

Ocena satysfakcji po leczeniu operacyjnym dysfunkcji narządu ruchu w przebiegu mózgowego porażenia dziecięcego

Evaluation of Satisfaction with Surgical Treatment for Musculoskeletal Dysfunction in Children with Cerebral Palsy

Andrzej Borowski^(A,B,C,D,E,F), Adam Kwapisz^(C,E,F), Tomasz Dorman^(E),
Andrzej Grzegorzewski^(A,D), Marek Synder^(A,D)

Klinika Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego, Łódź, Polska
Department of Orthopaedics and Paediatric Orthopaedics, Medical University of Łódź, Poland

STRESZCZENIE

Wstęp. Różnorodność objawów występujących w przebiegu mózgowego porażenia dziecięcego (mpd) skłania do stosowania pojęcia mózgowych porażen dziecięcych, podkreślając złożony charakter istniejących dysfunkcji narządu ruchu. Występowanie tego zespołu chorobowego ocenia się na 1 do 5 dzieci na 1000 żywo urodzonych, stawiając go na czele głównych przyczyn hospitalizacji na oddziałach ortopedii dziecięcej. Skomplikowany charakter dysfunkcji narządu ruchu wymusza mnogość procedur operacyjnych. Począwszy od wielopoziomowych operacji na tkankach miękkich, poprzez liczne osteotomie korekcyjne, aż do operacji w obrębie kręgosłupa z implantacją pomp administrujących bezpośrednio do przestrzeni podpajęczynówkowej leków – baklofenu. Celem pracy była ocena zadowolenia z przeprowadzonej procedury leczniczej u dzieci z mpd.

Materiał i metody. Grupę badaną stanowiło 52 dzieci (27 chłopców i 25 dziewcząt) leczonych operacyjnie w latach 1988-2001. Analizowana grupa składała się z 18 chorych z hemiparezą (32%), 19 z diparezą (36%) i 15 z tetraparezą (29%). Podczas badania kontrolnego przeprowadzono subiektywne badanie oceny satysfakcji pacjenta oraz rodzica/opiekuna z przeprowadzonego zabiegu operacyjnego.

Wyniki. Poprawę po zabiegu operacyjnym, jednocześnie deklarując podjęcie takiej samej decyzji ponownie, określiło 43 rodziców (82,6%). Pięć rodziców stwierdziło, iż zabieg operacyjny nie spowodował istotnych zmian w jakości życia ich dzieci (9,6%), natomiast dwójka (3,8%) pozostałych stwierdziła jego pogorszenie.

Wniosek. Wielopoziomowe uwolnienie tkanek miękkich w leczeniu dzieci z mpd w znaczący sposób poprawia jakość życia, charakteryzując się wysokim poziomem satysfakcji rodziców.

Słowa kluczowe: mózgowie porażenie dziecięce, leczenie operacyjne, poziom satysfakcji

SUMMARY

Background. The variety of symptoms in cerebral palsy (CP) points to the advisability of using the term ‘cerebral palsies’ to underline the complex nature of the associated musculoskeletal dysfunctions. The incidence of CP is estimated at 1 to 5 in 1000 live born infants. This makes CP one of the main causes of hospitalization in paediatric orthopaedic wards. The complicated nature of the musculoskeletal dysfunctions entails the necessity of employing multiple surgical procedures: starting from multilevel soft tissue operations, to multiple corrective osteotomies, to spinal surgery with implantation of baclofen pumps for subarachnoid administration. The aim of the study was to evaluate the level of satisfaction following surgery in CP children.

Material and methods. The study group was composed of 52 children (27 males and 25 females) surgically treated between 1988 and 2001. There were 18 children with hemiparesis, 19 with diparesis and 15 with tetraparesis. A subjective evaluation of the level of the satisfaction of the patient and the parent/guardian after the surgical treatment was carried out during a follow-up examination.

