

Zespół wrodzonej centralnej hipowentylacji (CCHS) – perspektywa terapii logopedycznej

Congenital central hypoventilation syndrome (CCHS) – perspective of speech and language therapy

Wkład autorów:

- A Projekt badania
- B Gromadzenie danych
- C Analiza danych
- D Interpretacja danych
- E Przygotowanie pracy
- F Przegląd literatury
- G Gromadzenie funduszy

Karolina Samsonowicz^{ABCDEF}, Anna Geremek-Samsonowicz^{AF}

Instytut Fizjologii i Patologii Słuchu, Światowe Centrum Słuchu, Warszawa/Kajetany

Streszczenie

Zespół wrodzonej centralnej hipowentylacji (CCHS) to bardzo rzadka, genetycznie uwarunkowana choroba związana z dysfunkcją autonomicznego układu nerwowego, której głównym objawem jest hipowentylacja najczęściej podczas snu. Oznacza to dożywotnią konieczność wspomagania wentylacji u pacjentów z CCHS. Sposób wentylacji zależy od stopnia nasilenia objawów choroby oraz od wieku. W pierwszych latach życia zaleca się przede wszystkim wentylację za pomocą respiratora poprzez tracheostomię. Ma to jednak wpływ na proces rozwoju mowy. U pacjentów z CCHS opóźnienia i zaburzenia rozwoju mowy stanowią bardzo częsty problem współtowarzyszący, który wymaga oddziaływania terapeutycznego. Kształtowanie wszelkich aspektów związanych z umiejętnościami komunikacyjnymi pacjenta z CCHS należy przede wszystkim do zadań logopedy. W pracy przedstawiono najważniejsze informacje na temat jednostki chorobowej oraz podstawowe kierunki postępowania w rehabilitacji logopedycznej, opierając się na dostępnym piśmiennictwie oraz doświadczeniach własnych.

Słowa kluczowe: zespół wrodzonej centralnej hipowentylacji • tracheostomia • terapia logopedyczna • rozwój mowy

Abstract

Congenital central hypoventilation syndrome (CCHS) is a rare genetic disorder associated with the dysfunction of the autonomic nervous system. Its main symptom is hypoventilation most commonly occurring during sleep. This means a lifetime need for mechanical ventilation in patients with CCHS. A method of ventilation depends on the severity of the symptoms and patient's age. In the first years of life positive pressure ventilation via tracheostomy is generally recommended, however, this can affect the process of a child's speech development. Speech development delays and disorders are very common accompanying conditions that need therapeutic intervention. Shaping all aspects of patient's communication skills is first of all the task of a speech-language therapist. The purpose of the article is to present a short review of basic information on CCHS and to provide general directions for speech therapy based on the available literature and author's own proposals.

Key words: congenital central hypoventilation syndrome • tracheostomy • speech therapy • speech and language development

Wstęp

Zespół wrodzonej centralnej hipowentylacji (CCHS), nazywany potocznie kłątą Ondyny, to rzadka, genetycznie uwarunkowana choroba charakteryzująca się upośledzoną kontrolą oddychania, która związana jest z dysfunkcją autonomicznego układu nerwowego [1–4]. Objawia się ona hipowentylacją głównie podczas snu – przede wszystkim w fazie NREM (ang. *non-rapid eye movement*) i nieobecną lub ograniczoną odpowiedzią oddechową na trwałą hiperkapnię i hipoksemię zarówno podczas snu, jak

i czuwania [2–5]. Określenia kłątwa Ondyny użyto po raz pierwszy w 1962 roku dla opisanego symptomów występujących u 3 dorosłych pacjentów po operacji mózgu, którzy wymagali mechanicznej wentylacji podczas snu przy zachowanej prawidłowej czynności oddechowej w czasie czuwania [6]. Nazwa wywodzi się z germańskiej legendy, w której to nimfa Ondyna przeklęła swojego niewiernego męża – śmiertelnika, pozbawiając jego organizm wszystkich automatycznych funkcji. Zaklęty przez Ondynę musiał cały czas pamiętać o swoim oddechu, świadomie wdychać i wydychać powietrze, w przeciwnym wypadku

