

Iida Hiltunen

**CHIARI 1 -MALFORMAATIOON LIITTYVÄ  
SUBJEKTIIVISESTI KOETTU  
NIELEMISVAIKEUS**  
Kyselytutkimus

# TIIVISTELMÄ

Iida Hiltunen: Chiari 1 -malformaatioon liittyvä subjektiivisesti koettu nielemisvaikeus – Kyselytutkimus  
Pro gradu -tutkielma  
Tampereen yliopisto  
Logopedian tutkinto-ohjelma  
Kesäkuu 2022

---

Chiari 1 -malformaatioksi kutsutaan pikkuaivojen rakennepoikkeavuutta, jossa pikkuaivorisat työntyvät selkäydinkanavaan. Yksi Chiari 1 -malformaatioon liitettyistä oireista on aivorungon ja alimpien aivohermojen puristumisesta ja toimintahäiriöstä johtuva nielemisvaikeus. Aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio, on raportoitu sekä objektiivisesti todennettuja että subjektiivisesti koettuja nielemisvaikeusoireita. Aihetta on kuitenkin tutkittu kansainvälisesti erittäin vähän, eikä suomenkielistä kirjallisuutta ole olemassa lainkaan. Tämä tutkimus on tiettävästi ensimmäinen potilaiden subjektiivisesti kokemien nielemisvaikeusoireiden tarkasteluun keskittyvä kyselytutkimus.

Tämän pro gradu -tutkielman tarkoituksena oli selvittää, kuinka nielemisvaikeus ilmenee aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Sähköisellä kyselylomakkeella kerätty tutkimusaineisto koostui 96 vapaaehtoisen 18–72-vuotiaan (Md = 38,0) tutkittavan vastauksista. Tutkimuksessa käytettiin nielemisvaikeuden itsearviointiin tarkoitettua EAT-10-kyselyn validoitua suomennosta. Tutkimuksessa tarkasteltiin koetun nielemisvaikeuden yleisyyttä sekä nielemisvaikeusoireiden laatua ja määrää. Lisäksi selvitettiin, onko EAT-10-kyselyn tulos yhteydessä tutkittavien ikään ja leikkaustaustaan tai tutkittavien kokemukseen siitä, onko heillä nielemisvaikeutta. Tutkimuksessa myös kartoitettiin suppeasti, millaisia hoitokontakteja tutkittavilla on ollut nielemisvaikeuteen liittyen. Muuttujien välisiä yhteyksiä tarkasteltiin tilastollisin menetelmin. Määrällisiä tuloksia täydennettiin poimimalla tutkittavien antamista avokommenteista sellaisia nielemisvaikeuden oirekuvaan liittyviä tekijöitä, joiden ilmenemistä EAT-10-kysely ei kartoita.

Tutkittavista kaksi kolmasosaa sai EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli vähintään kolme pistettä. Koettua nielemisvaikeutta raportoiti 55,2 prosenttia tutkittavista, ja heistä lähes kaikki saivat EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen. EAT-10-kyselyn yhteispisteiden ja koetun nielemisvaikeuden välillä havaittiin tilastollisesti merkitsevä yhteys ( $p < ,001$ ). EAT-10-kyselyssä tutkittavat raportoivat eniten syödessä ilmenevää yskimistä, kiinteän ruoan, nesteiden ja tablettien nielemisen työläyttä sekä ruoan takertumista kurkkuun nielemisen aikana. Kolme neljäsosaa EAT-10-kyselystä yli kolme pistettä saaneista tutkittavista raportoiti vähintään viittä kymmenestä kyselyssä kartoitettavasta oireesta. Ikä ja leikkaustausta eivät olleet tilastollisesti merkitsevästi yhteydessä tutkittavien EAT-10-kyselystä saamiin yhteispisteisiin. EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen saaneista tutkittavista 51,5 prosenttia raportoiti keskustelleensa nielemiseen liittyvistä tuntemuksistaan lääkärin kanssa ja 19,7 prosenttia raportoiti käyneensä puheterapeutin vastaanotolla.

Tämän tutkielman tulokset viittaavat siihen, että subjektiivisesti koettu nielemisvaikeus saattaa olla verrattain yleinen oire aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Tutkittavat raportoivat sekä erilaisia fyysisen terveydentilan kannalta keskeisiä nielemistoimintoihin liittyviä oireita että elämänlaatuun nielemisvaikeuden vuoksi heijastuvia haittoja. Nielemisvaikeuden seulonta osana Chiari 1 -malformaation oirekuvan arviointia on tärkeää, sillä nielemisvaikeusoireet voivat heikentää elämänlaatua merkittävästi ja pahimmillaan nielemisvaikeus voi johtaa esimerkiksi aliravitsemukseen ja keuhkokomplikaatioihin. Jatkossa olisi tärkeää selvittää, voiko puheterapeutin toteuttama kuntoutus ja ohjaus lievittää Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden oireita tai edesauttaa oireiden kanssa pärjäämistä. Lisäksi tulisi tutkia, onko potilaiden raportoimien nielemisvaikeusoireiden ja puheterapeutin tekemän kliinisen nielemisarvion ja/tai nielemistoimintojen instrumentaalisen arvion löydösten välillä yhteyttä tässä potilasryhmässä.

Avainsanat: Chiari 1 -malformaatio, CM1, nielemisvaikeus, dysfagia, kyselytutkimus, EAT-10

Tämän julkaisun alkuperäisyys on tarkastettu Turnitin OriginalityCheck –ohjelmalla.

## SISÄLLYSLUETTELO

1 JOHDANTO .....	1
2 KIRJALLISUUSKATSAUS .....	2
2.1 Chiari 1 -malformaatio .....	2
2.2 Nielemisvaikeuden ilmeneminen ja arviointi .....	4
2.3 Chiari 1 -malformaatioon liittyvä nielemisvaikeus .....	7
3 TUTKIMUKSEN TAVOITE JA TUTKIMUSKYSYMYKSET .....	10
4 TUTKIMUSMENETELMÄT .....	11
4.1 Tutkimushenkilöt.....	11
4.2 Aineistonkeruu ja aineiston muodostuminen.....	12
4.3 Aineiston analyysi .....	12
4.4 Tilastollinen analyysi.....	13
4.5 Tutkimuksen eettisyys .....	14
5 TULOKSET .....	16
5.1 EAT-10-kyselyn yhteispisteet ja niiden yhteys koettuun nielemisvaikeuteen .....	16
5.2 Eri nielemisvaikeusoireiden yleisyys ja vaikeusaste sekä oireiden lukumäärä .....	17
5.3 EAT-10-kyselyn pisteiden yhteys taustamuuttujiin.....	20
5.4 Tutkittavien hoitokontaktit .....	21
6 POHDINTA .....	23
6.1 Tulosten tarkastelu.....	23
6.2 Menetelmän pohdinta .....	29
6.3 Jatkotutkimusaiheita .....	31
7 LÄHDELUETTELO.....	33

Luettelo liitteistä:

Liite 1. Tutkimustiedote.

Liite 2. Sähköinen kyselylomake.

# 1 JOHDANTO

Chiari 1 -malformaatiossa pikkuaivorisat työntyvät niska-aukon läpi selkäydinkanavaan (Aitken ym., 2009; Karppinen, 2020). Diagnoosiin radiologisesti sopiva pikkuaivoherniaatio ei läheskään aina aiheuta oireita, ja tällöin kyseessä voidaan ajatella olevan radiologinen sattumalöydös (Karppinen, 2020). Niska-aukon ollessa ahdas Chiari 1 -malformaatioon voi kuitenkin liittyä erilaisia aivo-selkäydinnestekierron häiriöön sekä ydinjatkoksen ja alimpien aivohermojen puristumiseen liittyviä neurologisia oireita (Karppinen, 2020; McClugage & Oakes, 2019). Yksi Chiari 1 -malformaatioon liitetyistä oireista on nielemisvaikeus.

Nielemisvaikeus voi heikentää yksilön fyysistä terveydentilaa ja psyykkistä hyvinvointia vaikuttaen elämänlaatuun negatiivisesti (Belafsky ym., 2008; Ekberg ym., 2002). Chiari 1 -malformaatioon liittyvää nielemisvaikeutta on tutkittu erittäin vähän. Nielemisvaikeuden oirekuvaa on kuvattu lähinnä yksittäisissä potilastapausselostuksissa, eikä Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden esiintyvyyttä tiedetä. Aiemmissä tutkimuksissa yksittäisillä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio, on raportoitu terveydentilan kannalta keskeisiä nielemistoimintojen poikkeavuuksia kuten objektiivisesti todennettua aspiraatiota eli nieltävän aineksen päätymistä henkitorveen ja keuhkoihin sekä useita aspiraatoriskiä nostavia tekijöitä kuten puutteellista nielun tyhjenemistä sekä suuontelon ja nielun tuntopuutoksia (Almotairi ym., 2018; Ikusaka ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992; Paulig & Prosiegel, 2002; Santoso ym., 2019; White ym., 2019). Potilaiden subjektiiviseen kokemukseen perustuvia nielemisvaikeusoireita on kuvattu kirjallisuudessa hyvin vähän. Tämä tutkielma onkin tiettävästi ensimmäinen yksinomaan potilaiden subjektiivisten kokemusten tarkasteluun keskittyvä tutkimus. Potilaiden kokemusten kartoittaminen auttaa selvittämään, kuinka nielemisvaikeus ilmenee ja millä tavoin oireet vaikuttavat päivittäiseen elämään (Murry ym., 2018, s. 84).

Tässä kyselytutkimuksena toteutettavassa pro gradu -tutkielmassa tarkastellaan validoidun EAT-10-kyselyn avulla, millaisia nielemisvaikeusoireita Chiari 1 -malformaatiota sairastavat aikuiset raportoivat kokevansa ja kuinka suurella osalla tutkittavista oireita ilmenee. EAT-10-kyselyn tuloksia tarkastellaan suhteessa tutkittavien taustatietoihin ja siihen, raportoivatko tutkittavat kokevansa nielemisvaikeutta. Lisäksi kartoitetaan suppeasti, millaisia hoitokontakteja tutkittavilla on ollut nielemisvaikeuteen liittyen. Aiheen tutkiminen on tärkeää, jotta kliinisessä työssä osataan tunnistaa ne henkilöt, joilla voi olla Chiari 1 -malformaatiosta johtuva nielemisvaikeus. Tutkimustieto voi edesauttaa potilaiden oikea-aikaista asianmukaiseen hoitoon ohjautumista.

## 2 KIRJALLISUUSKATSAUS

### 2.1 Chiari 1 -malformaatio

Chiari 1 -malformaatiolla tarkoitetaan pikkuaivojen rakennepoikkeavuutta, jossa pikkuaivorisat työntyvät niska-aukon läpi selkäydinkanavaan (Aitken ym., 2009; Karppinen, 2020; Speer ym., 2003). Diagnoosista käytetään myös muun muassa nimityksiä Chiari 1 -oireyhtymä, Chiarin tyyppin 1 epämuodostuma ja Arnold-Chiarin oireyhtymä (Karppinen, 2020). Diagnoosiin liittyvä käsitteistö on melko vakiintumatonta, eikä tuoreimman kirjallisuuden perusteella mikään edellä mainituista nimityksistä välttämättä kuvaa kyseistä tilaa parhaalla mahdollisella tavalla. Hiljattain diagnoosia täsmällisemmin kuvaaviksi käsitteiksi on ehdotettu esimerkiksi nimityksiä Chiarin oireyhtymä, Chiari 1 -muotovirhe ja krooninen pikkuaivoherniaatio (Fric & Eide, 2020; Karppinen, 2020).

Vaikka nykyisin tunnetaan useita Chiari 1 -malformaation syntyyn mahdollisesti vaikuttavia taustasyitä ja mekanismeja, on aiheuttaja useimmiten tuntematon (Karppinen, 2020). Tarkkaa tietoa rakennepoikkeavuuden esiintyvyydestä ei kirjallisuudesta löydy, mutta esimerkiksi Aitkenin ja kumppaneiden (2009) tutkimuksessa 5248 lapsesta noin yhdellä prosentilla todettiin pään magneettikuvauksessa Chiari 1 -malformaatio. Chiari 1 -malformaatio todetaan naisilla miehiä useammin (Karppinen, 2020). Magneettitutkimusten lisääntyminen on johtanut diagnoosin yleistymiseen, mutta usein kyseessä voidaan ajatella olevan oireeton sattumalöydös (Caldwell ym., 2009; Karppinen, 2020). Chiari 1 -malformaation radiologisena diagnoosikriteerinä on perinteisesti pidetty vähintään viiden millimetrin pikkuaivoherniaatiota (Aitken ym., 2009; Karppinen, 2020; Speer ym., 2003). Nykyisin useat asiantuntijat kuitenkin kannattavat viiden millimetrin säännön hylkäämistä, sillä iso osa kriteerin täyttävistä henkilöistä on oireettomia (Bolognese ym., 2019), ja toisaalta myös alle viiden millimetrin pikkuaivoherniaatioihin on havaittu voivan joskus liittyä Chiari 1 -malformaatiolle tyypillisiä oireita (Heffez ym., 2020; Milhorat ym., 1999).

Chiari 1 -malformaatioon liittyvät oireet johtuvat niska-aukon ahtautumisesta aiheutuvasta aivo-selkäydinnestekierron häiriöstä sekä aivorunkoon kuuluvan ydinjatkoksen ja alimpien aivohermojen puristumisesta (McClugage & Oakes, 2019). Oirekuva on aina yksilöllinen, eikä oireita voida ennustaa tai hoitolinjaa valita vain radiologisten löydösten perusteella (Karppinen, 2020). Kuitenkin esimerkiksi pikkuaivorisojen muodon ja kallon takakuopan tilavuuden on ajateltu osaltaan selittävän oireita (Bolognese ym., 2019; Karppinen, 2020). Pikkuaivoherniaation koko ei puolestaan näytä ennustavan oireiden laatua tai vaikeusastetta (Heffez ym., 2020). Vaikka radiologisten löydösten

yhteyttä oireisiin on tutkittu, ei löydösten jaottelu oireita aiheuttaviin Chiari 1 -malformaatioihin ja oireettomiin sattumalöydöksiin ole aina kovinkaan yksiselitteistä (McClugage & Oakes, 2019). Diagnostiikkaa ja hoitopäätösten tekemistä voi hankaloittaa osaltaan myös se, että suurin osa Chiari 1 -malformaatioon usein liitetystä oireista voi liittyä lukuisiin muihinkin sairauksiin ja tiloihin (Caldwell ym., 2009; Karppinen, 2020). Lisäksi Chiari 1 -malformaatioon liittyy toisinaan erilaisia rinnakkaisdiagnooseja, jotka voivat aiheuttaa omanlaisiaan oireita (Caldwell ym., 2009). Esimerkiksi selkäytimen ontelotauti eli syringomyelia sekä hydrokefalus ja skolioosi esiintyvät verrattain usein samanaikaisesti Chiari 1 -malformaation kanssa.

Chiari 1 -malformaatioon liittyvät neurologiset oireet alkavat usein varhaisaikuisuudessa (Aitken ym., 2009). Keskeisin aivo-selkäydinnestekierron häiriöstä johtuva oire on takaraivolle painottuva ponnistuksen laukaisema lyhykestoinen päänsärky, joka on tyypillisin Chiari 1 -malformaation aiheuttama oire (McClugage & Oakes, 2019; Milhorat ym., 1999). Aivorungon ja aivohermojen puristuminen voi aiheuttaa useita erilaisia näiden rakenteiden toimintahäiriöön liittyviä oireita, joita ovat esimerkiksi huimaus, tahdonalaisten lihasten koordinoinnin vaikeus eli ataksia, puhemotorinen häiriö eli dysartria sekä tässä tutkielmassa tarkastelun kohteena oleva nielemisvaikeus (McClugage & Oakes, 2019). Nielemisvaikeutta käsitellään tarkemmin seuraavissa luvuissa.