Results. Forty-three parents (82.6%) reported improvement after the surgery and declared that they would take the same decision again. Five parents reported no significant change in the quality of life of their children (9.6%), and two (3.8%) reported a deterioration.

Conclusion. Multilevel soft tissue release in children with CP significantly improved their quality of life and was associated with a high level of parents’/guardians’ satisfaction.

Key words: cerebral palsy, surgical treatment, level of satisfaction

WSTĘP

Niepostępujące uszkodzenie centralnego układu nerwowego, prowadzące do zmieniających się wraz z wiekiem zaburzeń czynności ruchowych i postawy ciała oraz innych następstw wad mózgu, znajdujące się we wczesnym stadium rozwoju określają pojęcie mózgowego porażenia dziecięcego (mpd) [1,2].

Różnorodność objawów występujących w przebiegu mózgowego porażenia dziecięcego (mpd) skłania do stosowania pojęcia mózgowych porażen dziecięcych, podkreślając złożony charakter istniejących dysfunkcji narządu ruchu [3]. Występowanie tego zespołu chorobowego ocenia się na 1 do 5 dzieci na 1000 żywo urodzonych, stawiając go na czele głównych przyczyn hospitalizacji na oddziałach ortopedii dziecięcej [4,5,6,7,8,9].

Skomplikowany charakter dysfunkcji narządu ruchu wymusza konieczność stosowania mnogości procedur operacyjnych. Począwszy od wielopoziomowych operacji na tkankach miękkich, poprzez liczne osteotomie korekcyjne, aż do operacji w obrębie kręgosłupa z implantacją pomp administrujących bezpośrednio do przestrzeni podpajęczynówkowej leków – baklofenu [10,11,12]. Planując zabieg operacyjny należy postawić sobie pytanie, do jakich celów służyć będzie choremu dziecku operowana kończyna, zwracając szczególną uwagę na możliwości lokomocyjne dziecka. Prognozowanie możliwości lokomocyjnych powinno wywierać nieodzowny wpływ na planowany sposób leczenia [13].

Wychodząc naprzeciw oczekiwaniom rodziców oraz samych pacjentów nie powinno się roztaczać ulotnych obietnic. Jedynie w pełni wyczerpująca, szczerą rozmowa z opiekunami umożliwi zdobycie zaufania, które jest podstawą prawidłowego, poprawnego leczenia. Dlatego też podjęliśmy się przeprowadzenia ankiety pozwalającej na ocenę zadowolenia z przeprowadzonej procedury leczniczej u dzieci z mpd – wielopoziomowego uwolnienia tkanek miękkich kończyn dolnych.

MATERIAŁ I METODY

W latach 1988-2001 w Klinice Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej Uniwersytetu Medycznego w Łodzi z powodu zaburzeń funkcji kończyn dolnych, powstałych na tle niedowładów spastycznych, w przebiegu mpd leczono operacyjnie ponad 130 dzieci. Na zaproszenie do wzięcia udziału w badaniach kontrolnych pozytywnie odpowiedziało 52 dzieci (27 chłopców i 25 dziewcząt). Ostatecznie materiał badany stanowiło 18 chorych z hemiparezą (32%), 19 z diparezą (36%) i 15 z tetraparezą (29%). Leczenie operacyjne przeprowadzono pomiędzy 2 a 19 rokiem ży-

BACKGROUND

The concept of infantile cerebral palsy (CP) embraces non-progressive damage to the central nervous system at an early stage of its development, which leads to motor and postural disorders that change with age and to some other sequelae of cerebral defects [1,2].

The variety of symptoms in cerebral palsy (CP) points to the advisability of using the term 'cerebral palsies' to underline the complex nature of the associated musculoskeletal dysfunctions [3]. The incidence of CP is estimated at 1 to 5 in 1000 live born infants. This makes CP one of the main causes of hospitalization in paediatric orthopaedic wards [4,5,6,7,8,9].

