSAS bij kinderen bijzondere aandacht. Zie hoofdstuk 6.2 van deze richtlijn. Verder zal er rekening mee moeten worden gehouden dat er na ingrepen bij kinderen met OSAS complicaties kunnen optreden die opname noodzakelijke maken. Dit beperkt de groep ziekenhuizen waar kinderen met OSAS behandeld kunnen worden.

De anesthesioloog inventariseert tijdens het preoperatieve spreekuur de algehele gezondheidstoestand van de patiënt en de aanwezigheid van co-morbiditeit. Samen met de KNO-arts of kaakchirurg wordt het peri- en postoperatief beleid bepaald. Indien nodig wordt de kinderarts geconsulteerd, indien die al niet betrokken is bij de behandeling van de patiënt.

Een gespecialiseerd centrum voor slaaponderzoek bij kinderen komt in beeld als ATE niet overwogen wordt of al verricht is en de OSAS-problematiek is blijven bestaan of teruggekeerd. Op dit moment is niet bekend welke slaapklinieken of kinderlinieken specifieke ervaring hebben met betrekking tot diagnose en behandeling van OSAS bij kinderen.

Overige overwegingen

OSAS bij kinderen is een specialisme in ontwikkeling. Dat geldt ook voor de kindergeneeskunde met een voortgaande specialisatie voor bepaalde aandoeningen en ziektes. De komende jaren zullen enkele kloven overbrugd moeten worden.

- Er is behoefte aan specifieke kennis omtrent OSAS bij kinderen. Gespecialiseerde centra zullen niet alleen een toename van deze kennis laten zien, maar ook hun bekendheid als centrum kenbaar moeten gaan maken, zodat gerichte verwijzing mogelijk wordt. Deze centra zullen zich gaan opwerpen als kennis centra voor de zorg en diagnostiek van kinderen met OSAS. Op dit moment echter kennen we in Nederland alleen een groot aantal slaapklinieken met ruime ervaring met osas bij volwassenen maar geen of beperkte ervaring met OSAS bij kinderen.

- Er zijn zeer veel kno-artsen met ruime ervaring in de adenotonsillectomie, hetgeen de belangrijkste behandeling bij OSAS bij kinderen is. Specifieke kennis van OSAS ontbreekt echter vaak. Bekendheid omtrent de specifieke behandeling en diagnostiek van OSAS bij kinderen is, ook bij KNO-artsen, gewenst.
- Er zijn gespecialiseerde klinieken met ruime ervaring in allerlei facetten van de kindergeneeskunde, maar geen of zeer beperkte kennis en kunde van OSAS bij kinderen.

Inventarisatie van de huidige situatie van dienstverlening in de zorg rondom OSAS bij kinderen is gewenst. Op de raakvlakken tussen de verschillende specialismen kunnen 'centers of excellence op het gebied van diagnose en behandeling van kinderen met verdenking osas ontstaan. Hierbij is multidisciplinair samenwerken van groot belang om te komen tot verbetering van diagnostiek en zorg rondom het kind met (verdenking op) OSAS.

Aanbevelingen

Een ruime beschikbaarheid van een patiëntenversie van deze richtlijn met daarin voor leken begrijpelijk wat de belangrijkste symptomen zijn, is van het grootste belang bij de voorlichting van ouders, zodat deze tijdig opmerkzaam gemaakt worden op de belangrijkste symptomen en de huisarts opzoeken voor nadere evaluatie van de klachten van hun kind.

Een toegankelijke kernversie van de richtlijn is ook van belang voor de groepen verwijzers in de eerste en tweede lijn zoals artsen en consultants bij consultatiebureaus, huisartsen, KNO-artsen en kinderartsen. Verwerking van deze richtlijn in nascholingen en online wikibased interactieve naslagprogramma's (bijvoorbeeld WikiNO.nl) om inbedding in de beroepsgroep te stimuleren.

Een inventarisatie van de huidige kennis, kunde en capaciteit m.b.t. diagnose en behandeling van osas bij kinderen verdient de hoogste prioriteit.

De werkgroep is van mening dat het aanbeveling verdient om het tot stand komen van centers of expertise te bevorderen met de nadruk op het ontwikkelen van multidisciplinaire teams voor OSAS bij kinderen.