Lieväoireinen Chiari 1 -malformaatioon sopiva radiologinen löydös ei hyvästä ennusteesta johtuen vaadi hoitoa, vaan oirekuvan seuraaminen riittää (Karppinen, 2020; Langridge ym., 2017). Leikkaushoitoon voidaan päätyä neurokirurgin suosituksesta, mikäli potilaan niska-aukko havaitaan ahtaaksi ja oireet haittaavat päivittäistä elämää (Karppinen, 2020). Kirurgiseen hoitoon päädytään useimmiten Chiari 1 -malformaatiolle tyypillisen toistuvan ponnistus päänsärlyn ja oireita aiheuttavan syringomyelian vuoksi, minkä lisäksi objektiivisesti havaittavissa olevia poikkeavia neurologisia löydöksiä ja aivorunkoperäisiä oireita voidaan joskus pitää leikkauspäätöstä puoltavina tekijöinä (Chavez ym., 2014; Karppinen, 2020). Leikkaustekniikkana käytetään useimmiten niska-aukon avarrusleikkausta, jossa niska-aukon ahtautta ja siitä johtuvaa aivo-selkäydinnestekierron häiriötä ja taka-aivojen rakenteiden puristumista pyritään helpottamaan poistamalla pala takaraivoluuuta ja joissakin tapauksissa avaamalla kovakalvo (Karppinen, 2020). Anatomisista muutoksista huolimatta leikkaus ei aina poista potilaan oireita (Speer ym., 2003). Yksiselitteisiä kaikenkattavia suuntaviivoja Chiari 1 -malformaation hoitolinjan valinnalle ei toistaiseksi ole, minkä vuoksi leikkaushoidosta hyötyvän potilaan tunnistamiseen liittyy sekä ali- että yli-diagnosoinnin riski (Karppinen, 2020; Langridge ym., 2017). Hoitolinjaa valitessa potilaan tilannetta tulisikin tarkastella yksilöllisesti radiologisten löydösten lisäksi oireiden vaikeus ja pitkittyminen huomioiden (Langridge ym., 2017).

## 2.2 Nielemisvaikeuden ilmeneminen ja arviointi

Nieleminen on useista erilaisista tahdonalaisista ja tahdosta riippumattomista toiminnoista koostuva monimutkainen tapahtumasarja, jonka onnistuminen edellyttää tarkkaa ja tarkoituksenmukaista hermostollista säätelyä (Ekberg, 2012, s. 55). Nielemisen säätelyn keskuksena pidetään aivorunkoa, josta motorisia käskyjä ja aistitietoa välittävät aivohermot saavat alkunsa (Prosiegel, 2012, s. 86). Nielemistoimintojen säätelyyn osallistuu viisi aivohermoa, joista kielihermo (XII) on toiminnaltaan kokonaan motorinen, kun taas kolmoisherma (V), kasvohermo (VII), kieli-kitahermo (IX) ja vagusherma (X) sekä vievät motorisia käskyjä kohdelihaksiin että myös tuovat aistitietoa kohdelihaksista aivorunkoon (Ekberg & Nylander, 2012, s. 14–15).

Nieleminen voidaan jakaa oraaliseen, faryngeaaliseen ja esofageaaliseen vaiheeseen (Ekberg & Nylander, 2012, s. 16; Ertekin & Aydogdu, 2003). Nielemisen oraaliosassa ravinto muokataan suuontelossa nielemiseen soveltuvaksi bolukseksi, joka sitten kuljetetaan kielen liikkeen avulla nieluun (Ekberg & Nylander, 2012, s. 17). Boluksen taaksepäin suuntautuva liike käynnistää nielemisen faryngeaalisen vaiheen, jossa pehmeä suulaki sulkee nenänielun ja hengitystiet sulkeutuvat kurkunpään noustessa ja kurkunkannen kallistuessa alaspäin (Ekberg & Nylander, 2012, s. 17; Ertekin & Aydogdu, 2003). Faryngeaalisen vaiheen lopussa ruokatorven yläsulkiija relaksoituu päästäen boluksen ruokatorveen (Ertekin & Aydogdu, 2003). Nielemisen esofageaaliosassa nieltävä aines kulkeutuu ruokatorvea pitkin mahalaukkuun (Logemann, 2007). Nielemisvaikeudella voidaan tarkoitaa missä tahansa nielemisen vaiheessa ilmeneviä nieltävän aineksen käsittelyyn ja kuljetukseen liittyviä ongelmia, mutta useimmiten nielemisvaikeudella tarkoitetaan oraalisen ja/tai faryngeaalisen nielemisvaiheen häiriintymistä eli niin sanottua orofaryngeaalista nielemisvaikeutta (Denk-Linnert, 2012, s. 72). Suurin osa nielemisen ongelmista liittyy erilaisiin rakenteellisiin ja neurologisiin taustasyihin, mutta taustalla voi olla myös esimerkiksi jokin psykologinen tekijä tai toiminnallinen häiriö (Ilmarinen ym., 2019). Neurologiset taustasyt aiheuttavat useimmiten orofaryngeaalisen nielemisvaikeuden (Prosiegel, 2012, s. 83).

Nielemisvaikeus voi ilmetä monenlaisina oireina, ja sen seuraukset ovat aina yksilöllisiä. Yksilön terveydentilan kannalta nielemistoimintoja arvioidessa olisi tärkeintä tunnistaa, onko potilaalla riskiä nieltävän aineksen aspiraatiolle ja/tai penetraatiolle (Murry ym., 2018, s. 86). Aspiraatiolla tarkoitetaan nieltävän aineksen päätymistä äänihuulitason alapuolelle alahengitysteihin eli henkitorveen ja keuhkoihin (Denk-Linnert, 2012, s. 73–74). Kansankielisesti puhutaan ”henkeen vetämisestä”. Nieltävä aines voi aspiroitua ennen varsinaista nieläisyyttä, nieläisyyden aikana tai nielemisen

jälkeen (Logemann, 2007). Penetraatiosta puhutaan, kun nieltävä aines pääsee kulkeutumaan äänihuulitasolle tai sen yläpuolelle aspiroitumatta kuitenkaan alahengitysteihin (Denk-Linnert, 2012, s. 72). Nieltävän aineksen penetraatiota voi toisinaan esiintyä terveillä normaalisti nielevillä henkilöilläkin (Allen ym., 2010), mutta erityisesti syvälle nielun rakenteisiin yltävän penetraation on havaittu olevan yhteydessä kohonneeseen aspiraatoriskiin (Friedman & Frasier, 2000). Mikäli nielu ei tyhjene nielaistessa kunnolla, voi nielun rakenteisiin jäänyt aines eli retentio päästä aspiroitumaan alahengitysteihin nielemisen jälkeen sisään hengittäessä (Rommel ym., 2015). Aspiraation ja sille altistavien tunnusmerkkien havaitseminen on keskeistä, sillä toisinaan jo hyvin vähäisenkin aspiraatio voi aiheuttaa keuhkokuumeen (Denk-Linnert, 2012, s. 74). Pahimmillaan tämä aspiraatiopneumonia voi olla hengenvaarallinen.

Nielemistoimintojen tutkiminen voidaan aloittaa aiheeseen perehtyneen ammattilaisen tekemällä seulontatutkimuksella, jonka tarkoituksena on tunnistaa mahdollisimman tehokkaasti ne henkilöt, joiden nielemistoimintoja on tarpeen arvioida tarkemmin (Murry ym., 2018, s. 82). Varsinainen nielemisvaikeuksien arvioinnista ja hoidosta vastaavan puheterapeutin tekemä kliininen nielemisarvio koostuu potilastapaukseen perehtymisestä, potilaan yleistilan arvioinnista, kasvojen, suuontelon, nielun ja kurkunpään sensoriikan ja motoriikan tutkimisesta sekä nielemiskokeilusta (Logemann, 2007; Murry ym., 2018, s. 87–90). Nielemisen seulontatutkimusten ja kliinisen nielemisarvion aikana havainnoidaan erilaisia kohonneeseen aspiraatoriskiin viittaavia piirteitä, joista erityisesti nielemisen aikana tai sen jälkeen ilmenevän yskimisen sekä äänenlaadussa tapahtuvien muutosten on havaittu viittaavan usein aspiraatioon (Daniels ym., 2012).

Aspiraatoriskiä ei käytännössä voida täysin poissulkea nielemisen seulontatutkimusten ja kliinisen nielemisarvion perusteella niin sanotun hiljaisen aspiraation mahdollisuuden vuoksi (Denk-Linnert, 2012, s. 73). Hiljaisesta aspiraatiosta puhutaan, kun aspiraatio ei laukaise hengitysteitä suojaavaa yskimisrefleksiä (Denk-Linnert, 2012, s. 73; Murry ym., 2018, s. 91). Hiljainen aspiraatio jää usein huomaamatta, vaikka muun muassa nielemisarviossa havaittava nielemisen jälkeinen äänenlaadun muutos ja tahdonalaisen yskimisen heikkous sekä potilashistoriasta löytyvä keuhkokuumeesta ovat tekijöitä, joiden perusteella hiljaisen aspiraation mahdollisuutta olisi syytä epäillä (Murry ym., 2018, s. 91). Aspiraation havaitseminen ja poissulkeminen onnistuu luotettavimmin nielemisen instrumentaalisten arviointimenetelmien avulla (Denk-Linnert, 2012, s. 80). Yleisimmin käytetyt nielemisen instrumentaaliset arviointimenetelmät ovat radiologinen nielemisen läpivalaisututkimus eli videofluorografia (*videofluoroscopic swallowing study*, VFSS) sekä nielemisen tähytystutkimus (*fiberoptic endoscopic evaluation of swallowing*, FEES) (Logemann, 2007).



Nielemisvaikeus on kunkin yksilön subjektiivisesta kokemuksesta riippuvainen oirekokonaisuus (Belafsky ym., 2008). Potilaan näkökulman kartoittaminen osana nielemisarviota auttaa selvittämään, kuinka nielemisvaikeus ilmenee ja miten oireet vaikuttavat elämänlaatuun (Murry ym., 2018, s. 84). Potilaan subjektiivista kokemusta voidaan selvittää nielemisarvion yhteydessä tehtävällä haastattelulla, minkä lisäksi voidaan käyttää erilaisia oirekuvaa ja elämänlaatua arvioivia itsearviointityökaluja (Denk-Linnert, 2012, s. 78–79; Murry ym., 2018, s. 84). Useiden erilaisten nielemisvaikeuteen liittyvien oireiden ilmenemistä selvittäessä on mahdollista hyödyntää potilaskeskeisiä työskentelytapoja. Esimerkiksi tahaton laihtuminen ja toistuva kuumeilu ovat mahdollisesti nielemisvaikeuteen ja aspiraatioon liittyviä oireita (Denk-Linnert, 2012, s. 77), joiden ilmenemistä voidaan usein kysyä potilaalta itseltään. Muun muassa kokemus ruoan juuttumisesta nieluun, nielemisen aikana esiintyvä tukehtumisen tunne ja tarve nielaista useaan kertaan ovat myös potilaiden usein kuvaamia nielemisvaikeuteen liittyviä fyysisiä oireita (Murry ym., 2018, s. 88; Prosigel, 2012, s. 88). Potilaan subjektiivisen kokemuksen selvittäminen voi auttaa aspiraatoriskin kartoittamisessa silloinkin, kun potilaalle on mahdollista tehdä nielemisfunktion instrumentaalinen arvio, sillä potilas saattaa aspiroida muissa tilanteissa, vaikka juuri instrumentaalisen nielemisarvion aikana aspiraatiota ei tapahtuisikaan (Cheney ym., 2015).

Fyysisten oireiden lisäksi nielemisvaikeuteen voi liittyä erilaisia sosio-emotionaalisia pulmia. Nieleminen voi pelottaa ja ruokahalu heikentyä, minkä lisäksi henkilö saattaa alkaa välttämään tiettyjä ruokakoostumuksia, ja ruokailuun voi myös kulua tavanomaista pidempi aika (Denk-Linnert, 2012, s. 77; Murry ym., 2018, s. 88). Nielemisvaikeuden on havaittu olevan yhteydessä myös esimerkiksi lisääntyneeseen masennukseen ja ahdistukseen (Ekberg ym., 2002) sekä huonompaan itsetuntoon ja sosiaaliseen eristäytyneisyyteen (Eslick & Talley, 2008). Nielemisvaikeus voi siis vaikuttaa fyysisen terveydentilan ohella myös henkiseen hyvinvointiin negatiivisesti elämänlaatua toisinaan hyvinkin kokonaisvaltaisesti heikentäen (Ekberg ym., 2002). Potilaskeskeisten työskentelytapojen hyödyntäminen on välttämätöntä nielemisvaikeuden aiheuttaman haitan asteen arvioimiseksi.

Potilaiden raportoimien oireiden ja objektiivisesti nielemisarviossa tehtyjen löydösten välinen yhteys on vielä toistaiseksi monilta osin epäselvä, mikä hankaloittaa nielemisvaikeuksien arviointia (Dewan ym., 2021). Esimerkiksi nielemisfunktion instrumentaaliossa arviointia tehtyjen löydösten ja potilaiden raportoimien oireiden on havaittu eroavan usein ainakin joiltain osin toisistaan. Nielemisen itsearviointityökaluja ei voidakaan käyttää korvaamaan objektiivisempia nielemisen arviointimenetelmiä, mutta niiden avulla potilaan tilanteesta voidaan saada objektiivisiin

arviointimenetelmiin verrattuna yksilöllisempää tietoa (Bartlett ym., 2021; Denk-Linnert, 2012, s. 80). Käytännössä esimerkiksi validoitujen nielemisvaikeuskyselyjen käyttö on kliinisessä työssä myös resurssien kannalta järkevää, sillä instrumentaalisen nielemisarvion tekeminen ei aina ole välttämätöntä tai kustannustehokasta, ja toisaalta kaikkialla instrumentaalisia arviointimenetelmiä ei ole aina käytettävissä (Bartlett ym., 2021; Järvenpää ym., 2021).

Osa nielemisen itsearviointityökaluista on tarkoitettu jonkin tietyn potilasryhmän nielemistoimintojen arviointiin, kun taas jotkut kyselyt soveltuvat nielemisvaikeuden arviointiin riippumatta taustalla olevasta sairaudesta tai tilasta (Patel ym., 2017). Yksi nielemisvaikeuden etiologiasta riippumaton nielemisen itsearviointityökalu on tässä tutkimuksessa käytettävä EAT-10-kysely (*the Eating Assessment Tool*), jonka avulla voidaan arvioida nielemisvaikeuden vaikeusastetta sekä esimerkiksi oirekuvassa hoidon myötä tapahtuvia muutoksia (Belafsky ym., 2008). EAT-10-kysely koostuu kymmenestä väittämästä, joihin vastataan viisiportaisen Likert-asteikon arvolla sen mukaan, kuinka vaikeaksi kunkin väittämän mukainen ongelma koetaan. Kyselystä voi saada yhteensä 0–40 pistettä. Tulosta pidetään normaalista poikkeavana, mikäli kyselystä saatu yhteispistemäärä on kolme tai enemmän (Belafsky ym., 2008; Järvenpää ym., 2021). Kysely on käännetty useille eri kielille, ja erikielisten versioiden reliabiliteetti ja validiteetti on todettu tutkimuksissa erinomaiseksi (mm. Belafsky ym., 2008; Järvenpää ym., 2021; Printza ym., 2018; Schindler ym., 2013). EAT-10-kyselyn tuloksen ja instrumentaalisessa nielemisarviossa tehtyjen objektiivisten löydösten välinen riippuvuus on joissakin tutkimuksissa havaittu voimakkaaksi (Printza ym., 2018) tai kohtalaiseksi (Arslan ym., 2017), kun taas osassa tutkimuksista riippuvuus on havaittu heikoksi (Schindler ym., 2013; Shapira-Galitz ym., 2019).

### **2.3 Chiari 1 -malformaatioon liittyvä nielemisvaikeus**

Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden ajatellaan johtuvan aivorungon ja alimpien aivohermojen puristumisesta (McClugage & Oakes, 2019). Nielemisvaikeuden esiintyvyyttä ei tarkalleen tiedetä, mutta kirjallisuuden perusteella oire ei näyttäisi olevan ainakaan erityisen harvinainen. Esimerkiksi Killeenin ja kumppaneiden (2015) tutkimuksessa 21 prosentilla aikuisista tutkittavista (n = 47) oli nielemisvaikeus, kun taas Milhoratin työryhmän (1999) tutkimuksessa nielemisvaikeutta raportoitiin 43 prosentilla tutkittavista (n = 346). Heffezin ja kumppaneiden (2020) tutkimuksessa nielemisvaikeutta raportoitiin puolestaan jopa noin 60 prosentilla tutkittavista (n = 428). Tutkimuksissa ei kuitenkaan ole kuvattu, miten nielemisvaikeus on todettu.