The complicated nature of the musculoskeletal dysfunctions entails the necessity of employing multiple surgical procedures: starting from multilevel soft tissue operations, to multiple corrective osteotomies, to spinal surgery with implantation of baclofen pumps for subarachnoid administration [10,11,12]. While planning a surgery, one has to answer the question for what purpose the extremity to be operated on will serve the child with CP, with an emphasis on the locomotor skills of the child. Prediction of locomotor skills should be necessarily taken into account during treatment planning [13].

To meet the expectations of the parents and the patients themselves, one should be careful not to make elusive promises. Only a detailed and honest conversation with the parents/guardians can help build trust that is fundamental to an appropriate treatment. Therefore, we carried out a survey to evaluate the level of satisfaction with surgical treatment (multilevel soft tissue release of lower extremities) in CP children.

MATERIAL AND METHODS

Over 130 children were surgically treated for the dysfunctions of lower extremities secondary to spastic paresis in the course of CP in the Department of Orthopaedics and Paediatric Orthopaedics of the Medical University of Łódź between 1988 and 2001. A group of 52 children (27 males and 25 females) agreed to participate in a follow-up examination. Ultimately, the study group was composed of 18 patients with hemiparesis (32%), 19 patients with diparesis (36%) and 15 patients with tetraparesis (29%). Surgical treatment was administered between the

cia (średnio w 7,33 roku życia). W grupie dzieci z hemiparezą średnio w 6,5 roku życia, pomiędzy 2 a 19 rokiem życia, natomiast u dzieci z lokalizacją porażenia o typie diparezy i tetraparezy średnio w 7,7 roku życia, pomiędzy 2 a 17 rokiem życia.

Kontrolne badanie miało miejsce w 2 do 20 lat po zabiegu operacyjnym. Średni okres obserwacji wyniósł 5,6 lat (Tab. 1). W grupie hemiparezy wyniósł 6,1 lat (3-20 lat), natomiast w grupie diparezy i tetraparezy średnio w wieku 5,3 lat po zabiegu operacyjnym (2-14 lat po zabiegu). Wiek w czasie operacji oraz okres obserwacji nie różnicował obu powstałych grup ($p>0,05$).

Podczas badania kontrolnego przeprowadzono subiektywne badanie oceny satysfakcji pacjenta oraz rodzica/opiekuna z przeprowadzonego zabiegu operacyjnego. W trakcie badania dziecka proszono o wypełnienie ankiety oraz udzielenie odpowiedzi na pytania:

- Czy zabieg operacyjny spowodował poprawę, pogorszenie lub nie wpłynął na jakości życia dziecka?
- Czy zabieg operacyjny spowodował poprawę, pogorszenie lub nie wpłynął na pielęgnację dziecka?
- Czy zabieg operacyjny poprawił, pogorszył lub nie miał wpływu na jakość Twojego życia (pytanie dla pacjenta)?
- Czy jeszcze raz zdecydowałbyś się na zabieg operacyjny (pytanie dla pacjenta oraz jego opiekunów)?

ages of 2 and 19 years (mean age of 7.33 years). In the group of children with hemiparesis, the treatment was administered at the mean age of 6.5 years (range 2-19 years), whereas in children with diparesis and tetraparesis the mean age was 7.7 years and the range 2-17 years.