Adres autora: Karolina Samsonowicz, Instytut Fizjologii i Patologii Słuchu, ul. Mochnackiego 10, 01-943 Warszawa, e-mail: k.samsonowicz@ifps.org.pl

nieuchronnie by umarł [7]. Choroba ma charakter wrodzony, diagnoza najczęściej stawiana jest w krótkim czasie po urodzeniu [3]. W niektórych przypadkach choroba może przybrać łagodniejszą formę i objawić się w późniejszym dzieciństwie, a nawet w dorosłości [5] – w przebiegu sedacji, anestezji, infekcji oddechowej lub bezdechu sennego [4]. Mowa wtedy o tzw. CCHS o późnym początku (ang. *late onset CCHS*, LO-CCHS).

Diagnoza

Diagnoza CCHS może zostać postawiona tylko po uprzednim wykluczeniu chorób płuc, serca i schorzeń nerwowo-mięśniowych jak również uszkodzenia pnia mózgu mogących powodować hipowentylację [4–6]. Według kryteriów podawanych przez American Thoracic Society (ATS), aby móc zdiagnozować CCHS, wymagane jest także stwierdzenie mutacji w obrębie genu *PHOX2B* [5]. W ponad 90% przypadków mutacja polega na ekspansji powtórzeń polialaninowych (ang. *polyalanine repeat expansion mutation*, PARM), zaś w pozostałych ok. 10% przypadków odnotowuje się inne anomalie w obrębie genu *PHOX2B* (ang. *non-polyalanine repeat expansion mutation*, NPARM) [4,5]. Liczba powtórzeń polialaninowych koreluje z natężeniem klinicznych objawów choroby – jej cięższy przebieg obserwuje się przy większej liczbie powtórzeń polialaninowych [4,5]. W przeciwieństwie do pacjentów z grupy PARM, większość pacjentów z grupy NPARM wymaga stałego wspomaganie wentylacji [5].

Epidemiologia

CCHS jest chorobą bardzo rzadką. We Francji oszacowano, że zdarza się raz na ok. 200 000 urodzeń [3]. ATS podaje, że w 2009 r. na świecie zdiagnozowanych było 1000 osób z CCHS, u których stwierdzono mutację genu *PHOX2B* [5]. Dane te jednak dotyczą tylko kilku krajów, a liczba chorych jest prawdopodobnie niedoszacowana. Wiele przypadków CCHS o łagodniejszym przebiegu jest niezdiagnozowanych. W Polsce, wg informacji udostępnianych przez Polską Fundację CCHS „Zdejmij kłatwę”, odnotowanych jest 18 przypadków choroby [8]. Pomimo iż podejmowane są próby stworzenia ogólnoeuropejskiego rejestru pacjentów z CCHS, jaki istnieje np. we Francji, nie udało się do tej pory jednoznacznie ustalić liczby chorych w Europie i na świecie [9].

Zasady postępowania terapeutycznego

Podstawą opieki nad pacjentami z CCHS jest zapewnienie im dostępu do stałej, sztucznej wentylacji [5]. CCHS nie mija spontanicznie ani wraz z wiekiem i nie poddaje się leczeniu farmakologicznemu, co oznacza dożywnością konieczność wspomaganie wentylacji u chorych w zależności od nasilenia objawów: w czasie snu lub w czasie snu i czuwania [5]. Metody domowej wentylacji obejmują m.in.: wentylację za pomocą przenośnych respiratorów na dodatnie ciśnienie podłączanych przez rurkę tracheostomijną (ang. *portable positive pressure ventilator via tracheostomy*), wentylację nieinwazyjną za pomocą maski nosowej lub ustno-nosowej, wszczepienie stymulatorów/rozruszników przepony (ang. *diaphragm pacing*) [5,7]. Sposób wentylacji dobierany jest indywidualnie do stanu i potrzeb pacjenta. Generalnie w pierwszych latach życia