Nielemisfunktion kliinisen ja instrumentaalisen arvion tuloksiin perustuvia löydöksiä on kuvattu vuodesta 1992 lähtien kuudessa tapauselostuksessa (Elta ym., 1996; Ikusaka ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992; Paulig & Prosiegel, 2002; Santoso ym., 2019; White ym., 2010) sekä yhdessä tutkimuksessa, johon osallistui 11 aikuista, joilla oli Chiari 1 -malformaatio (Almotairi ym., 2018). Muiden neurologisten taustasyiden tavoin myös Chiari 1 -malformaatioon liittyvistä kirjallisuudessa raportoiduista nielemisvaikeusoireista ja nielemistoimintojen poikkeavuuksista suurin osa viittaa orofaryngeaaliseen nielemisvaikeuteen, joskin joitakin esofageaalisen vaiheen pulmia on myös kuvattu (ks. Hiltunen, 2021). Chiari 1 -malformaatioon on havaittu liittyvän jokaisen nielemisen säätelyyn osallistuvan aivohermon toiminnan häiriintymistä, mutta yleisintä vaikuttaisi olevan kieli-kitahermon ja vagushermon toimintahäiriö (Dyste ym., 1989; Milhorat ym., 1999). Muun muassa pehmeän suulaen refleksinomaisen nousuliikkeen ja gag-refleksin heikentyminen tai puuttuminen, äänihuulihalvaus, kielen motorinen heikkous sekä nielun tuntopuutokset ovat kirjallisuudessa Chiari 1 -potilailla kuvattuja kliinisiä löydöksiä, jotka voivat liittyä nielemisen säätelyyn osallistuvien aivohermojen toimintahäiriöihin (Dyste ym., 1989; Ikusaka ym., 1996; Milhorat ym., 1999; Nathadwarawala ym., 1992; Santoso ym., 2019; White ym., 2010).

Aspiraation ja aspiraatoriskiä nostavien piirteiden ilmenemisestä Chiari 1 -potilailla on olemassa vain vähän kirjallisuutta. Yksittäisissä tapauselostuksissa on kuvattu instrumentaalisesti todennettua ennen nielemisen käynnistymistä tapahtuvaa aspiraatiota yhdellä henkilöllä (Paulig & Prosiegel, 2002) ja nielemisen aikaista aspiraatiota kahdella tutkittavalla, joista toisella aspiraatio oli hiljaista aspiraatiota (Santoso ym., 2019; White ym., 2010). Lisäksi yksittäisillä tutkittavilla on havaittu instrumentaalisessa nielemisarviossa nieltävän aineksen penetraatiota ja retentiota (Almotairi ym., 2018; Nathadwarawala ym., 1992). Kurkunpään puutteellinen ylös- ja eteenpäin suuntautuva liike, nielun lihasten puutteellinen supistuminen ja hengitysteiden epätäydellinen sulkeutuminen sekä ruokatorven yläsulkijan puutteellinen relaxoituminen ovat myös aspiraatoriskin kannalta tärkeitä instrumentaalisesti havaittavia nielemistoimintojen poikkeavuuksia, sillä ne voivat altistaa retentiolle ja nielemisen jälkeen tapahtuvalle aspiraatiolle (Denk-Linnert, 2012, s. 73–74; Logemann, 2007). Kaikkia näitä poikkeavuuksia on kuvattu yksittäisillä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio (Almotairi ym., 2018; Ikusaka ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992). Lisäksi yksittäisillä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatioon liittyvä subjektiivisesti koettu nielemisvaikeus, on todettu instrumentaalisessa nielemisarviossa nielemisrefleksin käynnistymisen viivettä (Almotairi ym., 2018). Viive voi altistaa ennen nielemistä tapahtuvalle aspiraatiolle (Logemann, 2007).

Edellä kuvattujen instrumentaalisessa nielemisarviossa tehtyjen löydösten lisäksi kohonneeseen aspiraatoriskiiin viittaavia potilaiden itsensä raportoimia tai kliinisessä nielemisarviossa havaittuja Chiari 1 -potilailla kuvattuja oireita ovat muun muassa niellessä ilmenevä tukehtumisen tunne ja yskiminen, tuntemus nieltävän aineksen juuttumisesta nielun tai rintakehän kohdalle, nielemisen jälkeen äänenlaadussa tapahtuva muutos sekä tahaton laihtuminen (Almotairi ym., 2018; Elta ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992; Santoso ym., 2019; White ym., 2010). Lisäksi kahdella tutkittavalla on raportoitu olleen vähintään kerran nielemisvaikeuteen liittyvä keuhkokuume, ja kolmella tutkittavalla ravinnonsaantia on tuettu nenämahaletkun tai perkutaanisen endoskooppisen gastrostooman eli PEG-letkun avulla nielemisvaikeuden vakavuudesta johtuen (Ikusaka ym., 1996; Paulig & Prosiegel, 2002; Santoso ym., 2019). Potilastapausselostuksissa ei ole raportoitu, millaisia arviointimenetelmiä nielemisarviossa on mahdollisesti käytetty instrumentaalisten menetelmien ohella. Ainoastaan yhdessä Chiari 1 -malformaatioon liittyvää nielemisvaikeutta käsitelleessä tutkimuksessa on raportoitu käytetyn potilaiden kokemusta kartoittavia itsearviointityökaluja. Almotairin ja kumppaneiden (2018) tutkimuksessa tutkittavien kokemusta arvioitiin ravinnon koostumuksesta riippuvien nielemisongelmien yleisyyttä mittaavan validoidun WDS-työkalun (*Watson Dysphagia Scale*) sekä terveyteen liittyvää elämänlaatua mittaavan QLQ-OG25-kyselyn avulla. Tutkimuksessa yksittäiset tutkittavat raportoivat muun muassa nielemiseen liittyvää kipua ja ahdistusta sekä ruokakoostumuksiin liittyviä rajoitteita.

### 3 TUTKIMUKSEN TAVOITE JA TUTKIMUSKYSYMYKSET

Nielemisvaikeuden tunnistaminen on yksilön terveydentilan ja elämänlaadun kannalta keskeistä. Hoitamattomalla nielemisvaikeudella voi olla monimuotoisia, vakavia ja yhteiskunnallekin kalliita seurauksia. Tutkimustietoa Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden oireista, esiintyvyydestä ja tunnistamisesta on olemassa kansainvälisesti erittäin vähän, eikä suomenkielistä kirjallisuutta ole lainkaan. Tämä tutkimus on tiettävästi ensimmäinen potilaiden subjektiivisten kokemusten tarkasteluun keskittyvä kyselytutkimus. Tutkielman tarkoituksena on selvittää, miten subjektiivisesti koettu nielemisvaikeus voi ilmetä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Tutkimuksessa tarkastellaan validoidun EAT-10-kyselyn avulla, millaisia nielemisvaikeusoireita tutkittavat raportoivat ja kuinka paljon. EAT-10-kyselyn tuloksia tarkastellaan suhteessa siihen, kokevatko tutkittavat itsellään olevan nielemisvaikeutta. Lisäksi selvitetään, onko EAT-10-kyselyn tulos yhteydessä tutkittavien ikään ja leikkaustaustaan. Tutkimuksessa myös kartoitetaan suppeasti, millaisia hoitokontakteja tutkittavilla on ollut nielemisvaikeuteen liittyen.

Tutkielman tutkimuskysymykset ovat seuraavat:

1. Miten nielemisvaikeus ilmenee aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio?
  - a. Kuinka suurella osalla tutkittavista EAT-10-kyselyn yhteispisteet viittaavat normaalista poikkeavaan nielemiseen?
  - b. Onko EAT-10-kyselyn tuloksen ja koetun nielemisvaikeuden välillä yhteyttä?
  - c. Millaisia nielemisvaikeusoireita tutkittavilla on, ja kuinka monta eri oiretta tutkittavat raportoivat?
  - d. Ovatko tutkittavien ikä ja leikkaustausta yhteydessä EAT-10-kyselyn pisteisiin?
2. Millaisia hoitokontakteja tutkittavilla on ollut nielemisvaikeuteen liittyen?

## 4 TUTKIMUSMENETELMÄT

### 4.1 Tutkimushenkilöt

Tutkimuksen aineisto kerättiin vapaaehtoisilta tutkimushenkilöiltä, joten tutkittavista muodostui itsevalikoitunut näyte (ks. Heikkilä, 2014, s. 39). Tutkimukseen osallistui yhteensä 97 aikuista, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Ennen aineiston analyysia aineistosta poistettiin yksi tutkittava virheellisen vastaustavan vuoksi, joten lopullinen aineisto muodostui 96 tutkittavasta. Tutkittavilta edellytettiin täysi-ikäisyyttä, mutta mahdollisimman kattavan näytteen saamiseksi tutkittaville ei määritetty muita mukaanottokriteereitä. Tutkittavien taustatiedot on kuvattu taulukossa 1. Tutkittavilla Chiari 1 -malformaation lisäksi ilmeneviä sairauksia kartoitettiin avokysymyksen avulla, ja vastauksista poimittiin aineiston kuvailua varten maininnat neurologisista sairauksista. Tutkittavien anonymiteetin turvaamiseksi heidän raportoimiaan neurologisia sairauksia syringomyeliaa ja migreeniä lukuun ottamatta ei tässä tutkimuksessa eritellä niiden harvinaisuuden vuoksi.

**Taulukko 1.** Tutkittavien taustatietoja.

n = 96	
<b>ikä vuosina</b>	
keskiarvo (kh)	40,2 (12,3)
mediaani (min–max)	38,0 (18–72)
<b>sukupuoli</b>	n (%)
nainen	88 (91,7)
mies	7 (7,3)
jokin muu	1 (1,0)
<b>leikkaustausta</b>	n (%)
kyllä	44 (45,8)
ei	52 (54,2)
<b>muut sairaudet</b>	n (%)
syringomyelia	18 (18,8)
migreeni	11 (11,5)
muut neurologiset <sup>1</sup>	13 (13,5)

<sup>1</sup>Suurin osa harvinaisiksi luokiteltuja ja/tai perinnöllisiä sairauksia.

## 4.2 Aineistonkeruu ja aineiston muodostuminen

Tässä pro gradu -tutkimuksessa käytetty sähköinen kyselylomake luotiin Microsoft Office 365 Forms -palvelulla. Kyselylomake alkoi taustatietokysymyksillä, joita seurasi nielemisvaikeusoireita ja hoitokontakteja kartoittava osio. Kyselylomakkeen lopussa oli avoin kommenttikenttä, jossa tutkittavat saivat halutessaan antaa lisätietoja vastauksiinsa liittyen. Nielemisvaikeutta kartoittaneessa osiossa koettuja nielemisvaikeusoireita selvitettiin EAT-10-kyselyn (Belafsky ym., 2008) validoidun suomennoksen (Järvenpää ym., 2021) avulla. EAT-10-kyselyn väittämät ohjeistuksineen sisällytettiin sähköiseen kyselylomakkeeseen validoidussa muodossaan (ks. liite 2). Lomakkeen muiden kysymysten sisältö ja muotoilu suunniteltiin yhteistyössä tutkielman sisällönohjaajan kanssa. Taustatietokysymysten ja EAT-10-kyselyn lisäksi lomakkeella kysyttiin, kokeeko tutkittava itsellään olevan nielemisvaikeutta, onko tutkittava keskustellut nielemiseen liittyvistä asioista lääkärin kanssa, ja onko tutkittava tavannut puheterapeuttia mahdolliseen nielemisvaikeuteen liittyen. Ennen aineistonkeruun aloittamista kyselylomake lähetettiin testattavaksi yhdelle puheterapeutille ja yhdelle logopedian opiskelijalle, joilta pyydettiin kommentteja muun muassa kyselylomakkeen käyttökokemuksesta ja kysymysten ymmärrettävyydestä.

Aineistonkeruu toteutettiin joulukuun 2021 ja tammikuun 2022 aikana yhteistyössä Suomen Chiari- ja syringomyeliayhdistyksen kanssa. Tutkielman kirjoittaja jakoi tutkimuksen hakukuulutuksen ja sähköisen kyselylomakkeen linkin Facebookin suljettuun Chiari ja syringomyelia -ryhmään, joka on ryhmän kuvauksen mukaan vertaistukiryhmä Chiari- ja/tai syringomyeliadiagnoosin saaneille henkilöille ja heidän läheisilleen. Suomen Chiari- ja syringomyeliayhdistys ry jakoi hakukuulutuksen ja kyselylomakkeen linkin jäsentensä sähköpostilistalle ja yhdistyksen suljettuun Facebook-ryhmään.

## 4.3 Aineiston analyysi

Kyselylomakkeella saadut vastaukset ladattiin päivittäin Microsoft Forms -palvelusta Excel-tiedostoiksi. Eri päivinä ladatut lomakkeet yhdistettiin, ja muuttujia koodattiin tarvittaessa uudelleen siten, että kaikki tilastollisissa analyyseissä tarvittavat havainnot olivat numeerisessa muodossa. Määrällinen aineisto ei sisältänyt lainkaan puuttuvia havaintoja, sillä sähköisen kyselylomakkeen asetukset oli määritetty niin, että tutkittavien oli vastattava kaikkiin niihin kysymyksiin, joista muodostettuja muuttujia aiottiin tarkastella määrällisesti. Kyselylomakkeen lopussa olleeseen avoimeen kommenttikenttään vastaaminen oli vapaaehtoista. Avokommentteja saatiin 59,4

prosentilta (n = 57) tutkittavista. Avokommenteista poimittiin tähän tutkielmaan sellaisia teemoja, jotka toistuivat useamman tutkittavan vastauksissa ja joita kyselylomakkeen muiden kysymysten vastaukset eivät vaikuttaneet havainnollistavan. Tutkimuksen painopiste on tulosten määrällisessä tarkastelussa ja analysoinnissa, ja laadullisen tiedon esittelyn tarkoituksena on täydentää tutkimuksen kvantitatiivisia tuloksia.

Aineiston tutkittavat on jaettu kahteen eri ryhmään EAT-10-kyselystä saatujen yhteispisteiden perusteella. Jakoa käytetään, jotta voidaan tarkastella erikseen EAT-10-kyselystä normaalin tuloksen ja normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen saaneita tutkittavia. Jatkossa nimitystä EAT-10  $\geq$  3 -ryhmä käytetään puhuttaessa tutkittavista, jotka saivat EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli vähintään kolme pistettä (ks. Belafsky ym., 2008; Järvenpää ym., 2021). EAT-10  $\leq$  2 -ryhmäksi nimitetään puolestaan sitä osaa aineistosta, jossa tutkittavat saivat EAT-10-kyselystä normaalin tuloksen eli 0–2 pistettä. Nielemisvaikeusoireiden yleisyyttä, vaikeusastetta ja määrää tarkastellessa tulokset raportoidaan vain EAT-10  $\geq$  3 -ryhmässä. Muut tulokset esitetään molemmissa ryhmissä.

#### 4.4 Tilastollinen analyysi

Tilastolliset analyysit tehtiin IBM SPSS Statistics v. 27 Mac-ohjelmistolla. Koska aineiston koko oli suurempi kuin 50, testattiin analyyseissa käytettyjen kvantitatiivisten muuttujien normaalijakautuneisuus ennen tilastollisten analyysien suorittamista Kolmogorov-Smirnov-testin avulla (Tähtinen ym., 2020, s. 98). Ikämuuttujan ja EAT-10-kyselyn yhteispistemäärämuuttujan havaintoarvot eivät noudattaneet normaalijakaumaa. Näin ollen parametristen testien käytön edellytykset eivät täytyneet, minkä vuoksi aineiston tilastollisessa analysoinnissa käytettiin ei-parametrisia tilastollisia testejä (Nummenmaa ym., 2019, s. 193). Tilastollisten testien merkitsevyytasoksi asetettiin  $p \leq ,05$ .

EAT-10-kyselyn yhteispistemäärämuuttujan kuvailussa käytettiin jakauman vinoudesta johtuen mediaania, minimi- ja maksimiarvoja sekä ala- ja yläkvartiileja. Koetun nielemisvaikeuden ja EAT-10-kyselyn tuloksen välistä yhteyttä tarkasteltiin kahdella tapaa. Ensin koetun nielemisvaikeuden esiintymistä tarkasteltiin frekvenssien avulla erikseen EAT-10  $\geq$  3 ja EAT-10  $\leq$  2 -ryhmissä sekä koko aineistossa. Tämän jälkeen yhteyttä tarkasteltiin vertaamalla EAT-10-kyselyn pisteiden ryhmämediaaneja koettua nielemisvaikeutta kartoittaneen kysymyksen vastausvaihtoehtojen mukaan



jaetuissa ryhmissä, jotta voitiin selvittää, kuinka suuria keskimääräisten pisteiden mahdolliset erot ovat. Koettua nielemisvaikeutta kartoittaneen kysymyksen vastausvaihtoehtoja oli kolme, minkä vuoksi tilastollinen testaus tehtiin Kruskal-Wallis testillä käyttäen (Tähtinen ym., 2020, s. 162). Post hoc -testauksen avulla tarkasteltiin, minkä ryhmien välillä mahdolliset erot ilmenevät. Ryhmien parittaisissa vertailuissa käytettiin Bonferroni-korjausta p-arvojen korjausmenetelmänä ryhmien välisten erojen merkitsevyyden varmistamiseksi. Myös leikkaustaustan ja EAT-10-kyselyn yhteispisteiden välistä yhteyttä tarkasteltiin ryhmämediaaneja vertaamalla, koska muuttujista toinen oli kvalitatiivinen ja toinen kvantitatiivinen muuttuja. Leikkaustausta oli muuttujana kaksiluokkainen, mikä vuoksi leikkauksen läpikäyneiden ja leikkaamattomien tutkittavien keskimääräisissä EAT-10-kyselyn yhteispisteissä ilmenevien erojen merkitsevyyttä testattiin Mann-Whitneyn U-testillä (Heikkilä, 2014, s. 193). Tutkittavien iän ja EAT-10-kyselyn yhteispisteiden välistä yhteyttä tarkasteltiin Spearmanin järjestyskorrelaatiokerroimen avulla, koska Spearmanin järjestyskorrelaatiokerroin voidaan laskea muuttujille, joiden arvot eivät noudata normaalijakaumaa (Kestilä-Kekkonen, n.d.). Tutkimustulokset nielemisvaikeusoireiden määrästä ja vaikeusasteesta sekä tutkittavien hoitokontakteista kuvattiin frekvenssijakaumina.