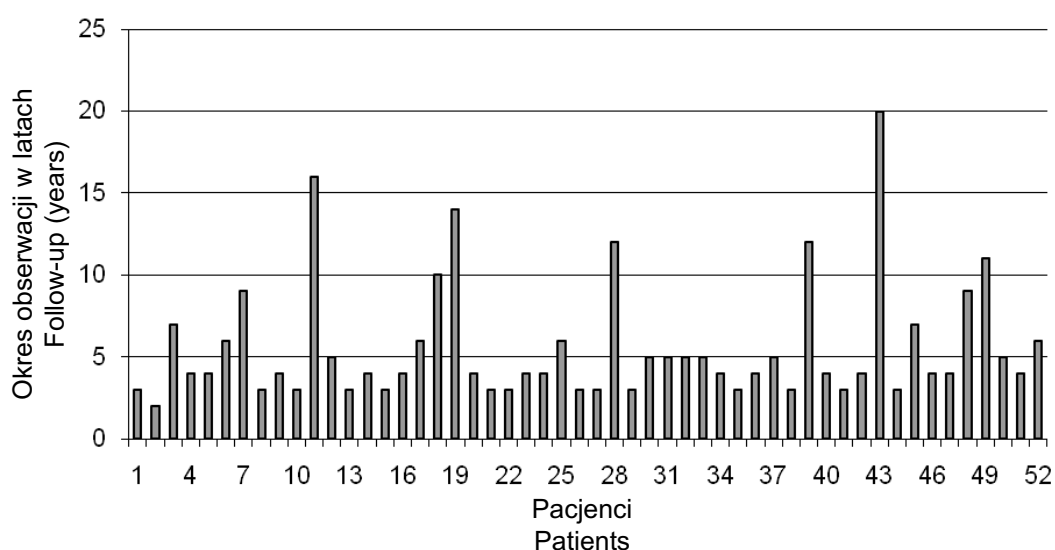
The follow-up examination was conducted after 2 to 20 years following the surgical procedure. The average follow-up duration was 5.6 years (Table 1), averaging at 6.1 years (3-20 years) in the group of children with hemiparesis and 5.3 years (2-14 years) in the groups of children with diparesis and tetraparesis. The age at surgery and the duration of follow-up were not different between the two groups ($p>0.05$).

A subjective evaluation of the level of the satisfaction of the patient and the parent/guardian after the surgical treatment was carried out during the follow-up examination. In the course of the examination, the parents/guardians were asked to fill in a questionnaire and answer the following questions:

- Has the surgical treatment improved, deteriorated, or made no change to the quality of your child's life?
- Has the surgical treatment improved, deteriorated, or made no change to the nursing care of the child?
- Has the surgical treatment improved, deteriorated, or made no change to the quality of your life? (question for the patient)
- Would you decide to have your child undergo the operation again? (question for the patient and the parents/guardians)

Tab. 1. Okres obserwacji

Tab. 1. Duration of follow up



Ograniczenia pracy:

1. Standardem leczenia dzieci z MPD w Klinice Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej jest leczenie operacyjne, co uniemożliwiło stworzenie grupy kontrolnej.
2. Badanie miało charakter retrospektywny, w zebranej dokumentacji nie oceniano chorych według funkcjonalnej skali GMFCS.

WYNIKI

W ocenianej grupie dzieci spośród 52 rodziców, jako poprawę jakości życia dziecka po zabiegu operacyjnym oraz jednocześnie deklarując podjęcie takiej samej decyzji ponownie określiło 43 rodziców, stanowiąc 82,6% ogółu ankietowanych. Pięcioro rodziców stwierdziło, iż zabieg operacyjny nie spowodował istotnych zmian w jakości życia ich dzieci (9,6%), natomiast dwójka (3,8%) pozostałych stwierdziło jego pogorszenie. U dwojga kontrolowanych pacjentów (3,8%) rodzice nie byli obecni podczas badania (pacjenci w chwili kontroli w wieku dojrzałym).

Najczęstsze odpowiedzi w grupie rodziców usatysfakcjonowanych wynikiem operacji: „zaczęła chodzić po zabiegu”, „stoi w parapodium”, „śpi z prostymi nogami”, „dziecko chce stać”, „samodzielnie włącza i wyłącza światło w swoim pokoju”, „utrzymuje równowagę podczas chodu”, „chętnie chodzi”, „chodzi na całych stopach”, „bawi się z rówieśnikami”.

