

**UNIVERSITATEA DE MEDICINĂ ȘI FARMACIE
„CAROL DAVILA”, BUCUREȘTI
ȘCOALA DOCTORALĂ
DOMENIUL MEDICINĂ**

***MANAGEMENTUL NUTRIȚIONAL AL PACIENȚILOR
CU ATREZIE DE ESOFAG
REZUMATUL TEZEI DE DOCTORAT***

Conducător de doctorat:

PROF. UNIV. DR. BĂLGRĂDEAN MIHAELA

Student-doctorand:

NENCIU IOANA-VALENTINA

2020

Cuprins

Listă de abrevieri.....	5
Introducere.....	6
I. Partea generală.....	9
1. Atrezia de esofag.....	9
1.1. Introducere.....	9
1.2. Clasificare.....	10
1.3. Etiologia atreziei de esofag.....	13
1.4. Anomalii asociate.....	14
1.5. Diagnosticul atreziei de esofag.....	16
1.6. Tratamentul atreziei de esofag.....	20
1.7. Nutriția pacienților cu atrezie de esofag.....	24
1.8. Complicații.....	26
1.8.1. Complicațiile postoperatorii imediate.....	26
1.8.2. Complicațiile gastrointestinale și nutriționale asociate atreziei de esofag....	28
1.8.3. Complicațiile respiratorii asociate atreziei de esofag.....	43
1.9. Aspecte socio-economice și psihologice.....	48
1.10. Concluzii.....	50
II. Contribuții personale.....	51
2. Managementul nutrițional al pacienților cu atrezie de esofag.....	51
2.1. Introducere.....	51
2.2. Material și metodă.....	52
2.3. Rezultate.....	53
2.3.1. Descrierea lotului.....	53
2.3.2. Anomalii asociate atreziei de esofag.....	62
2.3.3. Evoluția pacienților pe durata spitalizării.....	66
2.3.3.1. Date generale.....	66
2.3.3.2. Corelații între vârsta la internare, vârsta la intervenția chirurgicală și evoluția curbei ponderale.....	74
2.3.3.3. Corelații între numărul de zile de intubație orotraheală și evoluția curbei ponderale.....	76
2.3.3.4. Corelații între tipul sarcinii și evoluția curbei ponderale.....	76

2.3.3.5. Corelații între durata spitalizării și evoluția curbei ponderale.....	78
2.3.3.6. Corelații între alimentația primită și evoluția curbei ponderale.....	78
2.3.3.7. Corelații între malformațiile asociate și evoluția curbei ponderale.....	87
2.3.3.8. Corelații între complicațiile survenite pe durata internării și evoluția curbei ponderale.....	91
2.3.3.9. Predictorii ai mortalității prin atrezie esofagiană.....	92
2.4. Discuții.....	95
2.5. Concluzii.....	101
3. Evaluarea impactului pe care îl are îngrijirea unui copil cu atrezie de esofag asupra statutului socio-economic și psihologic al familiei.....	103
3.1. Introducere.....	103
3.2. Material și metodă.....	104
3.3. Rezultate.....	111
3.4. Discuții.....	143
3.5. Concluzii.....	147
Bibliografie.....	148
Anexe.....	157

INTRODUCERE

Atrezia de esofag (AE) reprezintă, în acest moment, una dintre cele mai frecvente malformații ale tubului digestiv, a cărei asociere cu alte anomalii congenitale și cu sindroame genetice este bine cunoscută. Dacă în anii 1950-1960 mortalitatea pacienților cu AE era de până la 35%, în ultimii 70 de ani este raportată o supraviețuire de până la 98%. Această evoluție este datorată progreselor notabile în ceea ce privește tehnicile chirurgicale, îngrijirea pacienților în terapia intensivă neonatală și tehnicile moderne de nutriție. În timp ce literatura de specialitate se concentrează asupra managementului chirurgical al atreziei de esofag și asupra complicațiilor care survin pe termen lung în evoluția copiilor cu AE, sunt puține studii adresate evoluției, din punct de vedere nutrițional, a pacienților în prima parte a vieții. Cu toate că date referitoare la calitatea vieții pacienților cu atrezie de esofag sunt raportate tot mai frecvent în literatura de specialitate, puține studii au evaluat impactul pe care AE îl are asupra familiei pacienților suferind de această malformație.

Pe fondul acestor progrese și preocupări, în lucrarea de față sunt prezentate 2 studii.

Primul studiu, care cuprinde pacienți spitalizați într-un interval de 6 ani în unul dintre cele mai mari centre de chirurgie pediatrică din țară, vizează descrierea caracteristicilor nou-născuților cu atrezie de esofag, descrierea evoluției din punct de vedere nutrițional a acestor pacienți, precum și evidențierea factorilor care impactează evoluția curbei ponderale a nou-născuților cu AE; acest studiu reprezintă primul de acest tip din literatura națională. Importanța studiului este dată și de caracterul multidisciplinar al acestuia.

Al doilea studiu prezentat are ca obiectiv evaluarea impactului îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag asupra statutului socio-economic și psihologic al familiei. A fost aplicat, în mediul online, un chestionar alcătuit din 22 de întrebări, adresat familiilor care au un copil diagnosticat AE. Datele obținute în urma prelucrării statistice ilustrează impactul negativ al îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag asupra calității vieții membrilor familiei, atât pe plan socio-economic cât și pe plan psihologic. Studiul prezentat este relevant prin sublinierea importanței laturii psiho-sociale și economice a îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag. Evidențiind impactul negativ asupra familiei, se trage concluzia că din echipa multidisciplinară implicată în îngrijirea copilului cu AE trebuie să facă parte și un psiholog care să consilieze atât părintele care prezintă risc de a dezvolta PTSD, cu impact asupra relației cu copilul nou-născut și asupra aptitudinilor de a-l îngriji pe acesta, cât și copilul diagnosticat cu AE, care este supus unui stres major din perioada neonatală.

I. PARTEA GENERALĂ

1. ATREZIA DE ESOFAG

1.1. INTRODUCERE

Atrezia de esofag (AE)- asociată adesea cu fistulă traheoesofagiană (FTE)- are o incidență la nivel global de 1 la 2400 până la 4500 de nașteri, fiind una dintre cele mai frecvente malformații ale tubului digestiv (1,2). În timp ce literatura de specialitate se concentrează asupra managementului chirurgical al atreziei de esofag și asupra complicațiilor care survin pe termen lung în evoluția copiilor cu AE, sunt puține studii adresate evoluției, din punct de vedere nutrițional, a pacienților în prima parte a vieții.

1.2. CLASIFICARE

În funcție de asocierea cu FTE, AE se clasifică în AE cu FTE distală (85%), AE cu FTE proximală (3%), AE cu FTE la ambele capete (<1%), AE fără FTE (8%), FTE fără AE (4%) (9). Cele 2 clasificări utilizate sunt clasificarea Gross și clasificarea Vogt.

1.3. ETIOLOGIA ATREZIEI DE ESOFAG

Etiologia AE este multifactorială, fiind implicați în apariția acesteia atât factori genetici cât și factori de mediu. Printre factorii genetici implicați în apariția AE se numără factorii de transcripție FOXF1 și FOXF2, care sunt, de asemenea, incriminați în dezvoltarea esofagului Barret și a adenocarcinomului esofagian (14). În apariția atreziei de esofag au fost incriminați și factori teratogeni precum methimazolul (15), talidomida, progesteronul sau estrogenul (4,16).

1.4. ANOMALII ASOCIATE

În 50% dintre cazuri AE asociază alte malformații, uneori acestea fiind grupate în sindroame sau asocieri precum VACTERL (defecte vertebrale, atrezie anală, defecte cardiace, fistulă traheoesofagiană, anomalii renale, anomalii ale membrelor) sau CHARGE (coloboma, defecte cardiace, atrezie choanală, retard de creștere, anomalii genitale, anomalii ale urechii) (3,22-26). Atrezia de esofag a fost descrisă și la pacienții cu sindrom Pierre Robin, cu sindrom Edwards, cu sindrom Down sau cu sindrom Di George (2,23). Copiii cu AE au risc mai mare de asociere a altor anomalii congenitale față de populația generală (29).