#### 4.5 Tutkimuksen eettisyys

Tämä pro gradu -tutkielma toteutettiin Tutkimuseettisen neuvottelukunnan (2012) hyvän tieteellisen käytännön ohjeiden mukaisesti tutkimustyön rehellisyyttä, yleistä huolellisuutta ja tarkkuutta kaikissa työskentelyvaiheissa noudattaen. Tutkimuksen tulokset esitetään avoimesti ja vastuullisesti. Tutkimusasetelma ei edellyttänyt eettistä ennakoarviointia tai tutkimuslupia. EAT-10-kyselyn käyttöön pyydettiin kirjallinen lupa kyselylomakkeen eri versioiden tekijänoikeuksien haltijalta the Nestlé Nutrition Institutelta, jonka edustaja on hyväksynyt sähköiseen muotoon muutetun EAT-10-kyselylomakkeen (ks. liite 2) tässä tutkimuksessa käytettäväksi ja julkaistavaksi. Validoidun EAT-10-kyselyn virallisen ohjeistuksen mukaisesti tutkittavia informoitiin tässäkin tutkimuksessa kyselyn pisterajoista ja heitä kehoitettiin keskustelemaan lääkärin kanssa, mikäli kyselyn tulos oli normaalista poikkeava.

Tutkimukseen osallistuminen perustui vapaaehtoisuuteen ja tutkittavien antamaan suostumukseen. Tutkittavia informoitiin tutkimuksen tarkoituksesta ja sisällöstä. Kyselylomakkeen alussa tutkittavat saivat luettavaksi tutkimustiedotteen (ks. liite 1). Tiedotteen ohessa oli tutkielman tekijän yhteystiedot mahdollisten lisäkysymysten esittämistä varten. Sekä tutkimustiedotteessa että

kyselylomakkeen lopussa oli linkki, jonka kautta tutkittavat pääsivät lukemaan tutkimuksen tietosuojailmoituksen, jossa kuvattiin, miten ja missä tarkoituksessa tutkittavien henkilötietoja käsiteltiin. Kyselylomake oli mahdollista lähettää vasta, kun tutkittava kuittasi hyväksyvänsä tietosuojailmoituksen sisällön ja antavansa suostumuksensa osallistua tutkimukseen tutkimustiedotteessa kuvatusti. Tietosuojailmoituksen ja aineistonhallintasuunnitelman laatimisessa konsultoitii Tampereen yliopiston datapalvelun asiantuntijaa ja tietosuojavastaavaa. Ennen aineistonkeruun ja henkilötietojen käsittelyn aloittamista pro gradu -tutkielman kirjoittaja teki perusmuotoisen tietoturvariskien kartoituksen arvioiden riskit mataliksi.

Kaikki tutkimuksessa käytetty aineisto kerättiin yhdellä kertaa sähköisellä kyselylomakkeella tutkittavilta itseltään. Aineisto ei sisältänyt suoria tunnistetietoja. Kyselylomakkeella saadut vastaukset ladattiin päivittäin Microsoft Forms -palvelusta Excel-tiedostoksi, minkä jälkeen vastaukset poistettiin Forms-palvelusta. Aineistoa säilytettiin kryptatussa muodossa siten, että siihen oli pääsy ainoastaan tutkielman kirjoittajalla. Aineistoon pääsy vaati vähintään kahden erillisen tämän tutkielman kirjoittajan määrittämän ja erillään säilyttämän salasanan syöttämistä. Lisäksi pääsy Tampereen yliopiston hyväksymään verkkopalveluun, jonne salanasuojattu aineisto oli tallennettu, vaati tutkielman kirjoittajan henkilökohtaisten tunnusten lisäksi kaksivaiheisen tunnistautumisen. Aineisto tuhoetaan kokonaisuudessaan pro gradu -tutkielman ja mahdollisten siihen liittyvien oheisjulkaisujen julkaisun jälkeen viimeistään vuoden 2024 loppuun mennessä. Tällä tutkielmalla ei ole rahoituslähteitä.

## 5 TULOKSET

### 5.1 EAT-10-kyselyn yhteispisteet ja niiden yhteys koettuun nielemisvaikeuteen

Kaksi kolmasosaa (68,8 %) tutkittavista sai EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli vähintään kolme pistettä. EAT-10-kyselyn yhteispisteiden jakautumista kuvaavat tunnusluvut on esitetty taulukossa 2. Neljäsosa  $EAT-10 \geq 3$  -ryhmän tutkittavista sai kyselystä vähintään 16 pistettä, ja korkein aineistossa havaittu yhteispistemäärä oli 35. Kyselystä on mahdollista saada enintään 40 pistettä.

**Taulukko 2.** EAT-10-kyselyn yhteispisteiden jakautuminen koko aineistossa ja ryhmässä, jossa tutkittavat saivat kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli  $\geq 3$  pistettä.

	n	Minimi (Min)	Alakvartiili (Q <sub>1</sub> )	Mediaani (Md)	Yläkvartiili (Q <sub>3</sub> )	Maksimi (Max)
Koko aineisto	96	0	2	5	12	35
EAT-10 $\geq 3$	66	3	5	9	16	35

EAT-10-kyselyn tulosten ja koetun nielemisvaikeuden välistä yhteyttä havainnollistetaan taulukossa 3 esittämällä koetun nielemisvaikeuden esiintyminen erikseen  $EAT-10 \geq 3$  ja  $EAT-10 \leq 2$  -ryhmissä.  $EAT-10 \geq 3$  -ryhmän tutkittavista 74,2 prosenttia raportoi koettua nielemisvaikeutta ja 24,2 prosenttia ei osannut sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta.  $EAT-10 \leq 2$  -ryhmän tutkittavista koettua nielemisvaikeutta raportoi 13,3 prosenttia ja 16,7 prosenttia ei osannut sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta.

**Taulukko 3.** Vastausten jakautuminen koettua nielemisvaikeutta kartoittaneessa kysymyksessä EAT-10-kyselyn pisterajan mukaan jaetuissa ryhmissä sekä koko aineistossa.

Kysymys	EAT-10 $\geq 3$ n = 66 n (%)	EAT-10 $\leq 2$ n = 30 n (%)	Koko aineisto n = 96 n (%)
<b>Koetko, että sinulla on nielemisvaikeuksia?</b>			
Kyllä, minulla on nielemisvaikeuksia.	49 (74,2)	4 (13,3)	53 (55,2)
Ei, minulla ei ole nielemisvaikeuksia.	1 (1,5)	21 (70,0)	22 (22,9)
En osaa sanoa.	16 (24,2)	5 (16,7)	21 (21,9)

EAT-10-kyselyn yhteispistemäärä oli tilastollisesti merkitsevästi yhteydessä koettuun nielemisvaikeuteen ( $p < .001$ ). EAT-10-kyselyn yhteispisteiden mediaani oli 11 pistettä nielemisvaikeutta raportoineilla tutkittavilla ( $n = 53$ ) ja 0,5 pistettä tutkittavilla, jotka eivät raportoineet koettua nielemisvaikeutta ( $n = 22$ ). Tutkittavilla, jotka eivät osanneet sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta ( $n = 21$ ), yhteispisteiden mediaani oli 4 pistettä. Koettua nielemisvaikeutta raportoineiden tutkittavien EAT-10-kyselystä saamat yhteispisteet olivat tilastollisesti merkitsevästi korkeampia verrattuna tutkittaviin, jotka eivät raportoineet nielemisvaikeutta ( $p < ,001$ ). Nielemisvaikeutta raportoineiden tutkittavien EAT-10-kyselystä saamat yhteispisteet olivat tilastollisesti merkitsevästi korkeampia myös verrattuna niihin tutkittaviin, jotka eivät osanneet sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta ( $p = ,001$ ). Lisäksi tutkittavien, jotka eivät osanneet sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta, yhteispisteet olivat tilastollisesti merkitsevästi korkeampia verrattuna tutkittaviin, jotka eivät raportoineet koettua nielemisvaikeutta ( $p = ,006$ ).

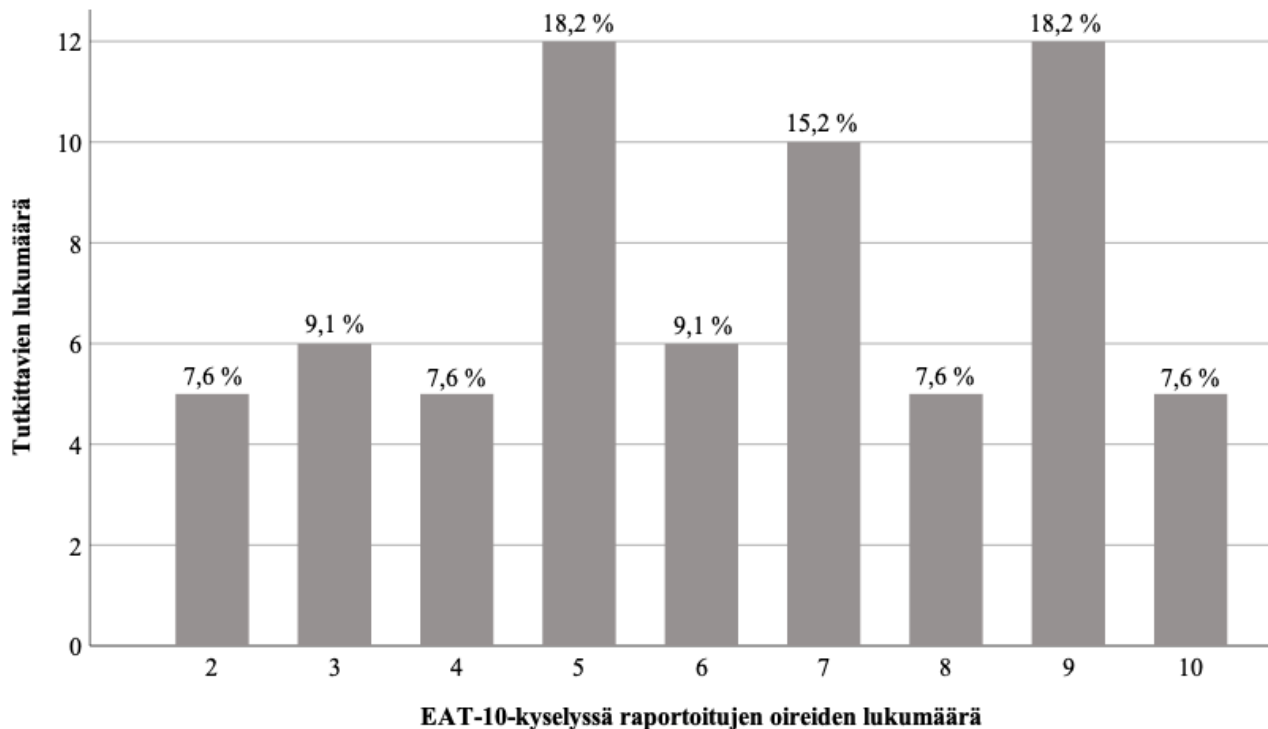
## **5.2 Eri nielemisvaikeusoireiden yleisyys ja vaikeusaste sekä oireiden lukumäärä**

EAT-10-kyselyssä kartoitettavien oireiden yleisyys ja oireiden eri vaikeusasteluokitusten tyypillisuus EAT-10  $\geq 3$  -ryhmän tutkittavilla ( $n = 66$ ) on kuvattu frekvenssilukuina ja prosentiosuuksina taulukossa 4. Tutkittavista 95,5 prosenttia raportoi kokevansa ruoan takertuvan kurkkuun nielemisen aikana. Toiseksi eniten raportoitiin kiinteän ruoan nielemisen työläyttä, jota raportoi tutkittavista 84,8 prosenttia. Seuraavaksi yleisin oire oli yskiminen syömisen aikana. Oiretta raportoi 77,3 prosenttia tutkittavista. Muita usein raportoituja oireita olivat tablettien ja nesteiden nielemisen työläys sekä kokemus siitä, että nieleminen vaikuttaa ruokailusta nauttimiseen. Kaikkia näitä oireita raportoi noin kaksi kolmasosaa EAT-10  $\geq 3$  -ryhmän tutkittavista. Lisäksi 60,6 prosenttia raportoi kokevansa nielemisen olevan ainakin jossain määrin stressaavaa. Nielemiskipua, nielemisvaivan aiheuttamaa painon laskua ja kokemusta siitä, että nielemisvaiva häiritsisi ulkona syömistä, raportoitiin muita oireita harvemmin (ks. taulukko 4).

**Taulukko 4.** Eri oireiden yleisyys ja vaikeusaste tutkittavilla, jotka saivat EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli  $\geq 3$  pistettä (n = 66).

	Yksittäiselle EAT-10-kyselyn väittämälle annettu vaikeusasteluokitus				Oiretta raportoinut yhteensä n (%)
	1 = lievä ongelma n (%)	2 n (%)	3 n (%)	4 = vakava ongelma n (%)	
1. Nielemisvaivani on aiheuttanut minulle painon laskua	4 (6,1)	6 (9,1)	0 (0,0)	0 (0,0)	10 (15,2)
2. Nielemisvaivani häiritsee sitä, voinko mennä ulos syömään	14 (21,2)	7 (10,6)	4 (6,1)	1 (1,5)	26 (39,4)
3. Nesteiden nieleminen on työlästä	24 (36,4)	16 (24,2)	6 (9,1)	0 (0,0)	46 (69,7)
4. Kiinteän ruoan nieleminen on työlästä	29 (43,9)	15 (22,7)	8 (12,1)	4 (6,1)	56 (84,8)
5. Tablettien nieleminen on työlästä	21 (31,8)	5 (7,6)	13 (19,7)	8 (12,1)	47 (71,2)
6. Nieleminen on kivuliasta	13 (19,7)	9 (13,6)	6 (9,1)	0 (0,0)	28 (42,4)
7. Nielemiseni vaikuttaa ruokailusta nauttimiseen	20 (30,3)	13 (19,7)	8 (12,1)	4 (6,1)	45 (68,2)
8. Niellessäni ruoka takertuu kurkkuuni	29 (43,9)	15 (22,7)	11 (16,7)	8 (12,1)	63 (95,5)
9. Yskin syödessäni	24 (36,4)	12 (18,2)	11 (16,7)	4 (6,1)	51 (77,3)
10. Nieleminen on stressaavaa	18 (27,3)	8 (12,1)	10 (15,2)	4 (6,1)	40 (60,6)

EAT-10-kyselyssä raportoitujen oireiden lukumäärän jakauma EAT-10  $\geq 3$  -ryhmän tutkittavilla on kuvattu kuviossa 1. EAT-10-kyselyn pisterajan ylittyminen ei perustunut yhdelläkään tutkittavalla ainoastaan yhden oireen raportoimiseen. Kaikkia kymmentä eri oiretta raportoitiin kokevansa 7,6 prosenttia tutkittavista, eli yhteensä viisi tutkittavaa vastasi jokaiseen EAT-10-kyselyn väittämään nollasta poikkeavalla pistearvolla. Tutkittavista 75,9 prosenttia raportoitiin kokevansa viittä tai useampaa eri oiretta.



**Kuvio 1.** EAT-10-kyselyssä raportoitujen oireiden lukumäärän jakauma tutkittavilla, jotka saivat kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli  $\geq 3$  pistettä (n = 66).

Tutkittavien avokommenteista poimittiin mainintoja sellaisista nielemisvaikeuden oirekuvaan liittyvistä asioista, joiden ilmeneminen ei tullut esiin EAT-10-kyselyn vastausten kautta. Yhdeksän tutkittavaa kuvasi oireiden voimakkuuden tai esiintymisen vaihtelevan siten, ettei oireita esiinny jatkuvasti vaan ennemminkin kausittain. Neljä tutkittavaa mainitsi heillä olleen nielemisvaikeuden oireita lapsesta saakka. Nielemisen aloittamisen vaikeutta ja nielemisrefleksin käynnistymisen viivettä kuvasi viisi tutkittavaa. Tutkittavista viisi kuvasi kokeneensa tukehtumisen tunnetta ruokaillessa, ja kaksi tutkittavaa raportoitiin heillä olleen toistuvia keuhkokuumeita. Kaksi tutkittavaa kuvasi puheterapeutin todenneen heillä suuontelon ja/tai nielun tuntokuutoksia. Alla olevat esimerkkisitaatit havainnollistavat, miten tutkittavat kuvasivat joitakin näistä oirekuvan piirteistä. Sitaattien perään on merkitty kunkin tutkittavan EAT-10-kyselystä saama yhteispistemäärä.