W przypadku pięciorga operowanych dzieci rodzice nie stwierdzili istotnej różnicy pomiędzy okresem przedoperacyjnym, jak i pooperacyjnym. Jednocześnie stwierdzali poprawę przez pewien czas po zabiegu operacyjnym, średnio 2 lata, lecz następnie stopniową „tendencję spadkową”. W dwóch przypadkach rodzice uznali stan dziecka w chwili badania kontrolnego jako pogorszenie. W obu tych przypadkach były to dzieci niechodzące z tetraparezą, nierehabilitowane od czasu opuszczenia szpitala po zabiegu operacyjnym. U dziewięciorga dzieci z tetraparezą rodzice deklarowali znaczną poprawę możliwości pielęgnacyjnych.

36 dzieci (69,2%) – pacjentów uznało znaczną poprawę jakości ich życia po zabiegu operacyjnym, od 14 pacjentów (26,9%) nie było możliwe otrzymanie odpowiedzi z powodu młodego wieku, bądź braku współpracy. Dwoje (3,8%) wskazało, iż zabieg operacyjny nie spowodował istotnych zmian oraz dwoje wskazało (3,8%) na pogorszenie. W pierwszym przypadku brak zdolności chodzenia oraz pionizacji powoduje wystąpienie niezadowolenia z przeprowadzonego zabiegu operacyjnego (dziecko nie chodziło przed zabiegiem), w drugim przypadku pacjent uska-

Limitations of the study:

1. Surgery is the standard treatment administered in CP children in the Department of Orthopaedics and Paediatric Orthopaedics, which made it impossible to form a control group for the study.
2. It was a retrospective study and the data retrieved from patients' records did not involve an evaluation according to the GMFCS functional scoring system.

RESULTS

Of the 52 parents of the children from the study group, 43 reported an improvement of the quality of their children's lives after the surgery and declared that they would take the same decision again, accounting for 82.6% of those questioned. Five parents reported no significant change in the quality of life of their children (9.6%), and two (3.8%) reported a deterioration. The parents of two patients (3.8%) were not present during the examination (these patients had come of age by the time they attended the follow-up examination).

The most frequent answers in the group of parents satisfied with the result of the surgery were: 'the child began to walk after the surgery', 'stands in a parapodium (standing frame)', 'sleeps with the legs straightened', 'wants to stand', 'turns the light on and off in his/her room on his/her own', 'maintains balance while walking', 'walks eagerly', 'walks on his/her whole feet', and 'plays with his/her peers'.

The parents of five children reported no significant difference between the pre- and postoperative period. They unanimously reported an improvement over a certain time after the surgery (2 years on average) that was, however, followed by a gradual 'downward trend'. In two cases, the parents regarded the condition of their children on the day of the follow-up examination as a deterioration. Both patients were tetraparetic children who did not walk and had not undergone rehabilitation since leaving hospital after the surgery. The parents of nine tetraparetic children reported a significant improvement of nursing care possibilities.

Thirty-six children (69.2% of the patients) reported a significant improvement of the quality of their lives after the surgery. It was impossible to obtain any answers from 14 patients (26.9%) because of their young age or lack of cooperation. Two patients (3.8%) claimed that the surgical procedure had not brought any significant change and the last two patients (3.8%) reported a deterioration. In the first case, the inability to ambulate and assume a standing position was the cause of dissatisfaction with the

rzał się na zbyt mały zakres ruchu odwiedzenia w operowanym stawie biodrowym.

DYSKUSJA

Podstawę do interpretacji wyników leczenia operacyjnego pacjentów z mózgowym porażeniem dziecięcym oraz właściwego zrozumienia przebiegu choroby stwarza fakt, iż narastające deformacje w obrębie układu narządu ruchu oraz zaburzenia w zdolnościach chodu następują stopniowo w trakcie rozwoju i wzrastania dziecka [14,15]. Podstawowym celem w leczeniu dysfunkcji kończyn dolnych w przebiegu spastyczności powinna stać się profilaktyka narastania przykurczy. Dobór odpowiedniej dla każdego pacjenta techniki operacyjnej jest bardzo trudnym zadaniem. Zabieg chirurgiczny u dzieci z mózgowym porażeniem niesie za sobą bardzo zróżnicowane i trudne do przewidzenia następstwa [16].