1.5. DIAGNOSTICUL ATREZIEI DE ESOFAG

Diagnosticul antenatal a fost descris pentru prima data în anul 1980 de către Farrant, la un făt cu VG de 26 de săptămâni (42). Diagnosticul prenatal se efectuează prin ecografia fetală, după săptămâna 18 de sarcină. **Postnatal**, suspiciunea de atrezie de esofag este ridicată de imposibilitatea sondării esofagiene a nou-născutului și/sau de imposibilitatea alimentării acestuia (5,10,46). Manifestările clinice întâlnite la nou-născuții cu AE cuprind (4,5,10,19,47): hipersalivatie, episoade de tuse, episoade de cianoză, semne de detresă respiratorie- consecutivă aspirației în căile respiratorii a salivei și a alimentelor ingerate, se instalează în special în timpul plânsului, al alimentației și al tusei-, abdomen excavat sau meteorizat, în funcție de asocierea FTE. **Diagnosticul diferențial** al AE trebuie făcut cu afecțiuni care se însoțesc de detresă respiratorie neonatală sau de tulburări de deglutiție.

1.6. TRATAMENTUL ATREZIEI DE ESOFAG

Principalele obiective preoperatorii la pacientul diagnosticat, clinic, cu AE, sunt confirmarea diagnosticului și identificarea anomaliilor asociate (46). Odată ce diagnosticul de AE a fost stabilit, se administrează fluide iv, se inițiază tratament postural, iar la nivelul pungii esofagiene superioare se montează un cateter de aspirație, pentru a permite aspirarea continuă a salivei (47). Se inițiază administrarea de antibiotic cu spectru larg (4). Imediat după naștere, după diagnosticare și stabilizare, trebuie asigurat transferul nou-născutului într-un serviciu de chirurgie pediatrică specializat în cura chirurgicală a AE (25).

Corecția chirurgicală a AE se realizează de obicei în primele zile de viață, de cele mai multe ori într-un singur timp (24), și are ca obiectiv ligaturarea FTE și stabilirea continuității esofagiene (46). Este recomandat ca intervenția chirurgicală, în cazul unui nou-născut fără alte patologii asociate, să se efectueze în primele 24 ore de viață (4). Tehnicile chirurgicale folosite înregistrează variații mari, fiind dependente de experiența chirurgului și de experiența fiecărui centru (33,49). Postoperator, se recomandă ca detubarea pacientului să fie efectuată după 24-48 ore, dacă starea generală a acestuia este bună. În cazul pacienților care prezintă anastomoză în tensiune, ventilația se menține pentru 3-5 zile (4).

1.7. NUTRIȚIA PACIENȚILOR CU ATREZIE DE ESOFAG

Nutriția enterală a pacienților cu AE operată poate fi inițiată pe sonda transanastomotică (STA) în primele 48-72 ore după intervenția chirurgicală, pentru a evita

necesitatea nutriției parenterale totale și eventualele complicații asociate acesteia (47). Se recomandă administrarea de lapte matern atunci când acest lucru este posibil; când acesta nu este disponibil, se recomandă administrarea unei formule de lapte standard (50). Este necesară inițierea nutriției parenterale totale până când este posibilă nutriția enterală. La copiii la care nu s-a putut practica anastomoza Eso-esofagiană termino-terminală, alimentația enterală se va administra prin intermediul tubului de gastrostomă, încurajându-se însă administrarea de alimente pe cale orală, aceste alimente urmând a fi colectate prin Esofagostomă. Această tehnică de alimentație este cunoscută ca “sham feed”- alimentație falsă- (58,59) și trebuie efectuată sub strictă supraveghere medicală.

1.8. COMPLICAȚII

1.8.1. COMPLICAȚII POSTOPERATORII IMEDIATE

Cele mai frecvente complicații postoperatorii imediate sunt dehiscenta anastomozei, stenozele anastomotice, scurgerile anastomotice, FTE recurentă și pareza de coardă vocală.

1.8.2. COMPLICAȚII GASTROINTESTINALE ȘI NUTRIȚIONALE ASOCIATE ATREZIEI DE ESOFAG

Refluxul gastro-esofagian (RGE) este descris la jumătate dintre copiii cu AE cu FTE (4,9,22). RGE este recunoscut ca factor de risc pentru complicațiile pulmonare întâlnite în evoluția pacienților cu atrezie de esofag. Complicațiile pe termen lung determinate de persistența RGE sunt disfagia, stricturile esofagiene, esofagita, carcinomul esofagian și metaplazia esofagiană.

Stricturile anastomotice (SA), descrise la mai mult de jumătate dintre pacienții cu AE (până la 60%), mai frecvente în rândul acelor cu AE cu distanță mare între cele două capete ale esofagului (“long gap atresia”), reprezintă complicația postoperatorie cel mai des întâlnită.

Disfagia este raportată în literatură la 21%-84% dintre pacienții cu AE operată (1,69,77-80) și este una dintre cele mai comune cauze ale complicațiilor nutriționale la copiii cu AE (74).

Tulburările de alimentație au la bază atât patologii esofagiene și orofaringiene, cât și tulburări de comportament. Interesul și capacitatea pacienților de a se alimenta sunt influențate de evenimente precum impactarea bolului alimentar, tusea și înecul asociate meselor, vărsăturile, durata prelungită a meselor.

Dismotilitatea esofagiană este o consecință atât a intervenției chirurgicale cât și a inervației anormale esofagiene prezente la naștere la pacienții cu AE (74). Investigațiile efectuate prin utilizarea substanței de contrast evidențiază, la nivelul esofagului distal, tulburări ale coordonării contracțiilor esofagului (3).

Complicațiile nutriționale. Creșterea staturo-ponderală a pacienților cu AE este influențată pe termen lung, aceștia prezentând valori mai mici atât ale greutății cât și ale înălțimii (74,85). Impact asupra creșterii copiilor cu AE au atât malformațiile asociate AE, sindroamele genetice întâlnite la unii pacienți, complicațiile respiratorii, complicațiile gastrointestinale, cât și intervențiile chirurgicale repetate efectuate pacienților cu AE.

Esofagita, esofagul Barret și cancerul esofagian. În timp ce incidența complicațiilor respiratorii scade odată cu tranziția către vârsta de adult, parte din simptomatologia digestivă persistă. Consecutiv expunerii îndelungate la refluxul acid, adulții cu AE dezvoltă esofagită și esofag Barret, care se asociază cu risc crescut pentru adenocarcinom esofagian (81). Incidența acestor complicații este mai crescută la adulții cu AE decât în populația generală (1,17). Recomandările ESPGHAN sunt de supraveghere a adulților cu AE, în mod deosebit a acelor cu anemie, RGE, manifestări respiratorii.

1.8.3. COMPLICAȚIILE RESPIRATORII ASOCIATE ATREZIEI DE ESOFAG

Simptomatologia respiratorie în rândul pacienților cu atrezie de esofag este mai frecventă decât în populația generală (88), și este frecvent corelată cu cea digestivă. Manifestările și complicațiile respiratorii întâlnite variază de la stridor până la insuficiență respiratorie, bronșite cronice sau bronșiectazii (65,88).

1.9. ASPECTE SOCIO-ECONOMICE ȘI PSIHOLOGICE

În literatură sunt raportate multe studii efectuate cu scopul evidențierii impactului psihologic al atreziei de esofag asupra pacientului care prezintă această anomalie, însă sunt puține studii care vizează evaluarea impactului psiho-social și economic asupra familiei pacienților. Diagnosticul de atrezie de esofag este unul dificil pentru aparținători, conducând la schimbări importante în cadrul familiilor, la destabilizări, fiind necesare eforturi de adaptare importante. În literatura de specialitate este menționat că AE reprezintă un eveniment traumatic din punct de vedere psihologic pentru părinți, care sunt la risc pentru dezvoltarea unor reacții de stres traumatic consecutiv comunicării diagnosticului (64).