*Olen tästä kärsinyt koko ikäni joten tulen ongelman kanssa yllättävän hyvin toimeen, koska tiedostan sen niin hyvin. (EAT-10 = 21)*

*Olen tottunut tähän ”ongelmaan” ja se on ollut minulla aina, joten en ole koskaan kokenut sitä isona vaivana. (EAT-10 = 4)*

*Joskus nieleminen ei vaan onnistu, jumittaa hetkellisesti. (EAT-10 = 13)*

*Puheterapeutti sanoi, että minulla ongelmana on nielemisen käynnistyminen. Usein pää antaa ns. nielemiskäskyn, mutta nielu ei niele. (EAT-10 = 21)*

*Vedän helposti niin sanotusti ”väärään kurkkuun” ja olen meinannut oikeasti tukehtua pari kertaa. (EAT-10 = 11)*

### **5.3 EAT-10-kyselyn pisteiden yhteys taustamuuttujiin**

Tutkittavien iän ja EAT-10-kyselystä saatujen yhteispisteiden välillä ei ollut yhteyttä ( $r_s = ,129$ ,  $p = ,210$ ). Myöskään leikkaustaustan ja EAT-10-kyselyn yhteispisteiden välillä ei havaittu tilastollisesti merkitsevää yhteyttä ( $U = 1066$ ,  $p = ,565$ ). EAT-10-kyselyn yhteispisteet olivat keskimäärin yhtä korkeita sekä Chiari 1 -malformaation leikkaushoidon läpikäyneillä ( $n = 44$ ) että leikkaamattomilla ( $n = 52$ ) tutkittavilla. Yhteispisteiden hajonta oli hieman suurempaa leikkaamattomilla tutkittavilla (min = 0,  $Q_1 = 2$ , Md = 5,  $Q_3 = 14,5$ , max = 35) verrattuna tutkittaviin, joille oli tehty leikkaustoimenpide (min = 0,  $Q_1 = 2$ , Md = 6,  $Q_3 = 11$ , max = 27). Kuusi tutkittavaa kuvasi leikkaushoidon vaikutusta nielemisvaikeuteen avokomentissaan. Kommenttien perusteella tutkittavien kokemukset leikkaushoidon vaikutuksesta erosivat toisistaan. Seuraavat esimerkkisitaatit havainnollistavat kokemuseroja. Sitaattien perään on merkitty kunkin tutkittavan EAT-10-kyselystä saama yhteispistemäärä.

*Tämä ei hävinnyt operaatiossa. Kurkkuni on – – puutunut toiselta puolelta, ja en tunne sillä puolella kuumaa tai kylmää. Vesi saattaa hulahtaa väärään kurkkuun. (EAT-10 = 26)*

*Tilanne parani paljon leikkauksen jälkeen mutta ongelmaa on silti vielä välillä. (EAT-10 = 2)*

*Tällä hetkellä vaikuttaa siltä, että myös nieleminen helpottunut leikkauksen myötä. (EAT-10 = 13)*

*Leikkaus vei nielemisvaikeuteni melko lailla kokonaan. – – Leikkaustoimenpide muutti kaiken, tällä hetkellä tilanne on erinomainen. (EAT-10 = 0)*

## 5.4 Tutkittavien hoitokontaktit

Yhteenvedo hoitokontakteja kartoittaviin kysymyksiin tutkittavien antamista vastauksista on esitetty taulukossa 5. Noin puolet EAT-10  $\geq 3$  -ryhmän tutkittavista raportoi keskustelleensa nielemiseen liittyvistä tuntemuksista lääkärin kanssa. EAT-10  $\geq 3$  -ryhmän tutkittavista 24,2 prosenttia ja EAT-10  $\leq 2$  -ryhmän tutkittavista 70,0 prosenttia vastasi, ettei ole kokenut tarvetta keskustella nielemiseen liittyvistä asioista lääkärin kanssa. Kaikista aineiston tutkittavista 14,6 prosenttia oli käynyt nielemisvaikeuden vuoksi puheterapeutin vastaanotolla. EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen saaneista tutkittavista 80,3 prosenttia raportoi, ettei ole käynyt puheterapeutin vastaanotolla.

**Taulukko 5.** Vastausten jakautuminen lääkärin kanssa keskustelua ja puheterapeutin vastaanotolla käymistä kartoittaneissa kysymyksissä EAT-10-kyselyn pisterajan mukaan jaetuissa ryhmissä sekä koko aineistossa.

Kysymys	EAT-10 $\geq 3$ n = 66 n (%)	EAT-10 $\leq 2$ n = 30 n (%)	Koko aineisto n = 96 n (%)
<b>Oletko keskustellut nielemiseen liittyvistä tuntemuksistasi lääkärin kanssa?</b>			
Kyllä olen.	34 (51,5)	2 (6,7)	36 (37,5)
En ole, mutta haluaisin jatkossa keskustella asiasta lääkärini kanssa.	14 (21,2)	7 (23,3)	21 (21,9)
En ole, enkä ole kokenut tarvetta keskustella asiasta.	16 (24,2)	21 (70,0)	37 (38,5)
En osaa sanoa	2 (3,0)	0 (0,0)	2 (3,0)
<b>Oletko koskaan käynyt puheterapeutin vastaanotolla nielemisvaikeutesi liittyen?</b>			
Kyllä olen.	13 (19,7)	1 (3,3)	14 (14,6)
En ole.	53 (80,3)	29 (96,7)	82 (85,4)

Alle on poimittu sitaatteja avokommenteista, joissa tutkittavat kuvasivat hoitokontakteihin liittyviä kokemuksiaan. Avokommenttien perusteella nielemisvaikeuden etiologia ei ollut kaikille tutkittaville täysin selvä. Avokommenttien perusteella vaikutti siltä, että jotkut tutkittavat eivät kokeneet saaneensa apua nielemisen ongelmiin yrityksistään huolimatta. Sitaattien perään on merkitty kunkin tutkittavan EAT-10-kyselystä saama yhteispistemäärä.



*Nielemisongelmaani vähätellään hoitohenkilöstön toimesta – -. Ei olla valmiita tutkimaan mistä [nielemisvaikeus] johtuu. Haluaisin vain apua ongelmaani. (EAT-10 = 28)*

*Lääkärit eivät oikein ota kantaa nielemisen ongelmiin. (EAT-10 = 16)*

*En tiedä mikä kolmesta diagnoosista ne [nielemisvaikeudet] aiheuttaa, enkä ole saanut lääkäriltä asiaan selitystä. (EAT-10 = 5)*

*Minulla on diagnosoitu dysfagia, joka luultavasti johtuu Chiarista. (EAT-10 = 12)*

*Lääkäri lähetti joskus puheterapeutille. Siellä käytiin läpi myös nielemiseen liittyvät ongelmat jotka minun tapauksessani ovat lievät. (EAT-10 = 4)*

*En ole edes osannut aiemmin ajatella että puheterapeutti voisi olla avuksi nielemisvaikeuteen. (EAT-10 = 23)*

## 6 POHDINTA

Tässä kyselytutkimuksena toteutetussa pro gradu -tutkielmassa tarkasteltiin, kuinka nielemisvaikeus voi ilmetä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Tutkimuksessa selvitettiin, millaisia nielemisvaikeuden oireita tutkittavilla on ja kuinka paljon. Tutkimuksessa tarkasteltiin tutkittavien iän ja leikkaustaustan sekä koetun nielemisvaikeuden yhteyttä nielemisvaikeuden itsearviointityökalun (EAT-10) pisteisiin. Lisäksi selvitettiin suppeasti, millaisia hoitokontakteja tutkittavilla on ollut nielemisvaikeuteen liittyen. Tutkimukseen osallistui 96 henkilöä.

### 6.1 Tulosten tarkastelu

Tässä tutkimuksessa 68,8 prosenttia kaikista aineiston tutkimushenkilöistä sai EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen eli yhteensä vähintään kolme pistettä (ks. Belafsky ym., 2008; Järvenpää ym., 2021). Koettua nielemisvaikeutta raportoi 55,2 prosenttia tutkittavista, ja heistä lähes kaikki (92,5 %) saivat EAT-10-kyselystä vähintään kolme pistettä. Aiemmissa tutkimuksissa nielemisvaikeutta on raportoitu 21–60 prosentilla tutkimushenkilöistä, joilla on Chiari 1 -malformaatio (Heffez ym., 2020; Killeen ym., 2015; Milhorat ym., 1999). Tutkimuksissa ei kuitenkaan ole raportoitu, kuinka nielemisvaikeus on todettu ja miten oirekuvaa on arvioitu, eikä tämän tutkimuksen tuloksia näin ollen voida suoranaisesti verrata aiemmin tutkimuskirjallisuudessa esitettyihin lukuihin. Tässä aineistossa nielemisvaikeus oli joka tapauksessa varsin yleistä huolimatta siitä, tulkitaanko nielemisvaikeudeksi poikkeava EAT-10-kyselyn tulos, koetun nielemisvaikeuden raportointi vai molemmat yhdessä.

Neljäsosa EAT-10-kyselystä vähintään kolme pistettä saaneista tutkittavista sai kyselystä yli 15 pistettä. Muissa potilasryhmissä tehdyissä tutkimuksissa korkeiden EAT-10-kyselyn yhteispisteiden on todettu voivan olla yhteydessä kohonneeseen aspiraatoriskiiin. Cheney ja kumppaneiden (2015) tutkimuksessa havaittiin, että EAT-10-kyselystä vähintään 16 pistettä saaneet tutkittavat aspiroivat 2,2 kertaa todennäköisemmin verrattuna tutkittaviin, jotka saivat kyselystä alle 16 pistettä. Tutkittavista suurimmalla osalla oli refluksiin tai sädehoitoon liittyvä nielemisvaikeus, mutta mukana oli muitakin nielemisvaikeuden etiologioita neurologisista taustasyistä rakenteellisiin tekijöihin. Tutkiessaan neurologisista syistä johtuvaa nielemisvaikeutta myös Arslan tutkimusryhmineen (2017) havaitsi EAT-10-kyselystä vähintään 16 pistettä saaneiden tutkittavien aspiroivan 2,4 kertaa todennäköisemmin verrattuna kyselystä vähemmän pisteitä saaneisiin. Toisaalta amyotrofista

lateraaliskleroosia (ALS) sairastavilla aspiraatiota ennustavaksi EAT-10-kyselyn pisterajaksi on ehdotettu huomattavasti matalampaa yhteispistemäärää eli kahdeksaa pistettä (Plowman ym., 2016). Jatkossa olisi tärkeää selvittää, voiko aspiraatoriski olla kohonnut myös Chiari 1 -potilailla, jotka saavat EAT-10-kyselystä korkeita pisteitä. Toisaalta on huomattava, etteivät matalat EAT-10-kyselyn yhteispisteet poissulje aspiraation mahdollisuutta, ja yksittäinenkin oire voi olla merkki kohonneesta aspiraatoriskistä (Cheney ym., 2015). Esimerkiksi ruokaillessa toistuvasti esiintyvä yskimisreaktio on aspiraatoriskin kannalta keskeinen oire, jonka ilmetessä nielemisfunktion instrumentaalisen arvion tekeminen on usein tarpeen aspiraation poissulkemiseksi (Denk-Linnert, 2012, s. 77; Murry ym., 2018, s. 90). Tämän aineiston tutkittavilla yskimisoire oli varsin yleinen, sillä jopa 77,3 prosenttia EAT-10  $\geq$  3 -ryhmän tutkittavista raportoi syömisen aikaista yskimistä. Tutkittavista 15 kuvasi oireen vaikeusastetta toisiksi vaikeimmalla tai vaikeimmalla vaihtoehdolla. Yskimisoireen huomioiminen nielemistä arvioidessa on tärkeää, mutta yksin sen havainnointi ei riitä ennustamaan aspiraatoriskiä, sillä potilas saattaa aspiroida hiljaisesti ilman yskimisrefleksiä (Denk-Linnert, 2012, s. 77).

Lähes kaikki (95,5 %) EAT-10-kyselystä yli kolme pistettä saaneet tutkittavat raportoivat ruoan takertuvan kurkkuun niellessä. Nesteiden, kiinteän ruoan ja tablettien nielemisen koki ainakin jossain määrin työlääksi vähintään kaksi kolmasosaa EAT-10  $\geq$  3 -ryhmän tutkittavista. Yleisesti ottaen tämän tyyppisten oireiden on havaittu voivan liittyä esimerkiksi nielun lihasten heikkouteen tai nielemisliikkeiden koordinoinnin pulmiin (Denk-Linnert ym., 2012, s. 77). Puutteellisen nielun lihasten supistumisen seurauksena nielu ei välttämättä tyhjene kunnolla, ja tällöin nielun rakenteisiin jäävä nieltävän aineksen retentio voi olla vaarassa päästä aspiroitumaan hengitysteihin nielemisen jälkeen (Logemann, 2007; Rommel ym., 2015). Toisaalta on huomattava, että normaalistikin nielevien aikuisten on havaittu raportoivan verrattain usein esimerkiksi tablettien nielemiseen liittyviä ongelmia (Garand ym., 2020, Printza ym., 2018), eikä jokaista yksittäin ilmenevää oiretta näin ollen ole tarkoituksenmukaista tulkita suoraan nielemisvaikeudeksi. Nielemistä on kuitenkin tarpeen arvioida tarkemmin objektiivisempien arviointimenetelmien avulla, mikäli potilas raportoi useita erilaisia nielemisfunktioon liittyviä oireita, sillä oireet saattavat olla yhteydessä aspiraatoriskiin.

Osa EAT-10-kyselyn väittämistä kartoittaa nielemisvaikeuteen liittyvää elämänlaatuun heijastuvaa haittaa ja sosio-emotionaalisia seurauksia. Tässä tutkimuksessa 68,2 prosenttia EAT-10  $\geq$  3 -ryhmän tutkittavista raportoi, että nielemisvaiva vaikuttaa ruokailusta nauttimiseen. Nielemisen jossain määrin stressaavaksi koki 60,6 prosenttia EAT-10  $\geq$  3 -ryhmän tutkittavista, ja ulkona syömistä nielemisvaivan raportoi häiritsevän 39,4 prosenttia. Suurin osa tutkittavista kuvasi haittojen astetta

verrattain lieväksi. Työn laajuuden rajaamiseksi tässä tutkielmassa ei tarkasteltu yksittäisten tutkittavien oireprofileita, minkä vuoksi ei voida sanoa, onko erilaisten nielemisfunktioon liittyvien fyysisten oireiden ja elämänlaadussa koetun haitan välillä tässä aineistossa yhteyttä. Yleisesti ottaen orofaryngeaalisen nielemisvaikeuden on havaittu vaikuttavan elämänlaatuun sitä negatiivisemmin, mitä vaikeampiasteisesta nielemisvaikeudesta on kyse (Jones ym., 2018). Tässä aineistossa EAT-10-kyselyn kartoittamista oireista eniten raportoitiin ruokailun aikaista yskimistä, kiinteän ruoan, nesteiden ja tablettien nielemisen työläyttä sekä ruoan takertumista kurkkuun, kun taas sosio-emotionaalisia haittoja raportoitiin pääosin vähemmän. Nielemisvaikeuden oirekuva vaikutti olevan keskimäärin melko monimuotoinen EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavan tuloksen saaneilla tutkittavilla, sillä EAT-10  $\geq$  3 -ryhmän tutkittavista jopa 75,9 prosenttia raportoi kokevansa vähintään viittä kyselyn kymmenestä oireesta. Viisi tutkittavaa raportoi kokevansa kaikkia kymmentä EAT-10-kyselyssä kartoitettavaa oiretta. EAT-10-kyselyn pisteraja voi ylittyä jo tutkittavan raportoidessa yhtä yksittäistä oiretta, mikäli oireen vaikeusasteeksi ilmoitetaan toiseksi vaikein tai vaikein vaihtoehto, mutta tässä tutkimuksessa pisteraja ei ylittynyt yhdelläkään tutkittavalla ainoastaan yhden oireen raportoimisen vuoksi. Kaikki kyselystä vähintään kolme pistettä saaneet tutkittavat raportoivat siis vähintään kahta eri oiretta. Aineistossa näytti olevan tyypillisempää useamman oireen raportoiminen verrattain lievänä kuin se, että tutkittava raportoisi lukumäärällisesti vähän vaikeiksi koettuja oireita.