zaleca się wentylację dodatnim ciśnieniem poprzez tracheostomię. Wentylacja nieinwazyjna rozważana jest zazwyczaj w przypadku starszych, stabilnych pacjentów w wieku przynajmniej 6–7 lat, którzy wymagają wspomaganie tylko w czasie snu [5]. Do permanentnego usunięcia rurki tracheostomijnej, czyli dekaniulacji, dochodzi po przejściu na wentylację przy użyciu maski lub rozrusznika przepony (po odpowiednim okresie adaptacji) [7].

Zaburzenia towarzyszące, zaburzenia rozwojowe

Oprócz zaburzeń oddychania w przebiegu CCHS występować mogą m.in.: choroba Hirschsprunga, guzy (nowotworowe i nienowotworowe), m.in. nerwiak zarodkowy (ang. *neuroblastoma*), refluks żołądkowo-przełykowy, dysfagia, inne objawy związane z dysfunkcjami autonomicznego układu nerwowego, takie jak niewłaściwa reakcja źrenic na światło, sporadyczne epizody nadmiernej potliwości, pragnienie oraz niewłaściwa regulacja ciśnienia krwi, rytmu bicia serca oraz temperatury ciała. [1,5,7]. U szczególnie dużej grupy pacjentów notuje się opóźnienia rozwojowe, opóźniony rozwój motoryczny oraz mowy a także trudności w nauce [1]. Choć niewiele prac naukowych omawia szczegółowo problem rozwoju psychoruchowego dzieci z CCHS (w tym rozwoju mowy, m.in. ze względu na niewielką grupę badawczą), można tu przytoczyć dane pochodzące z kilku opracowań. Badanie mające na celu ocenę funkcji poznawczych przeprowadzone przez Zelko i współautorów w 2010 roku na grupie 20 dzieci w wieku szkolnym wykazało m.in., iż ocena ogólnego funkcjonowania intelektualnego w badanej grupie mieściła się w szerokim zakresie wyników: od nieznacznie obniżonych (ang. *moderately deficient*) do wyników bardzo wysokich (ang. *superior*), przy czym średni wynik wg *Full Scale Intelligence Quotient* był obniżony w stosunku do populacji ogólnej [10]. Wyraźnie obniżone wyniki pacjenci uzyskiwali w zadaniach dot. percepcji wizualnej oraz szybkości grafopercepcji. W zadaniach dotyczących rozumienia werbalnego oraz pamięci roboczej nie odnotowano znaczących odchyień. W badaniach epidemiologicznych na podstawie wysyłkowych kwestionariuszy, przeprowadzonych przez Vanderlaan i współautorów w 2004 r. na grupie 196 pacjentów w wieku 0,4–38 lat, podaje się, że opóźnienie rozwoju mowy (ang. *speech delay*) występuje w 51% przypadków, co stanowiło zarazem najczęściej występujący problem współtowarzyszący CCHS (w wynikach przeprowadzonego badania) [1]. Odnotowano także, że aż u 29,6% pacjentów zdiagnozowano trudności w uczeniu się (ang. *learning disabilities*). Z badań kwestionariuszowych przeprowadzonych przez Montirosso i współautorów w 2009 roku we Włoszech na grupie 26 pacjentów w wieku 1,5–17,5 lat wynika, że problemy z wydawaniem dźwięków/wypowiadaniem słów (ang. *making sounds/saying words*) obserwowane są przede wszystkim wśród dzieci do lat 6 (odpowiednio: 83,3% w grupie < 3 lat, 100% w grupie 3–6 lat) [11]. Autorzy raportu tłumaczą to faktem, że większość dzieci do lat 6 jest wentylowanych przez tracheostomię, która zakłóca rozwój mowy werbalnej. Tego typu problemy obecne są jednak także u części starszych dzieci oraz nastolatków (22,2% w grupie 7–12 lat, 25% w grupie 13–18 lat). Ponadto raport pokazuje, że znaczący problem stanowi produkcja słów, zdań i dłuższych werbalnych wypowiedzi (83,3% w grupie < 3 lat, 66,70% w grupie 3–6 lat, 44,4% w grupie 7–12 lat, 20% w grupie 13–18 lat). Produkcja komunikatów niewerbalnych nie jest jednak zaburzona,