II. CONTRIBUȚII PERSONALE

2. MANAGEMENTUL NUTRIȚIONAL AL PACIENȚILOR CU ATREZIE DE ESOFAG

2.1. INTRODUCERE

Studiul de față este efectuat cu scopul de a descrie caracteristicile pacienților cu atrezie de esofag, de a descrie evoluția din punct de vedere nutrițional a nou-născuților diagnosticați cu AE și de a evidențierea factorii care au impact asupra acestei evoluții.

2.2. MATERIAL ȘI METODĂ

Am efectuat un studiu prospectiv observațional, în perioada ianuarie 2013- decembrie 2018, ce a inclus nou-născuți internați în Secția de Terapie Intensivă Neonatală a SCUC “Grigore Alexandrescu” București cu diagnosticul de atrezie de esofag. Studiul a fost efectuat cu avizul Comisiei de Etică a SCUC “Grigore Alexandrescu”. Au fost excluși pacienții ale căror date nu au fost complete. Datele necesare au fost colectate din fișele de observație, din sistemul informatic al spitalului și din arhivă. Datele obținute în urma analizei lotului de studiu au fost analizate folosind programul IBM® SPSS® v20 și Microsoft® Excel (ver. 16.15).

2.3. REZULTATE

2.3.1. DESCRIEREA LOTULUI

2.3.1.1 Caracteristici generale ale pacienților

În perioada ianuarie 2013- decembrie 2018 în Secția de Terapie Intensivă Neonatală (TINN) a SCUC “Grigore Alexandrescu” au fost internați 62 de pacienți cu diagnosticul principal de atrezie de esofag. Au fost excluși 8 pacienți ale căror date obținute au fost incomplete. Astfel, lotul examinat a fost alcătuit din 54 de nou-născuți.

Cei mai mulți pacienți diagnosticați cu AE au fost spitalizați în anul 2015 (11 pacienți). Treizeci și unu dintre pacienți (57.4%) au fost băieți, iar 32 (59%) au provenit din mediul urban. Nou-născuții internați au provenit din 19 județe, doar 20% din aceștia având domiciliul în București. Vârsta medie a mamelor pacienților cu AE a fost de 29.9 ani (SD 7.16). Peste jumătate dintre nou-născuții cu AE au provenit din sarcină investigată, iar aproape 10% din sarcini gemelare. Doar 4 pacienți au provenit din sarcini obținute prin

fertilizare in vitro (FIV). Aproape jumătate dintre pacienți au fost născuți prematur, media vârstei gestaționale a nou-născuților fiind de 36.17 săptămâni. Media greutății la naștere a fost de 2.369 g, media lungimii la naștere a fost de 46.84 cm, iar media perimetrului cranian 31.52 cm. Doar 6 nou-născuți (11.11%) au avut greutatea la naștere mică pentru vârsta gestațională (SGA). Aproape 15% dintre nou-născuți (8) au avut GN< 1500 g. Media scorului APGAR a fost 7.77. Peste 40% (42.59%) dintre copii au prezentat sindrom de detresă respiratorie acută neonatală (SDRA), iar peste jumătate au necesitat manevre de reanimare neonatală.

2.3.2. ANOMALII ASOCIATE ATREZIEI DE ESOFAG

Din totalul de 54 de nou-născuți, 48 (88.89%) au asociat FTE la capătul distal. AE cu distanță mare între capetele esofagiene a fost întâlnită la 17 pacienți (31.5%). Șaptezeci și patru la sută dintre nou-născuți au prezentat cel puțin o anomalie asociată. Cel mai frecvent au fost întâlnite anomaliile cardiace, notate la 50% dintre copii. Unsprezece pacienți (20.4%) au prezentat anomalii din spectrul VACTERL.

2.3.3. EVOLUȚIA PACIENȚILOR PE DURATA SPITALIZĂRII

2.3.3.1. Date generale

Vârsta la admisia în SCUC “Grigore Alexandrescu” a pacienților cu AE a variat de la o oră la 12 zile. Fiind exceptați din calcul 3 pacienți care au fost transferați în clinică la 6, 7, respectiv 12 zile de viață- toți provenind din centre non-universitare- media vârstei la internare a fost de 12.25 ore (DS= 15.83). Aproape trei sferturi dintre copii (72,2%) au fost admiși în primele 24 ore de viață. Media numărului de zile de spitalizare a pacienților cu AE a fost de 27.27 zile (DS 14.15). Nouăsprezece pacienți (35.19%) au necesitat spitalizare îndelungată (> 30 de zile). O durată mai mare a spitalizării a fost observată la pacienții cu defecte vertebrale ($p=0.05$). Aproape un sfert din pacienți (22.22%) au decedat pe durata spitalizării. În aproape jumătate din cazuri, intervenția chirurgicală a fost efectuată în primele 24 ore de la naștere (44.4%). La 66.67% din nou-născuți s-a practicat anastomoza eso-esofagiană termino-terminală cu închiderea fistulei esotraheale, iar la 27.78% dintre aceștia s-a efectuat gastrostomă și esogafostomă cu închiderea FTE. Zece pacienți au necesitat intubație orotraheală preoperatorie, iar 37 au necesitat IOT mai mult de 5 zile, cu o medie de 9.72 zile. Din totalul de 54 de pacienți, 24 (44.44%) au beneficiat de cura chirurgicală a AE în primele 24 de ore. În jumătate din cazuri (27 nou-născuți) cura chirurgicală a fost efectuată tardiv, la mai mult de 24 de ore de viață. Media vârstei la care

a fost inițiată nutriția enterală a fost similară la cele 2 categorii de pacienți: 13.15 zile la cei operați în primele 24 de ore de viață, respectiv 13.65 zile la cei operați tardiv.

2.3.3.2. Corelații între vârsta la internare, vârsta la intervenția chirurgicală și evoluția curbei ponderale

Vârsta mai mică la internare (exprimată în număr de ore) s-a corelat semnificativ cu o creștere a greutateii la 7 zile mai mare ($r = -0,410$; $p = 0,011$). Vârsta mai mare la intervenția chirurgicală s-a corelat semnificativ cu o diferență a greutateii la vârsta de 7 zile mai redusă ($r = -0,326$; $p = 0,045$).

2.3.3.3. Corelații între numărul de zile de IOT și evoluția curbei ponderale

Evoluția greutateii la vârsta de 7 zile ($p = 0,776$), la 14 zile ($p = 0,974$) și la 1 lună de viață ($p = 0,665$) nu s-a corelat semnificativ statistic cu durata intubării oro-traheale.

2.3.3.4. Corelații între tipul sarcinii și evoluția curbei ponderale

La sarcinile gemelare evoluția greutateii la vârsta de 7 zile a fost negativă, în timp ce la sarcinile unice s-a înregistrat în medie o creștere de $74,14 \text{ g} \pm 18,23$, cu variații de la -280 la 590 g ($p = 0,039$). La 14 zile de la naștere, la sarcinile gemelare se înregistrează o creștere medie cu $107,50 \text{ g} \pm 96,39$ față de săptămâna precedentă, cu variații de la 10 la 240 g, în timp ce la sarcinile unice s-a înregistrat o scădere în medie cu $-28,65 \text{ g} \pm 28,08$, cu variații în intervalul $-570 \div 310 \text{ g}$ ($p = 0,027$). La vârsta de 1 lună, atât sarcinile gemelare ($70 \text{ g} \pm 27,28$) cât și sarcinile unice ($137,2 \text{ g} \pm 43,32$) au înregistrat creșteri ale diferențelor greutateilor comparativ cu cele măsurate la 14 zile de viață ($p = 0,046$).

2.3.3.5. Corelații între durata spitalizării și evoluția curbei ponderale

Copiii care au înregistrat creștere ponderală la 14 zile de viață și la vârsta de o lună au prezentat o durată mai redusă a spitalizării (sub 30 de zile), față de cei cu scor ponderal redus, sau cu scădere ponderală ($p = 0,05$ la 14 zile, $p = 0,008$ la o lună).

