

## ABSTRACT

Den alment praktiserende tandlæge er sandsynligvis den første sundhedsperson, der står over for udfordringen med at diagnosticere patienter med idiopatiske orofaciale smertetilstande. Disse lidelser er relativt sjældne, og deres ætiologi og patofysiologi er ikke fuldt ud forstået. Den internationale klassificering af orofacial smerte (ICOP) definerer fire idiopatiske orofaciale smertediagnoser: burning mouth syndrome, persisterende idiopatisk ansigtssmerte, persisterende idiopatisk dentoalveolær smerte og konstant unilateral ansigtssmerte med ekstra anfald (CUFPA). Det første trin i håndteringen af disse tilstande er en grundig klinisk undersøgelse for at kunne udelukke andre forårsagende læsioner og ICOP-diagnoser. En tilstrækkelig viden om disse tilstande og en systematisk diagnostisk proces er afgørende for at undgå unødvendige invasive og irreversible behandlinger, der kan forværre symptomerne. Behandlingen er symptomatisk og kan være lokal eller systemisk medicin eller adfærdsmæssige tiltag. Den alment praktiserende tandlæges rolle varierer afhængigt af tilstanden samt klinikerens viden og erfaring; men en indledende undersøgelse og udelukkelse af lokal årsagssygdom bør foretages, før patienten henvises til en specialist. Denne artikel opsummerer de forskellige idiopatiske orofaciale smertetilstande og slutter med et patienttilfælde.

**EMNEORD** Burning mouth syndrome | diagnostics | orofacial pain | pathophysiology | treatment



Korrespondanceansvarlig andenforfatter:

**THOMAS LIST**  
thomas.list@mau.se

## Idiopatisk orofacial smerte

**MOHAMED EL-RUBAIY**, DDS, postgraduate student, Department of Orofacial Pain and Jaw Function, Faculty of Odontology, Malmö University

**THOMAS LIST**, professor and department chair, odont.dr., Department of Orofacial Pain and Jaw Function, Faculty of Odontology, Malmö University

► Accepteret til publikation den 27. september 2021

Tandlægebladet 2021;125:xxx-xxx

**IDIOPATISK OROFACIAL SMERTE** er en samlebetegnelse for en række diagnoser, som ofte giver alment praktiserende tandlæger udfordringer i det daglige arbejde. Tilstandene er relativt sjældne, og differentialdiagnostikken er vanskelig, da en del symptomer er fælles for tilstandene. Patienterne angiver ofte, at smerterne er plagsomme og har en betydelig indvirkning på livskvaliteten. Desuden har patienterne ofte konsulteret flere behandlere, og dette har i nogle tilfælde ført til flere invasive tandbehandlinger og en ond cirkel af besøg hos forskellige sundhedsudbydere. Det fælles træk for diagnoserne er, at årsagen er ukendt. Derfor betragtes diagnoserne ofte som skraldespandsdiagnoser, som kommer i anvendelse, fordi man har måttet udelukke en række andre diagnoser. Det er imidlertid vigtigt at kunne skelne mellem idiopatiske og andre kroniske orofaciale smertetilstande med lignende symptomer (fx trigeminusneuralgi med ledsagende vedvarende smerte, posttraumatisk trigeminal neuropatisk smerte og myofascial smerte), så man som kliniker ikke overser en tilstand, der kan behandles evidensbaseret (1).

Idiopatisk ansigtssmerte er unilateral eller bilateral smerte, som optræder ekstra- eller intraoralt i innervationsområdet for n. trigeminus (Fig. 1). Smerten er som regel konstant, af moderat intensitet, diffust lokaliseret, og karakteren beskrives som trykkende, dump og undertiden brændende. Der ses ingen afvigende fund ved klinisk og radiologisk undersøgelse, og der er ingen somatosensoriske afvigelser i nervesystemet (Tabel 1). Diagnosen er ofte en eksklusionsdiagnose, idet anamnese og kliniske fund ikke passer bedre på nogen anden diagnose, som anført i kriterierne fra International Classification of Orofacial Pain (ICOP) (2).