7.2 .Voorlichting en begeleiding van (ouders van) kinderen met OSAS

Het verhogen van het algemene kennisniveau van ouders op het gebied van osas bij kinderen ligt buiten de scope van de zorgverlener en is meer een taak van patiëntenverenigingen, bijvoorbeeld met als basis de patiëntenversie van deze richtlijn.

De instelling die de diagnose stelt en een behandeling voorstelt zal daarbij moeten voldoen aan de wettelijke kaders (WGBO). Vanuit voorlichtingsoptiek gelden daarbij de volgende vuistregels:

- Het woord van de behandelend specialist in een persoonlijk gesprek is voor ouders de essentie. Maar door de beperkte beschikbare tijd en de spanning in de gesprekssituatie is dit vaak niet afdoende.

- Naast persoonlijke informatie is daarom schriftelijke informatie van belang, zodat ouders en kinderen zich voor kunnen bereiden op een gesprek, en kunnen lezen over de aandoening en de voorgestelde therapie of onderzoeken. Websites en folders winnen aan kracht als ze naast algemene informatie over de ziekte en de ingreep, specifiek op de gang van zaken in het ziekenhuis ingaan en op het begrippenkader van de patiënt zijn toegesneden. Hierbij kan tegenwoordig ook multimedia ondersteuning ontwikkeld worden door instructiefilmpjes en websites te maken.
- Het is van belang dat in een persoonlijk gesprek bijvoorbeeld met een osas-verpleegkundige vragen van patiënt en ouders aan bod kunnen komen.
- Bij risicogroepen kan periodieke groepsvoorlichting en lotgenotencontact voor (ouders van) patiënten een belangrijke rol spelen bij alertheid op signalen van OSAS, bevordering van acceptatie en therapietrouw.

Bij behandeling met CPAP speelt vaak ook de leverancier van de apparatuur een belangrijke rol. Hun rol gaat in Nederland vaak verder dan alleen de verstrekking van de apparatuur. De keuze en afstelling van het masker wordt vaak door de leverancier gedaan. Zij zorgen ook vaak voor on site instructie van de ouders en kunnen benaderd worden bij storingen van de apparatuur. Bij kinderen heeft de kinderarts eveneens een ondersteunende rol voor de ouders bij het gebruik van CPAP.

Speciale aandacht vraagt de voorlichting en begeleiding van (de ouders van) kinderen met het syndroom van Down en andere syndromale aandoeningen. Dit valt echter buiten het kader van deze richtlijn.

Een multidisciplinaire aanpak lijkt gezien de co-morbiditeit gewenst bij de voorlichting en begeleiding van kinderen met OSAS. De aanwezigheid van een multidisciplinair team zorgt voor eenduidigheid naar de ouders van patiënten toe en zorgt voor kwaliteitsverbetering.

Aanbevelingen

De rol van ouders is van belang bij het signaleren van OSAS, maar ook bij de begeleiding en ondersteuning van het kind tijdens het diagnostisch proces en behandeling van OSAS.

Voorlichtingsmateriaal omvat een algemeen deel (omschrijving van OSAS, de risicogroepen, de symptomen, de belangrijkste behandelingen en wanneer deze worden toegepast) en een specifiek deel (gang van zaken in dit ziekenhuis bij diagnose en behandeling).

Het wordt aanbevolen om multimedia ondersteuning te ontwikkelen ter ondersteuning van de informatievoorziening.

Goede voorlichting kent een afgewogen mix tussen persoonlijke informatie (behandelend specialist en (OSAS-) verpleegkundige), zelf te raadplegen betrouwbare voorlichting (website, brochures) en groepsvoorlichting. Effectieve informatie is toegesneden op het abstractieniveau van ouders en kind.

7.3. Eisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS worden behandeld

7.3.1. Wat zijn de minimumeisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS geopereerd worden (kinderarts, anesthesioloog met aandachtsgebied kinderen, etc.)?