trudności relacjonowane były tylko wśród niewielkiej liczby najmłodszych pacjentów (16,7% w grupie < 3 lat). Taki sam wynik odnotowano także w zakresie rozumienia komunikatów niewerbalnych. Do wyników wszystkich wymienionych badań należy jednak podchodzić z ostrożnością, co podkreślają sami autorzy raportów. Wynika to głównie z ograniczonej liczebności grupy badanej, co jest nieuniknione w przypadku badań nad chorobami rzadkimi, ale też – jak np. w badaniu Vanderlaan – jej niejednorodność, gdzie wartości procentowe dotyczą całej badanej grupy mimo dużej rozpiętości wiekowej.

Możliwości komunikacji pacjenta z tracheostomią

Najpowszechniej stosowaną metodą zapewnienia mechanicznej wentylacji wśród pacjentów z CCHS, szczególnie w przypadku noworodków i dzieci w wieku przedszkolnym, jest wentylacja za pomocą respiratora poprzez tracheostomię. Ponieważ literatura nie podaje standardów postępowania terapeutycznego w aspekcie rozwoju mowy dzieci z CCHS, logopeda, planując terapię, może korzystać z zaleceń stosowanych w rehabilitacji mowy dzieci z długotrwałą tracheostomią. Tracheostomia wykonana w niemowlęctwie blokuje możliwość wokalizacji w najwcześniejszym okresie kształtowania się mowy, a długotrwała tracheostomia stanowi zagrożenie dla jej dalszego rozwoju [12]. Brak fonacji jest najbardziej skrajną konsekwencją tracheostomii, jednak trudności komunikacyjne u pacjentów mogą przejawiać się także jako opóźnienia/zaburzenia w rozwoju mowy zarówno w aspekcie ekspresji, jak i percepcji językowej, a także jako zaburzenia fonologiczne (ang. *phonological disorders*) bądź zaburzenia artykulacji [13]. Pacjent z tracheostomią oddycha w sposób zmodyfikowany: powietrze wdychane i wydychane jest przez rurkę tracheostomijną [14]. W przypadku istnienia przecieku pomiędzy rurką tracheostomijną a ścianami tchawicy możliwe jest uzyskanie przepływu powietrza przez krtań i fałdy głosowe, co jest niezbędne do tworzenia głosu. Jednakże wydychane powietrze podążać będzie drogą o najmniejszym oporze, tak więc jego większość będzie wydostawać się wciąż przez tracheostomię [14]. Aby zapobiec wydostawaniu się powietrza przez tracheostomię, należy zatkać zewnętrzny wylot palcem bądź brodą, jednak bardziej efektywnym sposobem jest użycie zastawki mowy (ang. *speaking valve*) [15]. Jest to zdejmowana nakładka umieszczana na końcu rurki tracheostomijnej, która uniemożliwia wykonanie wydechu przez tracheostomię. Wydychane powietrze kierowane jest wtedy do górnych dróg oddechowych przez krtań, a następnie przez usta lub nos na zewnątrz, co konieczne jest do wytworzenia głosu [14]. Wskazania medyczne do użycia zastawki mowy ocenia i monitoruje lekarz, zaś kandydatami mogą być dzieci w każdym wieku, w tym niemowlęta [14]. Według American Thoracic Society, aby możliwe było tworzenie głosu, rozmiar rurki tracheostomijnej nie powinien przekraczać 2/3 średnicy tchawicy, w przeciwnym wypadku można rozważyć użycie rurki fenestracyjnej – czyli z otworem, jednak wskazania do jej zastosowania u dziecka powinny być bardzo starannie rozważone przez lekarza prowadzącego [15]. Możliwość uzyskania fonacji zależy od wielu czynników, m.in. drożności górnych dróg oddechowych, stanu fałdów głosowych i płuc [14].