I ICOP's kriterier for idiopatisk orofacial smerte skelnes der mellem fire undergrupper (Tabel 1): burning mouth syndro-

## FAKTABOKS

### Liste over forkortelser

The International Classification of Orofacial Pain = ICOP

Burning mouth syndrome = BMS

Persistent idiopathic facial pain = PIFP

Persistent idiopathic dentoalveolar pain = PIDAP

Constant unilateral facial pain with additional attacks = CUFPA

Quantitative Sensory Testing = QST

Functional magnetic resonance imaging = fMRI

Cognitive behavioral therapy = CBT

Post-traumatic trigeminal neuropathic pain = PTNP

Temporomandibular disorders = TMD

me (BMS), persistent idiopathic facial pain (PIFP), persistent idiopathic dentoalveolar pain (PIDAP) og constant unilateral facial pain with additional attacks (CUFPA). To af tilstandene har identiske diagnostiske kriterier og patofysiologi, bortset fra, at smerten sidder intraoralt ved den ene tilstand (PIDAP) og ekstraoralt ved den anden (PIFP). De to tilstande vil derfor i det følgende blive beskrevet sammen.

### BURNING MOUTH SYNDROME

#### Diagnostiske kriterier og kliniske karakteristika

I ICOP beskrives BMS som en intraoral dysæstesi eller brændende fornemmelse, der har været mere end to timer pr. dag i mere end tre måneder, uden at der ved klinisk undersøgelse kan påvises nogen læsioner, der kan forklare symptomerne (2). Tilstanden er hyppigt lokaliseret til tungespidsen eller de forreste to tredjedele af tungen. Tungen er hos ca. halvdelen af patienterne med BMS det eneste afficerede område. Andre hyppige lokaliseringer er den anteriore del af ganen og gingiva, mens underlæben og svælget lidt sjældnere rammes. Den brændende fornemmelse er som regel bilateral; unilateral forekomst af BMS ses sjældent. Smerten følger ikke de perifere nervers innerva- ▶