Inleiding

Voor het beantwoorden van deze vraag is uitgegaan van het Standpunt voor de organisatie van anesthesiologische zorgverlening aan en ingrepen bij kinderen, van de Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie (www.anesthesiologie.nl/verenigingsstandpunten). Hierin worden de faciliteiten beschreven waaraan een ziekenhuis moet voldoen om verantwoorde anesthesie en chirurgie bij kinderen mogelijk te maken. Ook is gebruik gemaakt van 2 richtlijnen en de (niet systematische) review van Schwengel waarin wordt ingegaan op de benodigde faciliteiten in een ziekenhuis waar patiënten met OSAS geopereerd worden (American Academy of Pediatrics 2002, American Society of Anesthesiologists 2006, Schwengel 2009). Er is geen literatuuronderzoek gedaan naar de minimumeisen voor een kliniek waar kinderen met OSAS geopereerd worden. De werkgroep zag geen noodzaak om af te wijken van dit NVA standpunt en deze richtlijnen. Eén van de aanbevelingen in de AAP richtlijn is om hoog risico patiënten in een klinische setting te opereren en postoperatief continu te monitoren door middel van pulsoximetrie. Deze aanbeveling wordt door de ASA onderschreven. Tot de categorie hoog risico patiënten behoren in de AAP richtlijn: craniofaciale afwijkingen, syndroom van Down, neuromusculaire aandoeningen, chronische longziekten, sikkelcel ziekte, centraal hypoventilatie syndromen, genetische / metabole / stapelingsziekten. De ASA meldt ook dat de patiënt alleen ontslagen kan worden naar een bed zonder monitoring (verpleegafdeling of naar huis) indien het risico op luchtwegobstructie of centrale ademhalingsdepressie geweken is en de patiënt een zuurstofsaturatie gelijk aan de uitgangswaarde kan handhaven bij kamerlucht, zonder stimulatie. In de ASA richtlijn wordt ook het belang van aanwezigheid van materiaal voor de acute opvang van een moeilijke luchtweg beschreven. Ook moet de mogelijkheid aanwezig zijn om CPAP of NIPPV toe te passen bij patiënten die hiervan preoperatief gebruik maakten. Schwengel geeft aan dat hoog risico kinderen met OSAS postoperatief bewaakt dienen te worden op een afdeling waar de signalen van respiratoire depressie en luchtwegobstructie onderkend worden en leiden tot snelle interventies (Schwengel 2009). De directe beschikbaarheid van een PICU, in een kindercentrum, voor kinderen met ernstige OSAS of significante comorbiditeit wordt aanbevolen in de consensus statement van een multidisciplinaire werkgroep uit het Verenigd Koninkrijk (UK multidisciplinary working party 2008). Tot de categorie hoog risico patiënten behoren in deze consensus statement kinderen met leeftijd < 2 jaar, gewicht < 15 kg, failure to thrive, obesitas, neuromusculaire aandoeningen, craniofaciale afwijkingen, mucopolysaccharidose of syndromen geassocieerd met een moeilijke luchtweg, congenitale hartafwijkingen, chronische longziekten, ASA 3 of hoger, ECG of echocardiografische afwijkingen, ernstige OSAS.

In het Standpunt voor de organisatie van anesthesiologische zorgverlening aan en ingrepen bij kinderen (vastgesteld op 30 november 2009 door de Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie) wordt beschreven wat er van de anesthesioloog mag worden verwacht. De groep anesthesiologen werkzaam in een algemeen ziekenhuis met een kinderafdeling heeft

tenminste één, maar bij voorkeur twee anesthesiologen, met specifieke aandacht voor anesthesie bij kinderen. Deze anesthesiologen zijn aanspreekpunt voor het bewaken van de anesthesiologische zorgverlening aan en ingrepen bij kinderen waaronder:

- het onderhouden van contacten met een kindercentrum;
- de afspraken betreffende spoedingrepen bij en acute opvang van kinderen tijdens en buiten kantooruren;
- de afspraken wanneer te verwijzen naar een kindercentrum;
- de protocollen specifiek voor kinderen betreffende perioperatieve zorg zoals preassessment, premedicatie en nuchter zijn, perioperatieve pijnbehandeling, ontslagcriteria verkoeverkamer en dagbehandeling;
- het volgen van de standpunten en richtlijnen van de NVA (SKA).

De groep anesthesiologen die werkzaam zijn in een kindercentrum bestaat mede uit kinderanesthesiologen. Er zijn duidelijke banden tussen een kindercentrum en algemene ziekenhuizen over samenwerking, opleiding, verwijzing en second opinion op het gebied van anesthesie bij kinderen. Er worden contacten onderhouden tussen anesthesiologen werkzaam in een kindercentrum en anesthesiologen die als aanspreekpunt functioneren in algemene ziekenhuizen. Anesthesiologen werkzaam in een kindercentrum nemen het initiatief in protocol- en richtlijnontwikkeling. Anesthesiologen werkzaam in een kindercentrum zorgen voor overlegstructuren met snijdende specialisten en kinderartsen. De competenties waaraan anesthesiologen werkzaam in een algemeen ziekenhuis of in een kindercentrum, moeten voldoen staan beschreven in bovengenoemd Standpunt.