Vaikka tutkimuksen laadullinen aineisto oli verrattain pieni, nousi tutkittavien avokommenteista esiin joitakin aspiraatorisinkin kannalta keskeisiä oireita, joiden ilmenemistä EAT-10-kysely ei kartoita. Näitä oireita olivat esimerkiksi nielemisrefleksin käynnistymisen viive, suuontelon ja nielun tuntopuutokset sekä niellessä ilmenevä tukehtumisen tunne. Lisäksi kaksi tutkittavaa raportoi toistuvista keuhkokuumeista. Aiemmissä tutkimuksissa Chiari 1 -potilailla on raportoitu muun muassa ruokailun aikaista yskimistä ja tukehtumisen tunnetta, tunnetta nieltävän boluksen juuttumisesta nielun tai rintakehän kohdalle, nielemiskipua sekä toistuvia keuhkokuumeita ja laihtumista, joihin on liittynyt instrumentaalisesti todettuja nielemistoimintojen poikkeavuuksia, kuten aspiraatiota, penetraatiota, retentiota sekä esimerkiksi puutteellista kurkunpään nousua ja ruokatorven yläsulkijan relaksoitumista (Almotairi ym., 2018; Ikusaka ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992; Paulig & Prosiel, 2002; Santoso ym., 2019; White ym., 2010). Koska useisiin tässä tutkimuksessa raportoituihin oireisiin sekä korkeisiin EAT-10-kyselyn pisteisiin on havaittu voivan liittyä aspiraatiota, ei tämän tutkielman tuloksia voida sivuuttaa objektiivisten arviointimenetelmien puuttumisen vuoksi. Tutkimustulosten huomioiminen voi auttaa Chiari 1 -malformaatiosta johtuvan nielemisvaikeuden tunnistamisessa ja oirekuvaan liittyvien komplikaatioiden ennaltaehkäisyssä.

Tässä tutkimuksessa yksi EAT-10-kyselystä yli kolme pistettä saanut tutkittava raportoi, ettei hänellä ole nielemisvaikeutta, kun taas neljä tutkittavaa raportoi koettua nielemisvaikeutta, vaikka EAT-10-kyselyn pisteraja ei ylittynyt. Samanlaista EAT-10-kyselyn tuloksen ja tutkittavan raportoiman kokemuksen välistä ristiriitaa on havaittu myös Leslien ja Smithardin (2021) tutkimuksessa, jossa tarkasteltiin koetun nielemisvaikeuden esiintyvyyttä kansainvälisesti väestön 18–65-vuotiailla aikuisilla. Verrattain suppea EAT-10-kysely ei kata kaikkia mahdollisia nielemisvaikeuteen liittyviä oireita, mikä voi osaltaan selittää kyselyn tuloksen ja koetun haitan asteen välistä ristiriitaa. Vaikka tutkittava kokisi itsellään olevan nielemisen ongelmia, ei kyselyn pisteraja ylitse, jos kysely ei sisällä koettuja oireita kuvaavia väittämiä (Leslie & Smithard, 2021). Tässä tutkimuksessa tutkittavat kuvasivatkin avokommenteissaan joitakin sellaisia oireita, joiden ilmenemistä EAT-10-kysely ei kartoita. Ristiriitaa voi selittää myös se, etteivät tutkittavat aina välttämättä tiedä, millaisia nielemiseen liittyviä asioita voidaan pitää poikkeavina (Leslie & Smithard, 2021). Tiedon puute on voinut näkyä tämänkin tutkielman tuloksissa, sillä kaikista tutkittavista 21,9 prosenttia ei osannut sanoa, kokevatko he itsellään olevan nielemisvaikeutta. Toisaalta asiaan on voinut vaikuttaa tässä tutkimuksessa myös kysymysten esitysjärjestys (ks. liite 2). ”En osaa sanoa” -vastausvaihtoehto on voinut houkuttaa erityisesti niitä tutkittavia, jotka saivat EAT-10-kyselystä kyselyn pisterajan ( $\geq 3$ ) tuntumaan sijoittuvia yhteispistemääriä, sillä kyselyn pisteraja oli tutkittavilla tiedossa. Tutkittavat, jotka eivät osanneet sanoa, onko heillä nielemisvaikeutta, saivatkin EAT-10-kyselystä keskimäärin huomattavasti matalampia yhteispisteitä ( $Md = 4$  pistettä) verrattuna tutkittaviin, jotka raportoivat koettua nielemisvaikeutta ( $Md = 11$  pistettä), ja toisaalta he myös saivat tilastollisesti merkitsevästi enemmän pisteitä verrattuna tutkittaviin, joilla ei ollut koettua nielemisvaikeutta ( $Md = 0,5$  pistettä).

Tässä tutkimuksessa iän ja EAT-10-kyselyn yhteispisteiden välillä ei havaittu yhteyttä. Havainto on linjassa aiemman kirjallisuuden kanssa, sillä yhteyttä ei ole havaittu myöskään muissa potilasryhmissä tehdyissä tutkimuksissa (Garand ym., 2020; Leslie & Smithard, 2021; Printza ym., 2018). Leikkaustaustan ja EAT-10-kyselyn yhteispisteiden välillä ei niin ikään havaittu yhteyttä. Tutkimusta leikkaushoidon vaikutuksesta Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden oirekuvaan on hyvin vähän. Raportoidut hoitotulokset ovat kuitenkin olleet hyvin positiivisia, ja joillakin potilailla sekä instrumentaalisesti todennetun että koetun nielemisvaikeuden on raportoitu poistuneen jopa kokonaan (Almotairi ym., 2018; Elta ym., 1996; Ikusaka ym., 1996; Nathadwarawala ym., 1992; Paulig & Prosiegel, 2002; Santoso ym., 2019; White ym., 2010). Tässä tutkimuksessa leikkausoperaation läpikäyneet ja leikkaamattomat tutkittavat saivat EAT-10-kyselystä keskimäärin yhtä korkeita pisteitä, vaikkakin yhteispisteiden hajonta oli hieman suurempaa leikkaamattomilla tutkittavilla. On huomattava, että tässä tutkielmassa raportoidut tulokset ovat poikkileikkaus

tutkittavien vastaushetken kokemuksista, eivätkä tulokset siis kerro mitään siitä, onko leikkausoperaation läpikäyneiden tutkittavien oirekuvassa tapahtunut muutosta toimenpiteen myötä. Tutkimusasetelman vuoksi ei voida myöskään tietää, millainen toimenpide tutkittaville on tehty ja kuinka kauan siitä on kulunut aikaa. Tutkittavien avokommenteista voitiin kuitenkin havaita tutkittavilla olleen hyvin erilaisia kokemuksia siitä, kuinka leikkaushoito oli vaikuttanut nielemisvaikeuteen. Eräs tutkittava esimerkiksi kuvasi nielemisvaikeuden poistuneen leikkauksen myötä kokonaan, kun taas toinen kertoi oireiden pysyneen ennallaan.

Leikkaushoito on käytännössä ainoa kirjallisuudessa laajasti raportoitu Chiari 1 -malformaation hoitomuoto. Kaikkien potilaiden oireet eivät kuitenkaan parane leikkaushoidon myötä (Speer ym., 2003), ja toisaalta leikkaushoitoon ei aina päädytä ollenkaan esimerkiksi oirekuvan epäspesifisyydestä tai lievyydestä johtuen (Karppinen, 2020; Karppinen ym., 2022). Tässä tutkimuksessa olikin mukana sekä tutkittavia, joilla oli nielemisvaikeusoireita leikkaushoidosta huolimatta, että tutkittavia, joille ei ollut tehty kirurgista toimenpidettä vaikeistakaan nielemisvaikeusoireista huolimatta. Vaihtoehtoisia hoitomuotoja tulisi harkita, mikäli leikkaushoito ei tuo ratkaisua nielemisen ongelmiin tai jos leikkausta ei päädytä tekemään lainkaan. Toisinaan voi myös olla tarpeen tehdä tarkempia erotusdiagnostisia tutkimuksia nielemisvaikeuteen liittyen, jotta selviää, voiko oireiden taustalla olla jotakin muutakin kuin Chiari 1 -malformaatio, sillä pikkuaivoherniaatio ei tietenkään poissulje muiden nielemisvaikeuden taustasyiden mahdollisuutta. Jos nielemisvaikeus aiheuttaa päivittäistä haittaa ja etenkin jos vaikuttaa siltä, ettei nieleminen välttämättä onnistu turvallisesti, on nielemisvaikeuteen tärkeää reagoida silloinkin, kun nielemisvaikeusoireiden ei voida varmuudella sanoa johtuvan juuri Chiari 1 -malformaatiosta.

Puolet tässä tutkimuksessa EAT-10-kyselystä vähintään kolme pistettä saaneista tutkittavista raportoi keskustelleensa nielemiseen liittyvistä tuntemuksista lääkärin kanssa, kun taas 21,2 prosenttia vastasi, ettei ole keskustellut lääkärin kanssa, mutta haluaisi jatkossa niin tehdä. Nielemisvaikeuden tunnistamisen kannalta on tärkeää, että terveydenhuollon ammattilainen kysyy potilaalta ruokailun ja nielemisen onnistumisesta, sillä potilas ei välttämättä osaa itse ottaa asiaa puheeksi (Ekberg ym., 2002; Leslie & Smithard, 2021). Nielemisvaikeuden määritelmä on monilta osin epätarkka, eikä potilas välttämättä osaa kuvata oma-aloitteisesti sellaisia asioita, joita nielemisvaikeuteen liittyen on tapana kartoittaa. Nielemisvaikeudelle tyypillisiä asioita saattaa kuitenkin ilmetä asiasta tarkemmin kysyttäessä (Leslie & Smithard, 2021). Validoituja nielemisvaikeuden itsearviointityökaluja käyttämällä terveydenhuollon ammattilaiset voivat pyrkiä varmistamaan, että potilaalta tulee kysytyä nielemisvaikeuden tunnistamisen kannalta keskeisiä asioita. Nielemisen itsearviointityökaluista voi

olla hyötyä myös Chiari 1 -malformaatioon liittyvää oirekuvaa kartoitettaessa. EAT-10-kyselyn validoitu suomennos on nopea ja helppo täyttää, ja sitä voidaankin käyttää nielemisvaikeuden seulonnassa yksin tai yhdessä muiden nielemisen seulontatyökalujen kanssa (Järvenpää ym., 2021). Toisaalta on myös havaittu, että usein jo nielemisen onnistumisesta yhdellä kysymyksellä kysyminen voi auttaa tunnistamaan henkilöt, joilla on nielemisen ongelmia (Heijnen ym., 2016). Kaikkiaan nielemisvaikeuden tunnistamisen kannalta keskeisintä on, että asiaa lähdetään selvittämään. Toisaalta on syytä muistaa, ettei yksittäisiä nielemisvaikeuden oireisiin lukeutuvia tekijöitä useinkaan ole tarpeellista tulkita häiriöksi, mikäli potilas itse ei koe niistä haittaa eikä hänen fyysinen terveydentilansa ole vaarassa, sillä kyse voi yksinkertaisesti olla nielemisfunktion normaalivaihtelusta (Leslie & Smithard, 2021).

Verrattain suuri osa EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen saaneista tutkittavista oli keskustellut nielemisestä lääkärin kanssa, mutta tämän tutkielman perusteella ei voida tietää, millaisiin toimenpiteisiin tilanteessa on mahdollisesti päädytty. Tutkimuksessa kuitenkin havaittiin, ettei suurin osa nielemisvaikeuden oireita raportoineista tutkittavista ollut käynyt puheterapeutin vastaanotolla. Siinä missä 66 tutkittavaa sai EAT-10-kyselystä normaalista poikkeavaan nielemiseen viittaavan tuloksen ja 36 tutkittavaa oli keskustellut nielemisestä lääkärin kanssa, vain 14 tutkittavaa raportoi käyneensä puheterapeutin vastaanotolla. Lisäksi yksittäiset tutkittavat kuvasivat avokommenteissaan, etteivät koe saaneensa nielemisvaivaan apua yrityksistään huolimatta. Tämän tutkielman tulosten perusteella vaikuttaakin siltä, että osa Chiari 1 -potilaista saattaa olla vaarassa jäädä yksin nielemisvaivojensa kanssa, ja siksi potilaiden asianmukaiseen hoitoon ohjautumiseen tulisi kiinnittää jatkossa entistäkin enemmän huomioita. Puheterapeutti on oikea henkilö arvioimaan nielemisvaikeuden laatua ja vaikeusastetta, mutta puheterapeutille ohjautuminen vaatii lääkärin lähetteen. Chiari 1 -potilaat voivat hyötyä jo yksittäisistä kuntoutusalan ammattilaisten konsultaatiokäynneistä sekä omiin oireisiin ja niiden hallintaan liittyvän tiedon saamisesta (Karppinen ym., 2022). Puheterapeutin ammattitaidon hyödyntäminen ainakin tässä tarkoituksessa on tarpeen nielemisvaikeuden haitallisten seurausten ennaltaehkäisemiseksi.

## 6.2 Menetelmän pohdinta

Tämä tutkimus oli tiettävästi ensimmäinen Chiari I -malformaatioon liittyvää subjektiivisesti koettua nielemisvaikeutta tarkasteleva kyselytutkimus. Aineisto kerättiin vapaaehtoisilta tutkimushenkilöiltä. Koska tutkimushenkilöitä ei valittu tutkimukseen todennäköisyysotannan periaatteita noudattaen, on kyseessä niin sanottu mukavuusotannan tuloksena syntynyt itsevalikoitunut näyte, jonka avulla saatuja tuloksia ei voida suoraan yleistää populaatioon (Heikkilä, 2014, s. 39; Valli, 2015, luku 4). Valintamenetelmän on katsottu soveltuvan esimerkiksi vähän tutkittujen aiheiden esitutkintaan (Heikkilä, 2014, s. 39), minkä vuoksi menetelmä soveltui rajoituksistaan huolimatta hyvin tässä tutkimuksessa käytettäväksi. Tutkittavien suuri määrä (n = 96) lisää tutkimustulosten luotettavuutta.

Aineisto kerättiin sähköisen kyselylomakkeen avulla. Kyselylomakkeen käytön etuna on muun muassa se, että tutkijan vaikutus tutkittavien vastauksiin on minimoitu (Valli, 2015, luku 4). Lisäksi aineistonkeruuseen verkkokyselyn avulla ei tarvita merkittäviä henkilöresursseja, ja aineisto pystytään keräämään verrattain lyhyessä ajassa (Heikkilä, 2014, s. 18). Tässä tutkimuksessa käytetty kyselylomake pidettiin lyhyenä, ja vastaamiseen kuluvan ajan arvio kerrottiin tutkittaville ennen kyselyn alkua. Lomakkeen käytettävyys testattiin ennen aineistonkeruun aloittamista tietokoneella ja älypuhelimella. Vastaamisesta pyrittiin tekemään tutkittaville houkuttelevaa kertomalla tutkimuksen tarkoituksesta ja antamalla EAT-10-kyselyn virallisen ohjeistuksen mukaisesti tutkittaville toimintaohjesuositus siltä varalta, että tutkittava saa kyselystä normaalista poikkeavan tuloksen.

Kyselylomakkeiden heikkoutena voidaan pitää sitä, ettei annettujen vastausten tarkkuudesta ole takeita ja kysymykset saatetaan ymmärtää eri tavalla kuin tutkija on ne tarkoittanut (Heikkilä, 2014, s.18; Valli, 2015, luku 4). Tässä tutkimuksessa käytetyn kyselylomakkeen toimivuutta kartoitettiin pyytämällä ennen aineistonkeruun aloittamista kahdelta henkilöltä kommentteja lomakkeen käyttökokemuksesta ja kysymysten ymmärrettävyydestä. Kyselyyn vastaamista pyrittiin helpottamaan sähköisen lomakkeen asetuksilla muun muassa siten, että monivalintakysymyksissä oli mahdollista valita vain yksi vaihtoehto. Tutkimuksen luotettavuutta lisää se, että tutkimuksessa käytettiin validoitua nielemisen arviointityökalua (EAT-10). Toisaalta koska kyseessä on kokonaan tutkittavilta itseltään kerätty aineisto, ei voida varmistua esimerkiksi raportoitujen taustatietojen paikkaansa pitävyydestä. Taustatietoina kysyttiin muun muassa tutkittavien sairauksista, mutta aineiston laadusta johtuen tietoja käytettiin ainoastaan aineiston kuvailussa. Minkään sairauden ei määritetty olevan este tutkimukseen osallistumiselle, eikä tutkimuksessa siis kontrolloitu tutkittavilla mahdollisesti ilmenevien sairauksien yhteyttä raportoituihin nielemisvaikeusoireisiin.