Podstawowe założenia terapii logopedycznej

Kształtowanie wszelkich aspektów związanych z umiejętnościami komunikacyjnymi (w tym werbalnymi) dziecka z CCHS należy przede wszystkim do zadań logopedy. W przypadku występowania dysfagii lub innego rodzaju zaburzeń funkcji oralnych i pokarmowych logopeda także odgrywa znaczącą rolę w procesie terapeutycznym, jednak przedstawienie założeń tego typu terapii nie stanowi przedmiotu niniejszego opracowania. Tak jak w przypadku każdego pacjenta terapię logopedyczną powinna poprzedzić dokładna diagnoza, obejmująca m.in. wywiad (ze szczególnym uwzględnieniem aspektów medycznych dotyczących m.in. sposobu wentylacji), ocenę sposobów komunikacji dziecka, także w kontekście jego możliwości poznawczych (pomocna jest ocena psychologa), ocenę mowy czynnej i biernej (w tym środków niewerbalnych), motoryki artykulacyjnej, artykulacji i głosu. Diagnoza powinna posłużyć logopedzie do określenia celów terapii oraz wyboru sposobu bądź sposobów komunikacji odpowiednich dla danego pacjenta. Ważne jest tu uwzględnienie wszelkich aspektów funkcjonowania dziecka: poznawczych, fizycznych i medycznych oraz jego ogólnego obrazu klinicznego. W przypadku pacjentów, u których niemożliwa jest produkcja głosu i/lub mowy artykułowanej na poziomie adekwatnym do prowadzenia komunikacji werbalnej, za zasadne uznaje się zastosowanie odpowiednio dobranej formy komunikacji wspomagającej i alternatywnej (ang. *Augmentative and Alternative Communication*, AAC) [14]. W przypadku gdy możliwa jest fonacja i mowa artykułowana, a poziom funkcjonowania intelektualnego nie stanowi ograniczenia dla rozwoju mowy głosnej, celem terapii logopedycznej może być stymulowanie rozwoju komunikacji werbalnej oraz kształtowanie systemu językowego na wszystkich jego poziomach: fonetyczno-fonologicznym, morfologicznym, składniowym, leksykalnym, a w dalszej kolejności tekstowym. U małego dziecka z tracheostomią produkcja głosu będzie prymarnym celem rehabilitacji logopedycznej [14]. Jeśli dziecko wokalizuje, zalecana jest praca nad zwiększeniem liczby i różnorodności wypowiedzianych dźwięków. Skrócony czas fonacji oraz problemy z utrzymaniem jej ciągłości, zaburzenia koordynacji oddechowo-fonacyjnej, wysokości czy natężenia pożądanego wokalizacji/artykulacji, a mogące prowadzić do nieprawidłowości o typie hiperfunkcyjnym [14], są częstymi trudnościami występującymi u dzieci z tracheostomią i powinny być przedmiotem ćwiczeń stale prowadzonych w toku terapii. Usprawnianie rozwoju mowy i języka powinno się odbywać w trzech filarach: przede wszystkim czynności realizacyjnych (produkcja mowy), ale także czynności percepcyjnych (odbiór i rozumienie mowy) oraz procesów umysłowych (baza dla rozwoju języka). Podstawowe grupy ćwiczeń, które należałoby uwzględnić w terapii, to: ćwiczenia oddechowo-fonacyjne (w tym rozwijanie świadomości związanej z czynnością układu oddechowego w spoczynku i podczas tworzenia głosu, praca nad elementami cech głosu zależnymi od czynności układu oddechowego, ćwiczenia kształtujące poszczególne cechy głosu [16]), ćwiczenia usprawniające pracę aparatu artykulacyjnego – warg, języka, podniebienia miękkiego, ćwiczenia sprawności językowych: fleksyjne, składniowe, leksykalne, słowotwórcze, artykulacyjne, ćwiczenia percepcji słuchowej mowy, ćwiczenia słuchu fonemowego i fonetycznego, ćwiczenia sprawności