## Diagnostiske kriterier

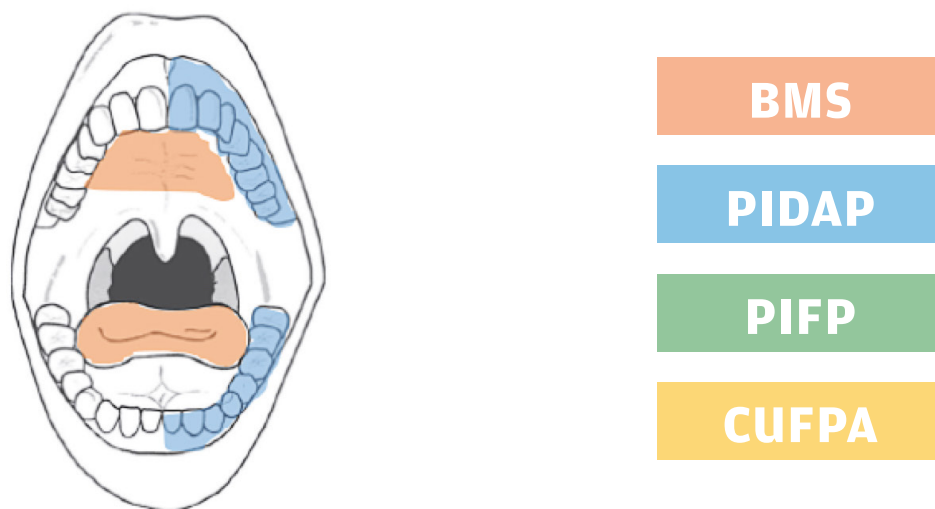
Kriterier	Diagnoser			
	Burning mouth syndrome (BMS)	Persistent idiopathic facial pain (PIFP)	Persistent idiopathic dentoalveolar pain (PIDAP)	Constant unilateral facial pain with additional attacks (CUFPA)
<b>A</b>	Oral smerte opfylder kriterier B og C	Oral smerte opfylder kriterier B og C	Oral smerte opfylder kriterier B og C	Persisterende, unilateral ansigts-smerte opfylder kriterie B, med anfald der opfylder kriterie C
<b>B</b>	Recidiverer dagligt: > 2 timer/dag > 3 måneder	Recidiverer dagligt: > 2 timer/dag > 3 måneder	Recidiverer dagligt: > 2 timer/dag > 3 måneder	Baggrundssmerte, med 1. mild til moderat intensitet 2. recidiverer dagligt > 2 timer/dag > 3 måneder
<b>C</b>	1. smerte af brændende karakter 2. føles superficielt i mundslimhinden	1. smerte vanskeligt lokaliserbar 2. trykkende eller dump smerte	1. lokaliseret til tand eller alveole 2. trykkende eller dump smerte	Anfald optræder som distinkte forværringer, op til seks gange pr. dag: 1. i samme område som baggrundssmerten 2. med moderat til svær intensitet 3. varer 10-30 minutter
<b>D</b>	Mundslimhinden fremtræder med normalt udseende, og lokale eller systemiske årsager kan udelukkes	Normale kliniske og radiologiske fund. Lokale årsager kan udelukkes	Normale kliniske og radiologiske fund. Lokale årsager kan udelukkes	Normale kliniske og radiologiske fund. Lokale årsager kan udelukkes
<b>E</b>	Kan ikke forklares bedre med nogen anden diagnose inden for ICOP eller ICHD-3	Kan ikke forklares bedre med nogen anden diagnose inden for ICOP eller ICHD-3	Kan ikke forklares bedre med nogen anden diagnose inden for ICOP eller ICHD-3	Kan ikke forklares bedre med nogen anden diagnose inden for ICOP eller ICHD-3

\*ICHD, International Classification of Headache Disorders

**Table 1.** Diagnostiske kriterier for idiopatisk orofacial smerte i henhold til International Classification of Orofacial Pain (ICOP).

**Table 1.** Idiopathic orofacial pain diagnostic criteria according to the International Classification of Orofacial Pain (ICOP).

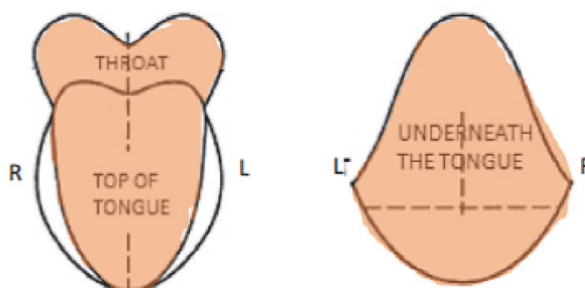
## Lokalisering af smerte



**Mouth and teeth**



**Tongue**



**Fig. 1.** Mest almindelige smertelokaliseringer kategoriseret efter tilstand. BMS = Burning mouth syndrome, PIDAP= Persistent idiopathic dentoalveolar pain, PIFP = Persistent idiopathic facial pain, CUFPA = Constant unilateral facial pain with additional attacks. Copyright INFORM. Tilgængelig fra: URL: <http://www.rdc-tmdinternational.org> Version 12. maj 2013. Der kræves ingen tilladelse til at gengive, oversætte, vise eller distribuere.

**Fig. 1.** Most common pain localizations categorized by condition. BMS = Burning mouth syndrome, PIDAP= Persistent idiopathic dentoalveolar pain, PIFP = Persistent idiopathic facial pain, CUFPA = Constant unilateral facial pain with additional attacks. Copyright INFORM. Available at <http://www.rdc-tmdinternational.org> Version 12 May 2013. No permission required to reproduce, translate, display, or distribute.

tionsområder (3). Smerten beskrives almindeligvis som “brændende” eller “skoldende”; men nogle patienter med BMS bruger betegnelser som “stikkende”, “prikkende” eller “følelsesløs”. Op imod 70 % af patienterne med BMS har xerostomi som ledsagesymptom, og næsten halvdelen har smagsforstyrrelser (4,5).