Kyselyn jakelukanavina toimi suljettu Facebookin vertaistukiryhmä sekä potilasyhdistyksen jäsenten sähköpostilista ja Facebook-ryhmä. On todennäköistä, että mukaan potilasyhdistyksen toimintaan ja vertaistukiryhmiin hakeutuu etenkin sellaisia henkilöitä, joilla on erilaisia Chiari 1 -malformaatioon liittyviä oireita. Näin ollen kyselylomakkeen jakelukanavien kautta tavoitetun joukon ei voida ajatella kuvaavan todenmukaisesti tutkimuksessa kiinnostuksen kohteena olevaa populaatiota eli aikuisia, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Näytteen ulkopuolelle on voinut jäädä tutkittavia, joilla ei ole nielemisvaikeutta tai joilla Chiari 1 -malformaatioon ei liity lainkaan oireita, mikä on voinut vaikuttaa tutkimustuloksiin. Aineistonkeruukanavat ovat saattaneet vaikuttaa myös esimerkiksi aineiston sukupuolijakaumaan, joka olikin erittäin epätasainen. Lähes kaikki vastaajat ilmoittivat olevansa naisia. On mahdollista, että tutkittavien rekrytointivaiheessa sosiaalisen median ja potilasjärjestön toiminnan kautta on tavoitettu eniten naisia. Toisaalta oli odotettavissa, että vastaajista suurin osa olisi naisia, sillä Chiari 1 -malformaatio on naisilla miehiä yleisempi (Karppinen, 2020).

Tässä tutkimuksessa nielemisvaikeusoireita kartoitettiin EAT-10-kyselyn avulla. Tutkimuksessa olisi voitu käyttää myös muunlaisia nielemisen itsearviointityökaluja tai esimerkiksi kokonaan itse laadittua kysymyspatteristoa. Koska EAT-10-kysely soveltuu nielemisvaikeuden arviointiin etiologiasta riippumatta (Belafsky ym., 2008), oli se luonteva valinta tässä tutkimuksessa käytettäväksi, sillä tietoa Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden piirteistä oli tätä tutkimusta suunniteltaessa saatavilla erittäin vähän. Validoidun ja aiemmin tutkimuksissa paljon käytetyn työkalun käyttö mahdollisti myös tutkimustulosten tarkastelun suhteessa aiemmin julkaistuun kirjallisuuteen, vaikka saatavilla ei ollutkaan tutkimuksia, joissa olisi tarkasteltu juuri Chiari 1 -malformaatioon liittyvää nielemisvaikeutta vastaavanlaisella itsearviointityökalulla. Koska EAT-10-kysely on melko suppea, päätettiin tutkimuksessa käytettyyn kyselylomakkeeseen sisällyttää avoin kommenttikenttä, jotta tutkittavilla oli mahdollisuus antaa sellaistaakin tietoa, joka ei olisi välittynyt pelkkien EAT-10-kyselyn ja hoitokontakteja kartoittavien kysymysten vastausten kautta. Avokomenttien kautta saatiinkin tutkimuksen määrällisiä tuloksia täydentävää laadullista tietoa.

### 6.3 Jatkotutkimusaiheita

Tutkittavien tässä tutkimuksessa raportoimien nielemisvaikeusoireiden ei voida varmuudella sanoa johtuvan Chiari 1 -malformaatiosta, sillä tutkimuksessa ei voitu kontrolloida esimerkiksi tutkittavien muiden sairauksien yhteyttä raportoituihin oireisiin. Tutkimus tarjoaa kuitenkin suuntaa antavaa tietoa siitä, miten koettu nielemisvaikeus voi ilmetä aikuisilla, joilla on Chiari 1 -malformaatio. Tulevissa tutkimuksissa tulisi kontrolloida tutkittavien taustatietoja, jotta voidaan selvittää, onko taustalla Chiari 1 -malformaation lisäksi jotakin muuta, mikä myös voisi selittää koettuja nielemisen ongelmia.

Tässä tutkielmassa tarkasteltiin ainoastaan tutkittavien raportoimia subjektiivisesti koettuja nielemisvaikeusoireita. Jatkossa olisi tärkeää selvittää, onko Chiari 1 -potilaiden kokemien oireiden ja nielemisfunktion objektiivisen arvion löydösten välillä yhteyttä. Tutkittavien nielemistoimintoja tulisi siis arvioida rinnakkain validoitujen itsearviointityökalujen ja esimerkiksi instrumentaalisten arviointimenetelmien avulla. EAT-10-kysely voisi olla tarkoitukseen soveltuva nielemisen itsearviointityökalu, joskin laajemmilla työkaluilla koetusta nielemisvaikeudesta voisi olla mahdollista saada kattavampi kuva. Videofluorografiatutkimus voisi puolestaan olla soveltuvin instrumentaalinen arviointimenetelmä, sillä sen avulla voidaan tarkastella, missä nielemisen vaiheessa ongelmia ilmenee ja esiintyykö esimerkiksi nieltävän aineksen penetraatiota tai aspiraatiota (Prosiegel, 2012, s. 90). EAT-10-kyselyn tulosten on havaittu olevan yhteydessä joihinkin videofluorografiassa havaittuihin faryngeaalisen ja esofageaalisen nielemisvaiheen poikkeavuuksiin muissa potilasryhmissä (Dewan ym., 2021), ja olisikin tarpeen selvittää, havaitaanko yhteyttä myös Chiari 1 -malformaatioon liittyvän nielemisvaikeuden kohdalla.

Tässä tutkimuksessa sekä Chiari 1 -malformaation leikkaushoidon läpikäyneet että leikkaamattomat tutkittavat saivat EAT-10-kyselystä keskimäärin yhtä korkeita pisteitä. Tulos ei kerro oirekuvassa esimerkiksi ajan kuluessa tai leikkaushoidon myötä mahdollisesti tapahtuneista muutoksista. Tutkittavien antamista avokommenteista kuitenkin havaittiin tutkittavilla olleen hyvin erilaisia kokemuksia siitä, onko leikkaushoito vaikuttanut koettuihin nielemisvaikeusoireisiin. Aiemmissä tutkimuksissa tuloksia leikkaushoidon vaikutuksesta Chiari 1 -malformaatioon liittyvään nielemisvaikeuteen on raportoitu niukasti, ja aihetta tulisikin tutkia lisää. Aiheen tutkiminen voisi olla mahdollista verrattain vähäisilläkin resursseilla, mikäli tutkittavia esimerkiksi pyydetäisiin täyttämään jokin nielemisen itsearviointilomake vastaanottokäyntien yhteydessä. Esimerkiksi EAT-10-kyselyä voidaan käyttää erilaisten hoitomuotojen vaikuttavuuden arviointiin, ja sen täyttäminen

vie vain pari minuuttia (Belafsky ym., 2008; Järvenpää ym., 2021). Luotettavimpia tuloksia saataisiin, mikäli nielemistoimintoja arvioitaisiin edellä kuvatusti potilaan subjektiivisen itsearvioinnin lisäksi objektiivisemmin esimerkiksi nielemisfunktion instrumentaalisten arviointimenetelmien avulla. Leikkaushoidon vaikuttavuutta arvioidessa oirekuvan arviointi tulisi toistaa tarpeeksi pitkän ajan kuluttua hoitotuloksen pysyvyyden selvittämiseksi.

Leikkaushoito on ainoa kirjallisuudessa laajasti raportoitu Chiari 1 -malformaation hoitomuoto. Koska leikkausoperaatio ei kuitenkaan ole kaikille Chiari 1 -potilaille tarpeellinen tai soveltuva vaihtoehto, tarvittaisiin myös ei-kirurgisista hoitovaihtoehdoista kirjallisuutta. Mitä nielemisvaikeuteen tulee, voisi Chiari 1 -potilaiden hoidossa tämän tutkielman tulosten perusteella olla nykyistä enemmän käyttöä puheterapeutin asiantuntemukselle. Puheterapeutti paitsi arvioi ja kuntouttaa nielemisvaikeuksia myös antaa potilaille nielemisvaikeuteen liittyvää tietoa. Tiedon saaminen voi jo itsessään olla potilaan hyvinvoinnin ja pärjäämisen kannalta merkittävä tekijä. Tässä aineistossa nielemisvaikeusoireet olivat varsin yleisiä, ja logopedisesta näkökulmasta keskeinen tutkimusaihe olisikin selvittää, voivatko Chiari 1 -potilaat hyötyä puheterapeutin antamasta nielemiskuntoutuksesta tai ohjauksesta. Edellä kuvattuun tapaan myös ei-kirurgisten interventioiden vaikuttavuuden arvioinnissa olisi tarpeen hyödyntää rinnakkain potilaskeskeisiä lähestymistapoja ja objektiivisempia nielemisfunktion arviointimenetelmiä, jotta voitaisiin selvittää, millainen vaikutus interventiolla on nielemistoimintojen onnistumiseen ja nielemisen turvallisuuteen sekä toisaalta laajemmin elämänlaatuun.

## 7 LÄHDELUETTELO

- Aitken, L. A., Lindan, C. E., Sidney, S., Gupta, N., Barkovich, A. J., Sorel, M. & Wu, Y. W. (2009). Chiari Type I Malformation in a Pediatric Population. *Pediatric Neurology*, 40(6), 449–454. <https://doi.org/10.1016/j.pediatrneurol.2009.01.003>
- Allen, J. E., White, C. J., Leonard, R. J. & Belafsky, P. C. (2010). Prevalence of penetration and aspiration on videofluoroscopy in normal individuals without dysphagia. *Otolaryngology: Head & Neck Surgery*, 142(2), 208–213. <https://doi.org/10.1016/j.otohns.2009.11.008>
- Almotairi, F. S., Andersson, M., Andersson, O., Skoglund, T. & Tisell, M. (2018). Swallowing Dysfunction in Adult Patients with Chiari I Malformation. *Journal of neurological surgery. Part B, Skull base*, 79(6), 606–613. <https://doi.org/10.1055/s-0038-1655758>
- Arslan, S. S., Demir, N., Kiliç, H. E. & Karaduman, A. A. (2017). The Ability of the Eating Assessment Tool-10 to Detect Aspiration in Patients With Neurological Disorders. *Journal of Neurogastroenterology and Motility*, 23, 550–554. <https://doi.org/10.5056/jnm16165>
- Bartlett, R. S., Kenz, M. K., Wayment, H. A. & Thibeault, S. L. (2021). Correlation Between EAT-10 and Aspiration Risk Differs by Dysphagia Etiology. *Dysphagia*, 37(1), 11–20. <https://doi.org/10.1007/s00455-021-10244-0>
- Belafsky, P., Mouadeb, D., Rees, C., Pryor, J., Postma, G., Allen, J. & Leonard, R. (2008). Validity And Reliability Of The Eating Assessment Tool (EAT-10). *Annals Of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*, 117(12), 919–924. <https://doi.org/10.1177/000348940811701210>
- Bolognese, P. A., Brodbelt, A., Bloom, A. B. & Kula, R. W. (2019). Chiari I Malformation: Opinions on Diagnostic Trends and Controversies from a Panel of 63 International Experts. *World Neurosurgery*, 130, E9–E16. <https://doi.org/10.1016/j.wneu.2019.05.098>
- Caldwell, D. L., Dubose, C. O. & White, T. B. (2009). Chiari Malformations. *Radiologic Technology*, 80(4), 340MR–354MR.
- Chavez, A., Roguski, M., Killeen, A., Heilman, C. & Hwang, S. (2014). Comparison of operative and non-operative outcomes based on surgical selection criteria for patients with Chiari I malformations. *Journal of Clinical Neuroscience*, 21(12), 2201–2206. <https://doi.org/10.1016/j.jocn.2014.06.009>
- Cheney, D. M., Siddiqui, M. T., Litts, J. K., Kuhn, M. A. & Belafsky, P. C. (2015). The ability of the 10-item eating assessment tool (EAT-10) to predict aspiration risk in persons with dysphagia. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*, 124(5), 351–354. <https://doi.org/10.1177/0003489414558107>
- Daniels, S. K., Anderson, J. A. & Willson, P. C. (2012). Valid Items for Screening Dysphagia Risk in Patients With Stroke – A Systematic Review. *Stroke*, 43, 892–897. <https://doi.org/10.1161/STROKEAHA.111.640946>

- Denk-Linnert, D.-M. (2012). Evaluation of Symptoms. Teoksessa O. Ekberg (toim.), *Dysphagia. Diagnosis and Treatment*, (s. 71–82). Springer. <https://doi.org/10.1007/978-3-642-17887-0>
- Dewan, K., Clarke, J. O., Kamal, A. N., Nandwani, M. & Starmer, H. M. (2021). Patient Reported Outcomes and Objective Swallowing Assessments in a Multidisciplinary Dysphagia Clinic. *The Laryngoscope*, 131, 1088–1094. <https://doi.org/10.1002/lary.29194>
- Dyste, G. N., Menezes, A. H. & VanGilder, J. C. (1989). Symptomatic Chiari malformations. *Journal of Neurosurgery*, 71(2), 159–168. <https://doi.org/10.3171/jns.1989.71.2.0159>
- Ekberg, O. (2012). Oral and Pharyngeal Function and Dysfunction. Teoksessa O. Ekberg (toim.), *Dysphagia. Diagnosis and Treatment*, (s. 55–68). Springer. <https://doi.org/10.1007/978-3-642-17887-0>
- Ekberg, O. & Nylander, G. (2012). Anatomy and Physiology. Teoksessa O. Ekberg (toim.), *Dysphagia. Diagnosis and Treatment*, (s. 3–18). Springer. <https://doi.org/10.1007/978-3-642-17887-0>
- Ekberg, O., Hamdy, S., Woisard, V., Wuttge-Hannig, A. & Ortega, P. (2002). Social and Psychological Burden of Dysphagia: Its Impact on Diagnosis and Treatment. *Dysphagia*, 17(2), 139–146. <https://doi.org/10.1007/s00455-001-0113-5>
- Elta, G. H., Caldwell, C. A. & Nostrant, T. T. (1996). Esophageal Dysphagia as the Sole Symptom in Type I Chiari Malformation. *Digestive diseases and sciences*, 41(3), 512–515. <https://doi.org/10.1007/BF02282327>
- Ertekin, C. & Aydogdu, I. (2003). Neurophysiology of swallowing. *Clinical Neurophysiology*, 114(12), 2226–2244. [https://doi.org/10.1016/S1388-2457\(03\)00237-2](https://doi.org/10.1016/S1388-2457(03)00237-2)
- Eslick, G. D. & Talley, N. J. (2008). Dysphagia: epidemiology, risk factors and impact on quality of life – a population-based study. *Alimentary Pharmacology & Therapeutics*, 27(10), 971–979. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2036.2008.03664.x>
- Frič, R. & Eide, P. K. (2020). Chiari type 1: a malformation or a syndrome? A critical review. *Acta Neurochirurgica*, 162, 1513–1525. <https://doi.org/10.1007/s00701-019-04100-2>
- Friedman, B. & Frazier, J. B. (2000). Deep laryngeal penetration as a predictor of aspiration. *Dysphagia*, 15(3), 153–158. <https://doi.org/10.1007/s004550010018>
- Garand, K. L., Hill, E. G., Armeson, K. & Martin-Harris, B. (2020). Aging Effects on Eating Assessment Tool-10 (EAT-10) Total Scores in Healthy, Community-Dwelling Adults. *Canadian Journal of Speech-Language Pathology and Audiology*, 44(1), 1–8.
- Heffez, D. S., Broderick, J., Connor, M., Mitchell, M., Galezowska, J., Golchini, R. & Ghorai, J. (2020). Is there a relationship between the extent of tonsillar ectopia and the severity of the clinical Chiari syndrome? *Acta Neurochirurgica*, 162, 1531–1538. <https://doi.org/10.1007/s00701-019-04171-1>