Van de kinderarts, in een ziekenhuis waar kinderen met OSAS worden behandeld, wordt verwacht dat deze werkzaam is op een kinderafdeling die voldoet aan de eisen zoals gesteld in het document kwaliteitscriteria/richtlijnen en aanbevelingen voor kindergeneeskundige praktijken onderdeel van het reglement van de commissie kwaliteitsvisitatie (mei 2006). Bij voorkeur draagt de kinderarts de verantwoordelijkheid voor de coordinatie van de medische zorg van de opgenomen kinderen. Daarnaast wordt verwacht dat er duidelijke en schriftelijke afspraken gemaakt zijn over opname en medebehandeling van kinderen en adolescenten. De kinderarts dient te beschikken over en te handelen naar protocollen en richtlijnen die in het kader van het kwaliteitsbeleid van de NVK zijn vastgesteld. De kinderarts streeft naar maximale veiligheid voor het kind en implementeert interventies en adviezen van de commissie veilige zorg voor kinderen (VMS veiligheidsprogramma). Door de algemeen kinderarts zijn afspraken gemaakt met andere lokale specialismen en een regionale PICU over de opvang, overdracht en het transport van kritiek zieke IC behoeftige kinderen. Het wordt wenselijk geacht dat de kinderarts het handvest Kind en Ziekenhuis onderschrijft.

Aanbevelingen

De werkgroep is van mening dat voor het uitvoeren van een operatieve ingreep bij kinderen met OSAS, het ziekenhuis moet beschikken over de volgende faciliteiten:

- Een kinderafdeling, waar 24 uur per dag zorg geleverd kan worden en rooming-in mogelijk is en een dagverpleging aangepast aan kinderen, met kinderverpleegkundigen en overig personeel die ruime ervaring hebben met de behandeling van chirurgische kinderen.

- De operatiekamer, de verkoeverkamer, de afdeling Spoedeisende Hulp, de poliklinieken, het laboratorium en de afdeling beeldvormende diagnostiek beschikken over voldoende voorzieningen (apparatuur, personeel, ruimte en organisatie) voor kinderen.
- Op de verkoeverkamer, de kinderafdeling en de dagbehandeling is materiaal aanwezig om kinderen postoperatief te monitoren (pulsoximeter, ademhalingsmonitor), met materiaal om de luchtweg / ademhaling te ondersteunen en met personeel dat een ademwegobstructie en ademhalingsdepressie kan herkennen en adequaat kan opvangen.
- Op de operatiekamer is materiaal aanwezig voor de acute opvang van de moeilijke intubatie met materiaal dat geschikt is voor kinderen en personeel dat hiermee kan omgaan.
- Voor de preoperatieve screening van en de preoperatieve voorlichting aan kinderen en ouders is een poliklinisch spreekuur ingesteld conform het verenigingsstandpunt van de NVA.
- Er is schriftelijke voorlichting over anesthesie bij kinderen aanwezig met instructies over o.a. beleid rondom het nuchter blijven, postoperatieve pijnbehandeling.
- Er zijn protocollen specifiek voor kinderen betreffende de perioperatieve zorg (nuchter zijn, postoperatieve pijnbehandeling en ontslagcriteria).
- De ouder krijgt de gelegenheid om het kind te begeleiden bij diagnostisch onderzoek, bij de inleiding van de anesthesie en bij het ontwaken op de verkoeverkamer, volgens het uitgangspunt van de SKA (sectie kinderanesthesiologie) november 2008.
- Er zijn duidelijke schriftelijke afspraken over de verantwoordelijkheden bij complicaties met betrekking tot opvang en eventueel transport naar en opname op een kinderafdeling of pediatrie intensive care unit.

De werkgroep is van mening dat de anesthesioloog zich moet conformeren aan de standpunten (waaronder Standpunt voor de organisatie van anesthesiologische zorgverlening aan en ingrepen bij kinderen) van de Nederlandse Vereniging voor Anesthesiologie.

De werkgroep is van mening dat de kinderarts moet werken volgens de standaarden en kwaliteitscriteria die in het kader van het kwaliteitsbeleid van de Nederlandse Vereniging voor Kindergeneeskunde zijn vastgesteld.