2.3.3.6. Corelații între alimentația primită și evoluția curbei ponderale pe durata spitalizării

Copiii care au primit lapte matern au înregistrat cele mai mari creșteri ale greutateii la vârsta de 7 zile ($p = 0,533$) și la 1 lună de viață ($p = 0,024$). Formula de lapte administrată nu a influențat semnificativ diferența de greutate la vârsta de 7 zile ($p = 0,254$) și la vârsta de 14 zile ($p = 0,861$), însă la 1 lună de viață cel mai bun scor ponderal l-au înregistrat pacienții alimentați cu lapte fără lactoză ($+680 \text{ g}$; $p = 0,029$). Nu s-au observat corelații semnificative

statistic între evoluția greutateii la vârsta de 7 zile, de 14 zile și o lună și dietă, coeficientul Pearson < 0.78 . Nutriția enterală a fost inițiată pe durata spitalizării la 42 de copii; doar la 7 dintre aceștia a fost inițiată în prima săptămână de viață. Nu au fost evidențiate corelații statistic semnificative între evoluția greutateii și vârsta la inițierea nutriției enterale, coeficientul Pearson < 0.78 .

2.3.3.7. Corelații între malformațiile asociate și evoluția curbei ponderale

Evoluția greutateii la vârsta de 1 lună s-a corelat semnificativ cu prezența anomaliilor cardiace (+177,14 vs +83,85 g; $p = 0,049$). Se constată că asocierea VACTERL nu s-a corelat statistic cu evoluția curbei ponderale. Evoluția greutateii nu s-a corelat semnificativ cu imperforația anală (cu fistulă recto-vaginală), cu prezența anomaliilor renale sau cu anomaliile membrelor.

2.3.3.8. Corelații între complicațiile survenite pe durata spitalizării și evoluția curbei ponderale

Dintre complicațiile survenite pe durata internării, cele care au avut impact asupra curbei ponderale au fost sepsisul ($p = 0.015$ la vârsta de o lună), refluxul gastro-esofagian ($p = 0.045$ la vârsta de o lună), dificultățile de alimentație, dehiscența anastomozei ($p = 0.05$ la 7 zile de viață).

2.3.3.9. Predictorii ai mortalității prin atrezie esofagiană

Prin trasarea curbei ROC s-au evidențiat ca predictorii ai mortalității prin atrezie esofagiană greutatea la naștere, numărul de zile de spitalizare, anomaliile cardiace. Risc mai crescut de deces s-a observat la pacienții de sex feminin ($p = 0.45$), la cei proveniți din mediul urban ($p = 0.827$), la pacienții cu vârsta gestațională cuprinsă între 32 și 36 de săptămâni ($p = 0.012$) și la cei care au asociat anomalii ale membrelor ($p = 0.043$). În studiul de față IOT preoperatorie nu se corelează statistic cu decesul ($p < 0.05$).

2.4. DISCUȚII

Conform Institutului Național de Statistică, în perioada 2013-2018 în România au fost înregistrați 1.155.967 nou-născuți vii. În SCUC “Grigore Alexandrescu” au fost admiși, în același interval, 62 de pacienți diagnosticați cu atrezie de esofag, aceștia reprezentând 0,0536 la 1000 de nou-născuți, 1 la 18.656 de nou-născuți. Considerând că la nivel național mai există cel puțin încă 5 centre în care se practică cura chirurgicală a AE, se poate aprecia că incidența AE la nivelul României este similară cu cea raportată în literatură, de 1 la 2500 până la 4.500 de nașteri.

În studiul de față au fost incluși 54 de nou-născuți diagnosticați cu AE.

Preponderența pacienților din mediul urban poate fi explicată prin faptul că, potrivit Institutului Național de Statistică, 56.4% din populația României locuia în mediul urban în anul 2017. Faptul că nou-născuții internați au provenit din 19 județe, doar 20% din aceștia având domiciliul în București, evidențiază adresabilitatea crescută în centrele universitare mari din țară și, astfel, necesitatea dezvoltării, din punct de vedere al numărului și al dotărilor, la nivel național, a centrelor multidisciplinare specializate în îngrijirea nou-născuților cu AE.

Concordant cu datele raportate în literatura de specialitate, AE/FTE a avut o incidență mai mare la nou-născuții de sex masculin în studiul de față, iar aproape jumătate dintre copii au fost născuți prematur (4,49). Cu toate că în literatură este raportată o incidență a AE de 2-3 ori mai mare la nou-născuții proveniți din sarcini gemelare (3,4), în lotul studiat doar 9.26% dintre pacienți au provenit din sarcini gemelare. În timp ce în literatură este consemnată o incidență mai crescută a AE în rândul copiilor proveniți din sarcini obținute prin tehnici de reproducere asistată (8), în lucrarea de față doar 7,41% dintre pacienți au provenit din sarcini obținute prin FIV. La nivelul țării noastre nu se cunosc date referitoare la incidența AE în populația generală, la incidența AE în rândul sarcinilor gemelare sau în rândul sarcinilor obținute prin FIV.

Media vârstei la momentul internării pacienților în SCUC “Grigore Alexandrescu” a fost de 12.25 ore, aproape trei sferturi fiind transferați în primele 24 ore de viață, ceea ce sugerează o diagnosticare rapidă a atreziei de esofag. Faptul că cei trei pacienți transferați la 6, 7, respectiv 12 zile de viață au provenit din centre non-universitare întărește ideea de necesitate a dezvoltării, la nivel național, a centrelor multidisciplinare specializate în îngrijirea nou-născuților cu AE, precum și a creșterii ratei de diagnosticare antenatală a acestor pacienți, permițând astfel ca nașterea să fie efectuată în proximitatea unor centre chirurgicale neonatale care pot îngriji pacienții cu AE/FTE.

Referitor la clasificarea AE/FTE, atât incidența AE asociată cu FTE la capătul distal (88.89%) cât și cea a AE însoțită de FTE la ambele capete esofagiene (5.56%) sunt ușor crescute față de cele raportate în literatură, unde AE asociată cu FTE la capătul distal este raportată la 85% dintre pacienții cu AE, iar AE cu FTE la ambele capete esofagiene este menționată ca având incidența de < 1% (9). Incidența anomaliilor congenitale asociate AE, de 74%, este mai mare în lotul studiat decât cea raportată în literatură, unde este menționat

faptul că AE asociază alte anomalii în 50% din cazuri (3,4,22-24). Preponderența anomaliilor cardiace (50%) se suprapune datelor cunoscute și raportate. Atât anomaliile din spectrul VACTERL cât și anomaliile spinale sau vertebrale au avut o incidență mai mică în studiul de față comparativ cu incidența menționată de Lautz și colab într-un studiu în care au fost incluși 2689 de copii cu atrezie de esofag; incidența anomaliilor spinale/ vertebrale a fost de 9.3%, mult mai mică decât procentul de 24.4% raportat de Lautz și colab (37). În ceea ce privește cei 5 nou-născuți proveniți din sarcini gemelare, 3 dintre ei au decedat pe durata spitalizării, iar 4 au prezentat anomalii asociate. Astfel, rezultatele sunt în concordanță cu datele raportate în literatură, conform cărora studii efectuate pe gemeni descriu o incidență mai mare a anomaliilor congenitale multiple în rândul acestora, precum și mortalitate mai mare comparativ cu copiii proveniți din sarcini unice (3,36).

Nou-nascuții care au primit în alimentație și lapte matern au înregistrat cele mai mari creșteri în greutate la 7 zile de viață și la vârsta de o lună. La vârsta de o lună cea mai mare creștere în greutate au avut-o copiii care au fost alimentați cu lapte fără lactoză. Nu s-au observat corelații semnificative statistic între evoluția greutății și dietă. Nutriția enterală a fost inițiată pe durata spitalizării la 42 de copii, doar la 7 dintre aceștia a fost inițiată în prima săptămână de viață. Nu au fost evidențiate corelații statistic semnificative între evoluția greutății și vârsta inițierii nutriției enterale

În timp ce literatura de specialitate se concentrează asupra managementului chirurgical al AE și asupra complicațiilor care survin pe termen lung în evoluția copiilor cu AE, sunt puține studii adresate evoluției din punct de vedere nutrițional a pacienților în prima parte a vieții. Astfel, nu sunt consemnate date referitoare la factorii care impactează evoluția curbei ponderale a nou-născuților cu AE și nu sunt studiate corelațiile dintre tipul de nutriție și evoluția pacienților. Studiul de față, primul de acest tip în literatura națională, se concentrează asupra descrierii caracteristicilor nou-născuților cu AE și asupra evidențierii factorilor care impactează evoluția curbei ponderale a nou-născuților cu AE. Deși este limitat de numărul mic de pacienți și de lipsa de urmărire a pacienților după externare, aceștia fiind evaluați ulterior în centrele medicale din județele de domiciliu, studiul prezentat este relevant prin faptul că include pacienți îngrijiți într-un centru terțiar de chirurgie pediatrică, centru cu mare experiență în ceea ce privește patologia chirurgicală neonatală, pacienții provenind din 20 de județe din țară. De asemenea, importanța studiului este dată de caracterul multidisciplinar al acestuia.