Hos mere end halvdelen af patienter med BMS opstår smerten spontant. Omkring en tredjedel forbinder smerten med tandbehandling, almensygdom eller ny medicin (4). Typiske forværende faktorer er sur eller krydret mad, stress og træthed (6). Derimod kan kolde drikke og tyggegummi virke lindrende (3).

Somatosensoriske afvigelser som hyper- og hypoæstesi eller hyper- og hypoalgesi forekommer af og til. Dermed falder patienter med BMS i to undergrupper: med og uden somatosensoriske forandringer. Formålet med denne underinddeling er at forbedre mulighederne for at forudsige behandlingsresultatet (2).

Udredningen hos den alment praktiserende tandlæge bør omfatte en grundig anamnese og en klinisk undersøgelse, der kan udelukke slimhindelæsioner som årsag til smerten. En differentialdiagnose udelukker lokale og systemiske tilstande med lignende symptomer, fx undergrupper af smerter fra gingiva og mundslimhinde i ICOP (2). Blandt andre tilstande eller læsioner, der kan forårsage brændende fornemmelse i mundhulen, kan nævnes *Candida*-infektion, oral lichen planus, hyposalivation, kontaktallergi, hypothyroidisme, lægemidler, anæmi, Sjögrens syndrom, vitamin B12-mangel, folinsyremangel og diabetes (7). Den vigtigste forskel på disse tilstande og BMS er, at man opnår smertelindring ved behandling af den underliggende årsag. Det er derfor nødvendigt at kunne udelukke sådanne forhold ved udredningen af BMS. Særligt interesserede læsere kan finde uddybende omtale af differentialdiagnostik og udredning af BMS i reference (9).

### Epidemiologi

Prævalensen af BMS angives meget forskelligt i den videnskabelige litteratur – fra 0,1 % til ca. 17 % (3,7,8). Dette kan bero på mange forhold, fx forskelle i definition af og diagnostiske kriterier for BMS, mindre strikte diagnostiske kriterier i ældre studier og forskellige køns- og aldersfordelinger i de undersøgte populationer.

Der ser også ud til at være forskel i forekomsten i forskellige geografiske områder. I en nyere systematisk oversigt og metaanalyse blev prævalensen af BMS på verdensplan anslået til 1,73 % med højest forekomst (5,58 %) i Europa og lavest (1,05 %) i Asien. Der er også rapporteret højere prævalens blandt personer over 50 år, og forekomsten er tre gange højere blandt kvinder end blandt mænd (8).

### Ætiologi og patofysiologi

BMS blev tidligere betragtet som en psykogen smerte, og man mente, at psykologiske tilstande spillede en væsentlig rolle i ætiologien (9). Denne opfattelse anses nu for forældet, og nyere undersøgelser tyder på, at den psykiatriske komorbiditet hos patienter med BMS skyldes fælles forhold hos disse patientgrupper, fx forandringer i centralnervesystemet eventuelt som følge af smerten, et fænomen der også forekommer ved kroniske smertetilstande (10,11). Igennem de seneste 15

## Klinisk relevans

**Idiopatisk orofaciale smerter kan være en udfordring for både patienter og klinikere. Området er præget af “skralde-spandsdiagnoser” eller eksklusionsdiagnoser, og dette fører ofte til endeløse rækker af undersøgelser hos forskellige klinikere og mange tentative behandlinger, hvoraf en del er invasive og indebærer risiko for endnu flere symptomer. Større forståelse for og kendskab til disse tilstande vil gøre klinikerne bedre rustet til at diagnosticere og behandle patienterne korrekt, inden de eventuelt henvises til en specialist i orofaciale smerter.**

år har psykofysiske, neurofysiologiske og billeddiagnostiske undersøgelser af hjernen givet samstemmende resultater, der tyder på, at neuropatiske mekanismer i form af læsioner eller dysfunktioner på forskellige niveauer i det trigeminale nervesystem kan være årsager til BMS (3,12).

