

Kandidatspeciale

Lena Havtorn

Kan en teknisk fejl være blød?

En undersøgelse af prævalensen for soft failure i cochlear implantater hos børn, samt hvilken påvirkning soft failure kan have på et barns sproglige udvikling.

Audiologopædi

Institut for Nordiske Studier og Sprogvidenskab

Vejleder: Lone Percy-Smith

Afleveret den: 02.11.2016

Abstract

Like other technical devices, cochlear implants (CI) are prone to technical failures. A continuous rise in children with implanted devices is expected in the future, which means that most CI-centers will experience implants with device failure. In this thesis, a distinction of device failure is divided into hard failure and soft failure (SF). Diagnosing SF in children is a very complex process, which relies heavily on identification of often very discrete indications of a reduced or insufficient clinical benefit from CI, as these technical malfunctions are undetectable by present in vivo testing methods.

The purpose of this thesis is twofold. The primary purpose is an investigation of the prevalence of SF in CI in children. This will be conducted as a systematic review of relevant international studies. The secondary focus is an investigation of how SF can influence the development of hearing and speech in children who have experienced SF. A single case study is presented as an empirical insight into a child's possible auditory benefit from reimplantation due to SF. A Tait Video Analysis is used to analyze the child's development of preverbal communication skills in four Auditory-Verbal-Therapy sessions.

The primary result shows an estimated prevalence of 0.3-3.7 % for SF. This indicates, that SF is a relatively rare occurrence in CI in children. In spite of this, it is important that professionals are aware of the indications for SF in children. It is also important quickly and efficiently to diagnose and reimplant children to insure an optimal auditory outcome of the CI treatment, in order for the child to develop age-appropriate hearing and speech abilities. The results from the secondary focus show, that most children who experience SF improves their auditory and speech recognition abilities after reimplantation. The case study shows improved auditory and speech perception skills post CI-reimplantation after a suspected SF. Despite this the prognosis for the case subject and his future developmental outcomes are still uncertain.

Throughout this thesis it is evident, that there is an inconsistent terminology and classification of technical failure types. This complicates general and standardized categorizations and comparisons across manufacturers and research studies.

Indholdsfortegnelse

1. Indledning	1
1.1 Problemformulering	2
2. Specialets opbygning	4
2.1 Begrebsafklaring og afgrænsning af fokus	4
3. Specialets teoretiske baggrund	6
3.1 Cochlear implantat og dets funktion	6
3.2 Udvalgte påvirkende faktorer i relation til børns auditive udbytte af CI	7
3.2.1 Hjernens plasticitet.....	7
3.2.2 Kognitive færdigheder	9
3.2.3 Cytomegalovirus (CMV)	9
3.3 Dansk praksis for CI-behandling af børn	10
3.3.1 Udredning og operation	10
3.3.2 Audiologisk efterbehandling efter CI-operation.....	11
3.3.3 Auditory-Verbal Therapy	12
4. Metoder	14
4.1 Metode - Litteraturstudie	14
4.2 Metode - Casestudie	16
4.2.1 Tait Video Analysis.....	17
5. Fejltilstande på cochlear implantater	20
5.1 Medicinske svigt	20
5.2 Tekniske svigt	21
5.3 Gennemgang af standarder for kategorisering af fejl på CI	21
5.3.1 ISO-standardiseringen.....	21
5.3.2 Internationale anbefalinger – et forsøg på forbedring.....	22
5.3.3 Revidering af ISO-standarder	27
5.3.4 Amerikansk konsensus.....	28
6. Litteraturstudie: Prævalens for soft failure	30
6.1 Resultater for de undersøgte fokusområder	34
6.1.1 Studiernes tidsaspekter	34
6.1.2 Aldersaspekter noteret i litteraturen	34
6.1.3 Failure rates	35
6.1.4 Mulige forklarende variabler som årsag til soft failure	37
6.2 Nye problemstillinger identificeret i forskningslitteraturen	39
6.2.1 Variation i kategoriseringen af komplikationer efter CI-operationer	39
6.2.2 Variation i klassificeringen af tekniske fejltilstande i CI	39
6.3 Opsummering af resultater for litteraturstudiet	40
7. Soft failures og sproglig udvikling	42
7.1 Generel sprogudvikling hos børn med CI	42
7.2 Soft failure og påvirkning på barnets auditive og sproglige udbytte	42
7.2.1 Fejlfindingsindikatorer for soft failure	42
7.2.2 Amerikanske anbefalinger til diagnosticering af soft failure	44
7.2.3 Sprogudvikling efter reimplantering i forbindelse med soft failure	47

7.2.4 Yderligere faktorer kan påvirke udbyttet af CI hos børn efter reimplantation	48
8. Casestudiet.....	50
8.1 Præsentation af case.....	50
8.2 Resultater – Tait videoanalyse af AVT undervisning.....	53
8.3.1 Resultater – AVT, første undervisning.....	53
8.3.2 Resultater – AVT, anden undervisning	57
8.3.3 Resultater – AVT, tredje undervisning.....	60
8.3.4 Resultater – AVT, fjerde undervisning.....	63
8.3.5 Samlede resultater for AVT-undervisningerne	66
8.4 Casestudiet i relation til forudgående viden.....	70
8.4.1 Min case i relation til CMV, hjernens plasticitet og kognitive færdigheder	70
8.4.2 Soft failure og fejlfinding i relation til min case	71
8.4.3 Min case og sprogligt udbytte efter reimplantation.....	72
8.5 Opsummering af resultater for casestudiet	73
9. Diskussion.....	74
9.1 Diskussion af specialets metoder	74
9.1.1 Litteraturstudiets metode.....	74
9.1.2 Casestudiets metode.....	75
9.2 Diskussion af tematikker præsenteret i specialet.....	76
9.2.1 Producenters kategorisering og rapportering af tekniske fejltilstande.....	76
9.2.2 Variation i terminologi	79
9.2.3 Tids- og aldersaspekter i relation til sprogudvikling ved soft failure.....	80
9.2.4 Prævalens for soft failure	82
9.2.5 Forklarende variabler som årsag til soft failure	82
9.3 Afsluttende diskussion	84
9.3.1 Håndtering af soft failure i audiologopædisk praksis.....	84
9.3.2 In vivo målemetoder	88
9.3.3 Prævalens for SF i relation til dansk audiologopædisk praksis.....	89
10. Konklusion	90
11. Perspektivering	92
Referencer	94
Bilagsoversigt.....	I

Oversigt over figurer og tabeller

Figur 1.	Funktionen af et cochlear implantat.	s. 7.
Figur 2.	Kategoriseringsoversigt for rapportering af CI-devices.	s. 24.
Figur 3.	Plot over CSR-udviklinger over tid.	s. 26.
Figur 4.	Egen fremstilling af optimeret kategorisering af tekniske fejltilstande i hhv. HF og SF i forbindelse med både in vivo og ex vivo undersøgelser.	s. 29.
Figur 5.	Amerikansk tjekliste til diagnosticering af SF.	s. 45.
Figur 6.	Beslutningstræ til klinisk evaluering af patienter med SF-diagnose.	s. 46.
Figur 7.	Case S's audiogrammer før og efter reimplantering af CI.	s. 52.
Figur 8.	Grafisk fremstilling af S's analysescores fra februar-maj 2016.	s. 67.
Figur 9.	Grafisk fremstilling af analysescores på baggrund af ytringernes kommunikative kvalitet.	s. 69.
	Oversigtstabel for litteraturstudiet.	s. 32.
Tabel 1.	Tabel over analyseparametre til videoanalyse	s. 18.
Tabel 2.	Oversigt over mulige medicinske komplikationer samt tekniske fejltilstande i cochlear implantater.	s. 27.
Tabel 3.	Egen udregning af procentsatser for rapporterede forekomster af SF i litteraturen.	s. 37.
Tabel 4.	Oversigt over fejlfindingsindikatorer for soft failure hos børn med CI.	s. 43.
Tabel 5.	Tait videoanalyse, 10. februar 2016.	s. 54.
Tabel 6.	Tait Videoanalyse optælling, første undervisning.	s. 56.
Tabel 7.	Tait Videoanalyse, 9. marts 2016.	s. 57.
Tabel 8.	Tait Videoanalyse optælling, anden undervisning.	s. 60.
Tabel 9.	Tait Videoanalyse, 13. april 2016.	s. 61.
Tabel 10.	Tait Videoanalyse optælling, tredje undervisning.	s. 63.
Tabel 11.	Tait Videoanalyse, 18. maj 2016.	s. 64.
Tabel 12.	Tait Videoanalyse optælling, fjerde undervisning.	s. 66.
Tabel 13.	Optimeret oversigt over fejlfindingsindikatorer for soft failure hos børn med CI.	s. 86.

Oversigt over forkortelser

CI	Cochlear implantat
HA	Høreapparat
AVT	Auditory Verbal Therapy
DF	Device failure
HF	Hard failure
SF	Soft failure
VT	Verbal turtagning
GT	Turtagning med gestik
VA	Autonomi verbal
GA	Autonomi gestik
NLVT	Non looking vocal turn
NLT-S	Non looking sign turn
NR	No response
IF	Impact factor

1. Indledning

Som andre tekniske apparater kan cochlear implantater (CI) opleve tekniske fejl. En specificerende karakteristik af disse fejl er dog besværet, da der ikke findes en entydig karakterisering og håndtering af de tekniske fejltyper i den kliniske praksis verden over.

I dette speciale inddeles tekniske fejltilstande efter detekterbarheden af fejltyperne i henholdsvis hard failure (HF) og soft failure (SF). HF er en teknisk fejltilstand der kan diagnosticeres og bekræftes af nuværende in vivo undersøgelsesmetoder, fx integritetstests. En SF er derimod meget mere kompleks, da den ikke er mulig at detektere og bekræfte via in vivo målemetoder. SF defineres som en teknisk fejltipe, der baseres på en mistanke om tekniske komplikationer med et implantat med udgangspunkt i indikationer på et reduceret auditivt og sprogligt udbytte af CI hos brugeren.

Dette speciale forsøger at afdække denne problemstilling for SF i CI hos børn. Her undersøges en afklaring af mulige SF i CI, indikationerne på SF, samt hvilke påvirkninger disse ”bløde” fejl kan have på børns auditive og sproglige udbytte af CI.

Hvert år ses der på verdensplan en stigning i antallet af cochlear implanterede børn (Lassig, Zwolan, & Telian, 2005). I Danmark skønnes det, at 24-36 børn på hver fødselsårgang har behov for CI-behandling inden 6 års alderen. Hertil gælder det for 95 % af børn født med svær hørenedsættelse, at forældrene er normalthørende. For disse forældre er forhåbningen, at en CI-behandling af barnets høretab skaber det optimale potentiale for, at barnet opnår aldersvarende talesprog (Sundhedsstyrelsen, 2012). I takt med, at antallet af CI-opererede børn stiger, kan det forventes, at flere CI-centre vil opleve en forekomst af tekniske fejl i CI. Det er derfor af afgørende betydning, at tekniske fejl identificeres og hurtigt tages hånd om, så professionelle kan sikre barnet en optimal CI-behandling.

Diagnosticering og udredning af SF er dog præget af langt større kompleksitet end ved HF. Hvor HF kan detekteres via objektive test og dermed hurtigt føre til en reimplantering, anvendes SF som diagnose på baggrund af en vurderet mistanke om tekniske fejl, der ikke kan bekræftes af objektive målemetoder. At diagnosticere SF hos børn er meget anderledes og langt mere udfordrende end hos voksne, da små børn ikke på samme måde kan give udtryk for mange af SF-indikatorerne. Dette gør diagnosticeringsprocessen meget kompleks

og udfordrende, og processen styres primært af et samarbejde mellem barnets familie og professionelle fra CI-centret (Balkany et al., 2005). Det er derfor vigtigt, at audiologopæder og andre professionelle, der omgås et barn med CI, har den bedst mulige viden og de nødvendige redskaber og kompetencer til at identificere og håndtere indikationerne på tekniske fejl på in vivo implantater, så et barn er sikret en vedvarende optimal CI-behandling.

1.1 Problemformulering

Specialet vil undersøge de introducerede tekniske fejltyper samt forekomsten af SF i international forskningslitteratur, da der i Danmark ikke findes lignende undersøgelser eller data for prævalensen for tekniske fejl i CI hos børn.

Det primære fokus er derfor en undersøgelse af prævalensen af rapporterede SF-problematikker hos børn med CI udformet som et litteraturstudie. Hertil undersøges mulige fejlfindingsindikatorer for SF, samt hvilke påvirkninger SF kan have på den sproglige udvikling hos børn med CI.

Som et sekundært fokus for denne opgave udformes en empirisk undersøgelse i form af et casestudie. I dette studie undersøges det, hvorledes en 5-årig dreng udvikler verbalt sprog efter reimplantation på baggrund af mistanke om SF i løbet af fire måneder.

Specialets formål:

- En primær undersøgelse af prævalensen af rapporterede soft failure problematikker hos børn med cochlear implantater.
- En sekundær empirisk undersøgelse af et barns udvikling af verbalt sprog efter reimplantation på baggrund af mistanke om soft failure.

Specialets underformål:

1. En specificering af kliniske beskrivelser af de tekniske fejltilstande device failure, hard failure og soft failure.
2. En undersøgelse af international forskningslitteratur for prævalensen for soft failure.
3. At karakterisere fejlfinding for soft failure samt mulige konsekvenser heraf for den sproglige udvikling hos børn med CI.
4. En perspektivering af litteraturstudiet samt forudgående sproglige karakteristikker med et casestudie.

5. Ved anvendelse af Tait Video Analysis som metode i et casestudie undersøges en drengs præverbale sproglige udvikling efter reimplantation af CI grundet mistanke om soft failure.

2. Specialets opbygning

Specialet indledes med en kort begrebsafklaring, hvorefter den teoretiske baggrund for opgaven præsenteres i form af udvalgte teoretiske afsnit om funktionen af CI, hjernens plasticitet, kognitive færdigheder, Cytomegalovirus samt en præsentation af de danske retningslinjer for CI-behandling af børn. Efterfølgende redegøres for specialets to metodiske udgangspunkter. Det efterfølgende kapitel specificerer kliniske beskrivelser af de tekniske fejltilstande (underformål 1), hvorefter opgavens primære litteraturstudie præsenteres og litteraturen analyseres (underformål 2). Den anden del af specialet baseres på specialets sekundære fokus til undersøgelse af mulige påvirkninger, som SF kan have på sprogudviklingen hos børn med CI. Dette undersøges indledningsvis i litteraturen (underformål 3), hvorefter casestudiet analyseres og inkluderes som et kvalitativt indblik i problemstillingen (underformål 4). Afslutningsvis diskuteres specialets metoder og resultater.

2.1 Begrebsafklaring og afgrænsning af fokus

I dette afsnit vil jeg kort redegøre for nogle af de gennemgående begreber og betegnelser der anvendes i specialet og derefter afslutte med en afgrænsning af specialets fokus.

Begreber og betegnelser:

- **Device failures:** Overbegreb for alle typer af tekniske fejltilstande i cochlear implantater
- **Hard failures:** Betegnelse for en teknisk fejltilstand i et implantat, som kan identificeres ved brug af in vivo undersøgelse af implantatet, fx ved brug af integritetstest.
- **Soft failures:** Betegnelse som anvendes ved mistanke om en teknisk fejltilstand i et implantat, fx grundet reduceret udbytte af CI, som dog ikke kan bekræftes via in vivo undersøgelse af implantatet.
- **In vivo:** Betegnelsen anvendes i dette speciale for undersøgelse af implantater, der befinder sig indopereret i CI-brugeren.
- **Ex vivo:** Betegnelsen anvendes i dette speciale for undersøgelse af implantater, der er eksplanterede og som ikke længere er indopereret i CI-brugeren.
- **CI-operation:** En operation hvor cochlear implantatet og elektroden indopereres i cochlea hos en person.

- **CI-reimplantation:** En operation hvor et implantat fjernes og erstattes af et nyt.
- **Revisionskirurgi:** En operation der skal afhjælpe en komplikation efter den primære CI-operation, men hvor implantatet ikke fjernes.
- **CI-eksplantation:** En operation hvor et implantat fjernes.
- **Device:** "Any internal CI component that is explanted or is left in vivo but is not within specification or providing expected clinical benefit according to ex vivo testing." (Battmer et al., 2010, s. 1192).
- **Clinical benefit:** "Patient performance is better than before the initial cochlear implantation, as demonstrated by speech reception test results, behavioral measures, pure-tone thresholds, and objective measures." (Battmer et al., 2010, s. 1191).
- **In specification:** "Technical characteristics of a specific CI device that have been stated by the manufacturer to the notified body/competent authority when applying for market approval." (Battmer et al., 2010, s. 1191).
- **Out of specification:** "Any cochlear implant internal device having one or more technical characteristics outside the limits of normal function, established by the manufacturer, for clinical use resulting in explantation or nonuse by the patient." (Backous & Watson, 2007, s. 92S).
- **Impact factor:** "Impact Factor is a measure of the frequency with which the "average article" in a journal has been cited in a given period of time. The impact factor is used as standard dimension and the relative importance of a scientific journal within its field. The Impact Factor is calculated by several scientific methods including citation analysis" (<http://www.citefactor.org/page/impact-factor>).

Specialets henvender sig til personer med forudgående audiologopædisk kendskab og viden. Det skal påpeges, at der i specialet ikke foretages en vurdering rettet mod specifikke CI-producenter eller -produkter. Specialets vil ikke indeholde beskrivelser af tematikker inden for kriterier for kandidatur til CI-behandling eller betingelser for fitting og justering af CI i computersoftware, eksempelvis MAPping og T- og C-levels. Det anderkendes dog at dette også er relevante faktorer at være opmærksom på i CI-behandlingen af børn.

3. Specialets teoretiske baggrund

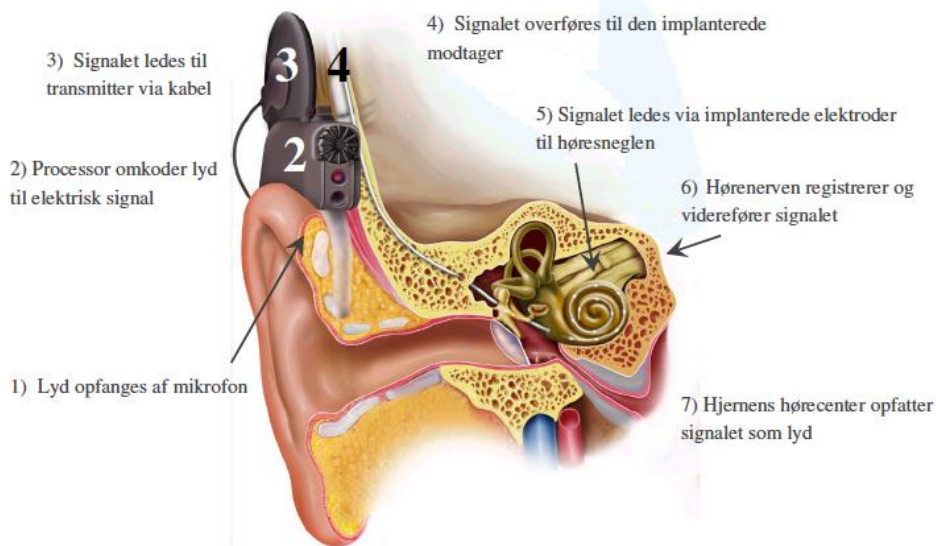
I dette kapitel vil jeg kort fremstille den overordnede baggrundsviden vedrørende funktionen af CI, vigtige påvirkende faktorer i relation til børns auditive udbytte af CI, samt fremstille de nuværende danske retningslinjer for klinisk håndtering af børn med CI i Danmark.

3.1 Cochlear implantat og dets funktion

Det skønnes, at der i alt vil være 24-36 børn på hver fødselsårgang som inden 6 års alderen har behov for CI-behandling i Danmark. Dertil vil der være 10-12 børn årligt, som har behov for CI, hvis høretab progredierer eller som får svært-profund høretab efter sygdom, som fx meningitis (Sundhedsstyrelsen, 2012).

Børn og voksne CI-behandles hvis der ses et svært til profund sensorineuralt høretab, og hvor vedkommende ikke har tilstrækkeligt gavn af behandling med høreapparat (HA). Ved et sensorineuralt høretab er funktionen af de sensoriske hårceller i cochlea beskadiget. Et CI indopereres med en elektrode, der indsættes i cochlea, og som gennem ca. 22 elektrodepunkter¹ sender elektriske impulser direkte til gangliacellerne i cochlea. Herved er funktionen af de beskadigede hårceller ikke nødvendig. Elektroden stimulerer den auditive nerve elektrisk og skaber mulighed for, at hjernen modtager de nødvendige nerveimpulser, som opfattes som lyd (Russell, Pine, & Young, 2013). Et CI fungerer således, at en ydre processor (2) (se figur 1 nedenfor), der bæres bag øret ligesom et HA, opfanger et akustisk signal gennem en ekstern mikrofon. I processoren bearbejdes det akustiske signal og omformes til et digitalt signal, som sendes videre til den ydre transmitter (3). Den ydre del af et CI holdes fast mod det indopererede implantat ved hjælp af magneter indsat i begge komponenter. Det digitale signal overføres fra transmitteren ind til modtageren i implantatet (4), hvorefter signalet sendes videre som et elektrisk signal til elektrodepunkterne i cochlea (5). Hørenerven bliver derefter stimuleret på specifikke steder på hørenerven alt efter den lydige kvalitet (6), og signalet sendes videre op til hjernen (7).

¹ Antallet af elektrodepunkter varierer fra producent til producent.



Figur 1. Funktionen af et cochlear implantat. Figuren er fra Sundhedsstyrelsen (2012).

De elektriske impulser der genereres fra et CI og sendt til ganglia-cellerne i cochlea gør, at det auditive signal til hjernen er meget anderledes end hos normalthørende, og hjernen skal derfor først lære at afkode og percipere signaler som signaler med auditiv betydning (Kral & Tillein, 2006). Derfor er intensiv auditiv stimulering og lydtræning vigtig, når barnet med CI skal lære at skelne talelyde og viderefotolke det akustiske input til meningsfuld auditiv information (Sharma et al., 2011).

3.2 Udvalgte påvirkende faktorer i relation til børns auditive udbytte af CI

I det følgende vil jeg redegøre for hjernens plasticitet, kognitive færdigheder, samt uddybe virussen Cytomegalovirus (CMV) som årsag til høretab, da CMV skønnes at være den potentielle årsag til høretabet hos barnet i specialets casestudie.

3.2.1 Hjernens plasticitet

Det er vigtigt meget tidligt i et barns liv at sikre en optimal auditiv stimulering. Når hjernen stimuleres dannes nye neurale forbindelser. Denne proces betegnes som hjernens plasticitet, som defineres i Kral & Tillein (2006) således:

“Neural plasticity is the ability of the nervous system to modify its organization and function based on changing external or internal demands.” (s. 90)

Nervesystemet er altså i stand til at reorganiseres og danne nye neurale forbindelser alt

afhængig af, hvilke ydre og indre behov der er for de forskellige funktioner. En hørebehandling med et CI kan bidrage til, at nervesystemet modtager den nødvendige auditive stimulering, og derved undgår tab af nervernes funktion. Udbyttet af denne behandling nævnes i Kral & Tillein (2006) at være afhængig af følgende faktorer:

Perifære faktorer:

- Processeringen af den akustiske lyd, der foregår i CI'ets ydre processor.
- Elektrodetypen.
- Elektrodens position og længde/omfang i cochlea.
- Omfanget af degeneration i nervebanerne.

Centrale faktorer:

- Tilstande i det centrale nervesystem.
- Nervesystemets grad af plasticitet.
- Personlige kognitive faktorer der er afgørende for, hvor hurtig personen kan tilpasse sig det nye sensoriske input.

Disse faktorer anses af forfatterne af afgørende betydning for, hvor hurtigt et barn med CI kan tilegne sig taleforståelse og sidenhen sprog.

Hvis et barn er født med et profunt høretab bevirker dette, at hjernen ikke modtager den samme auditive stimulering som normalhørende børn. Hvis hjernen ikke modtager auditive informationer over længere tid, medvirker hjernens plasticitet derved til, at områder, der ellers er øremærket til auditiv perception, bliver reorganiseret til andre funktioner. Graden af reorganisering og plasticitetens påvirkning hos et barn afhænger af høretabets størrelse, samt hvor længe barnet har haft en reduceret grad af auditiv stimulering. Længerevarende mangel på auditiv stimulering bevirker, at den auditive nerves funktion reduceres (Kral & Tillein, 2006). Et CI kan afhjælpe dette og kan bidrage med den auditive stimulation, der er nødvendig for, at den auditive del af hjernen kan udvikle sig (Sharma & Campbell, 2011).

Hjernen er plastisk hele livet, men der ses en tidlig periode, hvor hjernens plasticitet er ekstra påvirkelig, og hvor plasticitetens funktioner er øgede i forhold til niveauet af neural plasticitet resten af livet. Dette betyder, at der ses en kritisk periode for den bedst mulige auditive

stimulering via CI. Perioden er mest optimal inden for de første 2-3,5 år af barnets liv, men kan strække sig helt frem til omkring 7 års alderen (Kral & Tillein, 2006; Sharma & Campbell, 2011). Det er derfor vigtigt at hørebehandle børn så tidligt som muligt for at genoprette samt opretholde funktionen af det auditive cortex og nervesystemets evne til at processere auditiv stimulering, og derved sikre et fremtidigt auditivt og sprogligt udbytte af CI.

Dette er den afgørende faktor for, at der i Danmark i 2005 blev indført neonatal hørescreening af nyfødte. Formålet er at identificere høretab hos børn allerede i 2-3 måneders alderen. HA-behandling påbegyndes hurtigt derefter, og det anbefales videre, at eventuel operation til CI-behandling foretages, når barnet er 8-12 måneder gammel (Sundhedsstyrelsen, 2012).

3.2.2 Kognitive færdigheder

Et barns niveau af kognitive færdigheder kan også være en påvirkende faktor for udbyttet af en CI-behandling. Udover et behov for et optimalt auditivt signal fra CI og ind til det auditive cortex, spiller neurokognitive færdigheder en afgørende rolle i børns evner til at tilegne sig sprog. Tilegnelsen afgøres bl.a. af færdigheder inden for hukommelse og læringsprocessor, evnen til hurtigt at afkode auditive input samt koncentrationsevner. Et barns niveau af kognitive færdigheder vil direkte påvirke det forventede udbytte af CI-behandlingen. Jo bedre færdigheder, jo bedre forudsætninger vil der være for barnets auditive og sproglige udvikling efter CI-operation (O'Donoghue & Pisoni, 2014). Audiologopædiske målsætninger for udbyttet bør justeres bl.a. med hensyntagen til barnets kognitive kompetencer (Sundhedsstyrelsen, 2012).

3.2.3 Cytomegalovirus (CMV)

Cytomegalovirus (CMV) kan være en medfødt virus, som er en af de hyppigste infektionsårsager til sensorineuralt høretab hos nyfødte børn. Virussen er en del af herpesvirus-familien og smittes fra moren til barnet under graviditeten. Det estimeres i Viccaro, Filippo, Bosco, Nicastri, & Mancini (2012), at virussen er tilstede i ca. 0,2–2,5 % af alle fødsler. Hos ca. 10 % af børnene medfører virussen fysiske symptomer ved fødslen. Symptomerne kan være, at nogle børn ikke vokser tilstrækkeligt under graviditeten, eller at de har hududslæt og betændelsestilstand i øjnene ved fødslen. Det ses hos langt de fleste nyfødte med CMV, at der ikke udvises symptomer ved fødslen, men at disse først ses inden for barnets første leveår. Hos nogle kan senere symptomer være mental retardering,

forsinkelse i psykomotorisk udvikling eller indlæringsvanskeligheder. Det hyppigste forekommende symptom er et sensorineuralt høretab, som enten kan være tilstede ved fødslen, eller som forekommer senere. Det skønnes at cirka halvdelen af børnene får bilaterale høretab, som kan være profunde enten fra starten eller som resultat af et progredierende høretab (Ciorba et al., 2009; Park, 2013; Viccaro et al., 2012). Viccaro et al. foretog i 2012 en long term follow-up-undersøgelse af seks børn med CMV-virus og deres niveau af sproglig udvikling som udbytte af CI. I studiet ses det, at børnene generelt udviser et positivt udbytte af CI, hvor børn uden symptomer ved fødslen (asymptomatiske) dog viser bedre resultater end børn, der udviste symptomer ved fødslen (symptomatiske). Hertil ses det yderligere, at børnene med CMV scorede lavere i de sproglige undersøgelser sammenholdt med resultater for børn uden CMV som årsag til høretab. Det samme ses i studiet af Ciorba et al. (2009), hvilket, de mener, kan være grundet skader på centralnervesystemet hos nogle børn. Afsluttende konkluderes det, at CI-behandling bidrager positivt til udviklingen af sprog hos børn med CMV, men at medfølgende vanskeligheder, som fx kognitive funktionsnedsættelser samt alder for implanteringen, kan påvirke det overordnede udbytte. I Viccaro et al. (2012) ses det tilsvarende, at børnenes sproglige score med årene nåede et plateau for udvikling, hvor der sås en øget forskel mellem den kronologiske alder og hørealderen med tiden.

Overordnet ses det i ovenstående undersøgelser, at børn med CMV opnår et godt auditivt og sprogligt udbytte af CI. Dog anbefales det videre i Viccaro et al. (2012), at professionelle derfor er opmærksomme på, at barnets udvikling potentielt kan være langsommere og reduceret i forhold til børn uden CMV, og at forældrene bør vejledes herefter.

3.3 Dansk praksis for CI-behandling af børn

I dette afsnit vil jeg kort redegøre for de danske retningslinjer for pædiatrisk cochlear implantation i Danmark. Retningslinjerne fremstiller den nuværende kliniske praksis for udredning, den medicinske-kirurgiske behandling, og den auditive efterbehandling samt monitoreringen og kvalitetssikringen af den audiologiske behandling for børn med CI.

3.3.1 Udredning og operation

En neonatal hørescreening foretages i dagene efter barnets fødsel. Dette undersøges med en måling af otoakustiske emissioner samt mulige målinger af automatiseret Auditory Brainstem

Response. Hvis der er mistanke om høretab hos et barn, henvises familien derefter til videre udredning på audiologisk afdeling. Under udredningen foretages systematiske undersøgelser af eventuelle ætiologiske årsager til høretabet, hvilket bl.a. foretages gennem blodprøver.

Der påbegyndes med HA-behandling af barnets hørenedsættelse ved to-tre måneders alderen, og senest når barnets er omkring seks måneder (jf. hjernens plasticitet). Hvis det bedømmes, at barnets høretab ikke dækkes tilstrækkeligt af et HA, hvorfor en sprogudvikling derfor ikke er mulig, anbefales hørebehandling med CI. Forud for CI-operationen foretages udredende undersøgelser for medicinske og fysiologiske kontraindikationer for kandidatur til CI-behandling, som eksempelvis manglende auditiv nerve. Hertil anbefales pneumokokvaccine til forebyggelse af meningitis som komplikation efter operationen, ligesom der gives information om videre mulige komplikationer efter operationen. Binaural stimulation vælges, hvis ikke monaural stimulation skønnes at være tilstrækkeligt, eller hvis familien ønsker dette. I enkelte tilfælde foretages en bilateral operation konsekutivt.

CI-operationen foregår i fuld narkose med ansigtsnerve-monitorering. Under operationen foretages impedans-, stapediusrefleks-, og neuralresponsmålinger af implantatets funktion.

3.3.2 Audiologisk efterbehandling efter CI-operation

Det påpeges i retningslinjerne, at en tidlig og specialiseret audiologisk indsats efter en CI-operation spiller en afgørende rolle for barnets optimale auditive og sproglige udbytte af implantatet. Efterbehandlingen varetages det første år efter operationen på et specialiseret CI-center. Dette omfatter intensiv og målrettet træning af barnets auditive sans samt inkluderende vejledning af forældrene i relation til stimulering af barnets videre sproglige udvikling. I den forbindelse varetages efterbehandling af audiologopæder med specialindsigt i at arbejde ud fra den evidensbaserede tilgang kaldet Auditory Verbal Therapy (AVT). Tilgangen uddybes nærmere i nedenstående afsnit. Tilsvarende følges barnet i forløbet tæt af et audiologisk team, der varetager den tekniske vurdering og tilpasning af implantatet. De professionelle samarbejder om at monitorere barnets udvikling med CI. Før indsatsen fastsættes specifikke mål for barnets sproglige, kognitive og kommunikative udvikling, hvor det forventes, at barnet med CI gennemgår de samme udviklingstrin som normalthørende, dog tages der her hensyn til barnets kronologiske alder og hørealder samt individuelle forudsætninger.

For monitorering af barnets auditive og sproglige udbytte af CI, monitoreres barnet årligt i 1-5 år efter operationen og igen 10 og 15 år efter operationen. I den forbindelse sikres

kvaliteten af barnets udbytte af CI med mulighed for yderligere audiologisk efterbehandling.