De werkgroep is van mening dat kinderen met OSAS een electieve operatieve ingreep kunnen ondergaan in een ziekenhuis, met een kinderafdeling waar 24 uur zorg per dag kan worden geboden en dat beschikt over bovengenoemde faciliteiten.

De werkgroep is van mening dat kinderen met OSAS en aanvullende ernstige comorbiditeit of verhoogd perioperatieve risico altijd in een centrum met een pediatrie intensive care unit moeten worden behandeld.

Literatuur

- Clinical practice guideline: Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. American Academy of Pediatrics, section on pediatric pulmonology, subcommittee on obstructive sleep apnea syndrome. (2002)

- Practice guideline for the perioperative management of patients with obstructive sleep apnea.. American society of Anesthesiologists task force on perioperative management of patients with obstructive sleep apnea. (2006)
- Schwengel DA, Sterni LM, Tunkel DE, Hetmuller ES. Perioperative management of children with obstructive sleep apnea. *Anesthesia & Analgesia* 2009, 109(0): 60-75.
- Standpunt voor de organisatie van anesthesiologische zorgverlening aan en ingrepen bij kinderen. www.anesthesiologie.nl/verenigingsstandpunten (07-09-2010).
- Tonsillectomie and adenoidectomy in children with sleep related breathing disorders. consensus statement of a UK multidisciplinary working party. (2008)
- Kwaliteitscriteria/richtlijnen en aanbevelingen voor kindergeneeskundige praktijken onderdeel van het Regelement van de commissie kwaliteitsvisitaties Kindergeneeskunde, mei 2006.
- Handvest Kind en Ziekenhuis, Vereniging kind en Ziekenhuis.
- Kwaliteitscriteria voor intensive care voor kinderen in Nederland, NVK, mei 2010
- VMS veiligheidsprogramma, veilige zorg voor kinderen, juli 2011.

7.3.2. Wat zijn de minimumeisen voor een kliniek waar polysomnografie verricht wordt bij kinderen met OSAS?

Het verrichten van een polysomnogram bij kinderen dient plaats te vinden in gespecialiseerde centra waarbij er voldoende expertise is in een multidisciplinair team voor het uitlezen en interpreteren van de registraties. Dit multidisciplinair team dient te bestaan uit een kinderarts, KNO-arts, kaakchirurg en klinisch neurofysioloog. Daarnaast dient er een kindercardioloog, kinderlongarts, kinderanesthesioloog, craniofaciaal chirurg en orthodontist geconsulteerd te kunnen worden.

Gezien de relatief geringe ervaring met PSG bij kinderen lijkt het verstandig om dit onderzoek te centreren in een aantal geografisch verspreide lokaties. Het verdient aanbeveling om in de toekomst een minimum aantal PSG's per kliniek af te spreken om de kwaliteit te waarborgen.

De uitslag van een afwijkend polysomnogram wordt in het multidisciplinair team besproken en eventuele behandeling wordt door een van de leden van het team verricht. CPAP en BIPAP therapie voor OSAS worden alleen gedaan in centra voor thuisbeademing bij kinderen.

Aanbevelingen

Het verrichten van een polysomnogram bij kinderen dient plaats te vinden in gespecialiseerde centra waarbij er voldoende expertise is in een multidisciplinair team voor het uitlezen en interpreteren van de registraties.

Het verdient aanbeveling om in de toekomst een minimum aantal PSG's per kliniek af te spreken om de kwaliteit te waarborgen.

HOOFDSTUK 8: IMPLEMENTATIE VAN DE RICHTLIJN OSAS BIJ KINDEREN

8.1. Hoe kan de implementatie van deze richtlijn worden gewaarborgd?

Achtergrond

De implementatie van multidisciplinaire richtlijnen is in Nederland vooralsnog niet intensief onderzocht. Onderzoek naar de implementatie van standaarden (voor huisartsen) is iets beter beschikbaar. Uit deze onderzoeken kunnen conclusies getrokken worden, die waarschijnlijk ook relevant zijn voor de implementatie van multidisciplinaire richtlijnen.

In een onderzoeksrapport 'Effectieve implementatie: theorieën en strategieën' zijn belemmerende en bevorderende factoren voor de implementatie van standaarden en richtlijnen weergegeven (Hulscher 2000). In dit onderzoeksrapport en in een eerder rapport worden overzichtsartikelen met betrekking tot verschillende implementatiestrategieën becommentarieerd (Hulscher 2000, Grol 2003).