komunikacyjnych, a także – biorąc pod uwagę mogące występować w CCHS opóźnienia rozwojowe i późniejsze trudności w nauce – ćwiczenia wspierające funkcje poznawcze, m.in.: pamięć (słuchową i wzrokową), myślenie przyczynowo-skutkowe, kategoryzację, myślenie przez analogię.

Kształtowanie podstaw komunikacji językowej może odbywać się za pomocą techniki programowania języka, zakładającej zbudowanie w umyśle dziecka minimum gramatycznego i leksykalnego stworzonego na podstawie analizy reguł systemowych, etapów rozwoju mowy dziecka oraz frekwencji użycia wyrazów, by na takiej bazie narastał język w aktach codziennej komunikacji [17]. Przy znacząco ograniczonej komunikacji werbalnej pożądane i akceptowane zdają się wszelkie próby aktywności werbalnej, a kształtowanie prawidłowej artykulacji wydaje się schodzić na dalszy plan. Jednak jako że u dzieci z długotrwałą tracheostomią obserwuje się często powstawanie błędnych wzorców artykulacyjnych dla dźwięków mowy, praca nad prawidłową wymową powinna być w miarę możliwości dziecka wdrażana od samego początku terapii [13,14]. Znaczącym wsparciem może być wprowadzenie do rehabilitacji pacjenta nauki czytania. Nauka czytania jest tu jednak nie tyle celem, co środkiem do opanowania systemu językowego [17], w tym także kształtowania podsystemu fonetyczno-fonologicznego. Inną techniką, która może zostać wykorzystana w terapii, jest prowadzenie pamiętnika spełniającego rolę materiału językowego. Jest to też sposób na poszerzanie zasobu słownictwa i uczenia reguł odmiany fleksyjnej, składni

zdań. Ma on za zadanie prowokować do używania języka dźwiękowego, prowadzenia dialogu, a w dalszej kolejności aktywnego zadawania pytań i tworzenia prostych narracji, stwarzać także okazję do ćwiczeń czytania według przyjętych w terapii założeń [17,18]. W zależności od innych występujących u dziecka objawów i uwarunkowań klinicznych do rozważenia jest także włączenie równoległych działań rehabilitacyjnych, np. terapii słuchowej, terapii psychomotorycznej czy integracji sensorycznej, aby w sposób holistyczny oddziaływać na rozwój dziecka.

Podsumowanie

Zaburzenia rozwoju mowy stanowią bardzo częsty problem u pacjentów z zespołem wrodzonej centralnej hipowentylacji, jednak w obecnie dostępnym piśmiennictwie brak jest informacji dotyczących standardów i rezultatów postępowania logopedycznego. Wynika to głównie z niednorodności tej grupy jak też z jej małej liczebności, co jest charakterystyczne dla badań nad wszelkimi chorobami rzadkimi. Założenia postępowania logopedycznego muszą być dostosowane do każdego indywidualnego przypadku i oparte głównie na doświadczenia terapeuty i możliwościach dziecka. W zależności od możliwości uzyskania fonacji i mowy artykułowanej oprócz stymulowania rozwoju komunikacji werbalnej do rozważenia jest też włączenie stosownej formy komunikacji wspomagającej lub alternatywnej. Cele oddziaływań powinny podlegać jednak stałej ewaluacji w toku prowadzonej terapii logopedycznej.