Ovenstående retningslinjer er dog ikke evaluerede i relation til den kliniske praksis på danske CI-centre. Dertil ses ingen danske retningslinjer for, hvorledes et audiologisk team bør håndtere efterbehandlingen i forbindelse med komplikationer efter en CI-operation, og især ikke hvordan man bør handle i situationer, hvor der opleves eller er mistanke om tekniske fejltilstande, og/eller hvor barnet ikke opnår det forventede auditive og/eller sproglige udbytte af CI'et.

3.3.3 Auditory-Verbal Therapy

Auditory-Verbal Therapy (AVT) er en interventionsmetode, der anvendes til børn efter CI-operation². Metoden fokuserer på at udvikle barnets evne til at lytte og til at producere talesprog. Dette er med fokus på at udvikle og styrke barnets kompetencer inden for sprog, auditiv udvikling, talesprog, kognition og kommunikation. AVT-metoden går ud fra følgende ti principper (Sundhedsstyrelsen, 2012; www.agbell.org):

1. *Promote early diagnosis of hearing loss in newborns, infants, toddlers, and young children, followed by immediate audiologic management and Auditory-Verbal therapy.*
2. *Recommend immediate assessment and use of appropriate, state-of-the-art hearing technology to obtain maximum benefits of auditory stimulation.*
3. *Guide and coach parents to help their child use hearing as the primary sensory modality in developing spoken language.*
4. *Guide and coach parents to become the primary facilitators of their child's listening and spoken language development through active consistent participation in individualized Auditory-Verbal Therapy.*
5. *Guide and coach parents to create environments that support listening for the acquisition of spoken language throughout the child's daily activities.*
6. *Guide and coach parents to help their child integrate listening and spoken language into all aspects of the child's life.*
7. *Guide and coach parents to use natural developmental patterns of audition, speech, language, cognition, and communication.*
8. *Guide and coach parents to help their child self-monitor spoken language through*

² Rundt om i verden er der stor debat om, hvorvidt børn med CI bør modtage intervention baseret på tegn og visuelle støttesymboler eller auditiv-verbal intervention efter CI-operation. Da det ikke er specialets formål at diskutere denne problemstilling, tages der udgangspunkt i en auditiv-verbal intervention, da dette anbefales i de danske retningslinjer, og da denne interventionsmetode anvendes til min case (O'Donoghue & Pisoni, 2014; Sundhedsstyrelsen, 2012).

listening.

9. *Administer ongoing formal and informal diagnostic assessments to develop individualized Auditory-Verbal treatment plans, to monitor progress and to evaluate the effectiveness of the plans for the child and family.*
10. *Promote education in regular schools with peers who have typical hearing and with appropriate services from early childhood onwards.*

Metoden formidles af specialuddannede AVT-terapeuter. Terapeuten arbejder ud fra de ovenstående principper og har stor fokus på inddragelse af forældrene i interventionen. Terapeuten lærer forældrene en række teknikker og strategier for at støtte og hjælpe barnets auditive og verbale udvikling på vej. Derudover er det vigtigt, at den professionelle tager udgangspunkt i både barnets og familiens individuelle forudsætninger i tilrettelæggelsen af undervisningen, hvor det primære fokus er, at barnet opnår den bedst mulige udbytte af CI (Sundhedsstyrelsen, 2012).

4. Metoder

I dette kapitel præsenteres de metodiske udgangspunkter for specialets fokusområder. Først redegøres for metoden bag opgavens primære fokus; et litteraturstudie til undersøgelse af prævalensen af SF i den internationale litteratur. Herefter fremstilles de metodiske overvejelser bag opgavens sekundære fokus, der omhandler en mindre singlecase undersøgelse af en drengs sproglige udvikling efter foretaget reimplantation på baggrund mistanke om SF.

4.1 Metode - Litteraturstudie

Mit litteraturstudie bygger på en indsamling af internationale retrospektive undersøgelser med relevans til undersøgelsen af prævalensen for dokumenteret SF hos børn med CI.

Udgangspunktet for indsamlingen af brugbar data til undersøgelsen blev baseret på en systematisk litteratursøgning i udvalgte databaser beskrevet nedenfor. Som kontrol af den systematiske søgning, samt som forsikring af at relevant litteratur var fundet, blev søgningen suppleret af kædesøgninger fra den fundne litteratur foretaget via rex.dk og googlescholar.com.

Den strukturerede litteratursøgning blev foretaget i databaserne Medline, Eric, EMBASE og PsycInfo. Søgningen blev først foretaget med følgende søgeord: *cochlear implant**, *child**, *soft failure*, *electrode*, *fail**. I søgningen blev den boolske operatør *AND* samt trunkeringen *** anvendt. Når trunkeringen noteres i slutningen af et ord, søger databasen både på ordet samt ordets mulige endelser, fx *child/children*.

Efter den første søgning erfarede jeg dog, at der i forskningslitteraturen ikke var en konsekvent kategorisering og distinktion mellem termerne DF, HF og SF samt anvendelsen af termonologierne. Derfor blev en supplerende litteratursøgning foretaget med inklusion af søgeordet *device failure**. Efter litteratursøgningerne foretog jeg en screening af de fundne artiklers relevans ud fra følgende inklusions- og eksklusionskriterer:

Inklusionskriterier:

- Større retrospektive studier udgivet fra 2010 – 2016.
- Omhandler børn (under 18 år) med CI.
- Omhandler problematikker vedr. CI-operationer og komplikationer efter disse heriblandt tekniske fejltilstande.
- Resultater for undersøgelsen kan identificeres som isolerede data for børn.

Eksklusionskriterier:

- Studier som ikke specificerer eller nævner en forekomst af tekniske fejltilstande.
- Studier som kun omhandler voksne CI-brugere.
- Studier der ikke skelner/opdeler resultater for henholdsvis voksne og børn.
- Studier udelukkende med formålet at foretage specificeringer og/eller sammenligninger af kvalitetsvariationer mellem bestemte CI-produkter og/eller CI-producenter.

Gennem litteratursøgningerne blev 52 artikler identificeret. Ved screening af de pågældende artiklers abstracts blev 25 artikler udvalgt til gennemlæsning, vurdering og sortering af relevant materiale med udgangspunkt i ovenstående inklusions- og eksklusionskriterier. I denne proces blev endeligt 16 studier valgt til videre inklusion og analyse i det udformede litteraturstudie.

Undervejs i udvælgelsesprocessen blev følgende dyberegående eksklusionsovervejelser foretaget af de 25 studier. Ét studie blev ekskluderet, da det kun indeholdte data for to børn. Hertil blev et andet studie ekskluderet, da dette studie kun baserede sine data på en meget snæver børnegruppe for børn yngre end tolv måneder, samt da studiet ikke oplyste en tidsramme for datagrundlaget. Fire studier blev ekskluderet, da det ikke var muligt at aflæse isolerede resultater for den undersøgte population af børn, da studierne inkluderede data for både børn og voksne CI-brugere. Et enkelt studie blev ekskluderet, da undersøgelsen ekskluderede ”spontaneous failures”, som vurderes til at være tekniske SF-problematikker. Ligeledes er et enkelt studie ekskluderet, da dette studie ekskluderer en stor andel af DF, da forekomsten og håndteringen af DF først skete efter studiets afslutning. Da mit speciale, som tidligere nævnt, ikke er rettet mod en vurdering af specifikke produkter eller producenter, blev to studier ekskluderet, da netop dette var det primære fokus.

Som rettesnor for analysen af den udvalgte internationale forskningslitteratur opstillede jeg følgende fokusområder for vurderingerne af prævalensen for SF:

- Studiers tids- og aldersaspekter for børnene.
- Failure rates og/eller reimplantation rates.
- Mulige forklarende variabler som årsager til SF.

Som supplerende til mit primære fokus for litteraturstudie vil jeg undersøge mulige data for failure rates og/eller reimplantation rates, da disse data kan bidrage til en mere håndgribelig estimering af prævalensen for SF. Herefter vil jeg illustrere de forskellige studiers tidsaspekter og aldersaspekter for børnene for at undersøge, om disse parametre kan have en påvirkning på andelen af tekniske fejltilstande. Herudover undersøges det, hvorvidt litteraturen fremstiller forklarende variabler, som kan virke som mulige årsager til SF.

Derudover bliver forskningslitteraturen anvendt til, i samspil med anden supplerende litteratur, at indsamle relevant litteratur til specialets tredje underformål; *At karakterisere fejlfinding for soft failure samt mulige konsekvenser heraf for børn med CI*. De identificerede karakteristika præsenteres i kapitel 7, hvortil disse perspektiveres yderligere gennem mit casestudie.

4.2 Metode - Casestudie

I det følgende afsnit vil jeg redegøre for formålet og anvendelsen af mit casestudie som udgør specialets sekundære fokus. Her følger en beskrivelse af det metodiske udgangspunkt for analyse og resultatindsamlingen i min case.

Som tidligere nævnt er specialets overordnede formål bl.a. at forsøge at karakterisere fejlfinding samt sproglige og udviklingsmæssige konsekvenser for børn, hvor der er mistanke om SF. Jeg har derfor valgt at inkludere et enkelt casestudie med en 5-årig dreng ”S”, som er blevet reimplanteret monauralt efter mistanke om SF-problematik. Formålet med inkluderingen af et casestudie er, at bidrage med et kvalitativt indblik i problemstillingen, samt at dette eksempel vil virke som et perspektiverende element, både til opgavens litteraturstudie, men også til de mulige sproglige konsekvenser, der kan være for børn ved mistanke om SF-problematikker.

Mit casestudie er udformet som en klinisk observation, hvor jeg fulgte drengens Auditory Verbal Therapy-undervisning (AVT) én gang om måneden i fire måneder fra februar til og med maj 2016. Denne undervisning virkede som en auditiv genoptræning efter hans CI-reimplantation med nyt implantat i juni 2015. Jeg videofilmede drengens undervisning i alt fire gange. Forud for den første session udfyldte barnets mor en samtykkeerklæring for godkendelse af anvendelse af videomaterialet til denne opgave (se bilag I). Videokameraet blev placeret på et stativ i baggrunden med fokus på drengens front, så drengens kropssprog, ansigtsudtryk og gestikulationer i interaktionen med den voksne

kunne ses og aflæses. I undervisningen sad jeg afsides i lokalet, mens selve undervisningen foregik ved et bord, hvor audiologopæden, drengen og drengens mor sad. Ved første og tredje undervisning var drengens kommunale audiologopæd også tilstede. Vedkommende var til stede, da det var ønsket, at hun skulle observere drengen AVT-undervisning for bedre at kunne inkorporere disse interventionsstrategier i den generelle intervention med drengen. De fire videooptagelser vil virke som dokumentationsgrundlag for barnets tidlige udvikling af auditiv kommunikation.

4.2.1 Tait Video Analysis

Som metodisk analyse til videooptagelserne anvendes Tait Video Analysis. Jeg har valgt at anvende denne analysemetode, da denne metode anbefales i de danske kliniske retningslinjer for pædiatrisk cochlear implantation i Danmark. Formålet med analysemetoden er at monitorere børns udbytte af den audiologiske intervention efter CI-implantation (Sundhedsstyrelsen, 2012).

Tait Video Analysis er en kvantitativ metode oprindeligt udarbejdet af Margaret Tait i 1989 og sidenhen videreudviklet som en metode til vurdering og monitorering af præverbale kommunikationsfærdigheder hos børn med HA eller CI. Denne metode er relevant, da selv helt små børn i dag hørescreenes og hørebehandles, hvilket giver udfordringer for monitoreringen af udbyttet af barnets CI, da andre standardiserede tests ikke er tilpasset så tidlige udviklingsniveauer.

Videoanalyse som metode til vurdering og monitorering af præverbal sproglig udvikling hos børn med høretab anses som værende en anerkendt og valid anvendelsesmetode. Hertil er det fundet, at metoden potentielt kan give en indikation af barnets videre sprogudvikling med fx CI (Tait, Nikolopoulos, Wells, & White, 2007). Metoden er yderligere blevet vurderet i et dansk materiale af Aagaard & Percy-Smith (2003), som finder, at denne videoanalysemetode også er anvendelig i det kliniske arbejde i Danmark, hvor metoden nu bruges til vurdering og monitorering af børns præverbale sprogudvikling. Dog pointerer forfatterne, at de metodiske vurderinger kan være præget af subjektive vurderinger fra den professionelle, men konkluderer, at metoden dog overordnet bør anses som værende et objektivi vurderingsredskab i klinikken.

Kommunikationen i videooptagelserne skal være én-til-én interaktion mellem barnet og en voksen person, som barnet kender. Ved anvendelsen af denne analysemetode i praksis er det

muligt at danne sig et generelt og objektivt billede af barnets præverbale adfærd og tidligste kommunikative færdigheder. De færdigheder, som undersøges i denne metode, er: Øjenkontakt, kommunikativ turtagning, autonomi og auditiv opmærksomhed. Disse færdigheder er afgørende for børnenes sproglige udvikling, som analyseres og kategoriseres ud fra følgende parametre karakteriseret i Tabel 1 nedenfor.

Parametre	Beskrivelse
Verbal turtagning (VT)	Barnet kommunikerer i sin turtagning med brug af sin stemme enten i form af lyde eller ord. Dette kan være i samspil med brug af gestik, tegn eller mimik. Denne kategorisering noteres med VT.
Turtagning med gestik (GT)	Barnet kommunikerer i sin turtagning udelukkende ved brug gestik, tegn eller mimik uden brug af stemmen. Denne kategorisering noteres med GT.
Autonomi verbal/gestik (VA/GA)	Autonomi forstås som, når barnet udviser eget initiativ eller bidrager med nye aspekter til kommunikationen, hvilket kan være i form af introduktion af ny information, at modsige den voksne eller stille spørgsmål. Autonomi kan udvises både verbalt eller med brug af gestik/tegn. Det vurderes som autonomi, hvis barnets tur indeholder elementer, der ikke forudsiges ud fra den voksnes forudgående bidrag i kommunikationen. Denne kategorisering noteres med VA eller GA.
Non looking vocal/sign turn (NLVT/NLT-S)	Dette parametre, også kaldet "Auditory Awareness", omfatter turtagningsrespons, hvor barnet ikke kigger på den voksne, mens barnet responderer verbalt. Denne type respons illustrerer en ren auditiv opmærksomhed hos barnet, som yderligere indikerer en auditiv processering. Denne kategorisering noteres med NLVT for non-looking respons med verbalytring fra barnet og som NLT-S, hvor barnet udelukkende svarer non-looking ved brug af tegn/gestik.
No Response (NR)	Dette noteres, når barnet ikke responderer.

Tabel 1. Tabel over analyseparametre til videoanalyse (Aagaard & Percy-Smith, 2003; M. Tait, 1993; M. Tait, De Raeve, & Nikolopoulos, 2007; M. Tait, Lutman, & Nikolopoulos, 2001).

Ovenstående parametre er identificeret gennem litteraturen som en løbende videreudvikling af den tidligste anvendelse af kun de fire øverste parametre præsenteret af Tait (1993)

indeholdende VT, GT, Autonomi (VA+GA) og NLVT. I Tait et al. (2007) ses det, at også turtagninger uden respons (NR) bliver noteret og opgjort. NLT-S parameteret er medtaget i min oversigt, da dette parameter er inkluderet i studiet af Aagaard & Percy-Smith (2003). En inklusion af dette parameter i mulige responser hos barnet anser jeg som vigtigt for at redegøre for alle barnets kommunikative responser i interaktionen med den voksne.

Udover de ovenstående parametre er øjenkontakt også en vigtig indikator for barnets præverbale udvikling, barnets fokus og opmærksomhed på den voksne, barnets behov for mundaflæsning samt en indikator for barnets niveau af auditiv opmærksomhed (Tait, 1993). Hvis det vurderes, at barnet anvender øjenkontakt med et specifikt formål, fx at henlede den voksnes opmærksomhed mod noget bestemt, kategoriseres det som en turtagning med gestik (GT).

Ved at anvende denne metode på flere videooptagelser over tid, er det muligt at sammenholde resultaterne fra de forskellige videoobservationer af barnet, og derved få indblik i barnets udvikling. Det gøres ved at optælle hvert af barnets responser inden for de ovenstående kommunikative områder. Dette antal udregnes som en procentdel af det samlede antal muligheder for turtagning for barnet. Turtagningsøjeblikke identificeres ved at vurdere, hvornår den voksne har holdt pauser, som lægger op til, at barnet har en tur i kommunikationen.

Det anbefales, at man til sin analyse optager 5-10 minutters god og repræsentativ interaktion mellem barnet og den voksne, hvortil ca. 2-3 af disse minutter udvælges, transskriberes og analyseres ud fra de præsenterede parametre (Aagaard & Percy-Smith, 2003; Tait et al., 2001). Videoklippene er udvalgt efter situationer, jeg mener bedst illustrerer S's kommunikative færdigheder i interaktionerne. Efter hver analyse vil jeg endvidere optælle og udregne antallet responser fra S, der falder inden for de fremstillede parametre.

5. Fejltilstande på cochlear implantater

Det følgende kapitel omhandler den definatoriske ramme for fejlkategorisering af CI. Først i kapitlet introduceres begrebet device failure (DF), samt underkategorierne soft failure (SF) og hard failure (HF). Dernæst følger en historisk gennemgang af rapporteringsstandarder med udgangspunkt i ISO:5841-2:2000-standardiseringen (International Organization for Standardization). Sidst i kapitlet diskuteres vigtigheden og behovet for skelnen imellem HF og SF.

Ligesom alle tekniske systemer kan CI fejle. Årsagerne til implantatets fejltilstand kan skyldes postoperative medicinske komplikationer eller DF. Hvor medicinske komplikationer skyldes direkte konsekvenser af selve CI-operationen, er DF en elektrisk fejltilstand på den indopererede elektrode, der kan opstå på sigt efter en CI-behandling (Tessa, Sood, & Pecht, 2015). Herved er det nødvendigt for professionelle at foretage en grundig udredning af mulige årsager til fejlfunktioner med videre mulighed for en revisionsoperation eller en reimplantation af implantatet.

5.1 Medicinske svigt

Som ved alle operationer kan der efter operationen opstå større og/eller mindre komplikationer, som enten kræver mindre medicinsk behandling eller direkte reoperationer som behandling for den givne komplikation. Behovet for sådanne operationer ses af Friedmann, Roland Jr., & Waltzman (2014) som værende af stigende betydning, da CI-operationer nu udføres på helt små børn, og da kriterierne for CI-kandidatur gøres bredere. Dette skyldes bl.a., at et enkelt implantat ikke vil opretholde den samme tekniske kvalitet hele livet hos et implanteret barn. Personen vil derfor uanset medicinske eller tekniske komplikationer, være nødsaget til at gennemgå en reimplantation. De hyppigste medicinske komplikationer efter en CI-operation kan bl.a. være infektioner, vævskomplikationer, fejlplacering af elektrode og kolesteatomer (Friedmann et al., 2014; Heman-Ackah & Roland, 2013). Langt de fleste medicinske komplikationer, fx vævskomplikationer, leder til simple revisionskirurgiske indgreb, mens den største årsag til operationer med reimplantation er forårsaget af teknisk DF i implantatet (Balkany et al., 2005; Heman-Ackah & Roland, 2013).

5.2 Tekniske svigt

Efter en CI-operation kan der også opstå tekniske komplikationer, som gør, at selve implantatet ikke fungerer korrekt. Den direkte konsekvens af dette er, at CI-brugeren derved ikke får tilstrækkeligt eller intet auditivt udbytte af CI-behandlingen, hvilket resulterer i et oplevet reduceret clinical benefit. Sådanne tekniske komplikationer kaldes overordnet for DF. En DF-problematik er videre defineret som ethvert device der enten er out of specification fra producenten eller som ikke bidrager til det forventede clinical benefit for CI-brugeren (Battmer et al., 2010; Battmer, 2014).

I mit speciale ønsker jeg at arbejde ud fra en mere detaljeret beskrivelse af variationerne af fejltilstandene inden for DF. Jeg ønsker at anvende begrebet DF som en overordnet terminologi, som yderligere underinddeles i fejltyperne HF og SF. Fejltyperne adskiller sig fra hinanden ved følgende definitioner:

HF er defineret som: En teknisk fejltilstand i implantatet, der resulterer i en fuldstændig blokering af CI-brugerens auditive input, som kan diagnosticeres og bekræftes in vivo.

SF defineres som: En bruger oplever/der er mistanke om komplikationer med CI-implantatet, men hvor den eksakte fejlårsag ikke kan identificeres ud fra nuværende in vivo-tests.

Denne skelnen imellem SF og HF inden for begrebet device failure, vil virke som udgangspunkt for det videre indhold i denne opgave. Det bør dog påpeges, at disse definitioner på nuværende tidspunkt primært kun anvendes i udvalgt forskningslitteratur, og de er ikke at finde i de danske retningslinjer (Sundhedsstyrelsen, 2012).

5.3 Gennemgang af standarder for kategorisering af fejl på CI

Brugen af begrebet device failure og den systematiske kategorisering af fejltilstande i CI kan spores tilbage til indførelsen af den første ISO-standardisering i 1986.

5.3.1 ISO-standardiseringen

For at monitorere implantaters årsager til reimplantationer, samt for at sikre en høj kvalitet og en god reliabilitet og pålidelighed for CI, blev CI i 1986 underlagt den internationale ISO-

standard, som er udviklet til lignende nervestimulerende elektroder som fx pacemakere. Standarden er en rammeforordning for produktionen af disse implantater (Battmer, 2014). Standarden danner yderligere grundlag for rapporteringen af implantaternes clinical performance, deres levedygtighed og den overordnede kvalitet af produkterne. Formålet med ISO-standardiseringen er bl.a. at sikre konsistent rapportering af device-reliabiliteten på tværs af producenter samt internt i den internationale medicinske litteratur og forskning. Som udgangspunkt for sammenligning af produkternes levetid, udregnes deres CSR (Cumulative Survival Rate). CSR afspejler procentdelen af funktionsdygtige devices holdt op imod det samlede antal indopererede implantater. Ved at notere produkternes CSR inden for ISO-standarden er det derved muligt at monitorere kvalitet, levetid og reliabilitet både inden for samme produkt men også på tværs af producenterne.

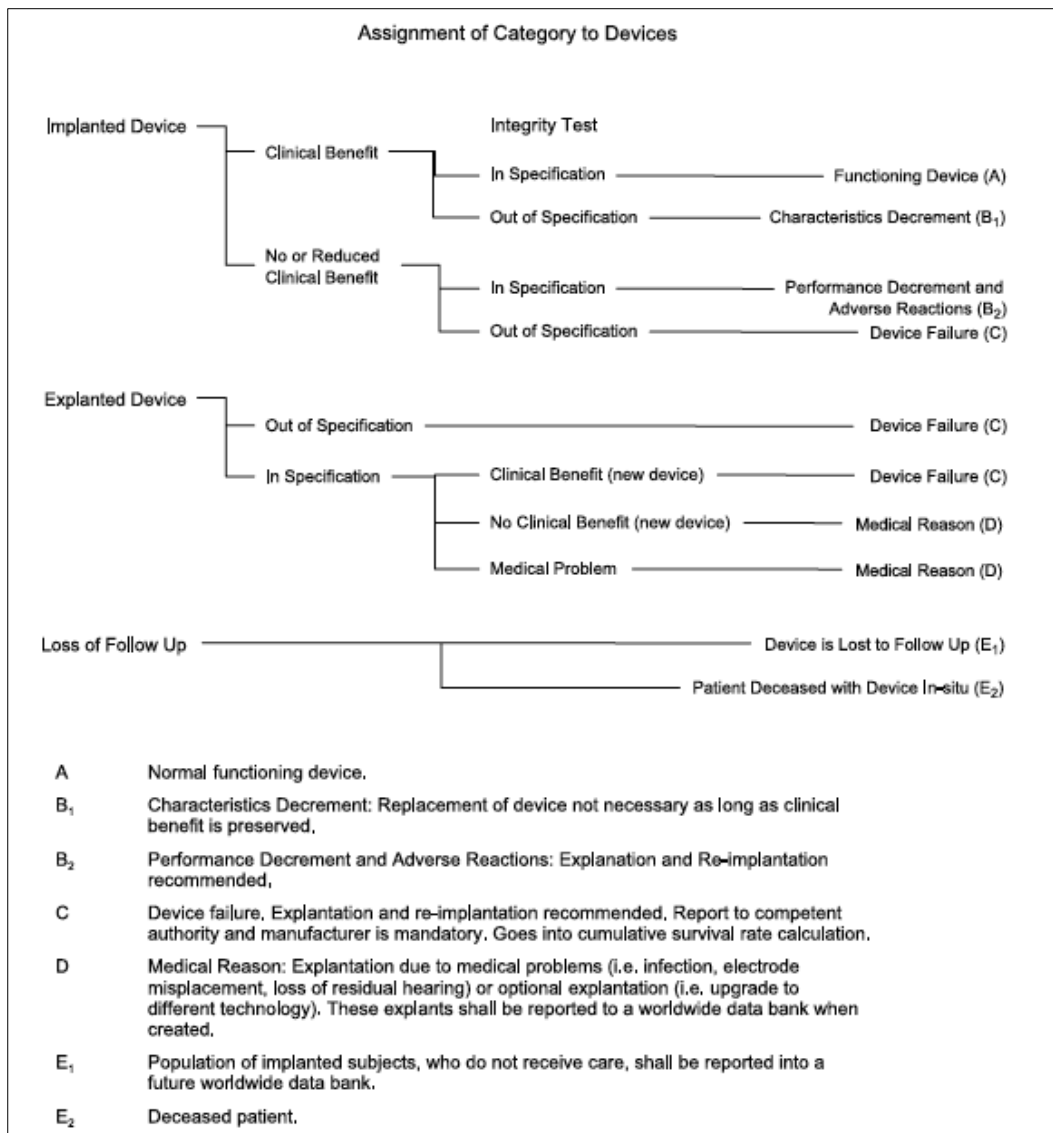
I 2000 blev en revideret udgave ISO:5841-2:2000 udgivet, som CI i dag er underlagt. Denne nye standard indeholder et klassificeringssystem til rapportering af implantater med fejl, bl.a. grundet DF. Dette klassificeringssystem kategoriserer DF som enten "failed devices" eller "devices out of specification". Dette ses dog som en meget grov skelnen mellem fejltyper, hvor det videre er forholdsvis uklart, hvad kategorierne præcist indeholder, samt hvilke parametre der adskiller de to kategorier fra hinanden (Battmer, 2014).

5.3.2 Internationale anbefalinger – et forsøg på forbedring

Disse uklarheder blev netop erfaret af CI-centrene verden over, hvor det var tydeligt, at rapporteringsstandarderne for DF og reliabiliteter for devices blev anvendt meget forskelligt på tværs af CI-producenter. Dette ledte til megen frustration, da centrene derved også havde svært ved at tolke og sammenligne producenternes CSR-statistikker. Herved opstod der internationalt mange forskellige og usammenlignelige data på CI-området. Som reaktion herpå blev der i juni 2005 afholdt et europæisk konsensusmøde mellem større europæiske CI-centre samt repræsentanter fra de forskellige CI-producenter. Målet var at skabe et fælles definitionsgrundlag for klassificeringen af mulige DF, som var mere detaljeret og klarere defineret for både producenter, audiologer og forskere på området (Backous & Watson, 2007; 'European Consensus Statement on Cochlear Implant Failures and Explantations', 2005). Til dette europæiske møde blev der udformet en anbefaling i form af en kategoriseringsoversigt. Det europæiske møde ledte videre til dannelsen af et større internationalt panel af eksperter, som fra november 2005 og frem til juni 2009 mødtes med det formål at optimere de tidligere formulerede retningslinjer både fra ISO-standarden samt fra det europæiske møde. Ønsket

var at skabe mere gennemsigtighed i retningslinjerne, samt at standardisere terminologien for reliabilitet af CI-devices. Det er ønsket at retningslinjerne og oversigten skal sikre, at data for DF på tværs af producenterne kan blive sammenlignelige på parametre som generel performance for specifikke produkter. Derved kan det være muligt at anvende disse data som videre grundlag for identificering af mulige tendenser, der kan afføde fremtidige undersøgelser af mere specifikke årsager til CI-fejlfunktioner (Backous & Watson, 2007; Battmer et al., 2010; Battmer, 2014).

Som produkt af panelets arbejde blev der udformet en optimeret udgave af kategoriseringsoversigten fra det europæiske møde (se Figur 2, s. 24), der fremstiller deres forbedrede retningslinjer, som dog ikke er autoriserede af ISO. Det overordnede mål med kategoriseringsmulighederne for fejlmeldte CI-devices er, at producenternes rapporteringer skelner mellem tekniske eller medicinske årsager som årsager til devices med oplevede fejlfunktioner. CSR udregnes herefter kun for devices med kategoriserede tekniske ætiologier. Udover at fremstille en mere detaljeret kategoriseringsoversigt giver panelets arbejde udtryk for et ønske om en overordnet konsensus for retningslinjer for et overordnet rapporteringsforløb for alle implanterede CI. Disse retningslinjer omhandler bl.a. en specificering af, at alle eksplanterede CI skal returneres til de pågældende CI-producenter til videre undersøgelser, som herefter vil afgøre om implantater er in - eller out of specification.



Figur 2. Kategoriseringsoversigt for rapportering af CI-devices (Battmer et al., 2010).

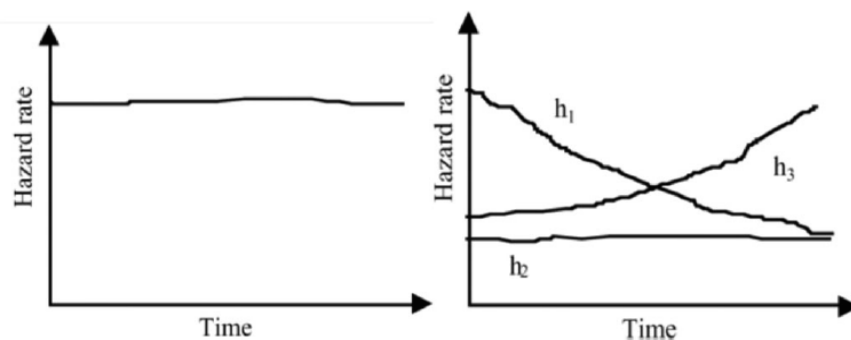
Alle returnerede implantater skal undersøges og inkluderes i CSR-statistikkerne som opdeles i data for voksne og børn. Som det fremgår af Figur 2, har producenterne mulighed for at foretage undersøgelser for årsagerne til mistanke om DF både in vivo, og ex vivo, hvor implantaterne er modtaget fra CI-centrene. Implanterede devices opdeles herefter i en vurdering af, om CI-brugeren har oplevet tegn på reduceret clinical benefit eller ej. Herefter skelnes der mellem om implantatet testes som in - eller out of specification, hvorefter den endelige kategorisering finder sted. In vivo devices kan kategoriseres som følgende: Er det et fungerende device, kategoriseres implantatet som Functioning Device (kategori A). Er der funktioner i implantatet, der viser tegn på fejl, men clinical benefit er intakt, Characteristics Decrement (kategori B₁). Implantatet ses som værende in specification, men der opleves

reduceret/ingen clinical benefit eller andre afvigende reaktioner på implantatet, Performance Decrement and Adverse Reactions (kategori B₂). Implantatet kategoriseres som DF (kategori C), hvis der opleves reduceret/ingen clinical benefit, samt ved et device der testes som out of specification. Ved både kategori B₂ og kategori C (in vivo) anbefales eksplantation og reimplantation af nyt implantat. Det anbefales yderligere, at de eksplanterede devices efterfølgende sendes til ex vivo undersøgelser, for at undersøge årsagerne til DF og/eller det oplevede reducerede clinical benefit. De eksplanterede devices bedømmes først og fremmest med udgangspunkt i, om de er in - eller out of specification. Hvis implantatet bedømmes at være out of specification kategoriseres dette straks som værende DF (kategori C). De devices, der betragtes som værende in specification ved ex vivo testning, vurderes herefter ud fra resultater for CI-brugerens nuværende status for clinical benefit med et nyt implantat. Hvis der opleves en forbedring af clinical benefit hos brugeren, kategoriseres det gamle implantat som værende DF (kategori C). Hvis der ikke opleves en forbedring i clinical benefit hos brugeren med et nyt implantat, eller hvis der findes en medicinsk årsag bag eksplantationen og en eventuel reimplantation, kategoriseres devices som Medical Reason (kategori D). Hvis det skulle ske, at en CI-bruger af ukendte årsager ikke længere følges af det lokale CI-center, eller at brugeren afgår ved døden uden relation til CI-behandlingen, kategoriseres implantatet som hhv. kategori E₁ og E₂ (Battmer et al., 2010).