Leczenie operacyjne dzieci z mpd bez wątpienia stwarza nowe warunki dalszego rozwoju dzieci. Zdaniem wielu autorów pozwala na poprawę funkcji oraz jakości życia [11]. Pomimo braku standaryzacji badania dzieci z mpd, należy podejmować próby oceny leczenia operacyjnego oraz dowiedzenia celowości chirurgicznych interwencji.

Użycie ankiety skierowanej do rodziców/opiekunów dzieci z mpd oraz, jeśli było to możliwe, samych pacjentów potwierdziło słuszność podejmowanych decyzji operacyjnych. Celem leczenia jest poprawa jakości życia dziecka, przystosowanie do życia w świecie dorosłych. Opinia samych pacjentów jak i ich opiekunów stanowi więc ważny, jak nie najważniejszy, czynnik decydujący o rodzaju leczenia. W zdecydowanej większości dominowały opinie pozytywne dotyczące leczenia operacyjnego, deklaracje chęci ponownej interwencji chirurgicznej. Brak 100% zadowolenia z leczenia wskazuje na konieczność przeprowadzania wyczerpującej oraz w pełni zrozumiałej rozmowy przed zabiegiem operacyjnym podkreślając, iż leczenie operacyjnie nie wyleczy dziecka z mpd, a jedynie umożliwi poprawę jakości jego życia.

WNIOSEK

Wielopoziomowe uwolnienie tkanek miękkich w leczeniu dzieci z mpd w znaczący sposób poprawia jakość życia, charakteryzujący się wysokim poziomem satysfakcji rodziców.

surgical outcome (the child could not walk before the surgery) and in the second case, the patient complained of a limited range of abduction in the operated hip joint.

DISCUSSION

The interpretation of surgical treatment results in patients with infantile cerebral palsy and proper understanding of the course of disease rely on the observation that increasing musculoskeletal deformities and gait disorders occur gradually as the child develops and grows [14,15]. The main aim of the treatment of lower extremity dysfunctions in spasticity should be to prevent the progression of muscular contractures. The choice of an adequate surgical technique for each patient is a very difficult task. Surgical procedures in CP children entail a range of sequelae that are also difficult to predict [16].

Surgical treatment of children with CP undoubtedly creates new conditions for further development of the children. According to many authors, it helps patients to improve their locomotor skills and the quality of their lives [11]. Despite the lack of standardization of examinations of CP children, attempts to evaluate surgical outcomes and prove the advisability of surgery in this group of patients need to be continued.

The questionnaire, filled by the parents/guardians of children with CP and, if possible, by the patients themselves, confirmed that operative decisions were correct. The aim of the treatment is improvement of the quality of the child's life and helping them adapt for an adult life. The opinion of both patients themselves and their parents/guardians is a crucial, if not the most crucial, factor determining the method of treatment. The vast majority of opinions concerning surgical treatment were positive and many of those questioned declared that they would like to choose surgery again. The lack of 100% satisfaction with the treatment points to the need to have a detailed and fully understandable conversation before the surgery, emphasizing that the surgical procedure will not cure the CP but it will only improve the quality of the child's life.

CONCLUSION

Multilevel soft tissue release in children with CP significantly improved the quality of their lives and was associated with a high level of parents'/guardians' satisfaction.