2.5. CONCLUZII

1. O importanță deosebită trebuie acordată atât diagnosticării antenatale a AE cât și constituirii unor echipe multidisciplinare care să fie dedicate îngrijirii pacienților cu AE, pentru a evita astfel subdiagnosticarea anomaliilor asociate și pentru a diminua efectele complicațiilor, pentru a reduce rata mortalității și pentru a crește calitatea vieții pacienților cu AE. În lipsa diagnosticării și a transferului rapid al pacienților cu AE în centre chirurgicale specializate în tratarea acestei malformații congenitale, cura chirurgicală este realizată cu întârziere
2. Cei 62 de pacienți cu AE internați în SCUC “Grigore Alexandrescu” în decursul a șase ani reprezintă 1 la 18.656 de nou-născuți
3. Pacienții transferați către SCUC “Grigore Alexandrescu” în vederea curei chirurgicale a AE au fost diagnosticați în primele ore de viață, fiind ulterior transferați în clinică; în cazul a numai trei pacienți diagnosticul a fost tardiv
4. În lotul studiat AE asociază alte anomalii cu o frecvență mai mare comparativ cu datele raportate în literatură
5. Alimentația la sân și administrarea unei formule de lapte fără lactoză se corelează cu o curbă ponderală ascendentă la o lună de viață. Nu s-au evidențiat corelații semnificative statistic între evoluția greutății pe durata spitalizării și numărul de calorii și cantitatea de proteine, glucide și lipide din alimentația pacienților. Nu au fost evidențiate corelații statistic semnificative între evoluția greutății și vârsta la inițierea nutriției enterale
6. Momentul și durata IOT nu se corelează statistic cu evoluția greutății pacienților și nici cu riscul de deces al acestora. Întârzierea curei chirurgicale a pacienților cu AE impactează negativ evoluția curbei ponderale a acestora. Complicațiile care au influențat evoluția greutății au fost sepsisul, refluxul gastro-esofagian, dificultățile de alimentație și dehiscenta anastomozelor.
7. Adresabilitatea crescută notată în centrele universitare mari din țară evidențiază necesitatea dezvoltării, din punct de vedere al numărului și al dotărilor, a centrelor regionale, multidisciplinare specializate în îngrijirea nou-născuților cu AE. Sunt necesare studii multicentrice pentru a evidenția caracteristicile pacienților cu atrezie de esofag din România și pentru a urmări evoluția pe termen lung a acestora
8. Elaborarea unor protocoale pentru urmărirea clinică și paraclinică a copiilor cu AE/FTE, precum și includerea acestora în programe naționale de evidență reprezintă măsuri cu o importanță și necesitate deosebite

3. EVALUAREA IMPACTULUI PE CARE ÎL ARE ÎNGRIJIREA UNUI COPIL CU ATREZIE DE ESOFAG ASUPRA STATUTULUI SOCIO-ECONOMIC ȘI PSIHOLOGIC AL FAMILIEI

3.1. INTRODUCERE

Caplan relatează că indiferent de momentul diagnosticării, prenatal sau postnatal, AE reprezintă un eveniment traumatic din punct de vedere psihologic pentru părinți, care sunt la risc pentru dezvoltarea unor reacții de stres traumatic consecutiv comunicării diagnosticului (64). În timp ce date referitoare la calitatea vieții pacienților cu atrezie de esofag sunt raportate în literatură de specialitate, puține studii au evaluat impactul pe care AE îl are asupra familiei pacienților suferind de această malformație.

Scopul studiului efectuat îl reprezintă evaluarea impactului îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag asupra statutului socio-economic și psihologic al familiei.

3.2. MATERIAL ȘI METODĂ

Am efectuat un studiu prospectiv în care am aplicat, în mediul online, un chestionar format din 22 de întrebări (Tabel 3.1.); chestionarul a fost adresat părinților aflați într-un grup de informare și suport pentru familiile care au un copil care suferă de AE. Chestionarul a fost aplicat pentru stabilirea statutului socio-economic și psihologic al familiilor în care unul dintre copii prezintă atrezie de esofag. Studiul a fost efectuat cu avizul Comisiei de Etică a SCUC „Grigore Alexandrescu”. Studiul prospectiv se bazează pe răspunsurile celor 41 de părinți ai căror copii prezintă atrezie de esofag.

Tabel 3.1. Chestionar- Impactul îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag asupra statutului socio-economic și psihologic al familiei

Chestionarul este completat de: *	
☐	mamă
☐	tată
☐	ambii părinți
☐	alt aparținător legal
Care este vârsta copilului diagnosticat cu atrezie de esofag? *	
Care este vârsta mamei? *	

Care este vârsta tatalui? *	
Locuiți în mediu: *urban/ rural	
Care este venitul pe membru de familie? *	
< 1.300 lei/ 1.300 - 3.100 lei/ 3.200 lei	
Care este ultima instituție de învățământ absolvită de mamă? *	
Care este ultima instituție de învățământ absolvită de tată? *	
fără studii/ școală primară/ școală gimnazială/ școală profesională/ liceu/ școală postliceală/ facultate/ studii postuniversitare	
Câți copii aveți? *	Copilul cu atrezie de esofag este: * fată/ băiat
Care este anul nașterii lui? *	
Ce alte malformații/ anomalii au fost asociate atreziei de esofag? *	
nu a avut alte malformații asociate/ vertebrale/ cardiace/ agenezie/ imperforație anală/ fistula recto-vaginală/ altele:	
A necesitat gastrostomă? Dacă da, până la ce vârstă? *	
Cum v-a influențat afecțiunea copilului activitatea profesională? *	
nu a fost influențată/ am redus orele de lucru/ am renunțat la serviciu/ am lucrat mai mult	
Cât de afectați ați fost din punct de vedere economic (al veniturilor, cheltuielilor) *	
Deloc/ am avut nevoie de ajutor financiar de la familie/prieteni/ am avut nevoie de job suplimentar/ am lucrat ore suplimentare/ am accesat un credit bancar/ altele:	
Pentru a avea acces la serviciile medicale, a fost necesar: *	
să ne mutăm în altă localitate/ să ne mutăm în altă țară/ nu a fost nevoie de relocare/ să călătorim periodic în altă țară/ să călătorim periodic în altă localitate/ nu fost nevoie să ne deplasăm din localitatea în care locuim	
Cum a fost afectată relația cu familia? *	
nu a fost afectată/ m-au ajutat cu îngrijirea copilului/ ne-am distanțat/ altele:	

Cum a fost afectată relația cu partenerul/ partenera? * nu a fost afectată/ relația s-a consolidat/ ne-am despărțit/ ne-am distanțat
Cum a fost afectată relația cu prietenii? * nu a fost afectată/ m-au ajutat cu îngrijirea copilului/ ne-am distanțat
A fost afectată relația dintre dvs și ceilalți copii? * Nu/ da/ nu am alți copii
Cum ați fost afectat/ă din punct de vedere psihologic? * Deloc/ am avut nevoie de sprijin moral din partea familiei/ prietenilor etc/ am apelat la consiliere psihologică/ altele:
Care dintre următoarele tulburări de alimentație au fost întâmpinate de copilul dvs? * refuzul alimentației/ regurgitațiile, vărsăturile/ tusea sau înecul în timpul meselor/ impactarea bolului alimentar/ durata crescută a meselor/ altele:

Calculul scorurilor

Sintetizând rezultatele obținute în urma prelucrării statistice, pentru fiecare subiect s-a stabilit scorul global pentru calitatea vieții QoL utilizând 6 domenii: funcțional, socio-economic, clinic, emoțional, relațional și psihologic. Pentru fiecare dintre respondenții aceluiși chestionar se calculează scorul primar; scala scorurilor standardizate este cuprinsă între 0 și 89, un scor redus fiind asociat unei stări de „mai rău” ca status general al calității vieții. Afectarea calității vieții este, astfel, clasificată în: majoră, la scoruri cuprinse între 0 și 30, moderată, la scoruri cuprinse între 31 și 60, minoră, la scoruri cuprinse între 61 și 89.