Ifølge de internationale anbefalinger har producenterne mulighed for at udelukke visse fejlproblematikker fra deres CSR-statistikker (Backous & Watson, 2007). For devices, der testes ex vivo af producenterne anbefales det som tidligere nævnt, at implantatet kategoriseres inden 60 dage. Hvis dette ikke lykkes, bør det pågældende device kategoriseres som "under study" indtil alle analyser er foretaget. Mens implantatet befinder sig i ovenstående kategorisering, inkluderes det i CSR-statistikkerne. Det er dog muligt for producenterne at fjerne data i statistikkerne igen for devices, der efter seks måneder stadig afventer konkluderende ex vivo resultater, som senere viser, at implantatet testes som in specification. I studiet af Tessa et al. (2015) argumenteres der for, at det ikke bør være muligt for producenterne at fjerne data for fejlrapporterede implantater. Studiet omhandler bl.a. en undersøgelse af CI-producenters rapporteringsrammer og påvirkninger på CSR. Forfatterne argumenterer videre for, at et device som testes in specification, men hvor et nyt implantat ikke bidrager til en forbedring af clinical benefit (Kategori D), også bør inkluderes i producenternes CSR-data. De mener, at der hos disse devices stadig findes en mulighed for, at der var en SF-relateret problemstilling i devicet, hvortil andre variabler såsom ny

elektrodetype kan påvirke en brugers benefit. Derudover diskuterer forfatterne, at et forbedret clinical benefit er et meget relativt begreb, der formodes at være subjektivt vurderet, og de argumenterer for, at det generelt ses at spredningen på benefit af samme implantat, kan variere voldsomt på tværs af CI-brugere.

Derudover kritiserer Tessa et al. (2015) de nuværende rapporteringsrammer for ikke at være detaljerede nok. Den manglende detaljeringsgrad, fremstiller de, har en stor påvirkning på de nuværende CSR-data hos producenterne. Dette illustreres i en figur (se Figur 3 nedenfor), hvor det ses, hvordan anvendelsen af en parametriske model (venstre plot) kommer til udtryk, når den anvendes på forskellige datasæt. Isoleres disse datasæt og deres detaljerede indhold, ville et mere detaljeret plot for kategoriseringsdata se ud som på højre plot. Figuren forklares med udgangspunkt i tekniske fejltilstande i CI. Det venstre plot viser derved en CSR udvikling (i figuren kaldet *hazard rate*) for en population bestående af alle tekniske fejltilstande, som ses nogenlunde konstant over tid. Det højre plot viser derimod, at CSR-udviklingen er et artefakt af datasættet, der kan være påvirket af tre forskellige datapopulationer (h_1 , h_2 og h_3) på omtrent samme størrelse. Datasættene repræsenterer forskellige kategoriseringer af tekniske fejltilstande, da forfatterne argumenterer videre, at kategoriseringen og rapportering ikke blot bør opdeles efter fejtyper, fx HF og SF, men at HF videre bør inddeles efter fejlårsager, fx beskadigelse af isoleringsmateriale, der forårsager tab af hermetisk lukke.



Figur 3. Plot over CSR-udviklinger over tid (figur præsenteret i Tessa, Sood & Pecht, 2005, s. 2064).

Dette betyder, at CSR-statistikkerne på nuværende tidspunkt udelukkende viser data baseret på samlede DF (kategori C). Disse data afspejler derfor ikke detaljerede informationer om de tekniske fejltilstande og deres karakteristika, fx om der er tale om HF- eller SF-lignende problemstillinger. Dette argumenterer forfatterne genererer misledende forudsigelser for fremtidige reliabilitetsfordelinger på tværs af CI-produkter og producenter.

For at bidrage til et overblik over de medicinske og tekniske fejltilstande i CI med inklusion af de internationale anbefalinger for kategorisering, har jeg fremstillet Tabel 2 nedenfor.

Medicinske årsager	Tekniske fejltilstande
<p><u>Ex vivo fejlfinding:</u></p> <ul style="list-style-type: none"> • Devices ”in specification” både in vivo og ex vivo, men hvor der <u>ikke</u> opleves en forbedring af clinical performance med nyt implantat (kat. D). • Devices ”in specification” både in vivo og ex vivo, og hvor der identificeres en medicinsk årsag til fejlfunktion (kat. D). <p><u>Eksempler på medicinske komplikationer:</u></p> <ul style="list-style-type: none"> • Infektioner • Vævskomplikationer • Fejlplacering af elektrode • Migration af modtager/implantat 	<p><u>In vivo fejlfinding:</u></p> <ul style="list-style-type: none"> • Funktioner i implantatet der viser tegn på fejl, men clinical benefit er intakt (kat. B₁). • Implantatet ses som værende ”in specification”, men der opleves reduceret/ingen clinical benefit eller andre afvigende reaktioner på implantatet (kat. B₂). • Reduceret/ingen clinical benefit samt et device, der testes som ”out of specification” (kat. C). <p><u>Ex vivo fejlfinding:</u></p> <ul style="list-style-type: none"> • Devices ”out of specificaton” ved ex vivo undersøgelser (kat C). • Devices ”in specification” både in vivo og ex vivo, men hvor der opleves en forbedring af clinical performance med nyt implantat (kat. C).

Tabel 2. Oversigt over mulige medicinske komplikationer samt tekniske fejltilstande i cochlear implantater.

Det ses dog, at disse internationale anbefalinger ikke skelner mellem HF og SF, men i stedet anvender fællesbetegnelsen DF for alle tekniske fejlfunktioner af både implanterede og eksplanterede devices. I et forsøg på at integrere den mere detaljerede inddeling af DF (HF + SF) samt ovenstående kategoriserings-anbefalinger, har jeg fremstillet et forslag til en optimeret figur, (se Figur 4, s. 29), som jeg beskriver nærmere i afsnit 5.3.4.

5.3.3 Revidering af ISO-standarder

Der blev i 2014 udgivet en revideret udgave af ISO-standarderne med titlen ISO:5841-2:2014. Det har desværre ikke været muligt at få adgang til denne standard eller at få indsigt i dets indhold trods undersøgelse på ISO-organisationens hjemmeside³ samt e-mail-korrespondancer med en relevant forskningsafdeling på Danmarks Tekniske Universitet og den danske CI-producent Oticon Medical A/S (se bilag II). Det ses kun muligt at komme standarden i hænde, hvis man betaler et betydeligt beløb på organisationens hjemmeside, hvilket jeg ikke har fundet ressourcer til.

³ http://www.iso.org/iso/catalogue_detail.htm?csnumber=60541

Det ses også, at forskningslitteraturen fortsat ikke konsekvent skelner imellem HF og SF. Hertil nævnes der ingen forskel i procedure eller terminologi for dataindsamlingen i perioden fra indførelsen af standarden i 2014 til i dag⁴. Derfor antages det, at ISO:5841-2:2014 ikke skelner imellem HF og SF i deres retningslinjer for rapporteringsstandarder for fejltilstande på CI.

5.3.4 Amerikansk konsensus

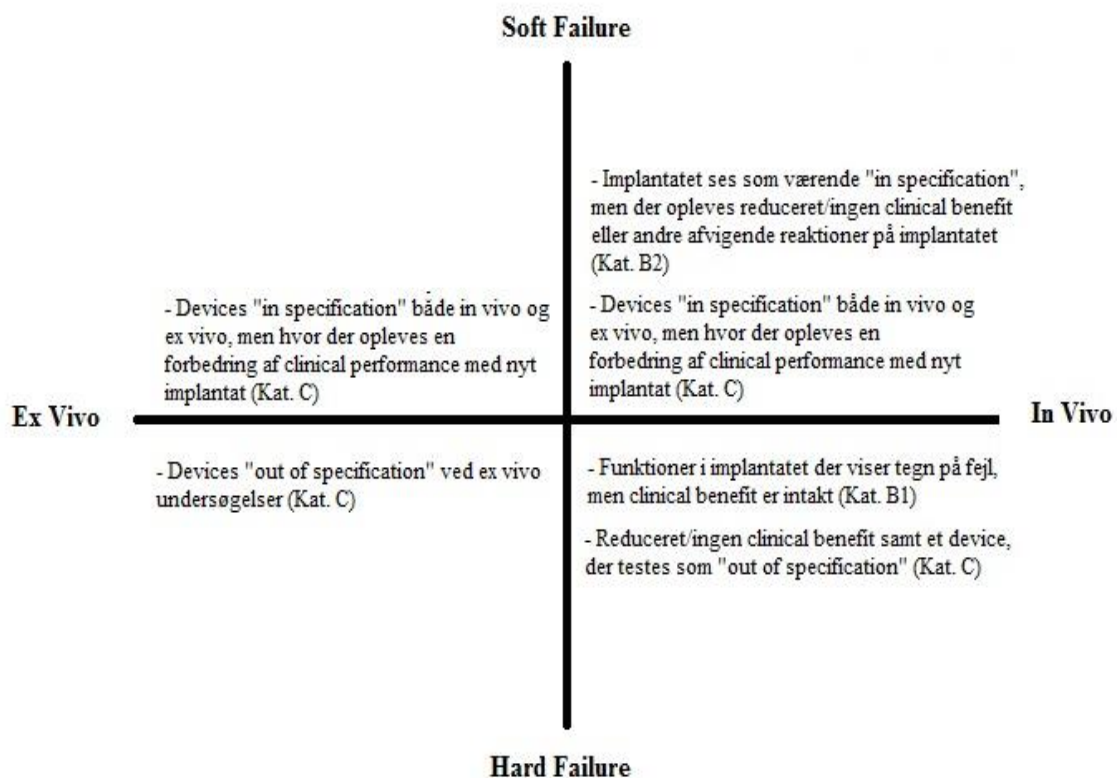
Allerede inden det europæiske og internationale møde blev der i marts 2005 afholdt et lignende amerikansk møde, hvori problematikken om manglende standardisering af fejlrapporteringer blev diskuteret. Der blev i forbindelse med mødet dannet et panel bestående af 19 fagfolk, der alle var direkte involverede i udvikling og produktion samt klinisk arbejde med CI. Formålet med dette panels arbejde var, som det internationale panel i 2005-2009, at bidrage til en optimeret konsensus for terminologi og definition af DF. Herudover var der også et ønske om, at mødet skulle bidrage til mere anvendelige kliniske anbefalinger til udførelse af diagnosticering og håndtering af fejlfunktioner ved CI (Balkany et al., 2005). Det er væsentligt at bemærke, at den amerikanske gruppe tydeligt opdeler det overordnede begreb DF i en mere detaljeret distinktion mellem de diagnostiske kategoriseringer af fejltilstandene i henholdsvis HF og SF. Panelets anbefalinger fra dette møde retter sig i særdeleshed mod audiologisk håndtering ved mistanke om SF.

Den amerikanske gruppe introducerer begrebet SF, der bør anvendes som en working diagnosis. Dette betyder, at SF-diagnosen bruges ved mulige tekniske fejltilstande, der ikke er mulige at redegøre for og videre bekræfte ved brug af nuværende in vivo tests, fx integritetstest. Derfor virker SF som en vejledende diagnose ved mistanke om en teknisk fejltilstand og anvendes som udgangspunkt for den videre udredning og håndtering af fejlproblematikken hos CI-brugeren. SF-diagnosen og den audiologiske indsats er derfor mere kompleks end ved HF, da diagnosen ikke på samme vis kan illustreres og tydeliggøres gennem objektive undersøgelser, men i stedet kræver, at der tages stilling til og tages hånd om muligvis meget svage tegn på manglende auditivt udbytte af CI-behandlingen eller oplevelsen af subjektive gener, når CI er aktiveret. For at kunne bekræfte SF som working diagnosis for in vivo devices kræves en eksplantering af det pågældende implantat, som herefter indsendes til den pågældende producent til videre ex vivo undersøgelser med mulighed for identificering af fejltilstande på implantatet. Hvis der ikke ses en fejltilstand ved

⁴ Eksempelvis i Battmer (2014), Googe & Carron (2016) og Tessa et al. (2015).

ex vivo undersøgelser, men der ses en forbedring i patientens clinical benefit eller afhjælpning af ubehagelige stimulationer fra implantatet, kan der støttes op om diagnosen for SF (Balkany et al., 2005; Battmer, 2014).

Det amerikanske panels arbejde tydeliggør et behov for klinisk at skelne mere detaljeret i fejlfindingen af de forskellige tekniske fejltilstande i CI, både til klinisk håndtering, men også for at optimere generelle professionelle kategoriseringer af forskellige tekniske fejltilstande i CI. Dette behov danner grund for, at jeg i mit speciale inddeler det overordnede begreb device failure i henholdsvis underkategorierne hard failure og soft failure. I den forbindelse har jeg fremstillet en figur (se nedenstående Figur 4) som giver et opsamlet og mere simplificeret overblik over den internationale kategorisering præsenteret i Figur 2, s. 24. Hertil har jeg videreudviklet på det internationale panels kategoriseringer til en mere detaljeret inddeling af DF i henholdsvis HF og SF med udgangspunkt i de kliniske anbefalinger udformet af det amerikanske panels arbejde. Denne figur og den fremstillede skelnen mellem tekniske fejltilstande i CI er udgangspunktet for det videre studie præsenteret i dette speciale.



Figur 4. Egen fremstilling af optimeret kategorisering af tekniske fejltilstande i hhv. HF og SF i forbindelse med både in vivo og ex vivo undersøgelser.

6. Litteraturstudie: Prævalens for soft failure

Denne del af specialet er en systematisk undersøgelse af den internationale litteratur som anvendes for at danne et billede af prævalensen for oplevede tekniske fejltilstande med fokus på SF som komplikation efter CI-operationer. Dette undersøges, da der i Danmark ikke findes data for prævalensen af tekniske fejl i CI hos børn.

Litteraturen er udvalgt på baggrund af inklusions- og eksklusionskriterier tidligere beskrevet i specialets metodeafsnit. De 16 udvalgte studier er alle udformede som retrospektive undersøgelser af forekomsten af komplikationer, både medicinske og tekniske, som følge af CI-operation.

Jeg har valgt at afgrænse studiernes udgivelsestidspunkter til perioden 2010-2016. Dette er gjort for at danne et mere samtidigt billede af forskningslitteraturens karakteristikker samt rapporteringer af tekniske fejltilstande i årene efter udgivelsen af ISO-standardiseringen fra 2000 samt udgivelsen af de internationale anbefalinger for samme. Terry, Kelt, & Jeyakumar (2015) har også tidligere udformet en lignende systematisk undersøgelse af prævalenser for både medicinske og tekniske komplikationer. I deres studie undersøges både medicinske og tekniske komplikationer, hvor tekniske fejltilstande udelukkende defineres som overordnede DF. Mit litteraturstudie adskiller sig ved udelukkende at undersøge prævalensen for tekniske fejltilstande med fokus på SF.

Som tidligere nævnt i metoden vil min analyse og mine resultater af studiet præsenteres ud fra følgende fokusområder:

- Studiers tids- og aldersaspekter for børnene.
- Failure rates og/eller reimplantation rates.
- Mulige forklarende variabler som årsager til soft failure.

Studiernes tids- og aldersaspekter inddrages som et fokusområde til undersøgelse af eventuelle tidsmæssige parametre, der kan spille ind i forbindelse med oplevede tekniske fejltilstande i CI-devices. Derudover undersøges aldersaspekter børnene inkluderet i studierne. Dette gøres for at illustrere om barnets alder kan have en påvirkning på prævalensen for DF. Derudover undersøges oplysninger om eventuelle failure rates for tekniske fejltilstande ved CI til en afsluttende estimering af udbredelsen af prævalensen for

generelle DF og en nærmere inddeling af HF og SF. Det tredje fokusområde er inkluderet i dette studie, da jeg vil undersøge, om litteraturen nævner mulige forklarende variabler som årsag til forekomsten af SF-problematikker hos børn med CI. Dette bliver gjort for at henlede opmærksomhed på problematikken, så den kan blive identificeret tidligere i den kliniske praksis.

De to første fokusområder er inkluderet i litteraturstudiets oversigtstabel (nedenfor). I tabellen har jeg noteret data for følgende temaer: Dataperiode, antal børn, antal primære implantater, antal reimplanterede implantater, gennemsnitlig alder ved første CI-stimulation, gennemsnitlig tid mellem primære implantation og oplevet DF, gennemsnitlig tid mellem oplevet DF og tid for reimplantation, gennemsnitlig tid mellem primære implantation og reimplantation, reimplantation rate grundet tekniske fejltilstande, DF/HF rate og SF rate. Til sidst er studierne impact factor (IF) noteret. Hvis data ikke findes for nogle af de ovenstående temaer, noteres det som I.O.⁵.

⁵ I.O. = Ikke oplyst.

Studie	Dataperiode	n (børn)	n (primære CI)	n (Reimp. CI)	Gnm. alder (første CI-stim.)	Gnm. tid ml. primær CI og DF	Gnm. tid ml. DF og reimp.	Gnm. tid ml. primær CI og reimp.	Reimp. rate %	DF/HF failure rates, %	SF failure rates, %	Impact Factor
Achiques et al. (2010)	Jun. 1998 – Sep. 2009	246	246	15	I.O.	0-18 år efter første CI	I.O.	I.O.	I.O.	DF: 16 stk 6,5%	I.O.	<i>Otology & Neurology.</i> IF: 1,787
Marlowe et al. (2010)	1991 - 2006	I.O.	482	62	I.O.	I.O.	I.O.	3,4 år	12,9 %	HF: 26 stk	SF: 18 stk	<i>Otology & Neurology.</i> IF: 1,787
Eskander et al. (2011)	Jan. 1990 – Jun. 2010	738	971	28	33 mdr.	61 mdr.	I.O.	46 mdr.	2,9 %	HF: 13 stk	SF: 12 stk	<i>Archives of Otolaryngology - Head and Neck Surgery.</i> IF: 2,327
Lescanne et al. (2011)	Jan. 1994 - Jun. 2010	140	144	8	43,6 mdr	I.O.	I.O.	22,8 mdr	5,7 %	DF: 5 stk HF: 2 stk	SF: 3 stk	<i>International Journal of Pediatric Otorhinolaryngolog y.</i> IF: 1,186
Masterson et al. (2012)	Mar. 1986 - Okt. 2010	345	I.O.	15	4 år	35 mdr	6 mdr.	I.O.	3,5 %	HF: 5 stk	SF: 1 stk	<i>The Journal of Laryngology & Otology.</i> IF: 0,672
Ikeya et al. (2013)	Dec. 1985 - Apr. 2007	151	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	DF: 4 stk, 2,6 % HF: 2 stk	SF: 2 stk	<i>Auris Nasus Larynx.</i> IF: 1,135
Sunde et al. (2013)	Jan. 2000 - Apr. 2012	129	202	10	I.O.	72 mdr	I.O.	I.O.	5 %	HF: 3 stk	SF: 3 stk	<i>Otology & Neurology.</i> IF: 1,787
Tarkan et al. (2013)	Mar. 2000 - Mar. 2012	475	I.O.	13	42,6 mdr	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	DF: 10 stk, 2,1 % HF: 4 stk	SF: 6 stk	<i>International Journal of Pediatric Otorhinolaryngolog y.</i> IF: 1,186

Studie	Dataperiode	n (børn)	n (primære CI)	n (Reimp. CI)	Gnm. alder (første CI-stimm.)	Gnm. tid ml. primær CI og DF	Gnm. tid ml. DF og reimp.	Gnm. tid ml. primær CI og reimp.	Reimp. rate %	DF/HF failure rates, %	SF failure rates, %	Impact Factor
Farinetti et al. (2014)	Mar. 1993 - Jan. 2013	235	I.O.	15	4;5 år	39,5 mdr	I.O.	I.O.	I.O.	DF: 9 stk	I.O.	<i>European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck Diseases.</i> IF: 0,822
Broomfield et al. (2014)	Jan. 2010 - Dec. 2011	961	1397	I.O.	6;1 år	I.O.	I.O.	I.O.	I.O.	DF: 6 stk, 0,6 %	I.O.	<i>Cochlear Implants International.</i> IF: 0,00
Olgun et al. (2014)	1998 - Jul. 2012	957	I.O.	56	4;3 år	I.O.	I.O.	41 mdr.	I.O.	DF: 3,8 % HF: 40 stk	SF: 7 stk	<i>International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology</i> J. IF: 1,186
Wang et al. (2014)	Jan. 1982 - Jun. 2011	957	1171	127	3 år	I.O.	I.O.	5,5 år	10,8 %	DF: 89 stk, 7,6 % HF: 70 stk, 6 %	19 stk, 1,6 %	<i>The Laryngoscope.</i> IF: 2,144
Blanchard et al. (2015)	Jan. 1990 - Jun. 2012	I.O.	877	62	3;8 år	I.O.	I.O.	4,3 år	7 %	DF: 50 stk, 5,7 % HF: 39 stk.	SF: 11 stk.	<i>Annals of Otolaryngology & Rhinology Laryngology.</i> IF: 1,094
Trozzi et al. (2015)	Feb. 1992 - Jan. 2013	653	778	30	3;5 år	I.O.	50 mdr.	3;10 år	3,8 %	DF: 22 stk, 5,14 % HF: 15	SF: 7 stk	<i>European Archives of Oto-Rhino-Laryngology.</i> IF: 1,545
Sterkers et al. (2015)	1990 - 2013	539	I.O.	45	5,07 år	I.O.	I.O.	I.O.	8,3 %	DF: 35 stk, 6,5 % HF: 24 stk, 4,45 %	SF: 11 stk, 2,05 %	<i>International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology</i> IF: 1,186
Googe & Carron (2016)	Apr. 2003 - Okt. 2014	156	248	I.O.	4;9 år	I.O.	I.O.	3,1 år	I.O.	DF: 7 stk, 2,8 %	I.O.	<i>American journal of otolaryngology.</i> IF: 0,984

6.1 Resultater for de undersøgte fokusområder

Mit litteraturstudie er sammenlagt baseret på data fra mere end 6682 børn og 6516 primære CI fordelt over flere årtier fra 1982 til 2014. I alt blev der i studierne udført reimplantationer af mere end 486 implantater på baggrund af både mediciske årsager og tekniske fejltilstande i implantaterne⁶.

I det følgende vil jeg beskrive mine resultater af litteraturstudiet inddelt efter de præsenterede fokusområder for analysen.

6.1.1 Studiernes tidsaspekter

Som det ses i ovenstående oversigtstabel for litteraturstudiet, er der både tidsangivelser for gennemsnitlig tidsforbrug mellem henholdsvis den primære CI-implantation og oplevet DF, mellem DF og reimplantering af ny implantat, samt mellem den primære CI-implantation og reimplantation. Dette skyldes en stor forskel i, hvilken tidangivelse der oplyses i den fundne litteratur.

Der blev på tværs af studierne identificeret et spænd mellem 35 måneder til 72 måneder fra den primære CI-implantation og den oplevede DF i fejlrante implantater fordelt på fire studier. Dette giver et gennemsnit på 51,9 måneder svarende til 4,3 år. Der er to datamålinger for tidsrummet imellem oplevet DF og reimplantering, hvilket indikerer et manglende fokus på dette aspekt. Siden de to datamålinger spænder fra seks til 50 måneder, vil en udregning af gennemsnittet ikke give mening. Det ses yderligere i et andet studie af Marlowe, Chinnici, Rivas, Niparko, & Francis (2010), baseret på 18 børn, at der gennemsnitlig går 8,5 måneder mellem mistanke om SF til reimplantering. Tilsvarende ses det i samme studie, at tidsforbruget fra oplevelse af HF-tilstand til reoperation var 2,7 måneder. Tidsforbruget mellem en primær CI-implantation og til udførelse af reimplantation ses i litteraturen at være fra 22,8 måneder til 66 måneder (5,5 år) fordelt på otte studier med et gennemsnit på 43,9 måneder svarende til 3,7 år.

6.1.2 Aldersaspekter noteret i litteraturen

Som det ses i oversigtstabellen, er børnenes gennemsnitsalder ved den primære CI-

⁶ Det præcise antal børn og primære CI implantater er usikkert, da det ikke fremgår af alle studier, hvorvidt der optælles antallet af børn eller implantater i undersøgelserne.

implantation undersøgt. Ved at inkludere en undersøgelse af børnenes alder er målet at identificere mulige aldersmæssige faktorer, der kan være relevante i forbindelse med undersøgelsen af prævalensen for DF og i særdeleshed SF.

I 12 ud af de 16 studier er der noteret en gennemsnitsalder hos børnene for tidspunktet, hvor de modtog deres primære CI-operation. Det ses, at aldersgennemsnittet i studierne spænder fra to år og ni måneder til seks år og en måned. Dette kan ved første øjekast synes at være et ret højt aldersgennemsnit for børnene⁷, men som Masterson et al. (2012) kommenterer, bliver børnenes alder ved den primære CI-operation lavere og lavere med årene bl.a. grundet indførelsen af den neonatale hørescreening. Hertil er børn, som bliver CI-opererede senere i livet grundet progredierende høretab, inkluderet i disse data. Disse tal i studierne er yderligere stærkt påvirkelige af samtidens muligheder og optimeringer inden for den audiologiske udredning og implementering af kliniske retningslinjer.

I flere studier diskuteres det yderligere, at børnenes alder også har en påvirkning på andelen af oplevede DF. Det ses blandt andet i Sunde, Webb, Moore, Gluth, & Dornhoffer (2013), at der er en tendens til, at børn har en højere overordnet DF end voksne CI-brugere. Det samme ses i andre inkluderede studier, som finder både en højere DF-rate, men også en højere reimplantations-rate, hvilket de vurderer, ofte er forårsaget af langt flere hovedtraumer hos især små børn, da børnene oftere oplever stød mod hovedet og beskadiger implantatet (Masterson et al., 2012; Wang, Wang, Psarros, & Cruz, 2014). Tilsvarende resultater ses i studiet af Achiques et al. (2010), hvor hele 70 % af de erfarede tekniske fejltilstande i devices var hos børn yngre end 10 år. Fejltilstande som resultat af stød mod hovedet vurderes i dette speciale at være kategoriseret som en HF. I et enkelt studie ses, at fejltilstande vurderet som SF-problematikker er hyppigere for den voksne population i undersøgelsen, sammenlignet med populationen af børn. Disse resultater udgøres dog kun af henholdsvis fem tilfælde hos voksne overfor to tilfælde hos børn (Farinetti et al., 2014).

6.1.3 Failure rates

I dette studie har jeg både undersøgt rater for henholdsvis reimplantation, overordnede DF, HF og SF. Reimplantationsrater blev inkluderet, da alle de inkluderede studier omhandler forskellige undersøgelser af forekomsten af komplikationer som følge af CI-operation

⁷ Som præsenteret i kapitel 4, anbefales det at børn med medfødte profunde høretab implanteres ved 8-12 måneders alderen (Sundhedsstyrelsen, 2012).

heriblandt tekniske fejltilstande. Otte ud af de 15 studier noterer i den forbindelse andelen for reimplantation, hvilket jeg synes er interessant at inddrage i tabeloversigten, da devices med SF kræver en eksplantation og ofte fører til reimplantation af et nyt implantat. I denne rate er inkluderet data for alle reimplantationer. Reimplantaionsraten for disse otte studier viser, at andelen af reimplanterede devices ligger mellem 2,9-12,9 %.

Derudover valgte jeg både at notere overordnede DF -, HF - og SF-rates, hvis muligt, da det overordnede formål er en undersøgelse af prævalensen for SF-problematikker i CI hos børn. Men jeg fandt dog, at ikke alle studier differentierer overordnede devices failures i henholdsvis HF og SF. Jeg noterede derfor alle opgjorte failure rates, for derved at opnå et mere detaljeret indblik i forekomsten af DF og hertil mulige opgørelser for prævalensen af SF. Det blev endvidere erfaret, at nogle studier anvendte forskellige termer for karakteristika, der er kendetegnet ved forekomsten af SF. Anvendelse af forskellige termer for SF-karakteristika vil jeg illustrere nærmere i afsnit 6.2.1. Jeg foretog derfor en klassificeringsanalyse af mulige SF-problematikker ud fra mine fremstillede karakteristika for SF, som kan ses i Figur 4, s. 29.

10 ud af de 16 studier har opgjort DF-rates. Der ses en samlet estimering af forekomsten af DF i CI hos børn på mellem 0,6-7,6 %.

Flere studier illustrerer yderligere, at de kan se en tendens til, at andelen af DF i indopererede CI-devices er faldende, da man på verdensplan oplever et øget antal af tidlige primære CI-operationer grundet mere sikre operationsteknikker samt indførelsen af tidlig neonatal hørescreening i mange lande. Dette illustreres fx i Trozzi et al. (2015), som viser, at implantationsraten for CI er steget voldsomt hos det undersøgte CI-center siden begyndelsen af 2000, fra ca. 22 implanterede devices i 2004 til ca. 110 implantationer i 2012⁸. Tilsvarende ligger andelen af eksplantationer af det primære implantat relativt stabilt fordelt gennem årene omkring to-fem eksplantationer om året, hvilket fører til, at procentdelen af DF bliver mindre. Den samme trend observeres i studiet af Wang et al. (2014) som i deres figur 2 sammenligner antallet af DF rates (for både voksne og børn) fra 1982-2011 i deres undersøgte CI-center. Her ses det også, at generelle failure rates er faldet gennem årene. Dette vurderer forfatterne at være grundet en forbedring af produkternes design, hvilket resulterer i en øget reliabilitet af implantaterne.

⁸ Disse data præsenteres i studiet i en graf (figur 2), der er svær at aflæse. Tallene er derfor et skøn.

Det ses, at kun to studier har noteret en failure rate for SF i deres studier. I Wang et al. (2014) ses en forekomst på 1,6 % (19 stk.) ud af i alt 1171 implantater. I studiet af Sterkers et al. (2015) er noteret en failure rate for SF på 2,05 %.

Det har dog været muligt at klassificere antallet af SF-tilstande for 11 ud af de 15 studier. Ud fra det noterede SF-antal i tabellen, har jeg videre foretaget udregninger af den procentvise andel af SF-devices i relation til studiernes samlede antal inkluderede CI i deres undersøgelser. Hvis det samlede antal af primære implantater ikke var noteret i undersøgelsen, blev udregning foretaget ud fra antallet af inkluderede børn. Disse værdier har jeg indsat i nedenstående tabel.

Studie	n (primære CI) / n (børn)	n (SF)	SF-rate %
Marlowe et al. (2010)	482	18	3,7
Eskander et al. (2011)	971	12	1,2
Lescanne et al. (2011)	144	3	2,1
Masterson et al. (2012)	345	1	0,3
Ikeya et al. (2013)	151	2	1,3
Sunde et al. (2013)	202	3	1,5
Tarkan et al. (2013)	475	6	1,3
Olgun et al. (2014)	957	7	0,7
Blanchard et al. (2015)	877	11	1,3
Trozzi et al. (2015)	778	7	0,9

Tabel 3. Egen udregning af procentsatser for rapporterede forekomster af SF i litteraturen.

Ud fra ovenstående analyse kan det ses, at prævalensen for DF i CI er relativt lille med et spænd på 0,6-7,6 %. Prævalensen for SF-problematikker er endnu mindre med scores fra 0,3-3,7 %. Procentsatserne illustrerer et stikprøveresultat for de inkluderede studier og viser at DF og især SF er en sjældent forekommende problematik i CI.

6.1.4 Mulige forklarende variabler som årsag til soft failure

Formålet med dette fokusområde er at undersøge hvorvidt den inkluderede litteratur pointerer mulige forklarende variabler som årsag til forekomsten af SF-problematikker hos børn med CI.

Flere studier undersøgte eventuelle påvirkende faktorer på forekomsten af generelle DF. Hverken høretabets ætiologi eller barnets køn havde signifikant påvirkning på forekomsten af DF (Farinetti et al., 2014; Marlowe et al., 2010; Olgun et al., 2014; Trozzi et al., 2015). Videre i litteraturen bekræftes det i undersøgelserne, at DF er den hyppigste årsag til reimplantation for CI.

I forskningslitteraturen præsenteres flere mulige forklarende variabler, der mistænkes at medføre SF-problematikker. Den hyppigst fremstillede forklarende variabel er tab af hermetisk forsegling af implantatet. Med dette menes, at ex vivo undersøgelser viser, at der er steder på implantatet, hvor det isolerende silikonelag, der hermetisk omslutter og beskytter implantatet, er beskadiget. Dette betyder, at der er risiko for at væske i cochlea har forårsaget direkte skade på implantatets funktion (Achiques et al., 2010; Lescanne, Al Zahrani, Bakhos, Robier, & Morinière, 2011; Marlowe et al., 2010; Wang et al., 2014). Disse skader har dog ikke været mulige at teste for i in vivo undersøgelse, og SF-diagnosen er derfor blevet anvendt, indtil ex vivo undersøgelser blev foretaget.

Gennem ex vivo undersøgelser af devices med SF fandt Marlowe et al. (2010) derudover, at tabet af clinical performance og besvær med programmering af CI hos disse børn i fire tilfælde var grundet elektrodefejlfunktioner, hvor flere elektrodepunkter havde defekter. Forfatterne fremstiller videre i deres diskussionsafsnit en hypotese om, at SF er et muligt forstadium til HF-tilstande i implantaterne. Det samme fremstilles i Blanchard et al. (2015), og denne hypotese vil derfor diskuteres yderligere i kapitel 9.