PISMIENICTWO / REFERENCES

1. Bax MC. Terminology and classification of cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1964; 6: 295-298.
2. Czochońska J. Wczesne rozpoznanie mózgowego porażenia dziecięcego. Możliwości i ograniczenia. *Neur Dziec* 1993; 23: 21-27.
3. Józwiak M. Kompleksowe wielopoziomowe uwolnienie tkanek miękkich w leczeniu dynamicznych i statycznych zniekształceń kończyn dolnych u dzieci z postacią spastyczną porażenia mózgowego. Rozprawa habilitacyjna. Akademia Medyczna w Poznaniu 1999.
4. Gomez AR. Cerebral palsy in 2005. An overview of the current knowledge and medical therapy. Conference book „Controversies in Cerebral Palsy” 24 th EPOS meeting 2005.
5. Józwiak M, Idzior M, Huber J, Szulc A, Grottel K. Podpajęczynówkowe podawanie baklofenu w leczeniu spastyczności u chorych z mózgowym porażeniem dziecięcym – doniesienie wstępne. *Chir Narz Ruchu i Ortop Pol* 2003; 68: 253-259.
6. Karska M, Karski T, Oleszczuk J, Sawulicka – Oleszczuk H. Ogólna informacja o epidemiologii i formach mózgowego porażenia dziecięcego na podstawie materiału Kliniki Położnictwa i Perinatologii, Kliniki Patologii Noworodków i Niemowląt I Kliniki Ortopedii Dziecięcej. *Biblioteka Ortopedii dziecięcej*. 2001: 11-19.
7. Mieszczanek T. Wybrane aspekty epidemiologiczne mózgowego porażenia dziecięcego w populacji dzieci i młodzieży z terenu zachodnio-południowej Polski. *Neur Dziec* 2003; 24: 18-22.
8. Synder M, Słomczykowski M, Grzegorzewski A. Dziecko z porażeniem mózgowym. Edycja Świętego Pawła 2002.
9. Zgorzalewicz B, Mieszczanek T, Zgorzalewicz M. Epidemiologia opisowa mózgowego porażenia dziecięcego. *Ortopedia Traumatologia Rehabilitacja* 2001; 3 (4): 467-471.
10. Borowski A, Shah SA, Littleton AG, Dabney KW, Miller F. Baclofen pump implantation and spinal fusion in children: techniques and complications. *Spine*. 2008 Aug 15; 33 (18): 1995-2000
11. Borowski A, Littleton AG, Borkhuu B, Presedo A, Shah S, Dabney KW, Lyons S, McManus M, Miller F. Complications of intrathecal baclofen pump therapy in pediatric patients. *J Pediatr Orthop*. 2010 Jan-Feb; 30 (1): 76-81.
12. Borowski A, Pruszczyński B, Grzegorzewski A, Synder M. Osteotomia transiliakalna miednicy w leczeniu dziecięcego biodra spastycznego. *Chir Narz Ruchu i Ortop Pol*. 2009 Jan-Feb; 74 (1): 13-7.
13. Józwiak M. Filogenetyczne i ontogenetyczne podstawy rozwoju chodu prawidłowego oraz patologicznego u dziecka z mózgowym porażeniem. *Ortopedia Traumatologia Rehabilitacja* 2001; 3 (4): 462-466.
14. Bell KJ, Ounpuu S, DeLuca PA, Romnes MJ. Natural progression of gait in children with cerebral palsy. *J Pediatr Orthop* 2002; 22: 677-682.
15. Johnson DC, Damiano DL, Abel MF. The evolution of gait in childhood and adolescent cerebral palsy, *J Pediatr Orthop* 1997; 17: 392-396.
16. Fucs PM, Svartman C, Montezuma R, Kertzman PF. Treatment of the painful chronically dislocated and subluxated hip in cerebral palsy with hip arthrodesis. *J Pediatr Orthop* 2003; 23: 529-534.

Liczba słów/Word count: 3319

Tabele/Tables: 1

Ryciny/Figures: 0

Piśmiennictwo/References: 16

Adres do korespondencji / Address for correspondence
lek. med. Andrzej Borowski

Klinika Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej UM w Łodzi
91-002 Łódź, ul. Drewnowska 75, tel. 500-263-972, e-mail: aborowski@xl.wp.pl

Otrzymano / Received 21.04.2010 r.
Zaakceptowano / Accepted 16.07.2010 r.