3.3. REZULTATE

DOMENIUL FUNCȚIONAL. În 82,9% din cazuri chestionarul a fost completat de către mamă. Vârsta copiilor cu atrezie de esofag a fost cuprinsă în intervalul 1 lună – 14 ani; mediana lotului (3 ani) a fost apropiată de vârsta medie ($3,80 \pm 3,64$ ani). Vârsta medie a membrilor respondente a fost de $34,39 \pm 6,32$ ani, iar vârsta medie a taților de vârsta medie $37,51 \pm 8,66$ ani. Mai mult de jumătate dintre familii provin din mediul urban. Scorul calculat pentru domeniul funcțional a fost cuprins între 0 și 10, înregistrând un nivel mediu ușor mai redus în familiile provenite din mediul urban ($p=0,017$).

DOMENIU SOCIO-ECONOMIC. Dintre familiile respondente, 61% au, declarativ, venit mediu per membru de familie cuprins între 1300 și 3100 lei. Venitul familial nu a înregistrat diferențe procentuale semnificative pe medii de proveniență ($p=0,744$). Nivelul educațional al mamelor pacienților cu atrezie de esofag este unul ridicat, 39% fiind absolvenți de facultate iar 34.1% având studii postuniversitare. Peste jumătate dintre tați au studii postuniversitare/ facultate. Scorul calculat pentru domeniul socio-economic a înregistrat un nivel mediu ușor mai redus în familiile care au copii cu atrezie de esofag cu vârste de peste 4 ani ($p=0,714$), și la familiile din mediul urban ($p=0,046$).

DOMENIUL CLINIC. Majoritatea familiilor au un singur copil (65,9%). Din total lotului de studiu, 65,9% dintre copiii cu atrezie de esofag au fost de sex masculin. Copiii părinților respondenți s-au născut între anii 2006-2020, înregistrând un vârf de frecvență în anul 2018 (11/41 cazuri), mediana fiind anul 2016 (7/41 cazuri - 17,1%). Malformații/anomalii asociate cu atrezie de esofag s-au identificat la 39% dintre copii, cele mai frecvente asocieri fiind anomalii cardiace (9 cazuri – 12,1%) și agenezia/imperforație anală (3 cazuri - 7,3%). Peste jumătate dintre copii (56,7%) au necesitat gastrostomă, în 43,9% din cazuri aceasta fiind suprimată până la momentul completării chestionarului. Scorul mediu a fost semnificativ mai redus în familiile în care copiii cu atrezie de esofag au vârsta peste 4 ani (5,88 vs 3,59; $p=0,027$), evidențiind o calitate a vieții mai scăzută la această grupă. Scorul mediu a fost, de asemenea, semnificativ mai redus în familiile cu domiciliul în mediul urban (3,91 vs 6,22; $p=0,022$), evidențiind o calitate a vieții mai scăzută în comparație cu proveniența rurală.

DOMENIUL EMOTIONAL. Din cei 41 de respondenți, mai mult de jumătate afirmă că îngrijirea copilului cu atrezie de esofag le-a influențat activitatea profesională. Peste jumătate dintre părinți declară că au avut nevoie de ajutor financiar de la familie sau prieteni (56,1%). Majoritatea respondenților au declarat că, pentru a avea acces la serviciile medicale necesare, au fost nevoiți să călătorească periodic în altă localitate (41,5%), sau în altă țară (36,6%). Scorul mediu a fost semnificativ mai redus în familiile cu domiciliul în mediul urban ($p=0,017$), evidențiind o calitate a vieții mai scăzută în comparație cu respondenții care locuiesc în mediul rural; scorul mediu nu a diferit semnificativ în funcție de vârsta copiilor cu atrezie de esofag ($p=0,756$).

DOMENIUL RELAȚIONAL. Familia, în proporție de 48,8%, s-a implicat în îngrijirea copilului cu atrezie de esofag. În aproape jumătate dintre situații relația cu partenerul s-a consolidat (48,8%) sau nu a fost afectată de apariția unui copil cu atrezie de

esofag (34,1%). Relația cu prietenii nu a fost afectată în proporție de 58,5% de apariția unui copil cu atrezie de esofag. Relația dintre părinții copilului cu AE și ceilalți copii ai familiei a fost afectată în 17,1%. Scorul mediu nu a diferit semnificativ în funcție de vârsta copiilor cu atrezie de esofag ($p=0,916$) și nici în funcție de mediul de proveniență ($p=0,638$).

DOMENIUL PSIHOLOGIC. Mai mult de jumătate dintre respondenți (58,5%) au avut nevoie de sprijin moral din partea familiei și a prietenilor după nașterea copilului cu atrezie de esofag, iar 19,5% dintre subiecți declară că au apelat la consiliere psihologică. 46,7% dintre subiecți sunt afectați din punct de vedere psihologic, fără diferențe semnificative între grupe de vârstă ($p=0,987$) sau medii de proveniență ($p=0,486$).

SCOR GLOBAL. Scorul global al calității vieții a fost cuprins între 4 și 89; scorul mediu- 30.17 a evidențiat o afectare majoră a calității vieții, dar fără diferențe semnificative între vârstele copiilor afectați sau mediul lor de proveniență.

Corelații între scorurile emoționale cu vârsta părinților, cu educația acestora și cu venitul familiei

Între scorurile emoționale și vârsta mamei ($p=0,865$) sau a tatălui ($p=0,666$) a fost evidențiată o foarte slabă corelație indirectă, ce se traduce prin faptul că aparent la vârste mai mari scorurile emoționale au fost mai reduse, însă corelațiile nu au fost semnificative din punct de vedere statistic. La sexul feminin, scorurile emoționale medii au fost semnificativ mai reduse atât în rândul mamelor absolvente de facultate sau cu studii postuniversitare în comparație cu cele al căror nivel educațional este mai redus ($p=0,002$), cât și în rândul taților absolvenți de facultate, studii postuniversitare, liceu sau școală postliceală în comparație cu cei neșcolarizați sau care au absolvit doar școala profesională/postliceală ($p=0,001$). Corelația dintre scorurile emoționale și venitul familiei nu a fost semnificativă din punct de vedere statistic; scorul mediu a fost ușor mai crescut la familiile cu un venit per membru de familie peste 3.200 lei față de cel înregistrat la familiile al căror venit a fost cuprins între 1.300 și 3.100 lei (5,11 vs 2,64; $p=0,321$).

Corelația scorurilor relaționale cu vârsta părinților, cu educația acestora și cu venitul familiei

Corelațiile dintre scorurile relaționale și vârsta mamei ($r=+0,121$; $p=0,453$) sau a tatălui ($r=+0,097$; $p=0,546$) au evidențiat o foarte slabă corelație directă, ce se traduce prin faptul că aparent la vârste mai reduse scorurile emoționale au fost mai reduse, fără a avea

însă semnificație statistică. Nivelul mediu al scorurilor relaționale nu au diferit semnificativ în funcție de educația mamei ($p=0,912$) sau a tatălui ($p=0,985$). Corelațiile dintre scorurile relaționale nu au diferit semnificativ statistic în funcție de venitul familiei.