Det blev endvidere præsenteret i Marlowe et al. (2010), at det generelt for eksplanterede devices var muligt at få kendskab til 49 ud af 60 ex vivo rapporter fra producenterne. For devices med SF blev der identificeret detekterbare årsager ved ex vivo undersøgelserne i 70,6 % af tilfældene, men fem SF-devices ud af 18 tilfælde blev kategoriseret som in specification. Det samme blev erfaret i studiet af Wang et al. (2014), der skildrer rapporteringsdata for 77 implantater ud af i alt 136 devices, der blev eksplanteret enten med eller uden reimplantation af nyt implantat. Det er bemærkelsesværdigt, at der ikke foreligger producent-afrapporteringer for samtlige ex vivo undersøgelser for de eksplanterede devices. Dette anbefales ellers i både Battmer et al. (2010) og Balkany et al. (2005). Derudover ses det i Wang et al. (2014), at 35,7% af SF-devices indsendt til ex vivo undersøgelser bliver kategoriseret af producenten som in specification, hvorimod kun 12,7 % af HF-devices bliver

meldt som in specification. Det er bemærkelsesværdigt, at der er en betragtelig større andel af SF-devices, hvor producenten ikke identificerer tekniske fejltilstande i efterfølgende ex vivo undersøgelser.

6.2 Nye problemstillinger identificeret i forskningslitteraturen

I dette afsnit vil jeg præsentere, hvilke interessante problemstillinger jeg stødte på i mit litteraturstudie. Derefter vil jeg opsummere, hvilke resultater jeg har fået af min undersøgelse af prævalensen for SF hos børn med CI.

6.2.1 Variation i kategoriseringen af komplikationer efter CI-operationer

Undervejs i min analyse af forskningslitteraturen blev det tydeligt, at det er meget forskelligt, hvordan studierne kategoriserer og skildrer mulige medicinske og tekniske komplikationer efter CI-operation. Alle studierne er som nævnt udformet som retrospektive studier, der undersøger forekomsten af mulige komplikationer efterfølgende CI-operation.

I syv af de 16 inkluderede studier kategoriseres de mulige komplikationer efter en CI-operation efter større (major) og mindre (minor) komplikationer. Denne skelnen mellem omfanget af komplikationerne opdeles efter, om komplikationen er livstruende, om der kræves udførelse af revisions- eller reimplantationskirurgi (major) eller om komplikationerne kan behandles med medicinsk intervention (minor). Her erfarede jeg under min udvælgelse af materiale til dette litteraturstudie, at noget forskningslitteratur slet ikke inkluderer DF som en større komplikation, og derved ikke nævner DF som en mulige komplikation efterfølgende primær CI-implantation.

De syv studier inkluderer DF i kategoriseringen som en major komplikation, hvortil de resterende inkluderede studier ikke anvender denne kategoriseringsmetode trods et lignende undersøgelsesdesign. Yderligere ses det, at enkelte inkluderede studier ikke har hovedfokus på alle eventuelle komplikationer efter CI-operation, men i stedet har det største fokus på undersøgelse af tekniske fejltilstande.

6.2.2 Variation i klassificeringen af tekniske fejltilstande i CI

Det ses at fire af studierne slet ikke skelner mellem HF og SF, men blot karakteriserer de undersøgte tekniske fejltilstande for DF. Hertil ses det i studierne, at de forskellige forekomster af DF ikke specificeres, hvoraf det ikke har været muligt for mig at få indsigt i og videre at kunne analysere på, om der i studiernes data er forekomster af SF-

problematikker.

Derudover er der stor variation i terminologien for beskrivelsen af tekniske fejltilstande med symptomer på SF på tværs af de resterende inkluderede studier. Syv studier (Blanchard et al., 2015; Eskander et al., 2011; Masterson et al., 2012; Olgun et al., 2014; Sterkers et al., 2015; Sunde et al., 2013; Wang et al., 2014) karakteriserer og underinddeler DF i HF og SF med udgangspunkt i de præsenterede amerikanske anbefalinger fra 2005. De resterende studier karakteriserer og skelner symptomerne for HF og SF anderledes, da det eksempelvis ses, at forfatterne i studierne af Lescanne et al. (2011) og Tarkan et al. (2013) benævner SF som ”spontaneous device failures”. Anderledes benævnes devices med SF-karakteristika som ”suspected device failures” i Marlowe et al. (2010), mens de i Trozzi et al. (2015) kalder HF for ”hardware failures” og SF for ”performance decrements”, selvom der dog ses en betegnelse af fejltyper som hard failures og soft failures i deres figur 1. Derudover ses det i studiet af Ikeya et al. (2013), at der skelnes mellem fejltyper som henholdsvis ”device failures” for tekniske fejl med HF-karakteristika og ”failures, unknown” for tekniske fejl med SF-karakteristika.

Sammenfattende ses der ikke en ensartet terminologi i litteraturen, hvilket vanskeliggør dannelsen af et overblik over prævalensen af SF i CI.

6.3 Opsummering af resultater for litteraturstudiet

Litteraturstudiets analyser viser et primært resultat for prævalensen af SF på 0,3-3,7 %. Herudfra vurderes det, at SF er en sjældent forekommende problematik hos børn med CI.

Derudover identificeres en stor forskel i, hvilke tidsangivelser der oplyses i litteraturen, som i alt oplyses fordelt på følgende tre forskellige perioder. Der ses et tidsforbrug på gennemsnitlig 4,3 år imellem første CI-operation til forekomsten af DF. Tiden imellem første CI-operation til reimplantation hos børnene er i gennemsnit på 3,7 år, men der i to studier oplyses tidsperspektiver imellem oplevet DF og reimplantering på henholdsvis seks og 50 måneder. Litteraturens aldersaspekter for børnene ses at være stærkt påvirkelige af samtidens muligheder og optimeringer inden for den audiologiske udredning og implementering af kliniske retningslinjer. Gennemsnitsalderen for børnene ved den første CI-operation spænder i litteraturen fra to år og ni måneder til seks år og en måned. Hertil fremstiller flere studier, at et barns alder også har en påvirkning på andelen af oplevede DF, hvor det ses at langt de fleste forekomster af DF sker hos børn yngre end 10 år formentligt grundet slag mod hovedet.

Litteraturen blev ligeledes undersøgt for mulige fremstillinger af forklarende variabler for forekomsten af SF. Her identificeres isoleringsproblematikker med tab af hermetisk forsegling af implantatet og elektrodefejlfunktioner som mulige variabler. Ligeledes ses det i litteraturen, at SF kan være et muligt forstadium til forekomsten af HF. Derudover blev det klart, at der ikke altid foreligger producent-afrapporteringer for eksplanterede devices, og tilsvarende fandt jeg, at producenterne ikke altid kan identificere tekniske fejltilstande i ex vivo undersøgelser for en del af SF-devices.

Afsluttende fandt jeg, at der ikke ses en ensartet terminologi i litteraturen, hvilket vanskeliggør dannelsen af et overblik over prævalensen af SF i CI.

7. Soft failures og sproglig udvikling

Dette kapitels fokus er en undersøgelse af viden i relation til specialets tredje underformål præsenteret i metodeafsnittet; *At karakterisere fejlfinding for soft failure samt mulige konsekvenser heraf for den sproglige udvikling hos børn med CI.*

I det følgende vil der først kort redegøres for den generelle sprogudvikling hos børn med CI. Derefter karakteriseres SF's mulige påvirkning på sprogudviklingen, indeholdende en præsentation af fejlfindingsindikatorer for SF hos børn med CI samt en skildring af internationale anbefalinger til klinisk håndtering af denne problematik. Afslutningsvis præsenteres kort andre faktorer, der kan påvirke udbyttet af CI efter reimplantation i forbindelse med SF.

7.1 Generel sprogudvikling hos børn med CI

At hørebehandle med CI gør det muligt for børn med svære-profunde sensorineurale høretab at skelne talelyde. CI skaber udgangspunktet for, at disse børn kan tilegne sig talesprog og sprogforståelse (Russell et al., 2013; Sharma & Campbell, 2011). Grundet hjernens plasticitet er det dog vigtigt, at børn modtager hurtig og optimal behandling med CI. I et studie af Nicholas & Geers (2007) ses det, at børn med CI, der scorer inden for normalområdet i kognitive og nonverbale tests, og som bliver implanteret inden de første 24 måneder, kan forventes at tilegne sig talesprog, som er aldersvarende allerede ved skolealderen. Formålet ved CI-behandling er netop, at barnet opnår aldersvarende talesprog og potentiale for integration i lokale institutioner (Sundhedsstyrelsen, 2012).

7.2 Soft failure og påvirkning på barnets auditive og sproglige udbytte

I det følgende afsnit vil jeg beskrive fejlfinding for SF-tilstande i CI hos børn. Herefter vil jeg præsentere eksempler på amerikanske anbefalinger for best practice for klinisk håndtering af SF-problemstillinger hos børn. Afslutningsvis vil jeg præsentere, hvordan forskningslitteraturen fremstiller prognoser for børns auditive udbytte og videre sproglige udvikling samt mulige faktorer der kan påvirke udbyttet efter reimplantering.

7.2.1 Fejlfindingsindikatorer for soft failure

Som nævnt i kapitel 5 anvendes SF som en working diagnosis, der benyttes ved tekniske fejltilstande, der ikke er mulige at redegøre for eller videre bekræfte ved brug af nuværende in vivo tests. Identifikationerne på SF kan være tydelige eller mere diskrete, men opleves

oftest som et reduceret clinical benefit hos CI-brugeren. Dette kan komme til udtryk som en pludselig eller gradvis reduktion i auditiv performance og taleforståelse. Dette kan også komme til udtryk som dårlig performance i relation til det forventede udbytte baseret på audiologisk data forud for operationen. Derudover kan SF også indikeres ved intermitterende funktion af CI'et, eller ved at implantatet genererer afvigende stimulationer, der eksempelvis udtrykkes som subjektiv ubehag eller smerte (Balkany et al., 2005; Friedmann et al., 2014). I Marlowe et al. (2010) ses det, at afvigende stimulationer fra implantater kommer til udtryk i form af uventede lyde genereret af stimulationerne, stimulationen af ansigtsmuskulaturen, smerter eller oplevelse af vertigo. Herudover ses det i studiet, at der også opleves justeringsvanskeligheder for implantater med SF-problematikker.

Med udgangspunkt i viden fra den præsenterede internationale forskningslitteratur har jeg fremstillet nedenstående oversigt, der skal bidrage til et overblik over fejlfindingsindikatorer for SF-tilstande i CI.

Fejlfindingsindikatorer for SF hos børn med CI
<ul style="list-style-type: none"> • Pludselig eller gradvis reduktion i auditiv performance og taleforståelse. • Oplevelse af afvigende og ubehagelig stimulation fra implantatet, som kan komme til udtryk som bl.a. smerte, eller hvis barnet udviser uventede reaktioner på at have CI tændt. Dette kan fx være, at barnet græder, når CI er tændt, at barnet tager sit CI af, eller at barnets adfærd ændrer sig markant. • Hvis der observeres, eller hvis barnet giver udtryk for, intermitterende funktion af implantatet, som ikke kan bevises med in-vivo tests. • Dårligere generel performance i relation til det forventede udbytte baseret på audiologisk data forud for operationen. • Når der ikke er andre kendte medicinske, kognitive og/eller psykosociale problemstillinger, der kan påvirke barnets evne til at modtage og opfatte auditiv stimulation. • Når barnets performance ikke kan forbedres med audiologisk håndtering over længere tid (fx ved at udskifte alle ydre komponenter af CI'et eller rejustering af implantatet). • Omfattende integritetstestning af CI-systemet viser ingen identificerede fejltilstande.

Tabel 4. Oversigt over fejlfindingsindikatorer for soft failure hos børn med CI.

7.2.2 Amerikanske anbefalinger til diagnosticering af soft failure

Som præsenteret i kapitel 5 blev der i 2005 dannet et større amerikansk panel, da det blev vurderet, at der manglede en standardisering af fejlrapporteringer i relation til tekniske fejltilstande i CI (Balkany et al., 2005). I den forbindelse udarbejdede panelet en række klarere og mere detaljerede karakteristikker af HF og SF. Ligeledes udarbejdede panelet en række kliniske anbefalinger til udførelse af diagnosticering og håndtering af disse fejlfunktioner ved CI. Disse er i særdeleshed rettet mod audiologisk håndtering ved mistanke om SF, da disse tilfælde er meget mere komplekse at håndtere i den kliniske praksis. For at specificere anvendelsen af SF som in vivo diagnose fremstillede panelet en skitsering for best practice-anbefalinger til klinisk anvendelse af diagnosen samt for videre behandling, da de oplevede stor variation i den audiologiske håndtering af disse fejltilstande i den kliniske praksis.

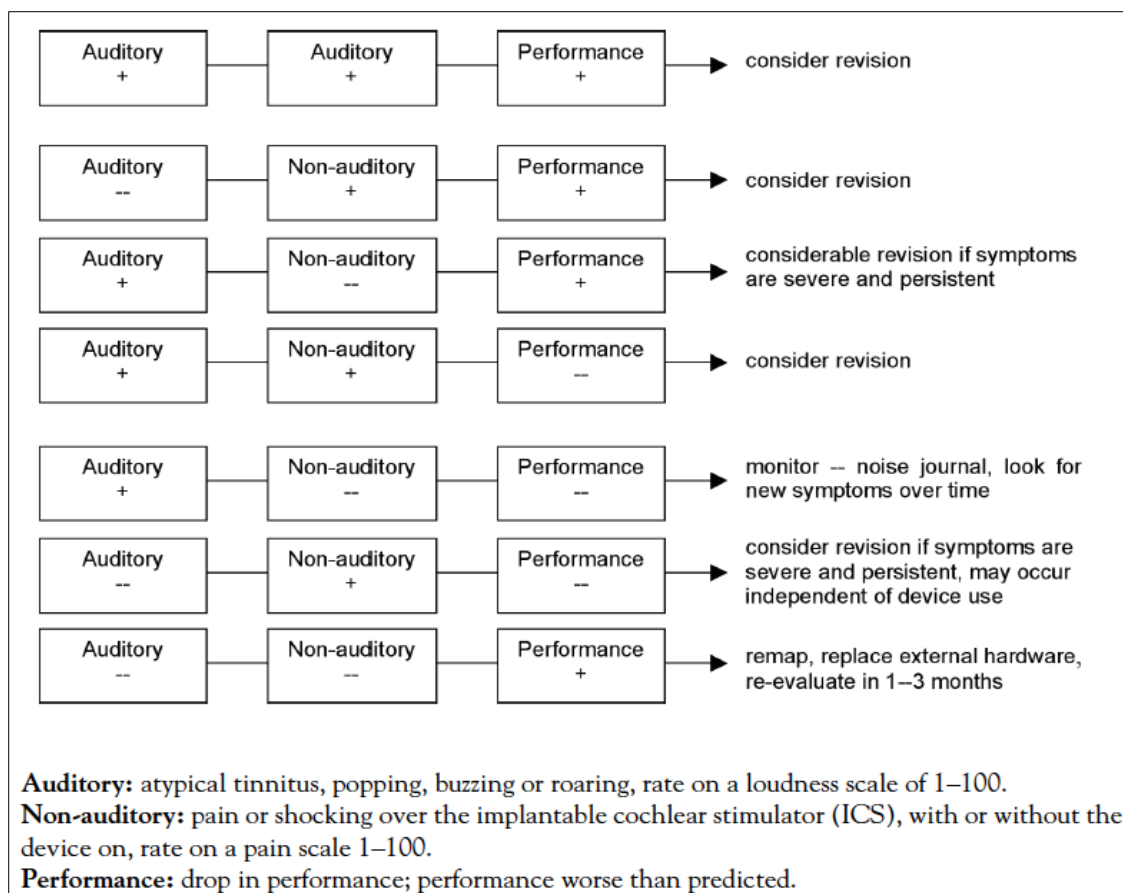
Diagnosticering af SF er en mere kompleks proces end hos HF-fejltilstande, der kan detekteres via objektive test, hvorefter implantatet hurtigt eksplanteres og erstattes af et nyt. SF som diagnose anvendes ved tilfælde, hvor der er mistanke om tekniske fejl på implantatet, men hvor in vivo undersøgelser ikke identificerer nogle klare fejl. Små børn kan ikke give direkte udtryk for mange af SF-indikatorerne, og diagnosticeringsprocessen styres derfor af et samarbejde mellem barnets familie og professionelle fra CI-centret. Diagnosticeringen består af subjektive observationer og objektive monitoreringsresultater for barnets udvikling (Balkany et al., 2005).

Diagnosticeringen af SF begynder med en undersøgelse af fejlfindingsindikatorer for SF (se Tabel 4 ovenfor). Når en gennemgang af indikatorerne er foretaget, sikres det, at ingen medicinske, processor- eller justeringsrelaterede variabler er årsag til fejltilstanden. For at konstatere en SF-diagnose, skal resultaterne af in vivo tests være normale. Panelet udarbejdede i den forbindelse en tjekliste (se Figur 5, nedenfor) til identificeringen af mulige SF-problematikker. Målet med dette var, at figuren kunne anvendes som et konkret redskab for diagnosticeringen i den kliniske praksis.

Suggested Checklist for Assessment of Soft Failures	
ADULT/OLDER CHILDREN	YOUNG CHILDREN
<p>AUDITORY</p> <input type="checkbox"/> atypical tinnitus <input type="checkbox"/> Buzzing <input type="checkbox"/> Roaring <input type="checkbox"/> Engine-like <input type="checkbox"/> Static <input type="checkbox"/> Popping <input type="checkbox"/> Other	<p>MAPPING</p> <input type="checkbox"/> Changes in levels over time <input type="checkbox"/> Changes in pulse width/dur <input type="checkbox"/> Loss of channels <input type="checkbox"/> Changes in impedance <input type="checkbox"/> Shorts/open circuits
<p>NONAUDITORY</p> <input type="checkbox"/> Pain over implant site <input type="checkbox"/> Pain down neck <input type="checkbox"/> Shocking <input type="checkbox"/> Burning <input type="checkbox"/> Itching <input type="checkbox"/> Facial stim	<p>HARDWARE</p> <input type="checkbox"/> Replacement of all externals
<p>PERFORMANCE</p> <input type="checkbox"/> Sudden drop <input type="checkbox"/> Decrement over time <input type="checkbox"/> Fails to meet expected performance <input type="checkbox"/> Intermittent performance	<p>OBJECTIVE ASSESSMENT</p> <input type="checkbox"/> Surface potential testing <input type="checkbox"/> Neural response measures <input type="checkbox"/> Stimulus artifact <input type="checkbox"/> Evoked potentials
	<p>BEHAVIORAL</p> <input type="checkbox"/> Increase in "bad behaviors" <input type="checkbox"/> Aggressiveness <input type="checkbox"/> Unwilling to wear device <input type="checkbox"/> Head hitting <input type="checkbox"/> Inattentiveness <input type="checkbox"/> Regression in language/speech
	<p>TEACHER/THERAPIST CONCERNS</p> <input type="checkbox"/> Intermittent responsiveness <input type="checkbox"/> Frequent appearance of being "off-task" <input type="checkbox"/> Deterioration in grades/school performance <input type="checkbox"/> Plateau in performance <input type="checkbox"/> Fails to meet appropriate expectations
	<p>OTHER FACTORS</p> <input type="checkbox"/> Education placement <input type="checkbox"/> Type and amount of therapy <input type="checkbox"/> Family involvement <input type="checkbox"/> Puberty
	<p>In addition, the adult checklist should be applied to a child whenever possible.</p>

Figur 5. Amerikansk tjekliste til diagnosticering af SF.

I de amerikanske anbefalinger præsenteres videre bl.a. to muligheder for håndtering og behandling ved mistanke om SF-problematikker. Disse er: 1. Enten at observere barnets udvikling over længere tid for at indsamle flere informationer om barnets auditive og sproglige udbytte af CI samt for at få et indblik i eventuelle afvigende stimuleringer fra implantatet, 2. At eksplantere implantatet ved mistanke om SF og reimplantering af nyt implantat. I forbindelse med disse overvejelser i den audiologiske udredning og behandling udarbejdede panelet nedenstående "beslutningstræ" (se Figur 6, nedenfor) som støtte i beslutningsprocessen.



Figur 6. Beslutningstræ til klinisk evaluering af patienter med SF-diagnose.

Det anbefales, at dette beslutningstræ anvendes i diagnosticeringen af SF, når alle andre in vivo undersøgelser er foretaget uden tydelige konklusioner. Plus (+) indikerer tilstedeværelsen af indikatorer på den pågældende kategori (kategoriernes indhold er forklaret i figuren), mens minus (-) indikerer, at der ikke findes nogle fejlfindingsindikatorer for denne kategori. Ud fra de forskellige fejlfindingsindikatorer aflæst i figuren fremstilles efterfølgende mulighederne for videre håndtering og behandling; At overveje revisionskirurgi (her i betydningen af, at revisionen ofte leder til reimplantering med nyt implantat), at vente og monitorere indikatorernes udvikling over tid, eller at omprogrammere implantaterne igen inklusiv udskiftning af ydre hardware med hensyntagen til reevaluering senere.

Ved reimplantering med nyt implantat anbefales det, at dette sker på samme øre. Panelet anerkender dog, at andre kirurgiske beslutninger i relation til reimplanteringens udførelse og valg af cochlea for proceduren samt behovet for reimplantering af nyt device kan forekomme, fx grundet medicinske kontraindikationer såsom identificerede ossificeringer af pågældende cochlea.

Derudover understreger panelet, at de professionelle i fejlfindingsprocessen til diagnosticering og håndtering af SF involverer den pågældende producent. Producenterne kan hjælpe med vejledning og in vivo undersøgelser i håndteringen af tekniske fejltilstande. De eksplanterede devices bør derefter indsendes til videre ex vivo undersøgelser hos producenterne. Hertil anbefales det, at producenterne altid sender resultater af ex vivo undersøgelser tilbage til klinikken, hvor de professionelle her vil monitorere barnets udbytte af det nye implantat. Denne vedvarende kontakt mellem klinik og producent efter en reimplantering, ser panelet som afgørende for, at producenterne kan opnå erfaringer med tekniske fejltilstande i deres produkter. En sådan rapporteringsstruktur anses som afgørende for fremtidig optimering af producenternes implantater, og panelet appellerer til, at der opstilles standardiserede rapporteringsrammer herfor. Yderligere anbefales det, at fremtidige initiativer bl.a. kunne omhandle, at der oprettes omfattende databaser indeholdende både SF-vurderingsredskaber til CI-centre og indeholdende beskrivelser af hver af producenternes integritetstests. Afslutningsvis gør panelet opmærksom på, at information om mulige SF-tilstande i CI videreformidles tydeligere til fremtidige kirurger og audiologer, samt at der i fremtiden arbejdes mod at forbedre in vivo undersøgelser, så det er muligt at identificere flere tekniske fejltilstande hurtigere.

7.2.3 Sprogudvikling efter reimplantering i forbindelse med soft failure

I Balkany et al. (2005) understreges det også, at det er vigtigt for de professionelle at have kendskab til prognosen for børns videre sproglige udvikling efter reimplantering. Dette anses som et væsentligt parameter i vejledningen af forældrene både før og efter reimplantering. Forfatterne påpeger dog, at det er meget svært for den professionelle at forudsige et barns auditive og sproglige udbytte af et nyt implantat, da det kan blive påvirket af mange faktorer. Disse faktorer kan bl.a. være funktionen af barnets nervebaner og barnets kognitive færdigheder. Det er derfor svært at fremstille en klar prognose for den mulige kliniske forbedring hos barnet.

Fem af de inkluderede studier i mit litteraturstudie involverede undersøgelser af børns auditive og sproglige udvikling efter reimplantering som følge af overordnet DF. Ingen studier adskiller de sproglige vurderinger i HF eller SF. I studierne af Sunde et al. (2013), Masterson et al. (2012) og Marlowe et al. (2010) ses det, at langt de fleste børn opnåede taleforståelsesscores, der var højere eller tilsvarende scores fra undersøgelser foretaget før DF. I Marlowe et al. (2010) noteres det, at hele 88 % af børnene opnåede tilsvarende eller

bedre scores inden for de første 18 måneder efter reimplanteringen. I studierne af Blanchard et al. (2015) og Sterkers et al. (2015) blev det erfaret, at en lille andel af børnene ikke opnåede scores for taleforståelse, der var tilsvarende niveauerne inden DF, og de opnåede derved ikke det forventede sproglige udbytte. I Blanchard et al. (2015) ses dette for 14 % af børnene, mens det i Sterkers et al. (2015) var tilfældet for 16,2 % af børnene. Disse scores blev opgjort et år efter reimplantering, og det vides derfor ikke, hvorvidt børnenes udvikling endnu havde potentiale til at forbedres yderligere.

Disse undersøgelser illustrerer, at størstedelen af de reimplanterede børn oplever et positivt auditivt og sprogligt udbytte af reimplantering efter DF. I et ældre studie af Lassig et al. (2005) opgøres taleforståelsesscores for børn med SF-problematikker isoleret. Her ses det, at for syv børn, opnår fire børn store forbedringer, to børn opnår mindre eller ingen ændringer i deres scores, mens et enkelt barn viste en forværring af sine scores.

Der ses ikke altid en forbedret auditiv taleforståelse efter reimplantering med nyt implantat. For langt de fleste af børnene har reimplanteringen dog en positiv påvirkning på børnenes auditive og sproglige udbytte. På baggrund af sådanne varierede resultater af reimplantering anbefales professionelle derfor at være opmærksomme på disse data, og derved være varsomme med at præsentere mulige forudsigelser om børns udbytte af reimplanteringen i vejledningen af forældrene. Herudover bør de påpege, at det kan tage flere måneder eller mere end et år, før det er muligt at konkludere på et udviklingspotentiale (Balkany et al., 2005; Cullen, Fayad, Luxford, & Buchman, 2008).

7.2.4 Yderligere faktorer kan påvirke udbyttet af CI hos børn efter reimplantation

Da det ses, at ikke alle børn får et forbedret auditivt og sprogligt udbytte på trods af reimplantering efter HF og SF, undersøgte jeg, om der i litteraturen fremstilles mulige forklaringer på, hvilke potentielle faktorer der kan påvirke udbyttet.

I Marlowe et al. (2010) finder de, at udbyttet påvirkes af procentdelen af aktive elektrodepunkter i implantatet, hvor et fald i taleforståelse efter reimplantering var associeret med en højere andel af inaktive kanaler. Hertil fandt de, at der var et større udbytte hos børn, der havde oplevet et fald i clinical performance i forbindelse med DF, end børn der oplevedes at være generelle "poor performers" både før, under og efter DF. Derudover identificerede forfatterne, at barnets alder kunne have påvirkning på prognosen for barnets sproglige udbytte efter reimplantering. Børn, der opnåede eller oversteg deres tidligere

taleforståelsesscores, var yngre (mean = 6,4 år) end de børn, der akkurat opnåede tidligere niveauer (mean = 9,4 år), såvel som børn der oplevede et fald i taleforståelsesscores efter reimplantering (mean = 11,3 år).

I studiet af Cullen et al. (2008) fremstilles det, at elektrodens specifikke position i cochlea efter reimplantation muligvis kan være en påvirkende faktor for barnets auditive input. Derudover ses det også muligt, at udbyttet kan påvirkes af, hvorvidt barnet er blevet reimplanteret med et implantat med en anden programmeringsstrategi, da dette kan forsinke barnets fremgang i taleforståelsen.

Afslutningsvis påpeges det i litteraturen, at man som professionel skal være yderst opmærksom på altid at monitorere barnets auditive og sproglige udbytte efter reimplantering. Derudover anbefales det, at et sprogstimulerende rehabiliteringsforløb igangsættes for børn, der har brug for dette, især med fokus på de børn, der både før og efter reimplanteringen ikke har opnået højeste testscores. Formålet bør være at sikre, at børnene får det bedst mulige udbytte af implantatet (Balkany et al., 2005; Cullen et al., 2008; Sterkers et al., 2015).

8. Casestudiet

I dette kapitel vil jeg præsentere et enkelt casestudie af en drengs præverbale udvikling efter cochlear reimplantation grundet mistanke om SF. Formålet med inkludering af et casestudie i dette speciale er som tidligere nævnt at anvende casedata som en kvalitativ vinkel til opgaves primære fokus på prævalensen for SF, men også som et konkret eksempel til specialets tredje underformål; en karakterisering af mulige sproglige - og/eller udviklingsmæssige konsekvenser af SF hos børn med CI.

I det følgende præsenteres analyseresultaterne for videoanalysen af barnets præverbale udvikling og afslutningsvis sammenholdes disse resultater med den tidligere præsenterede begrebsramme for SF samt mulige sproglige og udviklingsmæssige konsekvenser af SF relateret til børn med CI.

8.1 Præsentation af case

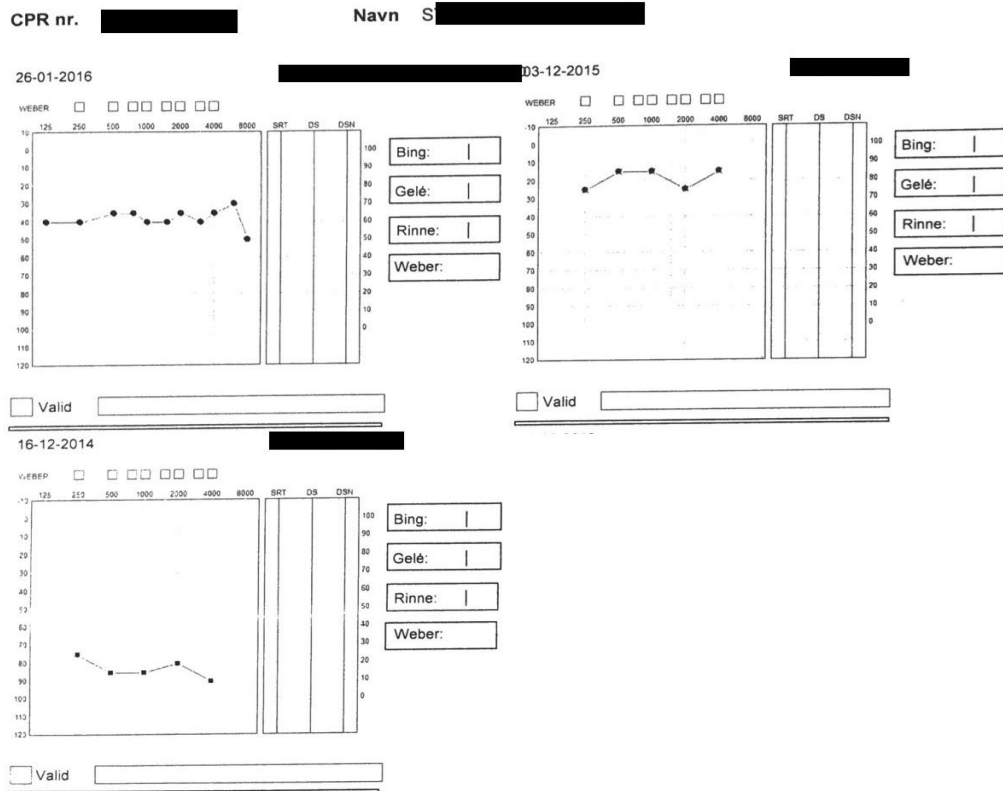
Igennem Decibel, landsforeningen for børn og unge med høretab, har jeg fået kontakt til barnet "S". S's forløb er en del af foreningens forskningsprojekt til undersøgelse af det sproglige udbytte af AVT-undervisning hos småbørn med høretab. Nedenstående journalinformationer er indhentet med godkendelse af S's mor (Se bilag III).

S er en dreng født i juni 2010 ved kejsersnit efter et længere fødselsforløb grundet nedsat puls. S blev herefter indlagt på neonatal afdeling i 12 dage grundet lavt blodsukker. Normal apgar score. Frem til efteråret 2011 var der ingen oplevet hørenedsættelse, da S udviklede normal pludren samt kunne sige enkelte ord. Ved 15 måneders alderen opstod en mistanke om hørenedsættelse, da S blev svær at få kontakt med ren auditivt. S blev behandlet for en bilateral sekretorisk otit med dræn i maj 2012. Dette hjalp ikke på hørelsen.

I august 2012 blev S henvist til audiologisk afdeling, hvor audiometriundersøgelse viste ingen reaktion på lyde ved 80 dB. Resultaterne for målte emissioner viste bilateral REFER. Samme måned fik S foretaget en MR-scanning som viste en hjerneskade, som muligvis var forårsaget af det lave blodsukker ved fødslen. I relation til hørenedsættelsen, var der også mistanke om CMV virus, og der blev derfor foretaget en undersøgelse af dette. En hørebehandling med HA blev igangsat i september 2012. I oktober 2012 kom der et positivt testresultat tilbage for CMV virus, hvilket kunne være en forklaring på den oplevede hørenedsættelse. S blev i samme ombæring indstillet til videre CI-behandling af sit høretab.