Undersøgelser ved hjælp af Quantitative Sensory Testing (QST) har vist, at patienter med BMS har afvigende mekaniske og termale smertetærskler i tunge- og mundslimhinde sammenlignet med kontrolpersoner, og dette kan tyde på, at neuropati i de små fibre eller central smerte kan være underliggende mekanismer bag BMS. Der er dog ca. 15 % af patienterne med BMS, der ikke udviser somatosensoriske forandringer under QST (3,10). Nogle patienter med BMS har afvigende blinkerefleks, hvilket kan tyde på perifer eller central neuropatisk smerte (1,3).

Patienter med BMS klager ofte over smagsforstyrrelser (dysgeusi), og tungen er det hyppigste sæde for smerten. Flere undersøgelser har derfor inddraget elektrogustatoriske tests til måling af tærskelværdier for elektrisk stimulation, smag og berøring af tungen. Undersøgelserne har påvist sensoriske og gustatoriske afvigelser, der kunne tolkes som dysfunktion af chorda tympani (13).

Neuropatologiske undersøgelser af biopsier fra tungeslimhinden har hos patienter med BMS påvist nedsat nervefibertæthed både i og under epitelet samt diffuse morfologiske forandringer, der kan være udtryk for degeneration. Disse fund tyder på, at ætiologien ved BMS i nogle tilfælde kan hænge sammen med neuropati i de små nervefibre (1,12).

Billeddiagnostiske studier af hjernevæv har påvist forandringer i centralnervesystemet. Flere undersøgelser har ved hjælp af functional magnetic resonance imaging (fMRI) påvist nedsat aktivitet i flere af hjernens områder, især i thalamus, hos patienter med BMS. Disse fund tyder på, at centrale mekanismer spiller en væsentlig rolle ved udvikling af BMS, og dette underbygges yderligere af undersøgelser, der viser, at kun halvdelen af patienterne med BMS opnår smertelindring ved blokade af nervus lingualis (3).

Kort sagt har den nyere videnskabelige litteratur påvist forandringer på forskellige niveauer i det somatosensoriske system, hvilket tyder på en neuropatisk ætiologi og patofysiologi hos de fleste patienter med BMS. ▶

## Behandling og prognose

Når patienter konsulterer deres tandlæge på grund af symptomer som brændende smerte eller fornemmelse i mundhulen, er det essentielt at foretage en grundig klinisk undersøgelse og relevante tests med henblik på at kunne udelukke forekomst af læsioner, der kan give anledning til lignende symptomer (Tabel 2). Anamnesen skal indeholde oplysninger om smertens debut, intensitet og anfaldshyppighed, forværende og lindrende faktorer, samt hvilke konsekvenser smerten har for patienten. Endvidere skal der nedfældes information om patientens sygdomme, lægemiddelforbrug og allergier samt udfaldet af eventuelle tidligere undersøgelser og behandlinger af problemet. En grundig anamnese er samtidig en god anledning til at opbygge god kommunikation mellem tandlæge og patient, og dette er af afgørende betydning i forbindelse med BMS og andre idiopatiske ansigtssmerter, da patienterne som regel har konsulteret mange forskellige behandlere. En stor del af disse patienter føler derfor, at de ikke bliver hørt og deres klager ikke taget alvorligt. Dette kan man undgå ved at give patienterne opmærksomhed og god tid til at beskrive deres symptomer.