Uit dit onderzoek blijkt dat richtlijnen die gemaakt en verspreid worden door erkende specialisten op dat gebied, die recht doen aan de gangbare praktijk en die 'interactief' verspreid worden relatief succesvol blijken. Uiteraard hebben ook vorm en inhoud van een richtlijn belangrijke invloed op de acceptatie van de richtlijn en - na acceptatie - op de implementatie (Grol 1998).

Ideale richtlijnen zijn valide, betrouwbaar, reproduceerbaar, multidisciplinair, toepasbaar en flexibel, duidelijk, eenduidig en goed gedocumenteerd. Verder is het bevorderlijk voor de kwaliteit van een richtlijn dat een testtraject voor implementatie wordt uitgezet, dat de uitvoering ervan evalueerbaar is en op basis daarvan aangepast kan worden. Van belang is tevens dat in de richtlijn, waar relevant, behalve aan het zorgverlenerperspectief ook aandacht wordt geschonken aan patiëntperspectief en aan het maatschappelijk perspectief (bijvoorbeeld: kosten en organisatie van zorg). Tenslotte is het van belang dat de richtlijn na implementatie ook daadwerkelijk geëvalueerd wordt en, indien nodig aangepast aan nieuwe inzichten. Een instrument ter controle van deze items is beschikbaar (AGREE-instrument).

De richtlijn 'OSAS bij kinderen' is zoveel mogelijk opgesteld aan de hand van deze AGREE-criteria. De richtlijn is transparant in de argumentatie voor wat betreft de balans tussen wetenschappelijke overwegingen en overige overwegingen, zoals praktijkorganisatie, patiëntwensen en voorkeuren en maatschappijbelang.

Naast een intrinsiek optimaal opgestelde richtlijn kunnen meerdere maatregelen de implementatie van de richtlijn bevorderen.

De belangrijkste conclusies ten aanzien van de effectiviteit van implementatiestrategieën van richtlijnen zijn (NHS 1999; Bero 1998; Wensing 1994; Wensing 1998):

- Voor optimale implementatie van de richtlijn moet aandacht worden besteed aan factoren die compliantie met de richtlijn kunnen bevorderen of belemmeren (per doelgroep en/of setting); een goede analyse van deze bevorderende en belemmerende factoren is noodzakelijk vóór implementatie.

- Er bestaat geen één-op-één relatie tussen de theorieën betreffende de implementatie en de concrete implementatiestrategieën.
- Het is onmogelijk om één optimale interventie (enkelvoudig of samengesteld) aan te bevelen voor het bevorderen van implementatie van vernieuwing of verandering (richtlijn), meerdere strategieën zullen moeten worden gecombineerd.

Implementatie richtlijn

De werkgroep rekent het niet tot haar taak exact weer te geven hoe deze richtlijn geïmplementeerd zal moeten worden. Wel wil zij in deze beknopte bijdrage een aantal voorstellen ter bevordering van de implementatie doen.

De volgende activiteiten zijn reeds ondernomen of in gang gezet ter bevordering van de implementatie van de richtlijn OSAS bij kinderen:

- Het gebruik van de richtlijn wordt vergemakkelijkt door stroomdiagrammen voor diagnostiek en behandeling en een samenvatting van de richtlijn op te nemen.
- De richtlijn zal zo intensief mogelijk worden verspreid onder de leden van de verschillende beroepsverenigingen.
- Op basis van de richtlijn wordt een patiëntenversie van de richtlijn ontwikkeld in samenwerking met de Apneu Vereniging.
- Informatie over de richtlijn zal worden verstrekt in publicaties in het Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde en zo mogelijk in andere vaktijdschriften.
- De Nederlandse Vereniging voor KNO-heelkunde en Heelkunde van het Hoofd-Halsgebied zal jaarlijks de inhoud van de richtlijn toetsen en beoordelen of gehele of gedeeltelijke bijstelling noodzakelijk is.
- De richtlijn komt integraal op het internet op de website van het CBO (www.cbo.nl). Daar waar mogelijk wordt de richtlijn gepubliceerd op de websites van de betrokken wetenschappelijke verenigingen.

De werkgroep stelt de volgende activiteiten voor ter bevordering van de implementatie van de richtlijn OSAS bij kinderen.