I december 2012 blev S implanteret bilateralt med Nucleus® Freedom Contour Advance. Efterfølgende bilaterale impedansmålinger var stabile, hvilket også var tilfældet for målte aNRT-responser.

Efter halvandet års AVT-undervisning blev der i juni 2014 rettet mistanke om SF grundet manglende auditivt udbytte af CI. Da S var inkluderet del af Decibels forskningsprojekt, blev hans udvikling monitoreret tæt, og han fik en forlænget AVT-undervisning i mere end de tolv måneder, der ellers anbefales i de danske retningslinjer (Sundhedsstyrelsen, 2012). Mistanken var baseret på gentagne objektive målinger (fx impedansmålinger), som ikke kunne vise nogle konkluderende indikationer på tekniske fejltilstande i implantaterne. Derudover viste S's audiogrammåling i december 2014 et ikke-optimalt auditivt udbytte af CI (se Figur 7 nedenfor). Objektive undersøgelser viste kognitive funktioner inden for normalområdet. På trods af dette blev det observeret, at S's lydproduktioner var meget forvrængede for både konsonanter og vokaler samt præget af højfrekvente kvaliteter. Lydproduktionerne skulle ofte aktivt promptes frem i undervisningen. Derudover blev det observeret, at drengen pludrede mere uden sine CI tændt, og at hans auditive udbytte især var forbedret, når det højre CI ikke var tændt. På baggrund af den store diskrepans mellem S's kognitive færdigheder og det ikke-optimale udbytte af CI, blev S sendt til videre udredning med henblik på reimplantering af højre implantat. Operationen blev udført et år senere i juni 2015. Ud fra audiogrammålinger foretaget i december 2015 og i januar 2016 ses det, at S's audiogrammålinger nu viser en forbedret auditiv stimulering. Efter reoperationen modtog S yderligere syv måneders AVT-undervisning hos Decibel, inden jeg så ham første gang i februar 2016.



Figur 7. Case S's audiogrammer før (nederst) og efter (øverst) reimplantering af CI. Disse målinger repræsenterer S's bilaterale hørelse.

En nærmere udredning af S på Børneklivikken, foretaget september 2016, har vist, at S har et normalt kognitivt niveau ved nonverbale test, og hans sproglige niveau vurderes at svare til 1;8 år, hvilket ses at være næsten tilsvarende hans udvikling, når hans reelle hørelder vurderes at tage udgangspunkt i den nye auditive stimulering efter reimplantering⁹.

Til dagligt går S i en specialinstitution, hvor den primære kommunikation er baseret på totalkommunikation, og der anvendes tegn til tale samt billedstøttet kommunikation. Fremadrettet er det forventet, at S i 2017 skal starte i en skole med høreklasser, hvor der er gode talesprogsmodeller til stimulering af hans videre auditive og sproglige udvikling.

S's kronologiske alder var 5;8 år ved første møde i februar, og hans hørelder var tilsvarende 0;7 år. Ved afslutning af videooptagelserne af hans AVT-undervisning i maj måned, var hans kronologiske alder 5;11 år, og hans hørelder var 0;11 år.

⁹ Informationen er modtaget skriftligt af speciallets vejleder, da journaloplysninger blev indhentet forud for udredningen på Børneklivikken.

8.2 Resultater – Tait videoanalyse af AVT undervisning

I det følgende vil jeg præsentere min analyse af barnets fire undervisningsgange. Som udgangspunkt for min analyse har jeg for hver videooptagelse udvalgt et enkelt videoklip af 2-3 minutters varighed, som jeg mener, bedst illustrerer S's kommunikative færdigheder i interaktionen med audiologopæden i AVT-undervisningen. De fire udvalgte klip er vedlagt som bilag IV-VII. De enkelte sessioner er optaget henholdsvis d. 10. februar, d. 9. marts, d. 13. april og d. 18. maj 2016 med fire til fem uger mellem hver undervisning.

Som Tait anbefaler, optæller jeg den procentvise fordeling af S's responser, opdelt efter de fremstillede parametre (se Tabel 1, s. 18), for de fire sessioner. Derudover vil jeg udregne den procentvise fordeling af S's sammenlagte verbale ture, turtagninger med brug af gestik og ture med autonomi samt responser, hvor han ikke har øjenkontakt, men udelukkende baserer sine responser på det auditive input. Derudover vil jeg optælle og foretage lignende udregninger for alle turtagninger indeholdende verbalresponser samt ture indeholdende udelukkende anvendelse af gestik eller tegn. Dette gøres for at illustrere en ren auditiv og en ren verbal udviklingsfaktor for barnet (Tait & Lutman, 1997). Alle de præsenterede optællinger sammenlignes afslutningsvis for at illustrere S's præverbale udvikling.

Til analysen af S's præverbale interaktioner, har jeg valgt at lade mig inspirere af skematiseringen præsenteret i specialet af Lassen (2011). Jeg mener, at denne skematisering bidrager til en mere letlæselig oversigt til vurderingen af et barns præverbale kommunikative færdigheder end den mere klassiske noteringsramme præsenteret af Tait¹⁰. Derudover ser jeg det som en styrke, at det i skematiseringen i Lassen (2011), er muligt direkte at notere responsernes karakteristika inden for de fremstillede parametre i oversigten. I skematiseringen noteres hver turtagning i en ny linje, hvor verbale ytringer markeres med kursiv. Ytringer fra moren i interaktionerne noteres i samme kolonne som responserne fra S. Øjenkontakt mellem de voksne og S vil noteres i parentes i kolonnerne for drengens turtagninger.

8.3.1 Resultater – AVT, første undervisning

Introduktion til klippet: S og audiologopæden "L" har først læst en bog om cirkus. Forud for klippet har L introduceret en cirkuskulisse med tilhørende dyr.

¹⁰ Til sammenligning inkluderer jeg et kort eksempel på Tait's noteringsramme i bilag VIII.

Tabel 5. Tait videoanalyse, 10. februar 2016.

	Audiologopæd L	S	Analyse
1.	<i>Hey du. L rasler med en kasse. Nu skal du bare se, hør. Henne i cirkus der er der én der siger - Du du du du duuh</i>	S kigger på kulissen. Reagerer på L's raslen. Siger: <i>Nnn</i> . S kigger på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Døø døød</i> .	VT
2.	L henvender sig til mor i ca. 2 sek. <i>Du du du du duuh</i> .	Kigger væk. Siger: <i>nnn, nnn</i>	NLVT
3.	<i>Hey S, det første nummer er en hund og en løve.</i>		NR
4.	<i>Prøv lige at hør'. Du du du du duuh.</i>	Mor: Tager fat i S og peger, retter hans opmærksomhed mod figuren i L's hånd. <i>Prøv at se</i> . S: Kigger væk og kigger så på figuren. Siger: <i>Uud, fff</i> .	NLVT
5.	<i>Første nummer. Da daarh.</i>	Mor: Peger, retter hans opmærksomhed mod figuren i døråbningen. S: Kigger på figuren. Siger: <i>Dejaarh</i> .	NLVT
6.	<i>Da daarh.</i>	S kigger på figuren. Siger: <i>Jaarh</i> .	NLVT
7.	L taler til mor i kort tid. <i>Da daarh. En løve der kan danse. Da daah</i>	S kigger på figuren. S's mimik viser glæde.	GT
8.	-	S tager fat i kulissen.	GA
9.	<i>Du skal vente. Det er din tur bagefter.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Aarh</i> . Mor: <i>jaah</i> .	VT
10.	<i>Og så kommer der en hund. Vuf vuf vuf.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). <i>Umm, bø, mm</i> .	VT
11.	<i>Vuf vuf vuf.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Umm, nnn</i> .	VT
12.	<i>Mm, ja. Vuf vuf vuf. Prøv lige at se en lille hund. Den danser sammen med løven.</i>	S tager hænderne op til øjnene og "gemmer" sig bag dem. Siger: <i>Bah</i> . S åbner hænderne op og kommer frem.	GA
13.	<i>Arh. Er du klar? Så danser de. Figurerne bevæger sig på en roterende plade. Danse, danse, danse, danse.</i>	S kigger på figurerne. S's mimik viser overraskelse, da pladen roterer.	GT
14.	<i>Åarh. S, kan du huske hvad publikum sagde? Prøv at hør'. - Jaah rigtigt!</i>	Kigger væk. Siger: <i>Nnn</i> . S begynder at klappe. Kigger på L, da han begynder at klappe (øjeblikkontakt). Kigger kort væk og kigger igen på L (øjeblikkontakt), mens de sammen klapper i hænderne.	NLT-S

15.	<i>De sagde "ekstranummer, ekstranummer". Klapper i hænderne. Rigtig godt husket. Så er det din tur. L skubber kulissen over mod S. Kom.</i>	S tager fat i trapezen.	GA
16.	<i>Nej, så skal vi lige tage ekstranummer. Det betyder, at du skal gøre det igen.</i>		NR
17.	<i>Kom, gør det igen.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt) og tager fat i figurerne. Siger: <i>Nnn</i> , Mor: <i>Nej</i> .	VT
18.	<i>Du skal få dem til at danse.</i>	S kigger ikke på L under den verbale instruktion. S kigger på figurerne og får dem til at danse på pladen.	NLT-S
19.	L taler til mor i 6 sek. <i>Naarj. Godt, tak for nummeret.</i> L klapper med S. <i>Jaah, rigtigt.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt), og begynder at klapper. Kigger på mor. Mor: <i>Jaah, vi klapper.</i>	GA
20.	<i>Nu er det din tur til at lave nummer for mig. Værsgo'. L vender kulissen, så S er bag den og den står med front mod hende. Hun giver S kassen med cirkusfigurer.</i>	Mor: <i>Ååh.</i> S kigger på kort op på L (ingen øjenkontakt) og kigger derefter i kassen.	GT
21.	L taler til mor i 5 sekunder. <i>Ja, god idé.</i>	Siger: <i>Aarh.</i> Viser en figur til L.	VA
22.	<i>Hey, hvad sagde den?</i>	S leger med figuren, der kigger frem.	NR
23.	<i>Nå, den kommer dér.</i>		NR
24.	<i>Må jeg lige høre. Hvad siger han? L tager sin hånd op til det ene øre.</i>	Mor: <i>Hvad siger han, S?</i>	NR
25.		Mor: <i>Siger han aarh?</i> S kigger på figuren. Siger: <i>Waarh.</i>	VT
26.	<i>Ja okay, jeg tror, at de i cirkus siger da da da da daaah.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). Kigger ned. Siger: <i>Mmm aarh.</i>	VT
27.	<i>Hey S. Da da da da daaah.</i>		NR
28.		Mor: <i>Da da da da daaah. Siger han det?</i> S siger: <i>Mmm.</i>	VT
29.	- <i>Okay, Jaah. L klapper. En abe.</i>	Siger: <i>Aarh.</i> S introducerer aben der kommer frem fra cirkustæppet. S kigger på L (øjeblikkontakt).	VA
30.	<i>Hvad skal han lave?</i>		NR
31.	- <i>Da daaah. L klapper. Jaah.</i>	S lader aben springe frem. Siger: <i>Daaah.</i> Kigger på L (øjeblikkontakt).	VA

I Tur 12 kan det diskuteres, hvorvidt S's gestikulationer bør vurderes som VA eller GA. Jeg vurderer situationen i interaktionen som autonomi, der dog ikke følges op på af den voksne. Jeg vurderer, at S bruger gestikulationerne til at formidle, at hunden gemte sig bag

cirkustæppet og kom frem. På trods af, at S også siger en lyd i løbet af denne tur, bliver turen vurderet som en GA, da hans initiativ startes udelukkende ved brug af tegn.

Tur 14 vurderes til at være et udtryk for en Non looking sign turn (NLT-S). Det kan først ligne, at S udviser autonomi, men jeg vurderer, at hans respons med at klappe stadig virker som en respons afledt af hendes spørgsmål. Dette bygger på, at de tidligere i sessionen snakkede om, at publikum råber ”ekstranummer”, mens de begge klappede i hænderne. Turen indledes med en svag ”nnn”-produktion, som jeg ikke vurderer til at have direkte relation til hans respons til L’s spørgsmål.

I tur 15 kan det diskuteres, hvorvidt den skal bedømmes som en GT eller en GA. Jeg vurderer, at S hér prøver at introducere trapezen i legen på eget initiativ, hvortil L svarer, at de ikke skal lege med trapezen nu, men at hun gerne vil have ham til at give et ekstranummer i forestillingen.

I Tabel 6 ses optællingerne af S’s responser for første AVT-undervisning.

Parameter	Antal	Procentdel
Verbal turtagning (VT)	8	25,8 %
Turtagning med gestik (GT)	3	9,7 %
Autonomi verbal (VA)	3	9,7 %
Autonomi gestik (GA)	4	12,9 %
Non looking vocal turn (NLVT)	4	12,9 %
Non looking sign turn (NLT-S)	2	6,5 %
No Response (NR)	7	22,6 %

Tabel 6. Tait Videoanalyse optælling, første undervisning.

Der er i alt observeret 31 mulige turtagningsmuligheder for S i interaktionen med den voksne. S har sammenlagt 15 ture, hvor han responderer verbalt (VT+VA+NLVT), hvilket svarer til 48,4 % af gangene. Derudover responderer han udelukkende med gestik (GT+GA+NLT-S) i 9 ture svarende til 29,0 % af alle turtagninger. S udviser eget initiativ (VA+GA) 7 gange svarende til 22,6 %, og han responderer uden at kigge op (NLVT/NLT-S) i 6 ture, hvilket er 19,4 % af gangene.

I løbet af denne video-optagede interaktion har S øjenkontakt med L i alt 11 gange. Tur 1, 10, 11 og 26 vurderer jeg øjenkontaktens karakter som værende en støttende mundaflæsning af L, der modellerer en udtale han skal gentage. I tur 17 og 31 anvender S sin mimik og øjenkontakten som et redskab til at tjekke om han henholdsvis har forstået informationen korrekt eller om han gør det forventede. To gange vurderes øjenkontakten som en indikation på fælles opmærksomhed i kommunikationen, hvilket fx ses i tur 14, hvor den anden øjenkontakt vurderes som udveksling af fælles begejstring for at klappe sammen. Tre gange bruger S øjenkontakt til at aflæse L's reaktioner på hans egne initiativer præsenteret for hende.

8.3.2 Resultater – AVT, anden undervisning

Til optagelsen af denne undervisning blev kameraets zoomfunktion desværre ikke indstillet korrekt. Der er zoomet meget ind på S's plads, hvilket gør, at det er svært at se resten af bordet. Hertil er udsynet til S's ansigt ofte mindsket, da det skjules bag audiologopæden i interaktionerne. Jeg har dog på bedste vis forsøgt at finde en sekvens, hvor dette ikke er for udpræget.

Introduktion til klippet: S og L har lavet små madpakker af legetøjsmad til nogle menneskefigurer der arbejder på en byggeplads. Nu skal de pakkes ud i arbejdernes frokostpause.

Tabel 7. Tait Videoanalyse, 9. marts 2016.

	Audiologopæd L	S	Analyse
1.	<i>Leverpostej. - Tak.</i>	S nikker og siger: <i>arh, arh</i> . Han giver madpakkepapiret til L. Han kigger væk.	NLVT
2.	<i>- Taak.</i>	Siger: <i>Aj, aarh</i> . Giver en pose til L.	VA
3.	<i>-</i>	Mor: <i>Skal den op på tallerknen?</i> S pakker stadig madpakker ud.	NR
4.	<i>-</i>	Mor: <i>Skal den op på tallerknen?</i>	NR
5.	<i>-</i>	Mor: <i>S, skal den op på tallerknen?</i> Da S ikke responderer, ligger mor den på tallerknen.	NR
6.	<i>Åårh, lækker pålægschokolade. Mmm. mmm.</i>	S kigger væk. Siger svagt: <i>Mmm</i> .	NLVT
7.	<i>-</i>	Siger: <i>Åh åh</i> . Med hans mimik og ved gestik viser han, at noget er	VA

		væk.	
8.	-	Mor: <i>Hvad mangler du?</i>	NR
9.	-	Mor: <i>S, hvad er det, du mangler?</i>	NR
10.	<i>Det er måske tallerknen, tror jeg. Der er lidt snak mellem de voksne, som ikke er hørbart.</i>	S siger: Ø', øh. Kigger væk. Peger på noget på bordet.	VA
11.	<i>Hov, hvad er nu dét der?</i>	Siger: <i>Aarb.</i> Kigger væk. S finder det legetøj frem, han havde brug for i madpakken.	NLVT
12.	<i>Mmm. Årh, det var burger.</i>	Mor: <i>Den er også go'.</i> S kigger væk.	NR
13.	<i>Mmm. Det var burger. Prøv lige at hør' her. Bur-ger. L holder burgeren hen til S. - Ja det var flot.</i>	Siger: <i>Ba'ahn.</i>	VT
14.	-	S leger, at figuren spiser burgeren. Med mimik viser han, at han laver sjov. Han kigger op på L (øjeblikkontakt). S producerer putstelyd gennem næsen, som om han griner.	GA
15.	<i>Mmm, ja. Lækker mad. Og der er også lidt at drikke hér. Kan du huske det? Saft.</i>	Kigger væk. Siger: <i>y y y</i> (glottal lyd).	NLVT
16.	<i>Mmm. S, det er saft.</i>	S kigger op på L (øjeblikkontakt). S responderer med et nik og en svag <i>nasal</i> produktion.	GT
17.	- <i>Nej, neej. Det bliver ulækkert.</i>	Siger: <i>Flll, flll.</i> S leger, at han hælder saft på burgeren. Kigger op på L (øjeblikkontakt).	NLVT
18.	<i>Det bliver da ulækkert.</i>	S griner: <i>Haha.</i> Kigger væk.	NLVT
19.	<i>Det er da hende dér, der drikker. L producerer søbe-lyd: Sjuuub. Åh, hun blev tørstig.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). Vender sig mod sin mor og udbryster: <i>Var!</i> Kigger op på L (øjeblikkontakt). Ryster på hovedet og griber ud efter flasken. Siger: <i>Uuh.</i>	VA
20.	<i>Ej, og ham derovre "Må jeg få lidt at drikke?". Sjuuub.</i>	Siger: <i>Xxaaa.</i> Kigger derefter op på L (øjeblikkontakt).	NLVT
21.	<i>Ja, det er godt hørt, S.</i>	Siger: <i>Sjuuu.</i> Kigger væk.	NLVT
22.	L og mor taler sammen i 30 sekunder	Kigger på mor. Siger: <i>Aaarh ba. Naar, jaae.</i> Henvender sig til mor ved siden af sig for at fange hendes opmærksomhed, mens hun taler med L. Han vifter med den ene arm imens. Siger: <i>Xxxx, sxx</i>	VA
23.	<i>Ja pizza. Hey den sidste. Mmm. Hvad er det nu der er til den sidste?</i>	Siger: <i>Naaarj, eee.</i> Kigger på madpakken.	NLVT
24.	<i>Mmm.</i>	Siger: <i>Veee.</i> Kigger væk, mens han pakker madpakken ud.	NLVT

25.	<i>Hvad var det nu? Hvad var det nu, S?</i>	S pakker madpakken ud.	NR
26.	<i>Åårh, en lækker pølsemad</i>	Siger: <i>Åhnn.</i>	NLVT
27.	<i>Åårh lækkert, mand.</i>	Siger: <i>Fff, sss.</i> Kigger op på L. (øjeblikkontakt)	VT
28.	<i>Nej, det der er ulækkert. Neej, det går da ikke.</i> L henvender sig til mor. <i>Tror han det er sennep?</i>	S smiler. Siger: <i>y y y</i> (glottal lyd). Mor: <i>S, er det ketchup?</i> Kigger på mor (øjeblikkontakt).	NR
29.	- <i>Er det ketchup?</i>	Mor: <i>Er det fordi, du synes det er ketchup?</i> Siger: <i>y y y</i> (glottal lyd).	NR
30.	L og mor taler sammen. <i>Ja, uhm, han spiser den.</i>	S siger: <i>Fff, jajaja.</i> Kigger på mor (øjeblikkontakt).	VA
31.	<i>Og så lige bananen. Banan.</i>	Tager bananen.	NLT-S
32.	<i>Mmm, banan.</i>	Kigger op på L (øjeblikkontakt).	NR
33.	<i>Prøv lige at hør'. Ba-nan.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt) Siger: <i>Ba'ba.</i>	VT

I tur 13 kan det diskuteres, om turtagningen hos S bør vurderes som en VT eller en NLVT, da det ikke er muligt tydeligt at se, om S kigger på L. Dog vælger jeg at vurdere turen som en VT, da L i sin tur direkte prompter S til gentagelse samtidig med, at hun holder legetøjet hen til S's mund, før han tager det i hånden. Samme vurdering er foretaget i tur 33.

I tur 14 udviser S eget initiativ til at skabe en ny situation i legen. Her har turen både potentiale til at blive analyseret som værende en tur med verbal autonomi eller autonomi med gestik, da S producerer en nasal pustelyd i turen. Jeg vurderer dog turen som værende GA, da jeg vurderer det nasale pust til at være i relation til et grin. Det samme gør sig gældende i tur 16, hvor S potentielt producerer en meget svag nasallyd, mens han nikker. Det er dog ikke en tydelig lydproduktion, så jeg vurderer turen til at være GT.

Tur 17 kan både vurderes som værende en NLVT eller en VT-tur, da S kigger op på L undervejs. Jeg vurderer turen til at være NLVT, da S starter sin lydproduktion, før han kigger op på L. Det samme vurderes for tur 20.

Tur 28 og 29 noteres som NR, selvom S faktisk producerer en gennemgående glottal lyd i turene. Jeg vurderer det som værende en perseveration, da jeg mener, at han ikke helt kan tolke, hvad den voksne vil kommunikere i situationen.

I Tabel 8 ses optællingerne af S's responser for anden AVT-undervisning.

Parameter	Antal	Procentdel
Verbal turtagning (VT)	3	9,1 %
Turtagning med gestik (GT)	1	3,0 %
Autonomi verbal (VA)	6	18,2 %
Autonomi gestik (GA)	1	3,0 %
Non looking vocal turn (NLVT)	11	33,3 %
Non looking sign turn (NLT-S)	1	3,0 %
No Response (NR)	10	30,3 %

Tabel 8. Tait Videoanalyse optælling, anden undervisning.

I dette klip er der noteret i alt 33 muligheder for turtagninger i interaktionen. Der ses i alt 20 ture, hvor S responderer verbalt (VT+VA+NLVT), hvilket svarer til 60,6 % af gangene. Derudover responderer han udelukkende med gestik (GT+GA+NLT-S) 3 gange, hvilket er 9,0 % af alle turtagninger. S udviser eget initiativ (VA+GA) 7 gange svarende til 21,2 %, og han responderer uden at kigge op (NLVT/NLT-S) i 12 ture, hvilket er 36,4 % af gangene.

I dette videoklip har S øjenkontakt med L 8 gange og med sin mor 2 gange. For tur 14, 20, 23, 27, 28 og 30 tolkes øjenkontakten som en aflæsning af de voksnes reaktioner på hans egne initiativer. I tur 16 bruger S øjenkontakten som et redskab til at tjekke, om han har forstået informationen korrekt. I turene 19 og 32 udveksler S kontakten som en indikation af fælles opmærksomhed i interaktionen. Ved tur 33 er det usikkert, om der er tale om en mundaflæsning eller fælles opmærksomhed, da det er svært at se på filmoptagelsen.

8.3.3 Resultater – AVT, tredje undervisning

Introduktion til klippet: Audiologopæden, S og mor leger med en byggeplads og nogle menneskefigurer, der arbejder på byggepladsen. Arbejderne på byggepladsen er ankommet i bus og på motorcykel.

Tabel 9. Tait Videoanalyse, 13. april 2016.

	Audiologopæd L	S	Analyse
1.	<i>Okay, ud af bussen.</i>	Siger: <i>Jah. Arh, arh, arh.</i> Kigger væk.	NLVT
2.	<i>Hey. Ned af motorcyklen.</i>	Siger: <i>Me.</i> S kigger derefter på byggepladsen og rækker ud efter den.	GA
3.	<i>Nej, pyyyh.</i> L flytter byggepladsen lidt væk. <i>De kan ikke arbejde, når de er på motorcykel. Der mangler én.</i>	Mor: <i>S?</i> S kigger mod byggepladsen.	NR
4.	<i>S, der mangler én.</i>	Mor peger på motorcyklen. S kigger på den og peger. Siger: <i>Tha'.</i> Kigger derefter op på mor (øjeblikkontakt)	NRVT
5.	<i>Ja, kig lige. Der mangler én. Der er én, der skal ned af motorcyklen.</i>	S tager en figur, peger på den og kigger op på L (øjeblikkontakt).	GT
6.	<i>Han har da ikke nogen motorcykel.</i>	S peger skiftevis på figurens ansigt og op på sine briller. Kigger op på L (øjeblikkontakt). Siger svagt: <i>Da', da'.</i>	GA
7.	<i>Ja, briller. Ja. Bril-ler.</i>	Mor: <i>Jaah.</i> Griner. S kigger på L (øjeblikkontakt) og siger: <i>Ba ba.</i> Mor: <i>Bril-ler.</i>	VT
8.	<i>Bril-ler.</i>	Mor: <i>Det er rigtigt, S. Det er rigtigt nok.</i> S kigger op på mor (øjeblikkontakt) og viser med sin mimik, at han synes, det er sjovt.	GT
9.	<i>Hey, S. Der er én, der skal ned af motorcyklen.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt) Siger: <i>Da, aarh.</i> Han nikker.	VT
10.	<i>Han er færdig med at køre motorcykel.</i>		NR
11.	L tager figurene fra S. <i>Hvis du lige tænker dig om. Færdig med at køre motorcykel.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). S nikker og siger: <i>Barh.</i> S tager den ene figur af motorcyklen.	VT
12.	<i>Tak. Så lyttede du.</i> L og mor taler kort sammen.		NR
13.	<i>Nu skal du bare se, hvad vi laver.</i> L finder nye ting frem fra en kasse ved siden af sig. <i>Færdig med motorcyklen, ja.</i>	Mor: <i>Færdig med motorcykel.</i>	NR
14.	<i>Vi flytter store tunge sten.</i>	S kigger på stenen. Siger: <i>y y y</i> (glottal lyd), <i>waa</i> , og nikker.	NLVT
15.	<i>Vi flytter store tunge sten.</i> L trækker byggepladsen frem.	S tager fat i byggepladsen. Siger: <i>yii, yii, yii.</i> Han begynder at lege med legetøjet.	NLVT
16.	- <i>Prøv at hør', hun er kranfører.</i> Viser en figur	Mor: <i>S, vente.</i> S kigger på figuren, nikker og siger:	NLVT

	til S.	<i>Ba' aarh.</i>	
17.	<i>Hun er kranfører.</i>	S kigger væk. Siger: <i>Barh, barh</i>	NLVT
18.	<i>Op i kranen, op i kranen.</i> Trækker kranen tættere på S.		NR
19.	<i>Op i kranen.</i>	S tager fat i kranen. kigger væk.	NLT-S.
20.	<i>Ja, prøv lige at se dér. Hun er kranfører.</i>	S tager fat i kranen. kigger væk. Siger: <i>Vaarh.</i>	NLVT
21.	<i>Nej, nu skal du ikke pille.</i> Flytter S's hånd fra kranen. L tager sin finger mod sit øre, for at vise, at S skal lytte. <i>Op i kranen.</i>	S kigger ikke på L. Siger: <i>Baarh</i>	NLVT
22.	<i>Op i kranen.</i>	S kigger ikke på L. Siger: <i>Baarh</i>	NLVT
23.	<i>Op i kranen.</i>	S kigger ikke på L. Siger: <i>Baarh</i>	NLVT
24.	<i>Hun er kranfører. Prøv lige at se dér. Hun sidder dér.</i> L peger på førersædet til kranen. - <i>Der var godt. Kranfører.</i>	S peger på sædet, siger: <i>Pa</i> , og nikker imens. Kigger væk. Han sætter pigen om i sædet. Han begynder at lege med kranen.	NLVT
25.	<i>De skal lige på plads. S, alle skal være klar.</i> L holder sin pegefinger op som tegn for at stoppe, mens hun taler.	S kigger op på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Vaarh.</i>	VT
26.	L stiller de andre figurer frem til S. <i>Så skal de ud at køre bilerne.</i>	S tager fat i en af bilerne og kører med den.	NLT-S
27.	<i>Hey, de skal op og køre bilerne.</i> - <i>Okay, han tager den der. En læsser, ja. Godt.</i>	S sætter figurerne i bilerne.	NLT-S
28.	<i>Og ham der med brillerne, det er dig.</i> L peger på S.	S kigger op på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Daarh.</i>	VT
29.	<i>Han sidder derinde og styrer maskinen.</i> - <i>Okay.</i>	S kigger væk, nikker og siger: <i>Mmm.</i>	NLVT
30.	<i>Du du du du du.</i> L lader en bil køre.		NR
31.	<i>Prøv lige at hør'.</i> Holder hånden op til munden. <i>Du du du du du.</i> - <i>Flot det kan du sagtens.</i>	S kigger væk. Siger: <i>Du du du</i>	NLVT

For tur 2 kan det diskuteres, hvorvidt denne tur bør kategoriseres som en verbal eller gestikulær autonomi. Jeg vurderer dog turen som værende GA, da han først kigger mod byggepladsen, og derefter viser initiativ, efter han producerer en kortere lyd.

Tur 26 kan ses som en NR, da S tager bilerne og kører med dem uden at interagere med den voksne. Jeg har dog valgt at vurdere turen som en NLT-S tur, da jeg tolker, at han griber ud efter bilerne som en respons på, at L har taget dem frem og videre forklarer ham, at figurerne skal køre i bilerne.

I Tabel 10 ses optællingerne af S's responser for tredje AVT-undervisning.

Parameter	Antal	Procentdel
Verbal turtagning (VT)	6	19,4 %
Turtagning med gestik (GT)	2	6,5 %
Autonomi verbal (VA)	0	0,0 %
Autonomi gestik (GA)	2	6,5 %
Non looking vocal turn (NLVT)	12	38,7%
Non looking sign turn (NLT-S)	3	9,7 %
No Response (NR)	6	19,4 %

Tabel 10. Tait Videoanalyse optælling, tredje undervisning.

I denne interaktion blev der i alt observeret 31 mulige turtagninger. S har sammenlagt 18 ture, hvor han responderer verbalt (VT+VA+NLVT), hvilket svarer til 58,1 % af gangene. Hertil responderer han udelukkende med gestik (GT+GA+NLT-S) i 7 ture, svarende til 22,6 % af alle turtagninger. S udviser eget initiativ (VA+GA) 2 gange svarende til 6,5 %, og han responderer uden at kigge op (NLVT/NLT-S) i 15 ture, hvilket er 48,4 % af gangene.

I dette klip har S øjenkontakt med L 7 gange og med sin mor 2 gange. Tur 9, 11 og 28 vurderer jeg som øjenkontakt med mulig støtte fra mundaflæsning, da S kigger på L, før han svarer verbalt. Øjenkontakten i tur 6 og 7 ses som S's aflæsning af de voksnes reaktioner på hans egne initiativer. Øjenkontakten i tur 8 virker som en indikation af fælles opmærksomhed i kommunikationen, mens S bruger øjenkontakten i tur 4, 5 og 25 som et redskab til at tjekke, om han har opnået en korrekt forståelse af den auditive information.

8.3.4 Resultater – AVT, fjerde undervisning

Introduktion til klippet: Audiologopæden og S leger med havdyr og har fordelt dem efter, om de bor i søen eller i havet. Der er ikke nok vand i baljerne til dyrene, så L og S har lige inden klippet hentet mere vand i køkkenet.

Tabel 11. Tait Videoanalyse, 18. maj 2016.