## Klinisk undersøgelse

Lokalisering:	Ekstraoralt	Intraoralt - Tænder	Intraoralt - Blødtvæv
Undersøgelse/anatomisk struktur	Muskler	Caries/frakturer	Læsioner?
	TMJ	Fyldninger/Kroner	Fugtighed af slimhinden?
	Kæbebevægelser	Perkussionsømhed	Spytkirtler: a. Udførselsgange b. Objektiv tørhed
	Spytkirtler	Ømhed for tryk ud for apex	Tunge: a. Udseende b. Farve c. Papiller
	Lymfeknuder	Bidprovokation (Fracfinder)	
	Somatosensorisk undersøgelse: - Berøring - Kulde - Nålestik	Vitalitetstest (kulde, elektrometrisk)	Somatosensorisk undersøgelse: - Berøring - Kulde - Nålestik
		Parodontalstatus	
		Okklusion	
		Proteser/apparatur	

**Table 2.** Kliniske undersøgelsesprocedurer ved differentialdiagnostik af idiopatiske orofaciale smerter.

**Table 2.** Clinical examination procedures in the differential diagnosis of idiopathic orofacial pain conditions.

Den kliniske undersøgelse bør begynde med en ekstraoral undersøgelse af kæbeled, muskler, lymfeknuder og spytkirtler (Tabel 2). Dernæst en intraoral undersøgelse med screening af alle bløde væv, inklusive tungen (farve, udseende, impressioner og papiller) og spytkirtlerne (udførselsgange, tegn på hyposalivation). Endvidere bør tænderne undersøges for skarpe kanter, tandslid, ru restaureringer og amalgamfyldninger eller metalkroner i relation til de smertende områder. Endelig bør der foretages en parodontalundersøgelse, skrab til påvisning af *Candida* samt måling af spytkretionshastigheden (7).

Hvis disse undersøgelser ikke resulterer i påvisning af noget patologisk, kan man gå videre med blodprøver og eventuelt allergitest; men på dette tidspunkt bør man som alment praktiserende tandlæge henvise patienten til videre udredning hos en specialist i oral medicin eller orofacial smerte. Hæmatologiske undersøgelser bør ifølge Currie et al. (2021) fokusere på mangeltilstande, autoimmune sygdomme, thyroideafunktion og diabetes (7).

Behandlingen af BMS er rettet mod symptomerne og falder i tre hovedkategorier: lokalbehandling, systemisk behandling og adfærdsbehandling. Clonazepam er et benzodiazepin, som ofte appliceres lokalt (3,14), og der er god evidens for en bedre smertelindrende effekt end placebo hos patienter med BMS (15,16). Der mangler dog dokumentation for langtidseffekt og eventuelle bivirkninger. Et andet hyppigt anvendt stof til lokal applikation er capsaicin, som er den aktive substans, der giver chilipeber den karakteristiske stærke og brændende smag. Capsaicin aktiverer de varmefølsomme ionkanaler, der er ansvarlige for den brændende fornemmelse; men når capsaicin appliceres på mundslimhinden, øger stoffet først den brændende fornemmelse for derefter at fremkalde smertelindring via deaktivering af neuroner og hæmning af nociceptive signaler (17). Capsaicin kan administreres som mundskyllevæske eller som creme eller gel i en skinne (neurostent), hvis dette er muligt i forhold til det smertevoldende område. Behandlingseffekten af capsaicin er ikke så veldokumenteret som for clonazepam; men der er påvist en vis signifikant smertereduktion sammenlignet med placebo (15).

Hvis lokalbehandling ikke afhjælper problemet, må man formode, at der er centrale smertemekanismer i spil, og overveje systemiske behandlingsmuligheder som antiepileptika (gabapentin eller pregabalin) eller antidepressiva (3).

En anden behandlingsform, der bør overvejes for patienter med BMS, er kognitiv adfærdsmæssig terapi (CBT). Der er studier, som tyder på, at patienter med BMS opnår signifikant smertereduktion efter CBT. Behandlingen er noninvasiv, den forbedrer patientens evne til at håndtere smerte (coping), og den modificerer kognitive forvrængninger som negative tanker, forestillinger og holdninger (18).