- Presentatie van de aanbevelingen van de richtlijn op wetenschappelijke bijeenkomsten van betrokken beroepsorganisaties.
- Op eerstkomende wetenschappelijke jaarvergaderingen van de deelnemende verenigingen de bespreking van de richtlijn agenderen om 'startproblemen' met de richtlijn te inventariseren en bijstelling mogelijk te maken.
- Ontwikkeling en gebruik van hulpmiddelen voor de implementatie van de richtlijn in de dagelijkse praktijk, zoals bijvoorbeeld een PDA-versie van de richtlijn.
- Een voorstel voor na- en bijscholingsactiviteiten ten behoeve van de richtlijn in de vorm een geaccrediteerde richtlijntoets via een E-learning module.
- Op basis van de richtlijn zal een klinisch zorgpad worden beschreven waarin samenwerking tussen disciplines en samenhang van de zorg centraal staat.
- Ontwikkeling van patiëntenvoorlichtingsmateriaal ter ondersteuning van de richtlijn.
- De werkgroep adviseert –waar relevant- delen van de richtlijn om te zetten in protocollen, rekening houdend met lokale omstandigheden.

- De lokale implementatie van de richtlijn in de lokale protocollen zal tijdens visitaties voor kwaliteit van zorg en opleiding worden geëvalueerd.
- Regelmatige evaluatie van de voortgang in implementatie en navolging van de richtlijn; dit kan met nog te ontwikkelen indicatoren op basis van de richtlijn.
- Formuleren van resterende onderzoeksthema's en vragen die voor verdere onderbouwing van de richtlijn noodzakelijk zijn en doorspelen daarvan aan de verschillende subsidiegevers en beleidsmakers.
- Gerichte uitleg van de richtlijn in de media, zodat patiënten via eenvoudige en frequent geraadpleegde bronnen (tijdschriften, kranten) op de hoogte zijn van verandering in beleid.

Aanbeveling

De werkgroep is van mening dat de uitvoering van de in dit hoofdstuk genoemde initiatieven en voorstellen zal bijdragen aan de implementatie van deze richtlijn en daardoor aan de verbetering van de kwaliteit van zorg voor de kinderen met OSAS.

Literatuur

- Bero LA, Grilli R, Grimshaw JM, Harvey E, Oxman AD, Thomson MA. Closing the gap between research and practice: an overview of systematic reviews of interventions to promote the implementation of research findings. The Cochrane Effective Practice and Organization of Care Review Group. *BMJ* 1998;317:465-8.
- Gezondheidsraad: Van Implementeren naar leren; het belang van tweerichtingsverkeer tussen praktijk en wetenschap in de gezondheidszorg. Gezondheidsraad: Den Haag, 2000 publicatie nr 2000/18.
- Grol R, Dalhuijsen J, Thomas S, Veld C, Rutten G, Mokkink H. Attributes of clinical guidelines that influence use of guidelines in general practice: observational study. *BMJ* 1998;317:858-61.
- Grol R, Grimshaw J. From best evidence to best practice: effective implementation of change in patients' care. *Lancet* 2003;362:1225-30.
- Hulscher M, Wensing M, Grol R: Effectieve implementatie: Theorieën en strategieën. Nijmegen: Werkgroep Onderzoek Kwaliteit, 2000.
- NHS centre for reviews and dissemination. Getting evidence into practice. *Effect. Health Care* 1999. (feb)
- The AGREE collaboration. Agree instrument. www.agreecollaboration.org (NEJM in press 2001).
- Wensing M, Grol R. Single and combined strategies for implementing changes in primary care: a literature review. *Int J Qual Health Care* 1994;6:115-32.
- Wensing M, Weijden T van der, Grol R. Implementing guidelines and innovations in general practice: which interventions are effective? *Br J Gen Pract* 1998;48:991-7.