	Audiologopæd L	S	Analyse
1.	<i>Hvor skal der vand hen - i søen eller i havet?</i>	Siger: <i>Måh</i> , og kigger på baljen (blå), der fungerer som søen.	NLVT
2.	<i>I søen? Hvor mangler der vand?</i>	Siger: <i>Dah</i> . S peger på baljen (pink), der fungerer som havet. Kigger op på L (øjeblikkontakt).	NLVT
3.	<i>Mere i Stillehavet?</i> - <i>Nåh, okay.</i>	Siger: <i>M'mmm</i> , og nikker. Kigger på L imens (øjeblikkontakt). S hælder vandet i baljen.	VT
4.	- <i>Ååh, der er også meget vand ude i Stillehavet.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt) og videre op på mor (øjeblikkontakt). Mor: <i>Okay.</i>	GT
5.	<i>Men hvad med nede i søen?</i>		NR
6.	<i>S, hvad med dyrene nede i søen?</i>		NR
7.	- <i>Hvad med dem nede i søen?</i>	Mor: <i>Hvad med dem derovre?</i> Mor peger på den blå balje, og S kigger derhen. Siger: <i>Bah</i> . Kigger derefter på L (øjeblikkontakt).	NLVT
8.	<i>Ja hvor skal det hen?</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Vaarh</i> , og nikker.	VT
9.	<i>I søen eller i havet?</i>		NR
10.	<i>I søen eller i havet?</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Dah</i> , og peger ned i den pink balje.	VT
11.	<i>I havet? Nåh. L løfter en lille spand med vand hen over baljen. Det hele?</i>	S kigger på spanden. Siger: <i>Daarh</i> .	NLVT
12.	<i>Det hele?</i> - L hælder roligt vandet ned i baljen.	S holder sig for ørene. Han nikker, peger og kigger kort op på L (øjeblikkontakt). Kigger fra spanden og ned i vandet.	GT
13.	<i>Skal vi slet ikke give noget til søen?</i>	S kigger op på L (øjeblikkontakt).	NR
14.	- <i>Åååh, det regner S, hva'? Uuuh, hen over den der pukkelhval.</i>	S peger fra spanden og ned i vandet. Hans mimik viser, at han synes det er spændende.	GA
15.	<i>Altså hvad med søen?</i>	Siger: <i>Vaarh, garh</i> . Kigger væk.	NLVT
16.	<i>Hvad med søen?</i>	Mor: <i>Hvad med den derovre?</i> Hun peger på den blå balje. S kigger på baljen. Siger: <i>Døh, døh</i> .	NLVT
17.	<i>Skal den ikke have noget?</i>	S peger på den pink balje, siger: <i>Ab</i> , og kigger på L (øjeblikkontakt).	VA
18.	<i>Skal den have mere? Skal den der pukkelhval have det hele?</i>	Siger: <i>Da, daah</i> . Kigger på L (øjeblikkontakt) og nikker imens.	VT
19.	<i>Mmm, hvad med dem der? L peger på den blå balje mens hun hælder mere op i den pink balje. De udtørres derovre i den sø.</i>	Siger: <i>Maah</i> . Kigger væk.	NLVT
20.	L og mor taler sammen i 20 sek. L hælder	S kigger på baljen. Siger: <i>Da'ah</i> .	VT

	resten af vandet op i den pink balje imens. <i>Nåh, S. Hvad med dem dér?</i> L peger på den blå balje. <i>De dør.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt). Kigger derefter tilbage i den pink balje.	
21.	<i>S, prøv lige at hør'. De dér, ikk'.</i> L peger på den blå balje. <i>De dør.</i> L viser tegn for at dø til S. <i>De dør.</i>	Kigger væk.	NR
22.	<i>Prøv lige at hør'. De dør.</i> L viser igen tegn.	S kigger på L (øjeblikkontakt). Gør samme tegn og siger: <i>Da'.</i>	VT
23.	<i>Dør.</i> L viser igen tegn.	S kigger på L (øjeblikkontakt). Gør samme tegn og siger: <i>Darh.</i>	VT
24.	L taler kort med mor. <i>De dør dem der.</i> Viser igen tegn for at dø og laver tilhørende lyd. <i>Øhhr.</i>	Kigger væk. Siger: <i>Dahh.</i>	NLVT
25.	<i>De mangler vand.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt) og nikker. Siger: <i>Ahh.</i>	VT
26.	<i>De mangler vand. -</i> <i>De dør, ja.</i>	S kigger på L (øjeblikkontakt) og viser tegnet for at dø og siger: <i>Daarh.</i>	VA
27.	<i>De mangler vand.</i>	Kigger væk.	NR
28.	<i>Åh, nej.</i> L banker let i bordet.	S kigger op på L (øjeblikkontakt). Siger: <i>Aja</i> , mens han også laver gestik for at banke i bordet.	VT
29.	<i>Åh nej.</i>	S peger på den pink balje og siger: <i>Dah'.</i>	VA
30.	<i>Der er kun vand ude i Stillehavet. Åh nej.</i>	Kigger på L (øjeblikkontakt).	NR

For tur 2 og 7 kan det diskuteres, hvorvidt S's respons bør kategoriseres som en VT eller en NLVT, da S i begge ture først kigger væk, og derefter kigger på L. Jeg vælger at kategorisere disse ture som NLVT, da S kigger væk, mens han producerer sine verbale responser, og først derefter kigger op på L.

Tur 14 vurderer jeg til at være autonomi med gestik, da S peger på vandet fra spanden og ned i baljen. Hertil tydeliggør hans mimik, at han synes, det er spændende. Der ses dog ingen øjenkontakt mellem de voksne og S, men jeg vurderer stadig, at han viser eget initiativ til at kommunikere sin forundring til de voksne. S's respons i tur 17 og 29 vurderes ligeledes til at være autonomi. Han viser eget initiativ i interaktionen ved at vælge, at der skal mere vand i den pink balje.

I Tabel 12 ses optællingerne af S's responser for fjerde AVT-undervisning.

Parameter	Antal	Procentdel
Verbal turtagning (VT)	9	30,0 %
Turtagning med gestik (GT)	2	6,7 %
Autonomi verbal (VA)	3	10,0 %
Autonomi gestik (GA)	1	3,3 %
Non looking vocal turn (NLVT)	8	26,7 %
Non looking sign turn (NLT-S)	0	0,0 %
No Response (NR)	7	23,3 %

Tabel 12. Tait Videoanalyse optælling, fjerde undervisning.

I interaktionen er der noteret i alt 30 turtagninger. Der ses i alt 20 ture, hvor S responderer verbalt (VT+VA+NLVT), hvilket svarer til 66,7 % af gangene. Derudover responderer han udelukkende med gestik (GT+GA+NLT-S) 3 gange, hvilket er 10,0 % af alle responser. S udviser autonomi (VA+GA) i alt 4 gange svarende til 13,3 %, og han responderer uden at kigge op (NLVT/NLT-S) i alt 8 gange, hvilket svarer til 26,7 % af turene.

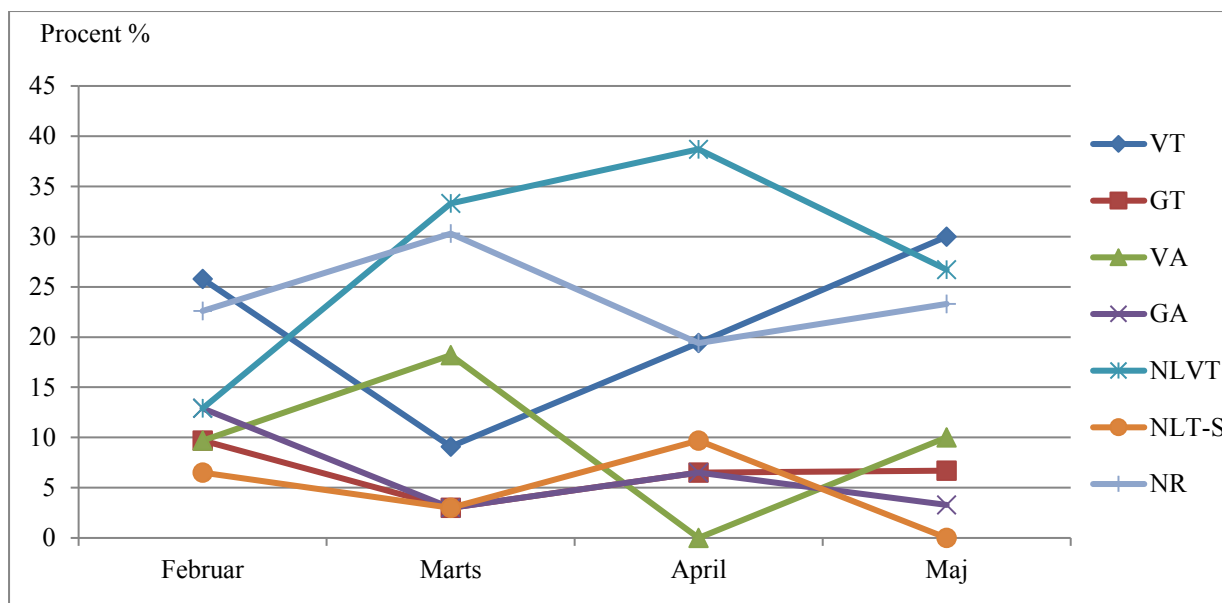
I dette klip har S øjenkontakt med L 17 gange og med sin mor en enkelt gang. For turene 8, 10, 13, 22 og 23 vurderer jeg, at øjenkontakten bruges af S til at mundaflæse som støtte til hans auditive forståelse. Dette ses, da der er øjenkontakt, inden han responderer. Øjenkontakten i turene 2, 4, 17 og 26 ses som en kontakt, hvor S aflæser de voksnes reaktioner på hans egne initiativer i interaktionen. I tur 7 bruger S øjenkontakten for at tjekke og aflæse, om han har forstået informationen korrekt, mens kontakten i tur 3, 12, 18, 20, 25, 28 og 30 vurderer jeg som et udtryk for fælles opmærksomhed.

8.3.5 Samlede resultater for AVT-undervisningerne

I dette afsnit vil jeg præsentere de fundne resultater af videoanalysen.

8.3.5.1 Resultater fordelt på de syv parametre

Ifølge Tait's analysemetode vil jeg i min videre analyse sammenholde de præsenterede parametre (se Tabel 1, s. 18) til en vurdering af S's præverbale udvikling. Til dette formål har jeg ud fra mine optællinger fremstillet følgende graf (se Figur 8 nedenfor) for hvert af de syv undersøgte parametre for præverbal kommunikation, som jeg har undersøgt i videoanalysen.



Figur 8. Grafisk fremstilling af S's analysescores fra februar-maj 2016.

I Figur 8 ses en stigning i S's verbale turtagninger (VT) samt for non looking verbal responses (NLVT). Det bemærkes, at målingen for VT i marts måned ligger markant lavere end de andre målinger. Omvendt ses i samme session, at måleresultaterne for NLVT og VA ligger proportionalt højere. Måleresultaterne illustrerer, hvorledes scoringer inden for de forskellige parametre er indbyrdes påvirkelige af hinanden inden for den enkelte session. Derudover skal det nævnes, at det var svært at fastholde S's opmærksomhed i denne session, hvilket også afspejles måleresultaterne. Analysen lægger derfor mere vægt på generelle tendenser fremfor de enkelte måleresultater.

Andelen af turtagninger uden respons (NR) varierer lidt i de forskellige undervisninger. Fra undervisning 2 til undervisning 3 ses et fald på 10 %, hvilket kan syne af lidt, men det har en stor påvirkning på interaktionen med en øget grad af aktiv deltagelse fra barnets side. I en sammenligning mellem første og fjerde undervisning ses dog en lille stigning på 0,7 %. Udviklingen for non looking-responser (NLVT), som indikerer andelen af ren auditiv processering af information, ses fra første til tredje undervisningsgang at være stigende. Dette indikerer, at S er blevet mere lyttende i kommunikationen. Derefter er der et fald i den procentvise andel fra 48,4 % for tredje undervisning til 26,7 % for fjerde undervisning. Dette kan være grundet flere ting. I legen med havdyrene i den fjerde undervisning bliver S eksempelvis stillet overfor flere komplekse problemstillinger i en leg, hvor der skal fordeles vand mellem akvarierne, end i legene ved de foregående AVT-sessioner. Hertil kommer, at S

selv styrer legen mere i dette klip, og at han muligvis har flere verbale responser med øjenkontakt med L, der stiller ham en større andel af spørgsmål, han skal tage stilling til, end ved de tidligere interaktioner hvor der har været flere direkte sætningsopbygninger.

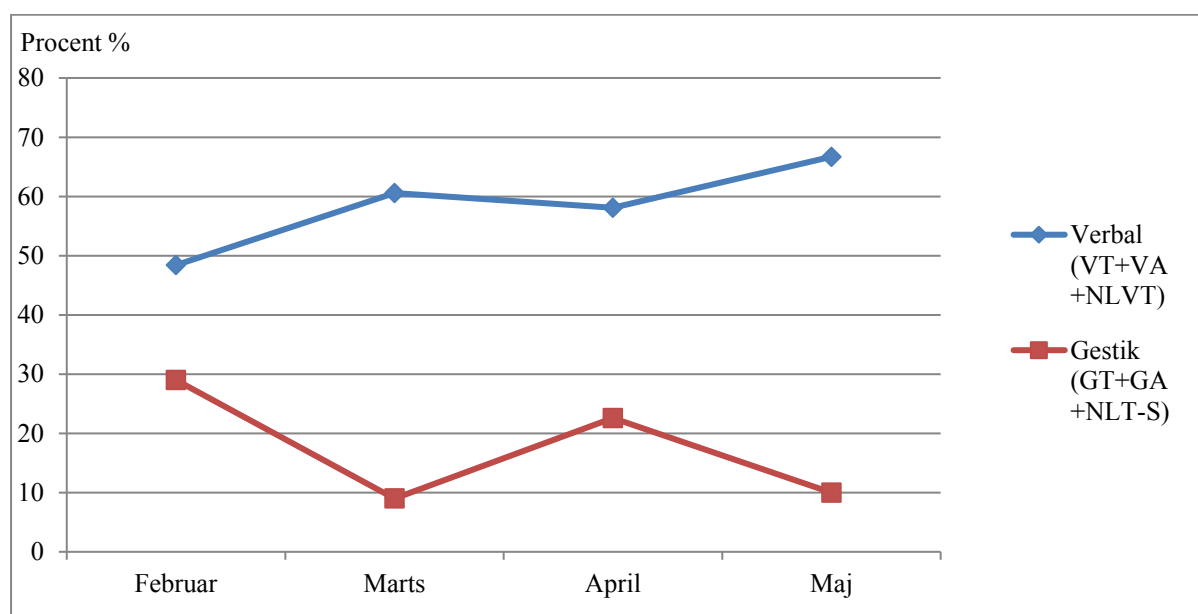
Andelen af øjenkontakt kan understrege dette samt forklare den stigende andel af verbale turtagninger. For hver undervisning har jeg kort noteret andelen af øjenkontakt, der fungerer som henholdsvis; mundaflæsning, bekræftelse af hvorvidt noget er korrekt forstået, fælles opmærksomhed og som aflæsning af de voksnes reaktioner på eget initiativ. Aflæsningerne af de voksnes reaktioner kan videre tolkes som en form for fælles opmærksomhed for barnets initiativ. Ved en sammenligning af andelen af øjenkontakt for fælles opmærksomhed mellem første og fjerde session, er der noteret fem gange med denne type øjenkontakt i første session sammenlignet med 11 gange for fjerde session. Dette kan være et udtryk for, at S er mere opmærksom på, at de alle er fælles om legen samt opmærksom på at aflæse de voksnes reaktioner på hans store medbestemmelse i legens udvikling i den fjerde session.

Selvom der muligvis ses en stigning i fælles opmærksomhed for de fire AVT sessioner, ses der en faldende udvikling i andelen af turtagninger med autonomi (VA/GA). Først og fremmest ses det, at det er forskelligt, hvor meget den enkelte leg optager ham. Nogle gange er han meget optaget af legetøjet og er opslugt af at lege med det selv fremfor at kommunikere til de voksne om legen. Det er også værd at overveje, om S præsenteres for nok muligheder og tid til at udvise eget initiativ, da det ses at mange af hans egne initiativer forekommer, når der er større pauser i kommunikationen. Dette kan eksempelvis være, når de voksne kort taler sammen i første og anden undervisning. Derudover ses det, at S især udviser autonomi, hvis der er information, der bryder med hans forståelse, eller hvis der er elementer, som han fatter speciel interesse for. Dette ses eksempelvis i interaktionen i anden undervisning, hvor L tror flasken er saft, mens S mener, at det er ketchup. Ligeledes ses det i tredje session, hvor figuren har briller på ligesom S også har briller, hvilket fanger S's opmærksomhed. Det kan være et udtryk for, at S på nuværende tidspunkt stadig er i gang med at udvikle et større kommunikativt overskud, da det i Tait et al. (2001) beskrives, hvorledes en øget mængde af relevant og korrekt brug af kommunikativ øjenkontakt kommer forud for børns udvikling af eget initiativ (autonomi) i kommunikationen.

8.3.5.2 S's samlede verbale udvikling

For at danne et klarere billede af S's overordnede verbale udvikling, har jeg valgt at

fremstille en tilsvarende Figur 9 (nedenfor) for S's udvikling for det samlede antal verbale responser (VT+VA+NLVT) og gestik-responser (GT+GA+NLT-S). Dette er gjort, da jeg mener, at det er interessant at foretage opgørelser over S's samlede gestik-responser og verbale responser samt at undersøge udviklingen i, hvordan disse anvendes. Dette er relevant, da S til dagligt går i en børnehave, hvor der anvendes totalkommunikation. Hvis data viser en positiv fremgang i verbaludviklingen og en nedgang i anvendelsen af gestik og tegn, er det en tydelig indikator på, at S har fået et auditivt udbytte af CI.



Figur 9. Grafisk fremstilling af analysescores på baggrund af ytringernes kommunikative kvalitet.

I Figur 9 ses det, at S's overordnede verbale udvikling er stigende. Når andelen af turtagninger indeholdende verbale ytringer (VT+VA+NRVT) lægges sammen, ses der en samlet udvikling fra 48,4 % (første undervisning) til 66,7 % (fjerde undervisning). Hertil ses det, at andelen af ytringer kun baseret på gestik og tegn er faldende henover de fire måneder fra 29 % i første session til 10 % i fjerde session. Dette stemmer overens med den mest optimale udvikling i forbindelse med AVT-undervisningen, hvor det er et mål, at barnets brug af verbale responser stiger, mens brugen af gestik og tegn vil falde (Tait et al., 2001). Disse observationer virker bekræftende for, at S's overordnede udbytte af CI er positivt, og at disse bidrager med et auditivt input, der er forudsætningen for hans videre sproglige udvikling.

8.4 Casestudiet i relation til forudgående viden

Dette afsnit bidrager med et overblik over informationer om case S i relation til den forudgående viden præsenteret i specialet.

8.4.1 Min case i relation til CMV, hjernens plasticitet og kognitive færdigheder

Årsagen til S's høretab menes at skyldes Cytomegalovirus (CMV). S er derfor en del af de 90 % af børn med CMV, hvor virussen er asymptomatisk ved fødslen, og hvor høretabet forekommer bilateralt med et progredierende forløb. Grundet det progredierende islæt for høretabet ses det, at S's neonatale hørescreening gik fint igennem. Dertil har kognitive tests vist scores, der ligger inden for normalområdet, hvor børn med CMV ellers kan risikere påvirkning af disse funktioner. Dette indikerer, at der ikke ses nogle patologiske faktorer i cortex, der ville kunne påvirke drengens auditive udbytte af CI.

Det var muligt for S at høre tilstrækkeligt til at udvikle alderssvarende pludren og til at producere enkelte ord helt frem til 15 måneders alderen, hvorefter der opstod mistanke om hørenedsættelse. Dette vil sige, at han har modtaget tilstrækkelig auditiv information i omtrent de første 15 måneder af den kritiske periode for maksimal plasticitet i hjernen. Dette er en vigtig påvirkende faktor, der indikerer, at den auditive nerve og det auditive cortex tidligere har modtaget tilstrækkelig neural stimulering, der sikrer et normaludviklet auditiv cortex som udgangspunkt for den videre hørebehandling. I journaloplysningerne ses det dog, at S i perioder har haft en svært nedsat eller helt manglende neural stimulering af det auditive cortex. Dette afleder jeg ud fra noteringer om, at det i den tidligste periode, inden behandling af otitis media i maj 2012, er uvist hvor længe, og i hvilket omfang, S's hørelse har været progredierende. Hertil ses det, at S behandles med dræn i tre måneder frem til august 2012, men dette hjælper ikke på hørelsen. Herefter startes behandling med HA, som viser et utilstrækkeligt udbytte, hvorefter S CI-opereres i december 2012. Fra hørelsen blev oplevet som nedsat af forældrene og frem til CI-behandlingen i december, er det minimum gået syv måneder. En midlertidig HA-behandling kan dog bevirke, at der vedligeholdes en lav auditiv stimulering af hørenerven. Længerevarende mangel på auditiv stimulering bevirker, at den auditive nerves funktion reduceres (Kral & Tillein, 2006). Der blev dog ikke set nogle sikre indikationer på lydlige reaktioner hos S i perioden. Det samme gør sig gældende i den efterfølgende hørebehandling med CI, som viser et nedsat auditiv udbytte (se audiogram fra d. 16.12.2014 i Figur 7, s. 52). På trods af indikationer på SF og et ikke optimalt udbytte af

behandlingen i relation til sprogudviklingen inden reimplantering, har drengens auditive cortex bibeholdt en stimulation, der er yderst vigtig til opretholdelsen af et aktivt auditivt cortex som grundlag for hans høreudvikling.

Manglende neural stimulering kan også påvirke et barns udvikling af kognitive færdigheder (O'Donoghue & Pisoni, 2014). Der ses dog forventninger om et normalt kognitivt niveau i hele hørebehandlingen, og der var vedvarende bekræftelse af normale kognitive funktioner fra nonverbale undersøgelser af dette foretaget i september 2016. På trods af et normalt kognitivt niveau hos S, ses der i CI-behandling fra december 2012 til reimplantering i juni 2015 et vedvarende misforhold mellem hans kognitive udgangspunkt for et positivt udbytte af behandlingen og det erfarede ikke-optimale auditive og sproglige udbytte af CI. Efter reimplantering ses et forbedret forhold mellem kognitionsniveau og udbytte af CI i relation til S's auditive og sproglige udvikling. Dette ses både ud fra udredningen fra Børneklinikken, som viser et sprogligt niveau svarende til 1;8 år omtrent svarende til hans hørealders vurderet fra tidspunktet for reimplantering.

8.4.2 Soft failure og fejlfinding i relation til min case

S blev som nævnt reopereret monauralt grundet mistanke om SF-problematik i højre implantatet. Anvendelsen af SF som en working diagnosis hos S blev brugt, da det blev observeret, at objektive in vivo undersøgelser af implantatet ikke viste nogle indikatorer på teknisk fejltilstand på trods af en stærkt nedsat clinical performance. I relation til min fremstillede Figur 4 (se s. 29) kan S's device kategoriseres in vivo som en kategori B2, som falder inden for in vivo samt SF-kategoriseringen. Efter eksplanteringen af det fejlmistænkte device blev det indsendt til vurdering hos producenten. Der er endnu ikke modtaget en rapportering angående ex vivo undersøgelse af S's eksplanterede device fra juni 2015. Det anbefales dog i de internationale anbefalinger, at producenter bør oplyse CI-centre om ex vivo undersøgelser inden 60 dage. Hvis det ikke er muligt at kategorisere et device inden for en seks måneders periode, bør CI-centret informeres om, at det pågældende device kategoriseres som "under study" indtil alle analyser er foretaget (Battmer et al., 2010). Da der efter mere end et år efter reimplantationen ikke forelægger en rapport, er det ikke muligt definitivt at kategorisere S's device i relation til ex vivo undersøgelser.

SF blev i denne case anvendt som working diagnosis grundet observationer af indikatorer på

et ikke-optimalt performanceudbytte af implantatet på trods af bl.a. normale objektive integritetsmålinger for implantatet. Observationerne blev sammenholdt med S's normale kognitive funktioner samt tidligere stimulerede auditive nerve og cortex, hvilket estimerede et positivt performanceudbytte af CI. Et sådant udbytte blev dog ikke observeret, og indikationerne til fejlfinding af SF (se Tabel 4, s. 43) var i S's tilfælde først og fremmest baseret på misforholdet mellem hans kognitive kompetencer og udbyttet af CI samt *dårligere generel performance i relation til det forventede udbytte baseret på audiologisk data forud for operationen*. Derudover blev performance ikke forbedret af audiologisk håndtering over længere tid, fx ved rejusteringer og udskiftning af ydre komponenter. En anden meget afgørende faktor, der afgjorde mistanken om SF, var en lydproduktion hos S, der bestod af yderst forvrængede og højfrekvente konsonantproduktioner. Derudover skulle lydproduktionerne ofte promptes frem, og det blev set, at S havde flere spontane produktioner, når CI'et var slukket. Sådanne forvrængede eller afvigende lydproduktioner er dog ikke identificeret som en fejlfindingsindikator i litteraturen (se Tabel 4, s. 43) eller i den amerikanske tjekliste for diagnosticering af SF (se Figur 5, s. 45), men var i casens tilfælde stærkt afgørende for diagnosticeringen af SF samt den videre reimplantation af det ene CI.

8.4.3 Min case og sprogligt udbytte efter reimplantation

Som nævnt er det en stor udfordring at diagnosticere SF hos børn, der ikke selv er i stand til at give udtryk for indikatorer på SF-problematikker i implantater. I S's tilfælde er det muligt, at det eksplanterede højre implantat aldrig har fungeret optimalt. Derudover er det stadig uvist, hvorvidt venstre implantat virker optimalt, eller hvorvidt der er risiko for, at dette implantat heller ikke virker tilstrækkeligt. Dette kan overvejes, da der i audiogrammålingen fra december 2014 ikke ses en bedre hørekurve på trods af et muligt normalt fungerende venstre implantat. Derudover kan også overvejes, at venstre implantat har virket tilstrækkeligt, men at den forvrængede lyd kvalitet produceret gennem det højre implantat har maskeret det auditive udbytte.

Det ses dog både i de bilaterale audiogrammålinger (se Figur 7, s. 52) samt i resultaterne af den præsenterede caseanalyse, at S i dag har et positivt auditivt udbytte efter reimplantation af højre implantat. Dette stemmer overens med størstedelen af data for den sproglige udvikling hos børn efter reimplantation på baggrund af SF præsenteret i litteraturen (se afsnit 7.2.3). Dog er det væsentligt at påpege, at S ikke fik et optimalt udbytte af sit højre CI i halvandet år forud for reimplantationen, hvilket har påvirket hans sproglige

udviklingsmuligheder frem til reimplanteringen og stadig påvirker hans sprogudvikling den dag i dag. Det betyder, at han ved afslutningen af videooptagelserne havde en kronologisk alder på 5;11 år, mens hans hørealder var 0;11 år. Hørealderen vurderes i S's tilfælde efter reimplanteringen og den optimerede bilaterale CI-behandling fra juni 2015. For at sikre, at det forbedrede sproglige potentiale bliver udnyttet, og man derved etablerer mulighed for en forbedret sprogudvikling hos S, er det yderst nødvendigt, at efterbehandlingen med AVT-undervisning bibeholdes efter reimplantering i forbindelse med SF.

8.5 Opsummering af resultater for casestudiet

Ud fra videoanalysen af casens AVT-undervisninger, ses det overordnet, at S's andel af verbale turtagninger i de kommunikative situationer er stigende, mens andelen af ytringer kun baseret på gestik og tegn er faldende. Derudfra vurderes det, at S's overordnede udbytte af CI er positivt, og at reimplanteringen med nyt implantat bidrager med et optimeret auditivt input, der er forudsætningen for hans videre sproglige udvikling.

9. Diskussion

I dette kapitel vil jeg diskutere indholdet af de forudgående kapitler som besvarelse på opgavens problemformulering. Først vil jeg diskutere specialets metodiske grundlag, og derefter vil jeg diskutere de forskellige tematikker præsenteret i specialet. De forskellige tematikker diskuteres i henhold til litteraturen og perspektiveres med fund i casestudiet, hvor det findes relevant. Afslutningsvis foretages en opsummerende afsluttende diskussion med forslag til fremtidige tiltag til optimering af den kliniske praksis i forbindelse med arbejdet med SF-problematikker.

9.1 Diskussion af specialets metoder

Der er anvendt to forskellige metoder i dette speciale. Opgavens primære fokus undersøges i et litteraturstudie, mens der til belysning af opgavens sekundære fokus benyttes et casestudie. Involveringen af de to forskellige metoder i specialet har til formål at skabe en evidensbaseret samt empirisk indsigt i specialets problemstillinger og undersøgelsesformål. Derudover tjener casestudiet et perspektiverende formål for den præsenterede viden i de foregående kapitler.

9.1.1 Litteraturstudiets metode

Formålet med anvendelse af et litteraturstudie i dette speciale er at skabe en evidensbaseret vinkel på undersøgelsen af prævalensen for SF. Anvendelsen af denne metode har bidraget med et tydeligere overblik over den eksisterende forskningslitteratur. Der er en usikkerhedsfaktor forbundet med, at jeg i min systematiske litteratursøgning kan have udeladt relevant litteratur i min søgning på baggrund af de udvalgte søgeord og inklusionskriterier præsenteret i opgavens metodeafsnit. Jeg har minimeret denne usikkerhedsfaktor mest muligt ved først at foretage en omfattende søgning i nogle af de største og mest relevante databaser med anvendelse af brede søgeord samt søgeteknikker såsom boolske operatører og trunkering af ordene. Derudover benyttede jeg mig af kædesøgninger med udgangspunkt i referencer fra den fundne litteratur, hvilket fungerede som en kontrol af den systematiske litteratursøgning.

Den anvendte forskningslitteratur er retrospektive studier af forekomsten af tekniske komplikationer efter CI-operation hos børn. Evidensniveauet af sådanne kohorte studier er i sundhedsstyrelsens oversigt ikke noteret på et så højt evidensniveau som klinisk kontrollerede randomiserede studier (Se bilag IX). I en undersøgelse af tekniske fejltilstande i CI, er det dog ikke muligt at basere data på baggrund af RCT-studier, da forekomsten ikke

kan kontrolleres for. Da mit fokus er en vurdering med udgangspunkt i kvantitative datapuljer, anser jeg retrospektive studier som en godt grundlag for en systematisk undersøgelse af prævalensen for SF i CI.

9.1.2 Casestudiets metode

Anvendelsen af et casestudie for et enkelt barn har den svaghed, at det er svært at foretage generelle konklusioner ud fra studiet. Casestudiet bidrager derimod med et indblik i problemstillingen hos et enkelt barn i relation til den kliniske håndtering samt de mulige sproglige konsekvenser i forbindelse med mistanke om SF-problematik. Grundet specialets korte tidshorisont har det kun været muligt at indhente casedata for en periode på 4 måneder. Casestudiet bidrager således med et kortere, men kvalitativt indblik i et barns præverbale udvikling samt auditive integration i kommunikation.

Tait Video Analysis er en kvantitativ metode som kan anvendes på intrapersonelle kvalitative datagrundlag. Dette skyldes, at metoden er kvantitativt anvendelig og sammenlignelig på tværs af undersøgelsesdesign og -populationer. Dog er vurderingerne af analyseparametrene for især autonomi en subjektiv vurdering, om hvorvidt der skønnes at barnet udviser eget initiativ i specifikke situationer eller ej. Dette er en potentiel bias i anvendelsen af metoden. Studiet af Tait et al. (2007) undersøger dette og konkluderer, at der på trods af denne faktor ses en generel høj grad af overensstemmelse af vurderinger på tværs af professionelle. De konkluderer videre, at metoden er valid til monitorering af børns præverbale udvikling efter CI implantation.

Analysemetoden er i casestudiet anvendt på AVT-sessioner med S, terapeuten, S's mor, og enkelte gange er den kommunale audiologopæd også tilstede. Denne opsætning stemmer godt overens med AVT-metoden, der aktivt inddrager forældrene i interventionen. Dette stemmer dog ikke så godt overens med Tait's anbefalinger om én-til-én interaktion mellem barnet og en kendt voksen, fx terapeuten. Dog vurderer jeg, at metoden på trods af dette er yderst anvendelig til en vurdering af børns præverbale færdigheder, da det stadig er muligt at foretage vurderinger af interaktionerne med samme rammer og udgangspunkt for interaktionerne.

Metoden bidrager med små øjebliksbilleder af et barns præverbale færdigheder, og der er derfor også andre variabler, der kan påvirke metodens anvendelse og resultater. Det anbefales, at der til analysen udvælges cirka 2-3 minutters videomateriale. Til min analyse

udvalgte jeg specifikke situationer, hvor jeg vurderede, at S viste gode og klare præverbale responser i interaktionen med den voksne. Dette kan være en bias i håndteringen af metoden samt sammenligningen af resultaterne for de enkelte sessioner. Dette forsøgte jeg at imødekomme ved at udvælge sammenlignelige videoklip, med cirka samme antal turtagninger, der alle afspejler tidspunkter i sessionerne, hvor S's kompetencer tydeligst kommer frem.

Derudover bør det diskuteres, i hvor stor grad analyseparametrene påvirker hinanden. I resultaterne for mit casestudie ses det, at hvis antallet af turtagninger med verbale kvaliteter (VT, VA, NLVT) øges, reduceres fx antallet af no responses (NR), når der sammenlignes med en anden session med samme antal turtagninger. Derudover oplevede jeg, at resultaterne også var stærkt påvirkelige af barnets umiddelbare humør eller motivationsniveau i det pågældende øjeblik i interaktionen. Komplexiteten af opgaverne, som barnet får stillet sig i interaktionen, påvirker ydermere resultater, hvilket ses fx i fjerde undervisning af S, hvor han i større grad selv styrer legen. Dette gør, at han i sin interaktion med terapeuten har mere øjenkontakt, der er udtryk for fælles opmærksomhed, end han har i de andre undervisningsgange.