Corelația scorurilor psihologice cu vârsta părinților, cu educația acestora și cu venitul familiei

Corelațiile dintre scorurile psihologice și vârsta mamei ($r= -0,027$; $p= 0,867$) sau a tatălui ($r= -0,067$; $p= 0,678$) nu au fost semnificative din punct de vedere statistic. La sexul feminin, scorurile psihologice medii au fost ușor mai reduse la mamele care au facultate sau studii postuniversitare (4,44 și 5,07) în comparație cu mamele al căror nivel educațional este mai redus- școală profesională sau liceu (6,0 și 6,14) ($p=0,791$). La sexul masculin, scorurile emoționale medii au fost semnificativ mai reduse la cei care au absolvit facultatea (2,75) în comparație cu cei care au absolvit școală postliceală (12) ($p=0,05$). Scorul mediu psihologic a fost semnificativ mai crescut la familiile cu un venit per membru de familie peste 3.200 lei față de cel înregistrat la familiile cu un venit per membru de familie cuprins între 1.300 și 3.100 lei (8,33 vs 3,44; $p=0,018$).

Corelația scorurilor scorului global cu vârsta părinților, cu educația acestora și cu venitul familiei

Scorul global și vârsta mamei ($r= -0,037$; $p=0,817$) sau a tatălui ($r= -0,072$; $p=0,655$) au fost parametri aparent independenți. La sexul feminin, scorul global al calității vieții a fost semnificativ mai redus la mamele care au studii postuniversitare, facultate, sau școală postliceală, în comparație cu mamele al căror nivel educațional este mai redus, școală profesională sau liceu ($p=0,05$). La sexul masculin, scorul global al calității vieții a fost semnificativ mai redus la cei care au facultate sau liceu în comparație cu cei care au absolvit școală postliceală (60,0) ($p=0,01$). Calitatea vieții a fost major influențată de venitul redus al familiei. La familiile cu un venit cuprins între 1.300 și 3.100 lei scorul mediu global al calității vieții a fost cel mai redus față de nivelul mediu înregistrat la familiile cu un nivel de peste 3.200 lei (23,32 vs 41,44; $p=0,018$).

3.4. DISCUȚII

Chestionarul care stă la baza lucrării de față, aplicat în mediul online, a fost completat de 41 de părinți care au un copil diagnosticat cu atrezie de esofag.

Plaja largă a vârstei copiilor respondenților evidențiază complexitatea și variabilitatea grupurilor formate de aparținători în mediul on-line cu scopul de a oferi și de a schimba informații referitoare la experiențele personale în ceea ce privește evoluția copiilor cu AE. Membrul familiei diagnosticat cu AE a fost de sex masculin în 65,9% din cazuri, acest procent fiind în concordanță cu datele raportate în literatură: Losty menționează o incidență mai mare a AE în rândul nou-născuților de sex masculin (4).

Doar 16 (39%) dintre copiii cu AE au alte anomalii asociate, cele mai frecvente asocieri fiind anomalii cardiace (9 cazuri – 12,1%) și agenezia/imperforație anală (3 cazuri - 7,3%). Aceste date sunt discordante față de cele din literatura de specialitate, unde sunt raportate anomalii asociate AE/FTE la jumătate dintre pacienți (3,4,22-24), în jumătate dintre cazurile cu anomalii asociate fiind incriminate cele cardiace. Această diferență semnificativă poate fi determinată de omisiunea respondenților de a menționa ca anomalii cardiace pe cele fără impact hemodinamic major, care nu afectează evoluția copilului.

Impactul socio-economic al nașterii unui copil cu atrezie de esofag a fost major în lotul studiat. Aproape trei sferturi dintre respondenți susțin că pentru a avea acces la serviciile medicale necesare au fost nevoiți să călătorească periodic în altă localitate sau în altă țară. Acest fapt evidențiază necesitatea dezvoltării, din punct de vedere al numărului și al dotărilor, la nivel național, a centrelor multidisciplinare specializate în îngrijirea nou-născuților cu AE.

Pentru a gestiona schimbările și evenimentele asociate îngrijirii copilului cu AE, aproape 20% dintre respondenți au apelat la consiliere psihologică, iar peste jumătate au beneficiat de sprijin moral din partea familiei și a prietenilor. Având în vedere complexitatea atreziei de esofag, frecvența cu care asociază și alte anomalii, complicațiile care survin în evoluție și care impactează evoluția pe termen lung a pacienților suferind de AE, trebuie avută în vedere oferirea de sprijin psihologic specializat familiilor acestor pacienți, cu atât mai mult cu cât este bine cunoscut și descris în literatură riscul de apariție a sindromului de stres post traumatic (PTSD), consecutiv comunicării diagnosticului către părinți. Caplan descrie cum instalarea sindromului de stres post traumatic al părinților are impact negativ asupra dezvoltării copilului cu AE, fiind afectate în aceste situații atât abilitățile părintelui de a-și îngriji copilul, cât și relația părinte-copil (64).

Datele obținute în studiul de față, referitoare la afectarea psihologică în raport cu vârsta copilului, sunt diferite de cele raportate în literatură, unde este consemnat că părinții copiilor

cu vârste mici au un nivel redus al sănătății mentale (93). Calitatea vieții a fost major influențată de venitul redus al familiei ($p=0,018$). Datele prezentate ilustrează impactul negativ al îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag asupra calității vieții tuturor membrilor familiei. Această afectare, insuficient studiată și discutată, subliniază necesitatea dezvoltării unor programe naționale de urmărire și susținere a pacienților cu AE și a membrilor familiilor acestora, astfel încât, prin aplicarea unor măsuri individualizate, pacienții și familiile lor să poată gestiona cu succes schimbările și traumele pe care le întâlnesc.

Studiul de față este relevant prin sublinierea importanței laturii psiho-sociale și economice a îngrijirii unui copil cu atrezie de esofag. La nivel global sunt efectuate puține studii cu scopul de a evalua impactul pe care îngrijirea unui copil cu AE o are asupra familiei și asupra funcționalității acesteia. Studiul este limitat de numărul mic de respondenți, de faptul că părinții răspuns la întrebări fără îndrumare și de faptul că, prin aplicarea în mediul online a chestionarului, au putut răspunde doar părinții cu acces la internet, care utilizează aplicația prin care li s-a adresat acest chestionar; de asemenea, chestionarul aplicat nu este unul standardizat pentru pacienții cu patologie malformativă și pentru aparținătorii acestora.

3.5. CONCLUZII

1. Din echipa multidisciplinară implicată în îngrijirea copilului cu AE trebuie să facă parte și un psiholog care să consilieze părintele care prezintă risc de a dezvolta PTSD, cu impact asupra relației cu copilul nou-născut și asupra aptitudinilor de a-l îngriji pe acesta
2. Părinții cu vârste mai ridicate și cu studii superioare prezintă afectare psihologică și emoțională mai pronunțate
3. Familiile cu venit per membru de familie ridicat sunt mai puțin afectate din punct de vedere emoțional și psihologic; calitatea vieții este major influențată de venitul redus al familiei
4. Întrucât consecutiv diagnosticării cu AE a unui copil, familia se află adesea în situația de a trebui să călătorească în afara localității de domiciliu sau chiar în afara țării, este imperios necesar ca la nivel teritorial să se dezvolte centre multidisciplinare pregătite pentru îngrijirea pacienților cu AE, din perioada neonatală până la vârsta de adult
5. Sunt necesare programe naționale care să aibă ca scop susținerea părinților copiilor cu AE, atât din punct de vedere psihologic, cât și economic