Piśmiennictwo:

- Vanderlaan M, Holbrook CR, Wang M, Tuell A, Gozal D. Epidemiologic survey of 196 patients with congenital central hypoventilation syndrome. *Pediatr Pulmonol*, 2004; 37(3): 217–29.
- Chen ML, Keens TG. Congenital central hypoventilation syndrome: not just another rare disorder. *Paediatr Respir Rev*, 2004; 5(3): 182–29.
- Trang H, Dehan M, Beaufils F, Zaccaria I, Amiel J, Gaultier C. The French Congenital Central Hypoventilation Syndrome Registry: general data, phenotype, and genotype. *Chest*; 2005; 127(1): 72–79.
- Ramanantsoa N, Gallego J. Congenital central hypoventilation syndrome. *Respir Physiol Neurobiol*, 2013; 189(2): 272–79.
- Weese-Mayer DE, Berry-Kravis EM, Ceccherini I, Keens TG, Loghmanee DA, Trang H. An Official ATS Clinical Policy Statement: Congenital Central Hypoventilation Syndrome. *Genetic Basis, Diagnosis, and Management*. *Am J Respir Crit Care Med*, 2010; 181(6): 626–44.
- Chin WT. Congenital Central Hypoventilation Syndrome, 2014. <http://emedicine.medscape.com/> (dostęp: maj 2016).
- Materiały The Central Hypoventilation Syndrome European Network. Zespół ośrodkowej hipowentylacji. Broszura informacyjna dla Pacjenta i jego Opiekuna wersja 1.2 – Listopad 2012. www.ichsnetwork.eu (dostęp: maj 2016).
- Materiały Polskiej Fundacji CCHS „Zdejmię Kłatwę”. <http://zdejmięklatwe.blogspot.com/> (dostęp: luty 2016).
- Materiały CCHS Support group. <http://www.cchssupport.co.uk/index.html> (dostęp: maj 2016).
- Zelko FA, Nelson MN, Leurgans SE, Berry-Kravis EM, Weese-Mayer DE. Congenital Central Hypoventilation Syndrome: Neurocognitive Functioning in School Age Children. *Pediatr Pulmonol*, 2010; 45: 92–98.
- Montirosso R, Morandi F, D’Aloisio C, Berna A, Provenzi L, Borgatti R. International Classification of Functioning, Disability and Health in children with congenital central hypoventilation syndrome. *Disabil Rehabil*. 2009; 31 Suppl 1: 144–52.
- Hill BP, Singer LT. J Speech and language development after infant tracheostomy. *Speech Hear Disord*, 1990; 55(1): 15–20.
- Kertoy MK, Guest CM, Quart CM, Lieh-Lai M. Speech and phonological characteristics of individual children with a history of tracheostomy. *J Speech Lang Hear Res*, 1999; 42(3): 621–35.
- Woodnorth GH. Assessing and managing medically fragile children: tracheostomy and ventilatory support. *Lang Speech Hear Serv Sch*, 2004; 35(4): 363–72.
- Mitchell RB, Hussey HM, Setzen G, Jacobs IN, Nussenbaum B, Dawson C, Brown CA 3rd, Brandt C, Deakins K, Hartnick C, Merati A. Clinical consensus statement: tracheostomy care. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 2013; 148(1): 6–20.
- Szkielkowska A, Kazanecka E. Emisja głosu. Wskazówki metodyczne. Warszawa: Instytut Fizjologii i Patologii Słuchu, Uniwersytet Muzyczny Fryderyka Chopina; 2011.
- Cieszyńska-Rożek J. Metoda Krakowska wobec zaburzeń rozwoju dzieci. Z perspektywy fenomenologii, neurobiologii i językoznawstwa. Kraków: Wydawnictwo Metody Krakowskiej; 2013.
- Szuchnik J, Skarżyński H. Uczeń – zmysły, komunikacja. Warszawa: Stowarzyszenie Przyjaciół Osób Niesłyszących i Niedosłyszących; 2004.