Det er vigtigt at anerkende at analysemetoden generelt har et stort anvendelsespotentiale. Det bør påpeges, at med udelukkende fire AVT-sessioner er det ikke muligt at identificere generelle tendenser i S's udvikling. Derimod viser de fire AVT-sessioner positive indikationer for S's verbale udvikling.

9.2 Diskussion af tematikker præsenteret i specialet

I det følgende vil jeg diskutere specialets præsenterede tematikker om henholdsvis producenters kategorisering og rapportering af tekniske fejltilstande samt anbefalinger hertil. Derefter vil jeg diskutere temaer om terminologi, tids- og aldersaspekter, prævalens, forklarende variabler samt diagnosticering af SF i CI.

9.2.1 Producenters kategorisering og rapportering af tekniske fejltilstande

9.2.1.1 ISO-standardiseringen

Fælles for de præsenterede standardiseringer og internationale anbefalinger er et ønske om at sikre en høj kvalitet af reliabiliteten for CI. CI er underlagt ISO-standardens udviklet til lignende nervestimulerende elektroder, som fx pacemakere. Jeg har adskillige gange forsøgt at finde frem til skriftligt materiale for standardiseringen, som jeg ellers kun har

kunnet læse om i forskningslitteratur. Denne forskning er baseret på indholdet af ISO:5841-2:2000-udgaven. Som det præsenteres i bilag II, har dette dog ikke været muligt på trods af kontakt til en stor dansk forskningsafdeling hos DTU og den danske CI-producent Oticon Medical A/S. Jeg forestillede mig, at producenten ville have adgang til standarden, der er en rammeforordning for produktionen af CI. Det viste sig dog, at firmaet svarer, at standarden¹¹ ikke er gældende for CI. Dette finder jeg tankevækkende, idét CI blev tilføjet denne standard i 1986, hvilket beskrives flere steder i den undersøgte internationale forskningslitteratur. Det kan diskuteres, hvad der kan være årsag til denne uoverensstemmelse mellem forskningens beretninger om anvendelse af ISO samt den reelle anvendelse af denne i praksis. Der er en potentiel risiko for, at der opstod en fejl i kommunikationen, og at modtageren ikke forstod forespørgslen korrekt. Muligheden foreligger dog også, at producenterne selv fremstiller egne standarder, eller at de anvender anden standardisering af kliniske anbefalinger vedrørende rapportering af produkters reliabiliteter. Dette vides ikke, men det kunne være interessant at undersøge nærmere. Det er således problematisk, at CI-producenter muligvis ikke er klar over, at ISO standarden er gældende i fremstillingen af CI, og at standarden ikke er offentlig tilgængelig.

9.2.1.2 Internationale kategoriseringsanbefalinger og soft failure

Det er problematisk, at både de internationale og de amerikanske anbefalinger har samme detaljeringsgrad i deres kategorisering af fejltilstande. De internationale anbefalinger kalder alle tekniske fejltilstande i CI for DF (se Figur 2, s. 24), hvor de karakteriserer variationerne mellem de forskellige fejltyper med udgangspunkt i testresultaterne for henholdsvis in vivo og ex vivo undersøgelser. De amerikanske anbefalinger inddeler fejltyper mere detaljeret i henholdsvis HF og SF. Det er interessant, at tre forskere både er en del af det amerikanske panel i 2005 og igen er en del af det internationale panel i 2010. På trods af dette, ses der ikke en ensartet karakterisering af tekniske fejltilstande, hverken i ISO-standardiseringen eller i de senere panelers anbefalinger for rapportering af reliabiliteter for CI.

I den forbindelse har jeg fremstillet en optimeret figur (se Figur 4, s. 29). Figuren afspejler et implementeringsforslag til kategorisering af tekniske fejltilstande i devices, som er en integrering af både de internationale og amerikanske anbefalinger. I figuren ses det, at devices både kategoriseres efter in vivo og ex vivo undersøgelsesresultater, ligesom i de

¹¹ Citeret fra bilag II, e-mailkorrespondance med Oticon Medical A/S: *ISO:5841-2. Specifies requirements for reports on the clinical performance in humans of population samples of cardiac pulse generators or ... etc. It is not applicable for Cochlear Implant.*

internationale anbefalinger. Derudover kategoriseres et device videre i henholdsvis HF og SF vurderet ud fra, om implantatet testes in- eller out of specification. I mit forslag foretages en mere detaljeret kategorisering ved at kategorisere de tekniske fejltilstande fra to kategoriseringer (jf. kat. B2 og kat. C i de internationale anbefalinger) til fire kategorier.

Jeg anser det som yderst vigtigt at få en strømlinet anvendelse af terminologierne, af rapporteringsstandarder og rapporteringsanbefalinger. Dette i et forsøg på at skabe større klarhed over mulige årsager til tekniske fejltilstande i CI, samt i den generelle rapportering af produktets pålidelighed på tværs af producenter. Derudover mener jeg, at det er vigtigt at skelne mellem HF og SF i relation til tekniske fejltilstande i CI, da den kliniske håndteringen og fejlfindingsprocessen for SF er meget anderledes end ved HF, og ikke kun baseres på objektive testresultater, men også støttes af subjektive professionelle vurderinger (Balkany et al., 2005).

9.2.1.3 Rapporteringer af fejlmeldte devices

I litteraturstudiet erfares det, at der ikke forelægger rapporter for alle ex vivo-undersøgelserne udført på indsendte implantater til producenterne på baggrund af DF-problematikker. I studiet af Marlowe et al. (2010) ses det, at der foreligger rapporter for 46 ud af 60 devices (76,6 %), mens det i studiet af (Wang et al., 2014) gør sig gældende for 77 ud af 136 devices (56,6 %). Det vækker undren, at der mangler rapporter på eksplanterede devices. Det kan muligvis skyldes, at nogle af implantaterne er kategoriseret som ”under study”, hvorved der endnu ikke foreligger en endegyldig rapport.

I min case ses det, at der efter 12 måneder ikke foreligger en rapport for det eksplanterede device. Den manglende rapport, gætter jeg på, kan skyldes, at S’s eksplanterede device muligvis findes som ”in specification”, og at det derfor kan kategoriseres som kategori C: *Devices ”in specification” både in vivo og ex vivo, men hvor der opleves en forbedring af clinical performance med nyt implantat*, da resultaterne af casestudiet viser, at S nu har et forbedret clinical benefit af sit nye CI.

9.2.1.4 Tekniske fejltilstande og CSR-statistikker

I de internationale anbefalinger er det muligt for producenterne at fjerne data for

fejlrapporerede devices fra deres CSR-statistikker¹² for devices, der efter mere end seks måneder stadig afventer rapportering, og som sidenhen testes in specification (Backous & Watson, 2007). Som det præsenteres i Tessa et al. (2015) samt i Figur 3 (s. 26), er grundlaget for de nuværende CSR-estimer præget af en grov og ugenomsigtig samling af datasæt, hvor ikke alle fejlrapporerede devices inkorporeres i statistikkerne. Dette er problematisk for dannelsen af et reelt billede produkternes reliabilitet.

Jeg støtter op om de ovenstående pointer og vil argumentere for, at en mere detaljeret differentiering af tekniske fejltilstande bør skelnes i henholdsvis HF og SF for at opnå større detaljegråd i reliabilitetsdata. Derudover vil en optimeret detaljeringsgrad i rapporteringen af tekniske fejltilstande bidrage til, at producenterne og forskere på området lettere kan foretage sammenligninger på tværs af fejltilstande. Herudover vil det muliggøre, at producenterne i fremtiden vil kunne benytte detaljerede datasæt til at analysere og eventuelt optimere fremtidige produkter med formålet at reducere forekomsten af en specifik fejltilstand i produkterne.

9.2.2 Variation i terminologi

I specialets litteratur ses en stor variation i definitionen af tekniske årsager til reimplantering af devices samt klassificeringer og rapporteringer af disse. Dette gør det yderst vanskeligt at foretage meningsfulde sammenligninger på tværs af litteraturen.

Først og fremmest ses der en variation i den generelle kategorisering af mulige komplikationer efter en CI-operation. Syv af de 16 studier opdeler årsager til reimplanteringer i henholdsvis major og minor komplikationer, hvor DF bliver kategoriseret som en major komplikation. Jeg måtte i min litteratursøgning ekskludere en stor mængde litteratur, da disse ikke inkluderede DF som en større komplikation i forbindelse med CI-implantation. Flere af de ekskluderede studier tager udgangspunkt i en omfattende undersøgelse foretaget af Hansen et al. (2010). Heri ses det, at forfatterne aktivt udelukker devices med tekniske fejltilstande fra deres undersøgelse af komplikationer i forbindelse med CI-operation, da DF ikke er en postoperativ medicinsk komplikation. Dog vælger forfatterne senere at illustrere grupperinger af komplikationerne i henholdsvis større (major) og mindre (minor), hvortil der for større komplikationer inkluderes *additional major surgery*¹³, som

¹² CSR (Cumulative Survival Rate) afspejler den procentdel af funktionsdygtige devices holdt op imod det samlede antal indopererede implantater (Information hentet fra kapitel 5).

¹³ Beskrives i figur 2, s. 547 i Hansen et al. (2010).

eksempelvis kan være reimplantering grundet patientrelaterede problematikker. Jeg vil dog argumentere for, at både medicinske og tekniske årsager til reimplantering er patientrelaterede problematikker, og at de begge bør inkluderes som en major komplikation og årsag til reimplantering, som det ses beskrevet i syv af de 16 inkluderede studier. Ved DF er der også risiko for, at fejltilstande kan være tilstede umiddelbart efter CI-operationen, og revisions- eller reimplantationskirurgi er i begge tilfælde af afgørende betydning for sikringen af et optimalt udbytte af CI-behandlingen.

Tilsvarende ses der en variation i klassificeringen af tekniske fejltilstande i CI. Som beskrevet i litteraturstudiet er det kun syv af de inkluderede studier, der karakteriserer og underinddeler DF i henholdsvis HF og SF. Fire studier benytter sig udelukkende af DF som begreb for tekniske fejltilstande, mens de resterende studier beskriver karakteristika for fejltyperne, hvilket muliggjorde en analyse af respektive HF- og SF-tilstande. De meget forskelligartede tilgange til organisering af fejltilstande vanskeliggør dannelsen af et overblik over forekomsten og håndteringen af tekniske komplikationer i CI. Den internationale data bliver derved meget svær at sammenligne, og det bliver videre vanskeligt at drage nytte af de forskellige erfaringer. Dette understreger blot vigtigheden af at udvikle og implementere ensartede standardiserende eller strømlinede konsensus for definitioner, klassificeringer og rapporteringer af tekniske fejltilstand i CI.

9.2.3 Tids- og aldersaspekter i relation til sprogudvikling ved soft failure

Tidlig diagnosticering har en positiv indvirkning på børns auditive og sproglige udbytte af CI-behandling i forbindelse med mistanke om SF. I mit litteraturstudie ses der en spredning fra første CI-operation og til den oplevede DF med et gennemsnit på 51,9 måneder, hvilket spænder fra de første 35 måneder til 72 måneder af børnenes hørebehandling. Det kan dog argumenteres, at DF kan forekomme fra første aktivering af et implantat efter operationen, selv på trods af normale perioperative impedansmålinger. Dette illustreres i Lassig et al. (2005), hvor der ses en forekomst af DF allerede fra implantatets første aktivering og frem til hele 12 år efter den primære CI-operation. Derudover illustreres det i et studie af Roby, Ferrello, Huang, Rimell, & Levine (2012), at der for både voksne og børn med CI ses ekspeditionstider mellem DF og reimplantering med nyt device på fire måneder for HF, mens der for SF ses et tidsforbrug på otte måneder. Man kunne forestille sig, at der i data for børn kan forekomme en længere tid inden fejltilstande identificeres. Hvis ikke barnets monitoreres tæt, kan der risikere at gå lang tid førend HF-tilstande identificeres gennem in vivo

undersøgelser, og det må det forventes, at der kan gå meget længere tid inden en mistanke om SF opstår, da diagnosen først er mulig at stille på baggrund af længere tids observation af barnets adfærd og udvikling.

Dette aspekt illustreres også i case S, hvor det ses, at der først efter halvandet år opstår mistanke om SF. Hertil kan det overvejes, om der er risiko for, at der kunne være gået endnu længere tid inden fejltilstanden blev mistænkt, hvis ikke S var inkluderet i et forskningsprojekt og i den forbindelse blev fulgt ekstra nøje af professionelle.

Antallet af 0-6 årige børn der CI-opereres skønnes fortsat at stige i fremtiden, hvilket understreger en vigtighed i, at professionelle i fremtiden er forberedt på at håndtere alle komplikationer i forbindelse med CI-behandling, både i forhold til komplikationer af medicinske årsager, men i særdeleshed også tekniske fejltilstande, både HF og SF. Derudover er det vigtigt at være opmærksom på, at tekniske fejltilstande kan være til stede umiddelbart i forbindelse med at implantatet aktiveres eller kan forekomme meget senere i livet.

Derudover er det vigtigt at være opmærksom på et barns alder i relation til hjernens plasticitet og dets påvirkning på både den auditive og sproglige udvikling (Kral & Tillein, 2006). I et studie af Nicholas & Geers (2007) ses det, at det for børn, der bliver implanteret inden de første 24 måneder, kan forventes, at de tilegner sig talesprog, der er aldersvarende allerede ved skolealderen. Tilsvarende ses en positiv tilegnelse for børn, der implanteres efter 24 måneders alderen, hvor udviklingen dog tager længere tid, førend børnene udviser aldersvarende talesprogsscores.

For case S vurderer jeg, at han har gode forudsætninger for et positivt auditivt og sprogligt udbytte af sit CI efter reimplantering på trods af en hørehistorie med perioder af reduceret eller ingen auditiv stimulering. Disse perioder vurderes dog ikke at have en afgørende betydning på hans auditive cortex eller kognitive færdigheder, da han i langt de fleste perioder har modtaget en form for auditiv stimulering, og da udredninger viser, at han har normalkognitive funktioner. For S må det dog forventes, at hans sproglige udvikling vil være forsinket, eftersom hans hørealder nu vurderes at starte efter reimplanteringen i juni 2015. I casestudiet dokumenteres og vurderes det, at S har fået et positivt og forbedret udbytte af CI efter reimplanteringen. Dette stemmer overens med litteraturen, der finder, at langt de fleste børn har et forbedret udbytte og får bedre taleforståelsesscores efter reimplantering (Marlowe et al., 2010; Masterson et al., 2012; Sunde et al., 2013).

9.2.4 Prævalens for soft failure

I mit litteraturstudie viste det sig, at kun to studier eksplicit noterede en failure rate for SF. Det var dog muligt at analysere en forekomst af SF ud fra ti studier (se Tabel 3, s. 37). Prævalensen for SF viste en spredning på 0,3-3,7 %. Dette er en relativt bred procentvis spredning i forekomsten af SF-problematikker noteret i studierne. Det er dog vigtigt at være opmærksom på, at den procentvise forekomst er tidsfølsom. Med dette menes, at data er baseret på information fordelt på 32 år. Herudover ses det i litteraturen, at antallet CI-operationer med årene er steget stødt, men at antallet af reimplantationer vedbliver på et mere konstant niveau på trods af stigningen i antal CI. Dette forklarer adskillelige studier med, at CI i dag er blevet mere pålidelige og udvikles med en reduceret risiko for forekomsten af tekniske fejltilstande i implantaterne, og dermed er der en øget reliabilitet af produkterne (Lescanne et al., 2011; Sunde et al., 2013). Jeg vurderer, at denne argumentation kan være en plausibel forklaring på ovenstående tendens. Det kan dog overvejes, om disse data både indeholder reimplantationer på baggrund af både medicinske og tekniske komplikationer. Forekomsten af medicinske komplikationer og derved behovet for revisions- og reimplantationskirurgi kan være reduceret på grund af optimeringer og forbedringer af medicinsk og kirurgisk håndtering i forbindelse med CI-operation. Hertil kommer, at data for tekniske komplikationer også kan være påvirkede af omfanget af rapporterede fejltilstande, og dermed hvor mange eksplanterede devices, der i sidste ende er inkluderet i CSR-statistikkerne, som diskuteret i afsnit 9.2.1.4.

Afsluttende ses det, at SF er en sjældent forekommende teknisk fejltilstand hos børn med CI. Procentfordelinger af prævalensen bidrager med en specificering af en tendens for forekomsten af SF noteret i den internationale litteratur.

9.2.5 Forklarende variabler som årsag til soft failure

Det ses i litteraturen at direkte årsager til forekomsten af SF ikke kan identificeres med sikkerhed. Dog fremstiller litteraturen flere bud på, hvilke mulige forklarende variabler der kan ligge til grund for SF.

Som beskrevet i kapitel 6 ses det, at isoleringsproblematikker identificeres som værende den hyppigst forekommende variabel. Et studie af Shao (2013) argumenterer for, at problematikkerne skyldes slitage på silikoneforseglingen. Forfatteren argumenterer videre

for, at slitagen er forårsaget i områder på implantatet, hvor materialet er ekstra skrøbeligt. Det ses, at der i fremstillingen af produkterne nogle gange foretages ekstra rettelser på forseglingen, hvor eventuelle ujævne lag og enkelte luftbobler reparerer. I studiet fremstilles det også, at der generelt kan være risiko for slitage på områder af implantatet, der er ekstra udsat, eksempelvis hvor det er i tæt kontakt med arvæv eller knogleformationer.

Derudover præsenteres der i et studie af Chung et al. (2010) en mulig sammenhæng mellem forekomsten af SF og meningitis som årsag til et sensorineuralt høretab¹⁴. I studiet af Eskander et al. (2011) ses der lignende resultater. Der ses ikke en direkte relation til DF, men der identificeres en generel sammenhæng mellem inflammationer og behovet for reimplantation hos børn, bl.a. på grund af DF. Her ses der, at der i 85 % af tilfældene er et behov for reimplantation efter forekomst af ossificering og knogledannelse efter operationen. Ossificeringerne påvirkede ikke kun elektrodepunkterne, hvilket kunne forårsage DF, men forekom bl.a. også i området for cochleostomien. Forfatterne finder dog, i modsætning til Chung et al. (2010) ingen direkte association mellem DF og reimplantation og børn med meningitis som årsag til høretabet.

Den sidste identificerede forklarende variabel hos børn er problemer med elektrodepunkterne, som endnu ikke er detekterbare med in vivo integrationstests. Dette kommer til udtryk som tab af clinical performance og besvær med programmering af CI på trods af normale integritetstest (Lassig et al., 2005; Lin et al., 2010; Marlowe et al., 2010; Zeitler et al., 2008).

I relation til mit casestudie ses der på nuværende tidspunkt ingen afrapportering af producentens ex vivo undersøgelse. Der ses derfor ingen resultater for, om nogle af ovenstående mulige forklarende variable til forekomsten af SF kan have forårsaget fejltilstanden set hos case S.

I flere studier diskuteres det, at SF muligvis er et forstadium til HF. I to studier argumenteres der for, at devices, som eksplanteres grundet in vivo mistanke om SF, i mellem 38-86 % af tilfældene er mulige at kategoriserer som HF i ex vivo undersøgelser. Dertil ses det, at mange af ex vivo årsagerne for SF-devices er magen til de klare årsager, der kan identificeres i devices med HF, såsom tydelig kortslutning af elektrodepunkter og beskadigelse på

¹⁴ Studiet blev ikke inkluderet i mit litteraturstudie, da det ikke var muligt at isolere datasæt udelukkende baseret på børnenes resultater.

isoleringsmaterialet (Friedmann et al., 2014; Marlowe et al., 2010). Ligeledes beskrives det, hvorledes børn, der diagnosticeres med HF inden reimplantering, allerede år forinden havde udvist tegn på SF (Blanchard et al., 2015; Cullen et al., 2008). At SF kunne være et muligt forstadium til HF, ser jeg som yderst plausibelt. De mulige forklarende variabler for SF virker alle som diskrete indikationer på faktorer, der senere i forværrede tilstande kan registreres og kategoriseret som HF. Det er dog vigtigt, at professionelle reagerer hurtigt på indikationer på SF, og ikke afventer detekterbare HF-resultater senere, da en SF har stor påvirkning på børns auditive og sproglige udbytte af CI.

9.3 Afsluttende diskussion

I dette afsnit vil jeg diskutere mit speciales resultater med fokus på den audiologopædiske håndtering af SF sammenholdt med min case. Derudover vil jeg videre diskutere mulige fremtidige tiltag til forbedrede in vivo-målemetoder i forbindelse med diagnosticering af SF. Afsluttende vil jeg perspektivere den fundne prævalens i relation til den danske population af børn med CI.

9.3.1 Håndtering af soft failure i audiologopædisk praksis

9.3.1.1 Diagnosticering af soft failure

Diagnosticering af SF er en kompliceret proces, der stiller store krav til audiologopæden og andre professionelle i udredningen og interventionen af barnet. Udfordringerne i diagnosticeringen er større end ved HF, da den professionelle udelukkende bygger deres mistanke om SF på subjektive vurderinger i samarbejde med familien, da der på objektive undersøgelser ikke ses klare indikationer for fejlfunktioner i implantatet. Det er derfor vigtigt, at man som audiologopæd er klar over, hvilke svage indikationer der er på spil i forbindelse med SF, og derefter kan handle på disse indikationer for at sikre en hurtig håndtering af problemstillingen.

I kapitel 7 har jeg fremstillet en oversigt over de identificerede fejlfindingsindikatorer for SF (se Tabel 4, s. 43). Den førstnævnte indikator på SF er *pludselig eller gradvis reduktion i auditiv performance og taleforståelse*. Jeg vil videre understrege, at det er vigtigt for professionelle at være opmærksomme på, at en dårlig auditiv performance samt sprogforståelse er en mulig indikator for SF allerede fra første aktivering af et implantat. Derfor er der suppleret med indsættelse af punkt 4, som indikerer, at man generelt skal være

opmærksom på en *dårligere generel performance i relation til det forventede udbytte baseret på audiologisk data forud for operationen*. I case S's tilfælde var disse ovenstående punkter af afgørende betydning for mistanken om SF. S blev reimplanteret monauralt, da det menes, at være højre implantat, der forårsagede indikationerne på SF. Det kan overvejes, at der er risiko for, at det ikke-reimplanterede CI også kan være plaget af tekniske fejlfunktioner. Dette kan tænkes, da der ved audiogrammålingen fra december 2014 (se Figur 7, s. 52) ses en generel svært nedsat hørekurve på trods af et muligt normalt fungerende venstre implantat. Det kan dog også være forårsaget af, at det ene implantat har virket tilstrækkeligt, men at den forvrængede lyd kvalitet fra SF-implantatet har maskeret det auditive udbytte. Det er væsentligt at bemærke, at audiogrammålingen fra 2014 tydeligt viste en indikator for SF med et stærkt reduceret auditivt udbytte af CI. Den bilaterale måling viste høretærskler på 80-90 dB HL.

Sammen med denne indikator for SF, sås det også, at indikatoren *når der ikke er andre kendte medicinske, kognitive og/eller psykosociale problemstillinger, der kan påvirke barnets evne for at modtage og opfatte auditive stimulationer*, var gældende i case S's tilfælde. Der blev oplevet en stor diskrepans mellem S's normale kognitive færdigheder, hans forventede performanceniveau og det reelle lave og afvigende performanceniveau med CI. Denne diskrepans var helt afgørende for mistanken om SF, da det for S's audiologopæd var tydeligt, at hun sad overfor et normalt begavet barn, som ikke var i stand til at modtage korrekt auditiv information, og som derfor ikke var i stand til at generere et forventet performanceniveau med sine CI. Et barns kognitive færdigheder og forudsætningerne for sprogtilegnelse hænger sammen (O'Donoghue & Pisoni, 2014). En sådan oplevet diskrepans bør derfor også anvendes som et pejlemærke i diagnosticeringen af SF hos børn med CI.

Som tidligere nævnt var endnu en afgørende indikator for mistanken om SF hos case S en yderst afvigende lydproduktion, der var meget forvrænget for både konsonanter og vokaler. Derfor har jeg valgt at optimere min fremstillede oversigt over fejlindikatorer for SF hos børn med CI (se nedenstående tabel 13). I den forbindelse har jeg tilføjet et ekstra punkt (punkt 3), der indeholder faktorer om afvigende lydproduktion. Derudover har jeg tilføjet muligheden for at observere en diskrepans mellem normale forudsætninger overfor et observeret dårligt generelt performanceniveau under punkt 6.

Fejlfindingsindikatorer for SF hos børn med CI
<ul style="list-style-type: none"> • Pludselig eller gradvis reduktion i auditiv performance og taleforståelse. • Oplevelse af afvigende og ubehagelig stimulering fra implantatet, som kan komme til udtryk som bl.a. smerte, eller hvis barnet udviser uventede reaktioner på at have CI tændt. Dette kan fx være, at barnet græder, når CI er tændt, at barnet tager sit CI af, eller at barnets adfærd ændrer sig markant. • Afvigende lydproduktion, der indikerer, at barnet ikke modtager en korrekt auditiv stimulering (fx ved at barnet ikke udvikler specifikke lyd kvaliteter på trods af en korrekt programmering af CI). • Hvis der observeres, eller hvis barnet giver udtryk for, intermitterende funktion af implantatet, som ikke kan bevises med in-vivo tests. • Dårligere generel performance i relation til det forventede udbytte baseret på audiologisk data forud for operationen. • Når der ikke er andre kendte medicinske, kognitive og/eller psykosociale problemstillinger, der kan påvirke barnets evne til at modtage og opfatte auditiv stimulering (der opleves fx en diskrepans mellem barnets forudsætninger og den generelle performance). • Når barnets performance ikke kan forbedres med audiologisk håndtering over længere tid (fx ved at udskifte alle ydre komponenter af CI'et eller rejustering af implantatet). • Omfattende integritetstestning af CI-systemet viser ingen identificerede fejltilstande.

Tabel 13. Optimeret oversigt over fejlfindingsindikatorer for soft failure hos børn med CI.

Det kan overvejes, hvorvidt vi som professionelle er gode nok til at håndtere SF-problematikker hos børn med CI? Især en hurtig diagnosticering og reimplantering er afgørende for at minimere tidsforbruget og påvirkningerne fra en periode uden et optimalt auditivt udbytte af CI hos barnet (Lassig et al., 2005). I mit litteraturstudie finder jeg i to studier et spænd fra seks til 50 måneder mellem forekomsten af DF og tiden for reimplantering med nyt implantat, mens der i Marlowe et al. (2010) ses et gennemsnitlig tidsforbrug på 8,5 måneder mellem mistanke om SF til reimplantering. I Blanchard et al. (2015) ses det endda, at et barn går hele fire år med en SF-problematik og uden sprogligt udbytte af CI inden der foretages en reimplantation. Det er et meget stort spænd i tidsforbrug på tværs af de forskellige studier, hvilket indikerer en stor variation i, hvor hurtigt der SF-behandles med reimplantering. Det er tankevækkende, at der kan være så stor variation i tidsforbruget, og man kan forestille sig, at det kan bunde i, at professionelle kan være meget i tvivl om diagnosticeringen og håndteringen af SF hos børn, eller endda, at nogle

professionelle ikke er opmærksomme på de små indikatorer for SF, hvis de overhovedet har viden om en mulig forekomst af SF.

Tidsforbruget mellem mistanken om SF og reimplantering for drengen i mit casestudie, ligger på 12 måneder. Ud fra litteraturen ses det at være et af de længere tidsforløb i forbindelse med SF. Forud for mistanken om SF ses yderligere halvandet år med AVT-undervisning med manglende auditivt og sprogligt udbytte. I den forbindelse kan det overvejes, hvorfor der ikke tidligere opstod mistanke om SF, og derudfra blev handlet hurtigere. Både gældende det erfarede tidsforbrug i litteraturen og i case S, kan man forestille sig, at ventetiden kan være forårsaget af en manglende viden om SF som en sjældent forekommende teknisk fejltilstand i CI. Hertil kan der argumenteres for, at det kan skyldes, at indikationerne kan være så diskrete, at det kan tage lang tid, før man er opmærksom på dem. Derudover kan man forestille sig, at mange audiologopæder i første omgang ville reagere på diskrete indikationer på SF med at undersøge mulige differentialdiagnoser hos barnet, fx nedsat kognitiv funktion, og at dette kunne have en påvirkning på performance. Dette understreger blot vigtigheden i, at vi som professionelle er opmærksomme på, at tekniske fejltilstande i CI kan forekomme, og at indikatorer såsom manglende eller reduceret performance, nok oftere er forårsaget af tekniske fejlfunktioner, end det er forårsaget af fx nedsatte kognitive færdigheder hos barnet.

9.3.1.2 Efterbehandling i forbindelse med soft failure

Det er væsentligt at påpege, at der i de danske retningslinjer ikke ses nogle specifikationer eller anbefalinger til den kliniske audiologopædiske håndtering af komplikationer såsom tekniske fejltilstande i CI. Der står dog i vejledningen, at man som professionel kan forlænge efterbehandlingstiden for det enkelte barn, hvis dette findes nødvendigt (Sundhedsstyrelsen, 2012). I de amerikanske anbefalinger for best practice for håndteringen af SF, understreger forfatterne dog vigtigheden af, at et nyt og intensivt specialiseret efterbehandlingsforløb bør tilegnes alle børn, der har oplevet tekniske komplikationer, og hvor der er set en længere periode uden optimal auditiv stimulering fra implantater (Balkany et al., 2005). I Case S's tilfælde har der efter reimplanteringen været ansøgt om endnu et AVT-forløb, hvilket blev godkendt. Det var under dette forløb, jeg fulgte drengens undervisning i foråret. Det kunne dog overvejes om en udarbejdning af tilsvarende retningslinjer for håndtering og efterbehandling for tekniske fejltilstande og i særdeleshed for intervention efter SF burde implementeres i Danmark. Dette for at sikre, at alle potentielle forekomster af sådanne problematikker hurtigt bliver adresseret og løst i CI-behandlingen af børn.

Et paradoks i håndteringen af SF hos case S er i relation til valget af hans nuværende institutionsplads. S modtager intervention baseret på auditiv-verbale metoder. På trods af dette går S til dagligt i en specialinstitution, hvor den primære kommunikation er baseret på visuel kommunikation. Det er som nævnt ikke specialets formål at diskutere hvorvidt børn med CI bør modtage intervention baseret på tegn og visuelle støttesymboler eller auditiv-verbal intervention efter CI-operation. Det kan dog diskuteres, hvorvidt valget af auditiv-verbal kommunikation for barnet også bør afspejles i barnets daglige institution. Hertil ses det dog, at det er forventet, at S skal starte i en skole med høreklasser, hvor det primære fokus ligger på en auditiv-verbal kommunikation. Det vides ikke, hvordan de modstridende kommunikationsformer i S's hverdag påvirker hans auditive præverbale udvikling, men overordnet viser resultaterne af casestudiet, at case S har et godt udbytte af CI efter en reimplanteringen. Andelen af verbale turtagninger øges, mens andelen af turtagninger baseret udelukkende på gestik og tegn er faldende hos S. Det vides heller ikke, hvor hurtigt den sproglige udvikling vil forløbe hos Case S, og hvordan hans sproglige forsinkelse grundet SF vil påvirke hans videre udvikling af andre kommunikative evner, såsom sociale og pragmatiske færdigheder samt tilegnelse af læsekundskaber. Jeg vil dog vurdere, at case S nu har gode forudsætninger for dette, grundet hans gode kognitive færdigheder og et nyt og positivt udbytte af CI. Det vil være interessant at foretage yderligere undersøgelser i mulige SF-påvirkninger på metakommunikative udviklingsfaktorer hos børn efter reimplantering grundet et forsinket udbytte af hørebehandlingen.

9.3.2 In vivo målemetoder

I flere studier diskuteres et behov for at optimere nuværende in vivo og ex vivo undersøgelsesmetoder. Her er det ønsket, at man derved fremtidigt kan fjerne SF som en teknisk fejltilstand i CI. Hvis dette bliver muligt, ville det skabe optimerede forudsætninger og en sikring af hurtig og professionel håndtering af alle tekniske fejltilstande i CI (Balkany et al., 2005; Marlowe et al., 2010; McJunkin & Jeyakumar, 2010; Wang et al., 2014). I Marlowe et al. (2010) og Wang et al. (2014) baseres denne diskussion på, at de i deres studier ser, at der i flere tilfælde ikke ses en sammenhæng mellem resultaterne for undersøgelserne af implantater i henholdsvis in vivo- og i ex vivo-tilstand. I Wang et al. (2014) ses det, at 12,7 % af HF-devices (testet i in vivo-tilstand) testes som in specification fra producenterne i ex vivo undersøgelser. Forfatterne understreger afslutningsvis vigtigheden i, at producenterne forsat udvikler på deres ex vivo undersøgelsesmetoder for at forbedre nøjagtigheden af disse for at identificere bagvedlæggende mekanismer for DF.