HOOFDSTUK 9: AANBEVELINGEN VOOR ONDERZOEK

Overwegingen van werkgroepleden voor verder onderzoek

De bevindingen die gevonden werden in de literatuur komen overeen met de algemene opvatting dat bij een verdenking op een obstructief slaap-apneu syndroom de 1e keus van behandeling vaak een adenotonsilllectomie is. Deze ervaringen zullen in de regel ook gelden in de Nederlandse KNO praktijk. Toch lijkt er een relatief groot percentage kinderen (20-46%) die anamnestic worden verdacht van een obstructief slaap apneu syndroom post-operatief nog soortgelijke klachten te ondervinden. Bij die kinderen met OSAS zonder comorbiditeit lijkt met name het aandeel van neusobstructie (deviërend septum, allergie, forse conchae inferiores) in het persisteren van afwijkingen op het post-operatieve polysomnogram een mogelijk belangrijke factor te zijn. De keel-neus oor arts dient zich te realiseren dat vaak bij een blijvende anamnestic verdenking, zoals bij de post-operatieve controle, de (hetero)anamnese onbetrouwbaar is. Juist hierin is er behoefte in het ontwikkelen in de toekomst van een goed post-operatief polysomnogram of topische diagnostiek (reeds pre-operatief of door middel van slaapnasopharyngoscopie) van het snurkprobleem.

Er is duidelijke behoefte aan gerandomiseerde trials die kijken in hoeverre kinderen pre-operatief kunnen gescreend worden op de aanwezigheid van een OSAS. Deze overwegingen gelden met name voor kinderen met het syndroom van Down en kinderen met obesitas. Echter ook dient er meer nadruk te zijn op het uitsluiten van pathologie in de neus en een mogelijke allergie. Het gestandaardiseerd toepassen van de Mallampati score zou mogelijk als een goed pre-operatief diagnosticum ook bij kinderen kunnen worden toegepast.

Deze cijfers benadrukken dat pre-operatief een inschatting gemaakt moet worden welke kinderen met obesitas een dermate positief effect kunnen ondervinden van een ATE dat zij , tot de kleine groep van gemiddeld 12- 25% behoren waar de OSAS middels een ATE zal verdwijnen en bij welke groep altijd een postoperatief PSG geïndiceerd is.

Zowel voor de middegezichts- als onderkaakshypoplasie geldt dat er bij jonge kinderen sprake is van veelal hoog-complexe, laag-frequente mandibulaire of craniofaciale groei- en ontwikkelingsstoornissen. Er is behoefte is aan gestandaardiseerd en polysomnografie gesteund, effect-gecontroleerd onderzoek binnen goed gedefinieerde diagnosegroepen die mogelijk in aanmerking komen voor een osteotomie en vooral distractie-osteogenese. Hierbij is de samenwerking van meerdere centra waarschijnlijk van belang om een voldoende case-load te verkrijgen.

Uit wetenschappelijke studies is gebleken dat diverse cefalometrische waarden significant aan OSAS bij kinderen zijn gerelateerd. Meer onderzoek is nodig om deze onderzoeksresultaten te bevestigen en om te bepalen of cefalometrisch onderzoek als diagnostisch instrument bij het vaststellen of uitsluiten van OSAS kan worden gebruikt. Tevens is het zinvol om met toekomstig cefalometrisch onderzoek na te gaan of en zo ja in

welke mate OSAS tijdens de gebitsontwikkeling en kaakgroei van kinderen gerelateerd is aan afwijkende veranderingen van de stand van het gebit en de kaken.

Het aantal studies naar de effecten en neveneffecten van behandeling van OSAS bij kinderen met orthodontische apparatuur is momenteel gering. Bovendien zijn de studies in het algemeen van korte duur en betreft het merendeels kleine patiëntenseries. Het verdient derhalve aanbeveling meer wetenschappelijke onderzoeksgegevens over de effectiviteit en bijwerkingen op korte en lange termijn van orthodontische behandelingen van OSAS bij kinderen te verkrijgen. Ook is meer wetenschappelijk onderzoek nodig om de indicaties en contra-indicaties van de diverse typen orthodontische apparaten bij de verschillende orthodontische afwijkingen en gradaties van OSAS bij kinderen beter te kunnen aangeven.

- Onderzoek naar de plaats van adenotonsillectomie bij kinderen met obesitas en OSAS (er zijn studies dat kinderen er dikker van worden waardoor het effect van de ATE ongedaan wordt gemaakt).
- Onderzoek naar postoperatieve respiratoire complicaties na Sluder in plaats van na tonsillectomie in verband met OSAS.
- Onderzoek bij welke kinderen/ernst van de OSAS CPAP is geïndiceerd.
- Onderzoek naar wat de waarde is van BIPAP versus CPAP bij kinderen.
- Onderzoek naar natuurlijk beloop van OSAS bij kinderen zonder comorbiditeit.
- Onderzoek bij welke kinderen met OSAS een polysomnografie moet worden verricht.