Bibliografie selectiva

1. Krishnan U, Mousa H, Dall'Oglio L, Homaira N, Rosen R, Faure C, Gottrand F. ESPGHAN-NASPGHAN Guidelines for the Evaluation and Treatment of Gastrointestinal and Nutritional Complications in Children With Esophageal Atresia-Tracheoesophageal Fistula. *JPGN*. 2016;63:550-70.
2. Patria MF, Ghislanzoni S, Macchini F, et al. Respiratory morbidity in children with repaired congenital esophageal atresia with or without tracheoesophageal fistula. *Int J Environ Res Public Health*. 2017;14(10):E1136
3. Spitz L. Oesophageal atresia. *Orphanet J Rare Dis*. 2007;2:24
4. Losty PD. Esophageal Atresia and Tracheo-Esophageal Fistula. In: Losty PD, Flake AW, Rintala RJ et al. *Rickham's Neonatal Surgery*. Springer. 2018;541-62
5. Carachi R, Keilani R. The Chest. In: *Atlas of Paediatric Surgical Imaging: A Clinical and Diagnostic Approach*. Springer. 2020;77-146 (eBook)
8. Boulet SL, Kirby RS, Reefhuis J, et al. Assisted Reproductive Technology and Birth Defects Among Liveborn Infants in Florida, Massachusetts, and Michigan, 2000-2010. *JAMA Pediatr*. 2016;170(6)
9. Marseglia L, Manti S, D'Angelo G, Gitto E et al. Gastroesophageal Reflux and Congenital Gastrointestinal Malformations. *World J Gastroentero*. 2015;21:8508-15
10. Bălănescu L, Bălănescu RN. Chirurgie neonatală: Diagnostic și tratament. Editura Universitară "Carol Davila" București. 2015;207-219
14. Zeck F, Reutter H. Gastrointestinal diseases among relatives of patients with esophageal atresia with or without tracheoesophageal fistula. *Transl Pediatr*. 2019;8(5):378-382
15. Ringer SA, Hansen AR. Surgical Emergencies in the Newborn. In: Eichenwald EC, Hansen AR, Marin CR et al. *Cloherty and Stark Manual of Neonatal Care*. 8th Ed. Lippincott Williams&Wilkins. 2018;943-967
16. Harmon CM, Coran AG. Congenital anomalies of the esophagus. In: O'Neill JR JA et al. *Pediatric surgery*. 5th Ed. St Luis: Mosby. 1998;941-967
17. Singh A, Middlesworth W, Khlevner J. Surveillance in patients with esophageal atresia/ tracheoesophageal fistula. *Curr Gastroenterol Rep*. 2017;19:4

19. Kumar V, Abbas A, Aster J et al. Cavitătea orală și tractul gastrointestinal. In: Robbins Patologie: Bazele morfologice și fiziopatologice ale bolilor. 9th Ed. Editura Medicală Calisto. 2015;552-602
22. Traini I, Menzies J, Hughes J et al. Oesophageal atresia: The growth gap. *World J Gastroentero.* 2020;26(12):1262-1272
23. Blanco AJ, Gutierrez Velez A, Solis-Garcia G, Salcedo Posadas A et al. Comorbidities and course of lung function in patients with congenital esophageal atresia. *Arch Argent Pediatr.* 2020;118(1):25-30
24. Leibovitch L, Zohar I, Maayan-Mazger A et al. Infants born with esophageal atresia with or without tracheo-esophageal fistula: short- and long-term outcomes. *Isr Med Assoc J.* 2018;20:161-166
25. Lee S. Basic Knowledge of Tracheoesophageal Fistula and Esophageal Atresia. *Adv Neonatal Care.* 2018;18(1):14-21
26. Pedersen RN, Calzolari E, Husby S, Garne E; EUROCAT Working group. Oesophageal atresia: prevalence, prenatal diagnosis and associated anomalies in 23 European regions. *Arch Dis Child.* 2012;97(3):227-232
29. Bogs T, Zwink N, Chonitzki V, et al. Esophageal Atresia with or without Tracheoesophageal Fistula (EA/TEF): Association of Different EA/TEF Subtypes with Specific Co-occurring Congenital Anomalies and Implications for Diagnostic Workup. *Eur J Pediatr Surg.* 2018;28(2):176-182
33. Lal DR, Gadepalli SK, Downard CD, et al. Perioperative management and outcomes of esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg.* 2017;52(8):1245-1251
36. Tan Tanny S, Fearon E, Hawley A. Predictors of mortality after primary discharge from hospital in patients with esophageal atresia. *J Pediatr.* 2020;219:70-75
37. Lautz TB, Mandelia A, Radhakrishnan J. VACTERL associations in children undergoing surgery for esophageal atresia and anorectal malformations: implications for pediatric surgeons. *J Pediatr Surg.* 2016;50:1245-1250
39. Nenciu IV, Becheanu CA, Bălgrădean M et al. Atrezia de esofag- Anomalii asociate și factori de predicție ai mortalității. *Ro J Pediatr.* 2020;69(2):124-127

42. Holland AJ, Fitzgerald DA. Oesophageal atresia and trachea-esophageal fistula: current management strategies and complications. *Paediatr Resp Rev.* 2010;11(2):100-6
46. Teague WJ, Karpelowsky J. Surgical management of oesophageal atresia. *Paediatr Respir Rev.* 2016;19:10-15
47. Hunt RW, Perkins EJ, King S. Peri-operative management of neonates with oesophageal atresia and tracheo-oesophageal fistula. *Paediatr Respir Rev.* 2016;19:3-9
49. Dylkowski D, Dave S, Andrew McClure J, Welk B, Winick-Ng J, Jones S. Repair of congenital esophageal atresia with tracheoesophageal fistula repair in Ontario over the last 20 years: Volume and outcomes. *J Pediatr Surg.* 2018;53(5):925-928
50. Petersen D, Johnson T. Surgery in the Gastrointestinal Tract. In: Shaw V Clinical Paediatric Dietetics. 5th Ed: Hoboken NJ: Wiley-Blackwell. 2020;149-165
58. Johnson T. Enteral nutrition. In: Shaw V Clinical Paediatric Dietetics. 5th Ed: Hoboken NJ: Wiley-Blackwell. 2020;52-63
59. Golonka NR, Hayashi AH. Early "sham" feeding of neonates promotes oral feeding after delayed primary repair of major congenital esophageal anomalies. *Am J Surg.* 2008;195(5):659-662
64. Caplan A. Psychological impact of esophageal atresia: review on the research and clinical evidence. *Dis Esophagus.* 2013;26(4):392-400
65. Porcaro F, Valfre L, Aufiero L et al. Respiratory problems in children with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *Ital J Pediatr.* 2017;43(1):77
69. Legrand C, Michaud L, Salleron J et al. Long-term outcome of children with esophageal atresia type III. *Arch Dis Child.* 2012;97:808-11
71. Nenciu IV, Becheanu CA, Țincu IF, Bălgrădean M. Atrezia de esofag- Complicații gastrointestinale și nutriționale. *Ro J Pediatr.* 2020;69(2):99-102
74. Gottrand M, Michaud L, Sfeir Roni, F. Motility, digestive and nutritional problems in Esophageal Atresia. *Paediatr Resp Rev.* 2016;19:28-33
77. Mahoney L, Rosen R. Feeding difficulties in children with esophageal atresia. *Paediatr Resp Rev.* 2016;19:21-27
78. Sistonen SJ, Koivusalo A, Nieminen U, et al. Esophageal morbidity and function in adults with repaired esophageal atresia with tracheoesophageal fistula: a population-based long-term follow-up. *Ann Surg.* 2010;251:1167-73

79. Baxter KJ, Baxter LM, Landry AM, Wulkan ML, Bhatia AM. Structural airway abnormalities contribute to dysphagia in children with esophageal atresia and tracheoesophageal fistula. *J Pediatr Surg.* 2018;53(9):1655-1659
80. Birketvedt K, Mikkelsen A, Klingen LL, Henriksen C, Helland IB, Emblem R. Nutritional Status in Adolescents with Esophageal Atresia. *J Pediatr.* 2020;218:130-137
81. Mousa H, Krishnan U, Hassan M et al. How to care for patients with EA-TEF: the known and the unknown. *Curr Gastroenterol Rep.* 2017;19(12):65
85. Masuya R, Kaji T, Mukai M. Predictive factors affecting the prognosis and the complications of 73 consecutive cases of esophageal atresia at 2 centers. *Pediatr Surg Int.* 2018;34:1027-1033
88. Dittrich R, Stock Philippe, Rothe K et al. Pulmonary outcome of esophageal atresia patients and its potential causes in early childhood. *J Pediatr Surg.* 2017;52:1255-1259
93. Witt S, Dellenmark-Blom M, Dingemann J, et al. Quality of Life in Parents of Children Born with Esophageal Atresia. *Eur J Pediatr Surg.* 2019;29(4):371-377