9.3.3 Prævalens for SF i relation til dansk audiologopædisk praksis

Der findes ikke en ensartet karakterisering og implementering i den internationale praksis for en SF-diagnose. Hertil kan det overvejes, om manglen på konkret viden og arbejdsredskaber til håndteringen af SF-problematikker har ført til, at nogle børn med CI i dag har fået andre diagnoser, fx kognitive problematikker, end SF som årsag til deres manglende udbytte af CI-behandlingen?

Mit litteraturstudie viser en prævalens for SF hos børn med CI på 0,3-3,7 %. I Danmark er der i dag omkring 700 børn, der er opereret enten monauralt eller binauralt med CI (Percy Smith, 2016). Hvis man skulle lave et dristigt estimat ud fra den erfarede prævalens, ville dette svare til, at der afrundet er mellem 2-26 børn i Danmark, der på nuværende tidspunkt oplever SF-svigt i et implantat. Hvorvidt børnene går rundt med ikke-diagnosticeret SF, eller om der er vedvarende opmærksom monitorering og audiologisk behandling af disse børn, vides ikke.

10. Konklusion

Under dette speciale blev det tydeligt, at der i forskningslitteraturen ikke ses en ensartethed i definitionen og klassificeringer af tekniske årsager samt for kategorisering og rapporteringer af disse hos producenterne. Dette besværliggør sammenligninger af data på tværs undersøgelser samt mellem de forskellige producenter og produkter.

Det ses i min primære undersøgelse, at SF en sjældent forekommende teknisk fejltilstand med en prævalens på 0,3-3,7 % for CI hos børn. Dog er SF vigtigt at have fokus i den audiologiske praksis, da diagnosticeringsprocessen for fejltilstanden er kompleks. Komplexiteten består i, at det for SF ikke er muligt objektivt at identificere den tekniske fejltilstand ved hjælp af nuværende in vivo undersøgelser af implantater, og vurderingen for mistanke om SF baseres udelukkende på den professionelle monitorering og vurdering af barnets udbytte af CI-behandling ud fra, til tider, diskrete fejlfindingsindikatorer for tilstanden. Det er vigtigt med et godt kendskab til SF-problematikker samt en hurtig og korrekt håndtering og behandling med reimplantering, da et ikke-optimalt udbytte af CI-behandlingen kan have en stor påvirkning på børns primære sproglige udviklingspotentiale.

Specialets sekundære undersøgelse var en undersøgelse af SF og dets påvirkning på sprogudviklingen hos et barn med CI. I litteraturen ses det, at langt de fleste børn får et positivt udbytte af CI-behandlingen efter reimplantering af nyt implantat i forbindelse med CI. Det optimerede udbytte af CI har en positiv påvirkning på børnenes videre udvikling af præverbale kommunikative færdigheder, taleforståelse og sidenhen talesprog. Det er dog svært at fremstille en klar prognose for den mulige klinisk forbedring hos børn med CI, da udbyttet påvirkes af flere faktorer fx barnets kognitive færdigheder.

Samme tendens ses i mit casestudie, hvor barnet har opnået et optimeret og positivt udbytte af CI-behandlingen efter reimplantering grundet mistanke om SF. Barnets auditive og sproglige udvikling er forsinket, og det vides endnu ikke hvordan dette vil påvirke hans videre udvikling af andre kommunikative evner, såsom sociale og pragmatiske færdigheder samt tilegnelse af læsekundskaber.

Små børn er ikke nødvendigvis selv er i stand til at give udtryk for oplevede indikationer på SF. Det er derfor audiologopæden, der i samarbejde med forældrene, som bærer det store ansvar i diagnosticeringen og efterbehandlingen af børn med CI ved mistanke om SF. Det er

derfor vigtigt at audiologopæder og andre professionelle er opmærksomme en mulig forekomst af SF hos børn med CI, da et manglende optimeret udbytte af CI-behandlingen grundet SF, kan have store konsekvenser for børnenes auditive og sproglige udvikling.

11. Perspektivering

Den identificerede prævalens for SF, skønnes i dansk praksis at være svarende til, at 2-26 børn med CI potentielt har risiko for at gå rundt med en SF-tilstand i et implantat. Fremtidigt kunne det være interessant at foretage en undersøgelse af prævalensen af SF i Danmark samt undersøge mulige SF-cases til en afklaring af den aktuelle danske audiologiske håndtering ved mistanke om SF-problematikker hos børn med CI.

De nuværende danske kliniske retningslinjer for pædiatrisk cochlear implantation omhandler ikke anbefalinger til audiologisk håndtering af tekniske fejltilstande som komplikation i forbindelse med CI-behandling. Hertil ses der ingen anbefalinger om efterbehandlingsforløb for børn i forbindelse med SF efter reimplantering eller efter lignende perioder med et nedsat udbytte af CI-behandlingen. Fremtidigt kunne det videre være interessant at indføre retningslinjer som ligner de amerikanske anbefalinger for best practice præsenteret i Balkany et al. (2005). I specialets kapitel 7 illustreres anbefalingernes tjekliste samt beslutningstræ som vurderingsredskaber i håndteringen af SF-problematikker hos børn. Jeg har inddraget disse, da jeg mener at redskaberne har et stort potentiale til at kunne implementeres og anvendes aktivt i en dansk klinisk sammenhæng.

Da der ses en stor variation i klassificeringen og kategorisering af mulige tekniske fejltilstande i CI, er det ønskeligt, at der fremtidigt arbejdes mod en optimering og afstemning af kategoriseringsanbefalingerne både for producenterne og til forskning. Her er det ønskeligt, at detaljeringsgraden for kategorisering af fejltilstandene øges fra kategorisering som DF til en distinktion mellem HF- og SF-tilstande. I den forbindelse præsenterer jeg i specialet mit eget forslag til en sådan kategoriseringsoversigt i Figur 4, s. 29. Jeg mener, at figurens kategorisering vil forbedre og øge gennemsigtigheden af produkternes mulige fejltilstande og håndteringen af disse i klinisk praksis.

Derudover har jeg i min figur placeret kategoriseringen *Devices "in specification"* både *in vivo* og *ex vivo*, men hvor der opleves en forbedring af clinical performance med nyt implantat, som en SF problematik for både *in vivo* og *ex vivo* implantater. Dette bryder med den oprindelige definition af SF, som i de amerikanske anbefalinger kun anvendes som en betegnelse for en working diagnosis for *in vivo* implantater. Jeg vil dog argumentere for, at SF diagnosen også kan være anvendeligt til klassificering og kategorisering af implantater, hvor der i *ex vivo* undersøgelser ikke kan identificeres nogle specifikke årsager til fejltilstandene, og som dermed kategoriseres som værende *in specification* af producenterne.

Hertil kunne det foreslås, at implantaterne derefter samles i en specifik SF-database. Ved at kategorisere disse implantater for sig selv, vil det være muligt at indsamle og sammenligne data for denne gruppe af devices på tværs af produkter og producenter. Dette kunne komme producenterne til gode i forskningsøjemed for at optimere fremtidige produkter samt for at videreudvikle på nuværende målemetoder.

Referencer

- Aagaard, H., & Percy-Smith, L. (2003). *Dokumentation af cochlear implanterede børns kommunikative og sproglige udvikling belyst ud fra videotransskriptionsmetoden*. Helsingør: Helsingør Kommune.
- Achiques, M. T., Morant, A., Muñoz, N., Marco, J., Llópez, I., Latorre, E., & Pitarch, I. (2010). Cochlear implant complications and failures. *Acta Otorrinolaringologica (English Edition)*, *61*(6), 412–417.
- Backous, D. D., & Watson, S. D. (2007). Standardization of reliability reporting for cochlear implants: An interim report. *Ear and Hearing*, *28*(2), 91S–94S.
- Balkany, T. J., Hodges, A. V., Buchman, C. A., Luxford, W. M., Pillsbury, C. H., Roland, P. S., ... others. (2005). Cochlear implant soft failures consensus development conference statement. *Cochlear Implants International*, *6*(3), 105–122.
- Battmer, R. D. (2014). A Global View of Device Reliability. In S. B. Waltzman & J. T. Roland (Eds.), *Cochlear implants* (3. ed, pp. 132–140). New York: Thieme.
- Battmer, R. D., Backous, D. D., Balkany, T. J., Briggs, R. J., Gantz, B. J., Van Hasselt, A., ... O'Donoghue, G. M. (2010). International classification of reliability for implanted cochlear implant receiver stimulators. *Otology & Neurotology, Inc.*, *31*(8), 1190–1193.
- Blanchard, M., Thierry, B., Fergal Glynn, De Lamaze, A., Garabédian, E. N., & Loundon, N. (2015). Cochlear implant failure and revision surgery in pediatric population. *Annals of Otology, Rhinology & Laryngology*, *124*(3), 227–231.
- Broomfield, S. J., Murphy, J., Wild, D. C., Emmett, S. R., & O'Donoghue, G. M. (2014). Results of a prospective surgical audit of bilateral paediatric cochlear implantation in the UK. *Cochlear Implants International*, *15*(5), 246–253.
- Chung, D., Kim, A. H., Parisier, S., Linstrom, C., Alexiades, G., Hoffman, R., & Kohan, D. (2010). Revision cochlear implant surgery in patients with suspected soft failures. *Otology & Neurotology*, *31*(8), 1194–1198.
- Ciorba, A., Bovo, R., Trevisi, P., Bianchini, C., Arboretti, R., & Martini, A. (2009). Rehabilitation and outcome of severe profound deafness in a group of 16 infants affected by congenital cytomegalovirus infection. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, *266*(10), 1539–1546.
- Cullen, R. D., Fayad, J. N., Luxford, W. M., & Buchman, C. A. (2008). Revision cochlear implant surgery in children. *Otology & Neurotology*, *29*(2), 214–220.
- Eskander, A., Gordon, K. A., Kadhim, L., Papaioannou, V., Cushing, S. L., James, A. L., &

- Papsin, B. C. (2011). Low pediatric cochlear implant failure rate: contributing factors in large-volume practice. *Archives of Otolaryngology–Head & Neck Surgery*, 137(12), 1190–1196.
- European Consensus Statement on Cochlear Implant Failures and Explantations. (2005). *Otology & Neurotology*, 26(6), 1097–1099.
- Farinetti, A., Gharbia, D. B., Mancini, J., Roman, S., Nicollas, R., & Triglia, J.-M. (2014). Cochlear implant complications in 403 patients: comparative study of adults and children and review of the literature. *European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck Diseases*, 131(3), 177–182.
- Friedmann, D. R., Roland Jr., T., & Waltzman, S. B. (2014). Revision Cochlear Implantation. In S. B. Waltzman & J. T. Roland (Eds.), *Cochlear implants* (3. ed, pp. 141–147). New York: Thieme.
- Googe, B. J., & Carron, J. D. (2016). Analyzing complications of minimally invasive pediatric cochlear implantation: A review of 248 implantations. *American Journal of Otolaryngology*, 37(1), 44–50.
- Hansen, S., Anthonsen, K., Stangerup, S.-E., Jensen, J. H., Thomsen, J., & Cayé-Thomasen, P. (2010). Unexpected findings and surgical complications in 505 consecutive cochlear implantations: a proposal for reporting consensus. *Acta Oto-Laryngologica*, 130(5), 540–549.
- Heman-Ackah, S. E., & Roland, J. T. (2013). Surgical Devices (Cochlear Implantation, Revision–Pediatric). *Encyclopedia of Otolaryngology, Head and Neck Surgery*, 2687–2692.
- Ikeya, J., Kawano, A., Nishiyama, N., Kawaguchi, S., Hagiwara, A., & Suzuki, M. (2013). Long-term complications after cochlear implantation. *Auris Nasus Larynx*, 40(6), 525–529.
- Kral, A., & Tillein, J. (2006). Brain plasticity under cochlear implant stimulation. In *Cochlear and Brainstem Implants* (Vol. 64, pp. 89–108). Karger Publishers. Retrieved from <http://www.karger.com/Article/Abstract/94647>
- Lassen, S. P. (2011). *CI-børn med andre vanskeligheder end høretabet - hvad ved vi om dem og hvor mange er der?* (Kandidatspeciale). Københavns Universitet, Det Humanistiske Fakultet.
- Lassig, A.-A. D., Zwolan, T. A., & Telian, S. A. (2005). Cochlear implant failures and revision. *Otology & Neurotology*, 26(4), 624–634.
- Lescanne, E., Al Zahrani, M., Bakhos, D., Robier, A., & Morinière, S. (2011). Revision

- surgeries and medical interventions in young cochlear implant recipients. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 75(10), 1221–1224.
- Lin, J. W., Mody, A., Tonini, R., Emery, C., Haymond, J., Vrabc, J. T., & Oghalai, J. S. (2010). Characteristics of malfunctioning channels in pediatric cochlear implants. *The Laryngoscope*, 120(2), 399–404.
- Marlowe, A. L., Chinnici, J. E., Rivas, A., Niparko, J. K., & Francis, H. W. (2010). Revision cochlear implant surgery in children: the Johns Hopkins experience. *Otology & Neurotology*, 31(1), 74–82.
- Masterson, L., Kumar, S., Kong, J. H. K., Briggs, J., Donnelly, N., Axon, P. R., & Gray, R. F. (2012). Cochlear implant failures: lessons learned from a UK centre. *Journal of Laryngology and Otology*, 126(1), 15–21.
- McJunkin, J., & Jeyakumar, A. (2010). Complications in pediatric cochlear implants. *American Journal of Otolaryngology*, 31(2), 110–113.
- Nicholas, J. G., & Geers, A. E. (2007). Will they catch up? The role of age at cochlear implantation in the spoken language development of children with severe to profound hearing loss. *Journal of Speech, Language, and Hearing Research*, 50(4), 1048–1062.
- O'Donoghue, G. M., & Pisoni, D. B. (2014). Auditory and Linguistic Outcomes in Pediatric Cochlear Implantation. In S. B. Waltzman & J. T. Roland Jr (Eds.), *Cochlear Implants* (3. ed, pp. 158–166). New York: Thieme.
- Olgun, Y., Bayrak, A. F., Catli, T., Ceylan, M. E., Aydin, R., Duzenli, U., & Olgun, L. (2014). Pediatric cochlear implant revision surgery and reimplantation: An analysis of 957 cases. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78(10), 1642–1647.
- Park, A. H. (2013). Congenital Cytomegalovirus and Sensorineural Hearing Loss. *Encyclopedia of Otolaryngology, Head and Neck Surgery*, 579–582.
- Percy Smith, L. (2016). *Born deaf - Growing up hearing. Outcomes of Pediatric Cochlear Implantation in Denmark*. (PhD dissertation). University of Copenhagen, Faculty of health and medical sciences.
- Roby, B. B., Ferrello, M., Huang, T. C., Rimell, F. L., & Levine, S. C. (2012). Symptom Timeline Preceding Cochlear Implant Failure An Institutional Experience. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, 146(5), 782–787.
- Russell, J. L., Pine, H. S., & Young, D. L. (2013). Pediatric cochlear implantation: expanding applications and outcomes. *Pediatric Clinics of North America*, 60(4), 841–863.
- Shao, W. (2013). Cochlear Implant Electrode Failure Secondary to Silicone Touch-Up During Device Manufacturing. *Otology & Neurotology*, 34(7), e72–e75.

- Sharma, A., & Campbell, J. (2011). A sensitive period for cochlear implantation in deaf children. *The Journal of Maternal-Fetal & Neonatal Medicine*, 24(sup1), 151–153.
- Sterkers, F., Merklen, F., Piron, J. P., Vieu, A., Venail, F., Uziel, A., & Mondain, M. (2015). Outcomes after cochlear reimplantation in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 79(6), 840–843.
- Sunde, J., Webb, J. B., Moore, P. C., Gluth, M. B., & Dornhoffer, J. L. (2013). Cochlear implant failure, revision, and reimplantation. *Otology & Neurotology*, 34(9), 1670–1674.
- Sundhedsstyrelsen. (2012). Kliniske retningslinjer for pædiatrisk cochlear implantation i Danmark – udredning, operation, efterbehandling og monitorering. Sundhedsstyrelsen (SST).
- Tait, M. (1993). Video analysis: a method of assessing changes in preverbal and early linguistic communication after cochlear implantation. *Ear and Hearing*, 14(6), 378–389.
- Tait, M., De Raeve, L., & Nikolopoulos, T. P. (2007). Deaf children with cochlear implants before the age of 1 year: comparison of preverbal communication with normally hearing children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 71(10), 1605–1611.
- Tait, M. E., Nikolopoulos, T. P., Wells, P., & White, A. (2007). The use and reliability of Tait video analysis in assessing preverbal language skills in profoundly deaf and normally hearing children under 12 months of age. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 71(9), 1377–1382.
- Tait, M., & Lutman, M. E. (1997). The predictive value of measures of preverbal communicative behaviors in young deaf children with cochlear implants. *Ear and Hearing*, 18(6), 472–478.
- Tait, M., Lutman, M. E., & Nikolopoulos, T. P. (2001). Communication development in young deaf children: review of the video analysis method. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 61(2), 105–112.
- Tarkan, Ö., Tuncer, Ü., Özdemir, S., Sürmelioğlu, Ö., Çetik, F., Kıroğlu, M., ... Kara, K. (2013). Surgical and medical management for complications in 475 consecutive pediatric cochlear implantations. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 77(4), 473–479.
- Terry, B., Kelt, R. E., & Jeyakumar, A. (2015). Delayed complications after cochlear implantation. *JAMA Otolaryngology–Head & Neck Surgery*, 141(11), 1012–1017.

- Tessa, L. L., Sood, B. P., & Pecht, M. G. (2015). Field reliability estimation for cochlear implants. *IEEE Transactions on Biomedical Engineering*, 62(8), 2062–2069.
- Trozzi, M., Powell, H. R., Toma, S., Ahmed, W., Jephson, C. G., Rajput, K., & Cochrane, L. A. (2015). Cochlear re-implant rates in children: 20 years experience in a quaternary paediatric cochlear implant centre. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, 272(10), 2667–2672.
- Viccaro, M., Filipo, R., Bosco, E., Nicastrì, M., & Mancini, P. (2012). Long-term follow-up of implanted children with cytomegalovirus-related deafness. *Audiology and Neurotology*, 17(6), 395–399.
- Wang, J. T., Wang, A. Y., Psarros, C., & Cruz, M. (2014). Rates of revision and device failure in cochlear implant surgery: A 30-year experience. *The Laryngoscope*, 124(10), 2393–2399.
- Zeitler, D. M., Lalwani, A. K., Roland Jr, J. T., Habib, M. G., Gudis, D., & Waltzman, S. B. (2008). The effects of cochlear implant electrode deactivation on speech perception and in predicting device failure. *Otology & Neurotology*, 30(1), 7–13.

Internetsider

http://www.iso.org/iso/catalogue_detail.htm?csnumber=60541

(siden er sidst besøgt d. 31. Oktober 2016).

www.agbell.org (siden er besøgt d. 12. Oktober 2016).

www.sundhedsstyrelsen.dk/~media/3E5E326CD6E54D609575282C73F9F9F2.ashx

(siden er besøgt d. 18. Oktober 2016).

<http://www.citefactor.org/page/impact-factor> (siden er besøgt d. 31. Oktober 2016).

Bilagsoversigt

Bilag I: Samtykkeerklæring.

Bilag II: E-mailkorrespondancer med henholdsvis DTU og Oticon Medical i forbindelse med forsøg på indhentning af ISO:5841-2:2014 standardiseringen.

Bilag III: Godkendelse til indhentning af journaloplysninger.

Bilag IV-VII: USB-pen med filmklip af S's AVT undervisning (vedlagt).

Bilag VIII: Eksempel på klassisk noteringsform for metoden Tait Video Analysis.

Bilag IX: Sundhedsstyrelsens evidensniveauer og styrkegraderinger.

Bilag I: Samtykkeerklæring.

Kære forældre

Jeg er en kandidatstuderende fra Audiologopædi på Københavns Universitet, som i samarbejde med DeCIbel, er i gang med at udarbejde et speciale, der undersøger såkaldte soft failure-problematikker i Cochlear Implants (CI). I den forbindelse inddrages case-eksempler på udvalgte danske børn med CI, som muligvis har oplevet en soft failure i deres indopererede CI-elektroder.

Formålet med inddragelse af case-eksemplerne vil være at dokumentere og karakterisere de udvalgte børns sproglige udvikling før og efter re-operation af CI-elektroder med udgangspunkt i deres individuelle Auditory Verbal Therapy (AVT) undervisning hos DeCIbel.

Som dokumentering af de individuelle AVT sessioner vil lyd- og videooptagelser anvendes. Det understreges hermed, *at alle deltagere er anonyme, og at alle oplysninger samt lyd- og videofiler udelukkende vil blive anvendt i relation til opgavens fokus. Alle ovenstående data vil blive destrueret efter bedømmelse af den endelige opgave.*

Med venlig hilsen

Lena Havtorn Jensen

Samtykkeerklæring:

Undertegnede giver hermed tilladelse til indhentning og anvendelse af CI- og AVT-relateret data fra optagelser og Decibels journalarkiv vedrørende (søn/datter) navn:

_____ til brug i denne undersøgelse.

Dato: _____


Mors navn/underskrift: _____

Fars navn/underskrift: _____

Bilag II: E-mailkorrespondancer.

Danmarks Tekniske Universitet

20/9/2016 Gmail - Vedr. kendskab til ISO-standarder og cochlear implants

Lena Havtorn Jensen

Vedr. kendskab til ISO-standarder og cochlear implants
6 meddelelser

Lena Havtorn Jensen 3. april 2016 kl. 14.40
Til:

Kære Torsten Dau

Jeg er i øjeblikket ved at skrive mit speciale hos DeCibel med Lone Percy-Smith som vejleder. Jeg undersøger bl.a. prævalensen af soft failure problematikker hos børn med CI gennem et større litteraturstudie.

I den forbindelse er jeg stødt på flere artikler, der nævner af device failures og device reliability bør følge den officielle ISO-standard. Det er dog ikke muligt for mig at få adgang til denne (hverken version 2000 og 2014) uden at skulle betale flere hundrede kroner for adgangen.

Har du eventuelt mulighed for at fremskaffe en version af standarden fra 2014?

Kilden: "Implants for Surgery - Cardiac Pacemakers—Part 2: Reporting of Clinical Performance of Populations of Pulse Generators or Leads, ISO 5841-2, 2000."

Jeg håber, at det er ok jeg kontakter dig i denne forbindelse.

Venlig hilsen

Lena Havtorn, Audiologopædistuderende

Torben Poulsen 4. april 2016 kl. 16.44
Til:
Cc:

Kære Lena

Jeg har fået din mail til Torsten Dau vedr. ISO 5841-2. Jeg kender ikke denne standard og har den heller ikke. Jeg vil foreslå at du kontakter Leif Nielsen/Lotte Sørensen på Dansk Standard (Se Cc...). Det kan være de kan hjælpe dig med et eksemplar til dit eget og helt personlige brug.

Venlig hilsen
Torben Poulsen
Emeritus

From: Torsten Dau
Sent: 03 April 2016 22:16
To: Torben Poulsen
Subject: FW: Vedr. kendskab til ISO-standarder og cochlear implants

Hej Torben,

Kan du eventuelt hjælpe i denne sag?

Tusind tak og bedste hilsner,

Torsten

<https://mail.google.com/mail/u/0/?ui=2&ik=0e25d944a0&view=pt&q=tdau%40elektro.dtu.dk&qs=true&search=query&th=153dc2337d67123b&dsqt=1&siml=...> 1/7

Leif Nielsen

Til:
Cc:

7. april 2016 kl. 10.07

Kære Lena,

Det er jo ikke en standard inden for det akustiske område, så jeg har den ikke umiddelbart.

Men jeg kan se, at den er implementeret som Dansk Standard og koster 483 kr, - + sikkert noget ekspeditionsgebyr - se <https://webshop.ds.dk/da-dk/standard/ds-iso-5841-22014>, hvilket under alle omstændigheder er billigere en den originale ISO standard, som du måske har fået pris på.

Imidlertid er indholdet af den danske standard fuldstændig identisk med ISO standarden, så er prisen på den danske standard over dit budget?

Venlig hilsen,

Leif Nielsen

Lena Havtorn Jensen

Til:
Cc:

7. april 2016 kl. 10.33

Kære Leif,

Ja, det har været lidt kompliceret at finde frem til den, da den ikke er inden for det akustiske område.

Men tusind tak for hjælpen! Jeg finder lige ud af hvad jeg vil gøre.

Venlig hilsen,
Lena Havtorn

20/9/2016

Gmail - Hjælp til speciale



Lena Havtorn Jensen

Hjælp til speciale

6 meddelelser

Lena Havtorn Jensen

5. september 2016 kl. 10.44

Til: Mette

Hej Mette

Jeg sidder lige nu og arbejder på mit speciale, hvor jeg skriver på et afsnit om ISO-standardiseringen for rapportering af CI med device failure for producenterne.

Jeg kan dog ikke få adgang til de officielle ISO dokumenter uden at skulle betale mere end 600 kr for det, hvilket jeg synes er lige lidt over mit budget! Tror du det er muligt for mig at få adgang til standarden gennem Oticon Medical (som producent)?

Standarden er denne: ISO: 5841-2:2014.

Håber det giver mening, det jeg skriver. ;)

Vh
Lena

Lena Havtorn Jensen

5. september 2016 kl. 20.45

Til: Mette

Eller kan du eventuelt sende min mail videre i systemet til nogen som muligvis ved noget om det? :D

[Citeret tekst er skjult]

Mette

5. september 2016 kl. 20.59

Til: |

Cc:

Hej Lena.

Håber du har det godt.

Jeg ser hvad vi kan gøre.

Jeg sætter Katrine på opgaven.

Med venlig hilsen/Best regards,

Mette



Oticon Medical

Kongebakken 9, DK-2765 Smørum, Denmark

From: Lena Havtorn Jensen
Sent: 5. september 2016 20:45
To: Mette
Subject: Re: Hjælp til speciale

[Citeret tekst er skjult]

Lena Havtorn Jensen
Til: Mette

5. september 2016 kl. 21.35

Tusind tak!! :)
[Citeret tekst er skjult]

Katrine
Til: Mette

9. september 2016 kl. 09.46

Hej Lena,

Se nedenstående svar som jeg har modtaget,

ISO 5841-2

Specifies requirements for reports on the clinical performance in humans of population samples of cardiac pulse generators or ... etc

It is not applicable for Cochlear implant.

Jeg kan desværre ikke klare det certifikat til dig.

Lad mig vide hvis der er andet jeg kan hjælpe.

Rigtig god weekend☺

Venlig hilsen/ Best regards,

Katrine.

Bilag III: Godkendelse til indhentning af journaloplysninger.

12/10/2016

Gmail - Journal på S



Lena Havtorn Jensen

Journal på S

3 meddelelser

Lena Havtorn Jensen

23. september 2016 kl. 10.43

Til:

Hej I

Jeg skriver til dig, da jeg vil høre om I som forældre vil give godkendelse til at jeg får indsigt i S| journal på Gentofte?

Jeg vil meget gerne bruge informationerne til et introducerende afsnit af S og hans hørehistorie i mit speciale om soft failures, hvor jeg inkludere hans AVT undervisning med Lone.

Håber I har det godt.

Venlig hilsen
Lena Havtorn Jensen

23. september 2016 kl. 13.05

Til: Lena Havtorn Jensen

Hej Lena

Du må gerne få indsigt. Er der noget formelt jeg skal skrive under på i den sammenhæng?

Vh D _____

Fra: Lena Havtorn Jensen

Sendt: 23. september 2016 10:44

Til: D

Emne: Journal på S

[Citeret tekst er skjult]

Lena Havtorn Jensen

26. september 2016 kl. 10.08

Til: D

Hej D

Det er helt fint med et ok over mail, så der er ikke andet der skal gøres.
Mange tak skal du have!

Vh
Lena
[Citeret tekst er skjult]

Bilag IV-VII: USB-pen med filmklip af S's AVT-undervisning.

Bilag IV: Case S, første AVT-undervisning, februar 2016.

Bilag V: Case S, anden AVT-undervisning, marts 2016.

Bilag VI: Case S, tredje AVT-undervisning, april 2016.

Bilag VII: Case S, fjerde AVT-undervisning, maj 2016.

Filmene bliver ikke offentliggjorte.

Bilag VIII: Eksempel på klassisk noteringsform for metoden Tait Video Analysis.

Voksen: Hey du. Nu skal du bare se, hør. Du du du du duuuh
Henne i cirkus der er der én der siger,
Du du du du duuuh



Barn: (Kigger på kulissen) (kigger væk)
Nnn Nnn nnn
Reagerer på L's raslen
(kigger på L)
Døø døød

Voksen: Hey S, det førte nummer er Prøv lige at hør'.
en hund og en løve. Du du du du duuuh.



Barn: (Mor peger, S kigger væk
Og kigger så på figuren)
uud, fff

Bilag IX: Sundhedsstyrelsens evidensniveauer og styrkegraderinger.

Kilde: www.sundhedsstyrelsen.dk/~media/3E5E326CD6E54D609575282C73F9F9F2.ashx

(siden er besøgt d. 18. Oktober 2016).

Evidensniveauer og styrkegraderinger af anbefalinger

Anbefaling	Evidensniveau	Behandling/forebyggelse	Prognose	Diagnose	Sundhedøkonomisk analyse	
A	1a	Systematisk review eller metaanalyse af homogene randomiserede kontrollerede forsøg.	Systematisk review af prospektive kohorte studier eller en klinisk beslutningsregel der er valideret på en testpopulation.	Systematisk review af homogene niveau 1 diagnostiske studier eller en klinisk beslutningsregel der er valideret på en testpopulation.	Systematisk review af homogene niveau 1 økonomiske studier.	
	1b	Randomiseret kontrolleret forsøg.	Prospektivt kohortestudie med > 80% follow-up.	Uafhængig blind sammenligning af konsekutive patienter med relevant klinisk problemstilling, som alle har fået udført både den undersøgte diagnostiske test og reference testen.	Analyse, der sammenligner alle alternative kliniske resultater med hensyn til relevante omkostninger, og som også omfatter en sensitivitsanalyse med hensyn til variation af klinisk vigtige variable.	
	1c	Absolut effekt. ("Alt eller intet")	Absolut effekt ("Alt eller intet")	"Patognomoniske" testresultater.	Klart god eller bedre, men billigere. Klart dårlig eller værre, men dyrere. Klart bedre eller værre, men til samme pris.	
B	2a	Systematisk review af homogene kohortestudier.	Systematisk review af homogene retrospektive kohortestudier eller af ubehandlede kontrolgrupper fra randomiserede kontrollerede forsøg.	Systematisk review af homogene niveau 1 og 2 diagnostiske studier.	Systematisk review af homogene niveau 1 og 2 økonomiske studier.	
	2b	Kohortestudie.	Retrospektivt kohortestudie eller den ubehandlede kontrolgruppe fra et randomiseret kontrolleret forsøg eller en klinisk beslutningsregel, som ikke er valideret i en testpopulation.	Uafhængig sammenligning af ikke-konsekutive patienter eller et snævert spektrum af patienter, som alle har fået udført både den undersøgte diagnostiske test og referencetesten; eller en klinisk beslutningsregel, som ikke er valideret i en testpopulation.	Analyse, der sammenligner et mindre antal alternative kliniske resultater med hensyn til relevante omkostninger, og som også omfatter en sensitivitsanalyse med hensyn til variation af klinisk vigtige variable.	
	2c	Databasestudier.	Databasestudier.			
	3a	Systematisk review af case-control undersøgelser.				
	3b	Case-control undersøgelse.		Uafhængig sammenligning af konsekutive patienter med relevant klinisk problemstilling, men hvor ikke alle har fået udført både den undersøgte diagnostiske test og referencetesten.	Analyser uden præcise opgørelser for relevante omkostninger, men som også omfatter en sensitivitsanalyse med hensyn til variation af klinisk vigtige variable.	
C	4	Opgørelser, kasuistikker.	Opgørelser, kasuistikker.	Referencetesten er ikke anvendt blindt og uafhængigt.	Analyse uden sensitivitsanalyse.	
D	5	Ekspertmening uden eksplicit kritisk evaluering, eller baseret på patofysiologi, laboratorieforskning eller tommelfingerregler.	Ekspertmening uden eksplicit kritisk evaluering, eller baseret på patofysiologi, laboratorieforskning eller tommelfingerregler.	Ekspertmening uden eksplicit kritisk evaluering, eller baseret på patofysiologi, laboratorieforskning eller tommelfingerregler.	Ekspertmening uden eksplicit kritisk evaluering, eller baseret på økonomisk teori.	

Udarbejdet efter "Oxford Centre for Evidence-Based Medicine Levels of Evidence and Grades of Recommendations" (May 2001) http://www.cebm.net/levels_of_evidence.aspx#levels