- Heijnen, B. J., Speyer, R., Bülow, M. & Kuijpers, L. (2016). ‘What About Swallowing?’ Diagnostic Performance of Daily Clinical Practice Compared with the Eating Assessment Tool-10. *Dysphagia*, 31, 214–222. <https://doi.org/10.1007/s00455-015-9680-8>
- Heikkilä, T. (2014). *Tilastollinen tutkimus* (9. painos). Edita Publishing.
- Hiltunen, I. (2021). *Chiari I -malformaatioon liittyvät nielemisvaikeudet. Integroiva kirjallisuuskatsaus* [kandidaatintutkielma, Tampereen yliopisto]. Trepo Tampereen yliopiston julkaisuarkisto. <http://urn.fi/URN:NBN:fi:tuni-202105124918>
- Ikusaka, M., Iwata, M., Sasaki, S. & Uchiyama, S. (1996). Progressive dysphagia due to adult Chiari I malformation mimicking amyotrophic lateral sclerosis. *Journal of neurology, neurosurgery and psychiatry*, 60(3), 357–358. <https://doi.org/10.1136/jnnp.60.3.357>
- Ilmarinen, T., Rousselle, R., Apajalahti, M., Nikander, P., Arkkila, P., Atula, S. & Järvenpää, P. (2019). Nielemisvaikeuden arviointi. *Lääkärilehti*, 34, 1811–1816. Saatavilla [https://helda.helsinki.fi/bitstream/handle/10138/320101/SLL342019\\_1811.pdf?sequence=1](https://helda.helsinki.fi/bitstream/handle/10138/320101/SLL342019_1811.pdf?sequence=1)
- Jones, E., Speyer, R., Kertscher, B., Denman, D., Swan, K. & Cordier, R. (2018). Health-Related Quality of Life and Oropharyngeal Dysphagia: A Systematic Review. *Dysphagia*, 33, 141–172. <https://doi.org/10.1007/s00455-017-9844-9>
- Järvenpää, P., Kuuskoski, J., Pietarinen, P., Markkanen-Leppänen, M., Freiberg, H., Ruuskanen, M., Rekola, J., Ilmarinen, T., Kinnari, T. J., Autio, T. J., Penttilä, E., Muttilainen, M. S., Laaksonen, A., Oksanen, L., Geneid, A. & Aaltonen, L.-M. (2021). Finnish Version of the Eating Assessment Tool (F-EAT-10): A Valid and Reliable Patient-reported Outcome Measure for Dysphagia Evaluation. *Dysphagia*. <https://doi.org/10.1007/s00455-021-10362-9>
- Karppinen, A. (2020). Chiarin tyypin 1 epämuodostuma – diagnostinen ja hoidollinen haaste. *Duodecim*, 136, 1895–1902. Saatavilla <https://www.duodecimlehti.fi/duo15757>
- Karppinen, A., Harno, H., Romberg, A. & Ruutiainen, J. (14.1.2022). *Chiarin tyypin 1 epämuodostuma*. Neuroliitto. Haettu 27.4.2022 osoitteesta <https://neuroliitto.fi/tietotuki/tietoa-sairauksista/harvinaiset-neurologiset-sairaudet/diagnoosit/chiari-1/>
- Kestilä-Kekkonen, E. (julkaisuaika tuntematon). Kovarianssi ja korrelaatio. Teoksessa *Kvantitatiivisen tutkimuksen verkkokäsikirja*. Tampere: Yhteiskuntatieteellinen tietoarkisto. Haettu 14.2.2022 osoitteesta <https://www.fsd.tuni.fi/fi/palvelut/menetelmaopetus/kvanti/korrelaatio/korrelaatio/>
- Killeen, A., Roguski, M., Chavez, A., Heilman, C. & Hwang, S. (2015). Non-operative outcomes in Chiari I malformation patients. *Journal of Clinical Neuroscience*, 22(1), 133–138. <https://doi.org/10.1016/j.jocn.2014.06.008>
- Langridge, B., Phillips, E. & Choi, D. (2017). Chiari Malformation Type 1: A Systematic Review of Natural History and Conservative Management. *World Neurosurgery*, 104, 213–219. <https://doi.org/10.1016/j.wneu.2017.04.082>

- Leslie, P. & Smithard, D. G. (2021). Is Dysphagia Under Diagnosed or is Normal Swallowing More Variable than We Think? Reported Swallowing Problems in People Aged 18–65 Years. *Dysphagia*, 36, 910–918. <https://doi.org/10.1007/s00455-020-10213-z>
- Logemann, J. A. (2007). Swallowing disorders. *Best Practice & Research Clinical Gastroenterology*, 21(4), 563–573. <https://doi.org/10.1016/j.bpg.2007.03.006>
- McClugage, S. G. & Oakes, W. J. (2019). The Chiari I malformation. *Journal of Neurosurgery: Pediatrics*, 24(3), 217–226. <https://doi.org/10.3171/2019.5.PEDS18382>
- Milhorat, T. H., Chou, M. W., Trinidad, E. M., Kula, R. W., Mandell, M., Wolpert, C. & Speer, M. C. (1999). Chiari I malformation redefined: clinical and radiographic findings for 364 symptomatic patients. *Neurosurgery*, 44(5), 1005–1017. <https://doi.org/10.1097/00006123-199905000-00042>
- Murry, T., Carrau, R. L. & Chan, K. M. K. (2018). *Clinical management of Swallowing Disorders* (4. painos). Plural Publishing, Inc.
- Nathadwarawala, K. M., Richards, C. A. L., Lawrie, B., Thomas, G. O. & Wiles, C. M. (1992). Recurrent aspiration due to Arnold-Chiari type 1 malformation. *British Medical Journal*, 304, 565–566.
- Nummenmaa, L., Holopainen, M. & Pulkkinen, P. (2019). *Tilastollisten menetelmien perusteet* (1.–5. painos). Sanoma Pro Oy.
- Patel, D. A., Sharda, R., Hovis, K. L., Nichols, E. E., Sathe, N., Penson, D. F., Feurer, I. D., McPheeters, M. L., Vaezi, M. F. & Francis, D. O. (2017). Patient-reported outcome measures in dysphagia: A systematic review of instrument development and validation. *Diseases of the Esophagus*, 30(5), 1–23. <https://doi.org/doi:10.1093/dote/dow028>
- Paulig, M. & Prosiel, M. (2002). Misdiagnosis of amyotrophic lateral sclerosis in a patient with dysphagia due to Chiari I malformation. *Journal of Neurology, Neurosurgery and Psychiatry*, 72(2), 270. <https://doi.org/10.1136/jnnp.72.2.270>
- Plowman, E. K., Tabor, L. C., Robison, R., Gaziano, J., Dion, C., Watts, S. A., Vu., T. & Gooch, C. (2016). Discriminant ability of the Eating Assessment Tool-10 to detect aspiration in individuals with amyotrophic lateral sclerosis. *Neurogastroenterology & Motility*, 28, 85–90. <https://doi.org/10.1111/nmo.12700>
- Printza, A., Kyrgidis, A., Pavlidou, E., Triaridis, S. & Constantinidis, J. (2018). Reliability and validity of the eating assessment tool- 10 (Greek adaptation) in neurogenic and head and neck cancer related oropharyngeal dysphagia. *European Archives of Oto-Rhino-Laryngology*, 275(7), 1861–1868. <https://doi.org/10.1007/s00405-018-5001-9>
- Prosiel, M. (2012). Neurology of Swallowing and Dysphagia. Teoksessa O. Ekberg (toim.), *Dysphagia. Diagnosis and Treatment*, (s. 83–106). Springer. <https://doi.org/10.1007/978-3-642-17887-0>

- Rommel, N., Borgers, C., Van Beckevoort, D., Goeleven, A., Dejaeger, E. & Omari, T. I. (2015). Bolus Residue Scale: An Easy-to-Use and Reliable Videofluoroscopic Analysis Tool to Score Bolus Residue in Patients with Dysphagia. *International Journal of Otolaryngology*, 2015, 1–7. <http://doi.org/10.1155/2015/780197>
- Santoso, L. F., Kim, D. Y. & Paydarfar, D. (2019). Sensory dysphagia: A case series and proposed classification of an under recognized swallowing disorder. *Head & Neck*, 41, E71–E78. <https://doi.org/10.1002/hed.25588>
- Schindler, A., Mozzanica, F., Monzani, A., Ceriani, E., Atac, M., Jukic-Peladic, N., Venturini, C. & Orlandoni, P. (2013). Reliability and Validity of the Italian Eating Assessment Tool. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*, 122(11), 717–724. <https://doi.org/10.1177/000348941312201109>
- Shapira-Galitz, Y., Yousovich, R., Halperin, D., Wolf, M., Lahav, Y. & Drendel, M. (2019). Does the Hebrew Eating Assessment Tool-10 Correlate with Pharyngeal Residue, Penetration and Aspiration on Fiberoptic Endoscopic Examination of Swallowing? *Dysphagia*, 34, 372–381. <https://doi.org/10.1007/s00455-018-9964-x>
- Speer, M. C., Enterline, D. S., Mehlretter, L., Hammock, P., Joseph, J., Dickerson, M., Ellenbogen, R. G., Milhorat, T. H., Hauser, M. A. & George, T. M. (2003). Chiari type I malformation with or without syringomyelia: prevalence and genetics. *Journal of Genetic Counseling*, 12(4), 297–311. <https://doi.org/10.1023/A:1023948921381>
- Tutkimuseettinen neuvottelukunta (2012). *Hyvä tieteellinen käytäntö ja sen loukkausepäilyjen käsitteleminen Suomessa. Tutkimuseettisen neuvottelukunnan ohje 2012*. Tutkimuseettinen neuvottelukunta. Saatavilla [https://tenk.fi/sites/tenk.fi/files/HTK\\_ohje\\_2012.pdf](https://tenk.fi/sites/tenk.fi/files/HTK_ohje_2012.pdf)
- Tähtinen, J., Laakkonen, E. & Broberg, M. (2020). *Tilastollisen aineiston käsittelyn ja tulkinnan perusteita*. Turun yliopiston kasvatustieteiden tiedekunnan julkaisuja C:22. Turun yliopiston kasvatustieteiden laitos.
- Valli, R. (2015). *Johdatus tilastolliseen tutkimukseen* (2. painos). PS-kustannus.
- White, D. L., Rees, C. J., Butler, S. G., Tatter, S. B., Markley, L. W. & Cartwright, M. S. (2010). Positional dysphagia secondary to a Chiari I malformation. *Ear, nose, & throat journal*, 89(7), 318–319.



## **Liite 1. Tutkimustiedote.**

### **TIETOA TUTKIMUKSESTA**

Tämä tutkimus on tarkoitettu aikuisille, joilla on todettu Chiari 1 -malformaatio eli Chiarin tyypin 1 epämuodostuma.

Teitä pyydetään osallistumaan Chiari 1 -malformaatioon liittyvää subjektiivisesti koettua nielemisvaikeutta tarkastelemaan tutkimukseen. Tutkimuksen tarkoituksena on selvittää, millaisia subjektiivisesti koettuja nielemisvaikeuden oireita Chiari 1 -malformaatioon voi liittyä. Lisäksi tutkimuksessa pyritään tarkastelemaan, kuinka eri taustatekijät voivat vaikuttaa oireiden ilmenemiseen ja määrään. Chiari 1 -malformaatioon liittyviä nielemisvaikeusoireita on tutkittu erittäin vähän. Teidän toivotaan osallistuvan tutkimukseen, vaikka kokisittekin nielemisenne ongelmattomaksi, sillä myös tämä antaa tärkeää tietoa aiheesta. Teille ei ole luvassa välitöntä hyötyä tutkimukseen osallistumisesta esimerkiksi palkkion muodossa. Saatte kuitenkin mahdollisuuden osallistua ensimmäiseen Suomessa aiheesta tehtävään tutkimukseen, jonka tuloksia pääsette halutessanne tarkastelemaan tutkimuksen valmistuttua. Aihetta käsittelevä Tampereen yliopiston logopedian oppiaineen pro gradu -tutkielma julkaistaan osoitteessa [trepo.tuni.fi](http://trepo.tuni.fi), ja se tulee olemaan vapaasti luettavissa. Tutkielma arvioidaan julkaistavan viimeistään syksyllä 2022.

Tutkimus on kyselytutkimuksena toteutettava kertatutkimus. Kaikki tutkimuksessa käytettävä aineisto kerätään tällä kyselylomakkeella. Kyselyyn vastaaminen on vaivatonta ja se vie teiltä korkeintaan noin 10 minuuttia. Kyselylomakkeella kerättävää aineistoa käytetään pro gradu -tutkielman lisäksi mahdollisesti myös erillisessä jatkotutkimuksessa, jolloin siitä julkaistaan tieteellinen artikkeli. Antamianne tietoja käsitellään liitteenä olevassa tietosuojailmoituksessa kuvatulla tavalla. Tutkimuksessa ei kerätä suoria tunnistetietoja. Tutkimustulokset esitetään niin, etteivät tutkittavat ole edes epäsuorasti tunnistettavissa. Antamianne tietoja ei missään vaiheessa luovuteta tutkimuksen ulkopuolisille henkilöille. Aineisto tuhotaan kokonaisuudessaan viimeistään vuoden 2024 loppuun mennessä.

Tutkimukseen osallistuaksenne teidän tulee olla 18-vuotias. Perehdyttehän yllä olevaan tutkimustiedotteeseen ja liitteestä löytyvään tietosuojailmoitukseen huolellisesti ennen kyselyyn vastaamista. Tutkimukseen liittyviin kysymyksiinne vastaa pro gradu -tutkielman tekijä Iida Hiltunen.

## Liite 2. Sähköinen kyselylomake.

\* Pakollinen

### Osio 1/3: Taustatiedot

Tässä osiossa kysytään joitakin taustatietoja. Kyselyn seuraavalla sivulla on avoin kysymys, jossa voit halutessasi antaa lisätietoa vastauksiisi liittyen.

#### 1. Ikä vuosina \*

Anna luku, joka on suurempi tai yhtä suuri kuin 18

#### 2. Sukupuoli \*

- Nainen
- Mies
- Jokin muu
- En halua vastata

#### 3. Pikkuaivojen alaosan valuman eli pikkuaivoherniaation koko millimetreinä

(Jos ei tiedossa, kohdan voi jättää tyhjäksi)

Kirjoita vastaus

#### 4. Onko sinulle tehty Chiari 1 -malformaation leikkaustoimenpide? \*

(Eli niska-aukon avarrusleikkaus)

- Kyllä
- Ei

#### 5. Onko sinulla Chiari 1 -malformaation lisäksi muita sairauksia? Jos on, niin mitä? \*

(Esimerkiksi syringomyelia tai muita neurologisia sairauksia. Jos sinulla on ainoastaan Chiari 1 -malformaatio, voit vastata kysymykseen "ei ole")

Kirjoita vastaus

## Osio 2/3: Nielemisvaikeusoireet

Tämä osio koostuu nielemisvaikeusoireita kartoittavista kysymyksistä. Kohdassa 6 käytetään Belafskyn ym. (2008) kehittämää EAT-10-oirekyselyä. EAT-10-lomakkeen käyttö on suojattu tekijänoikeuslain nojalla (© Société des Produits Nestlé SA 2009).

- Belafsky, P., Mouadeb, D., Rees, C., Pryor, J., Postma, G., Allen, J., & Leonard, R. (2008). Validity And Reliability Of The Eating Assessment Tool (EAT-10). *Annals Of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*, 117(12), 919–924. <https://doi.org/10.1177/000348940811701210>

### 6. Missä määrin seuraavat tilanteet ovat teille ongelmallisia? \*

(EAT-10: nielemisen arviointityökalu)



	0 = ei ongelmaa	1	2	3	4 = vakava ongelma
Nielemisvaivani on aiheuttanut minulle painon laskua	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Nielemisvaivani häiritsee sitä, voinko mennä ulos syömään	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Nesteiden nieleminen on työlästä	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Kiinteän ruoan nieleminen on työlästä	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Tablettien nieleminen on työlästä	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Nieleminen on kivuliasta	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Nielemiseni vaikuttaa ruokailusta nauttimiseen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Niellessäni ruoka takertuu kurkkuuni	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Yskin syödessäni	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Nieleminen on stressaavaa	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

### 7. Laske yhteen kohdassa 6 saamasi pisteet, ja kirjoita tulos alle (yhteensä max. 40 pistettä) \*

(Jos sait kohdan 6 EAT-10-kyselystä yhteensä 3 pistettä tai enemmän, tulos voi viitata nielemisen tehokkuuteen tai turvallisuuteen liittyviin ongelmiin. Tällöin on suositeltavaa, että keskusteleet asiasta lääkärisi kanssa.)

Anna luku, joka on pienempi tai yhtä suuri kuin 40

8. Koetko, että sinulla on nielemisvaikeuksia? \*

- Kyllä, minulla on nielemisvaikeuksia.
- Ei, minulla ei ole nielemisvaikeuksia.
- En osaa sanoa.

9. Oletko keskustellut nielemiseen liittyvistä tuntemuksistasi lääkärisi kanssa? \*

- Kyllä olen.
- En ole, mutta haluaisin jatkossa keskustella asiasta lääkäriini kanssa.
- En ole, enkä ole kokenut tarvetta keskustella asiasta.
- En osaa sanoa.

10. Oletko koskaan käynyt puheterapeutin vastaanotolla nielemisvaikeutesi liittyen? \*

- Kyllä olen.
- En ole.
- En ole, mutta asia on suunnitteilla.
- En osaa sanoa.

11. Vapaa sana, mikäli haluat antaa lisätietoa vastauksiisi ja oireisiisi liittyen.

(Ethän kirjoita tähän henkilötietojasi tai muita sellaisia asioita, joista sinut on mahdollista tunnistaa suoraan)

Kirjoita vastaus