## PERSISTERENDE IDIOPATISK ANSICHTSMERTE OG PERSISTERENDE IDIOPATISK DENTOALVEOLAR SMERTE Diagnostiske kriterier og kliniske karakteristika

I ICOP beskrives PIFP som persistent smerte med varierende karakteristika, der har varet mere end to timer pr. dag i mere end tre måneder (2). Smerten er diffust lokaliseret og kan beskrives som enten dyb eller overfladisk. Smerten følger ikke in-



nervationsområdet for nervus trigeminus, og den kan med tiden brede sig ud over et større område af hovedet og halsen. Smerten beskrives som trykkende eller dump og undertiden som brændende. Kliniske og radiologiske fund er normale, og man kan udelukke lokale årsager. Nogle patienter påpeger et tidsmæssigt sammenfald mellem smertedebut og invasiv kirurgi eller traume i ansigt, kæber, tænder eller gingiva. Den tidsmæssige relation er dog ikke så tydelig som ved post-traumatisk trigeminal neuropatisk smerte (PTNP). Smerten ved PIFP kan ikke henføres til nogen specifik patologisk proces, omend man har mistanke om traumatiske neuropatiske mekanismer. 10 % af patienterne med PIFP udviser også neuropatiske smertekarakteristika (19).

PIDAP er lokaliseret intraoralt, men udviser i øvrigt samme tidsmønstre, kvalitative karakteristika og diagnostiske kriterier som PIFP. Smerten kan ramme en tand eller en ekstraktionsalveole, og den kan bevæge sig fra tand til tand i relation til tandbehandling; men den optræder kun sjældent flere steder på samme tid. Smerten er hyppigst lokaliseret til molarer og præmolarer i overkæben, men kan også ramme inciserne. Patienterne vil ofte angive, at smerten opstod i forbindelse med invasiv tandlægebehandling (20).

De fleste patienter med PIFP og PIDAP oplyser, at de har haft lange perioder med daglige, persisterende kroniske smerter (20,21). Smerternes udbredelse, intensitet og karakter ændres ofte med tiden. I sjældne tilfælde kan nogle patienter med PIFP opleve perioder med smertereduktion eller ligefrem smertefrihed (21). PIFP og PIDAP kan have komorbiditet med andre kroniske orofaciale smertetilstande, hovedpine, udbredt smerte eller irriteret tyktarm (22). Ca. to tredjedele af patienterne med PIDAP har overlappende symptomer på TMD (20), og patienter med PIFP har ofte psykosociale komorbiditeter (23).

Kvantitative somatosensoriske forstyrrelser, hyperæstesi, hypoæstesi, hyperalgesi og hypoalgesi kan forekomme ved begge lidelser, så patienter med PIFP eller PIDAP kan inddeles i to undergrupper: med og uden somatosensoriske forandringer. Patienter, der har haft smerterne i mindre end tre måneder, men i øvrigt har symptomerne på PIFP eller PIDAP, vil sandsynligvis få stillet diagnosen alligevel. Hensigten med at tilføje en akut smertediagnose (< 3 måneder) er at fange patienterne tidligt i forløbet for derigennem at mindske risikoen for, at smerten bliver kronisk.

Tandlægens anamnese skal registrere smertens debut, intensitet, anfaldshyppighed og konsekvenser for patienten. Ekstra- og intraorale undersøgelser skal omfatte tænder og støttevæv: perkussionsømhed, ømhed for tryk ud for apex, ømhed for berøring af kronen, følsomhed for kulde og elektrometrisk påvirkning, provokationstest (bid på cuspides) samt diagnostisk blokade med lokalanalgetika. Den radiologiske undersøgelse af tænder og kæber bør omfatte både panoramaoptagelse og periapikale optagelser og om nødvendigt CBCT. Det er påkrævet at foretage en klinisk undersøgelse af tyggemusklér og kæbeled og en kvalitativ somatosensorisk undersøgelse ekstraoralt ved mistanke om PIFP og intraoralt ved mistanke om PIDAP (Tabel 2).

Vigtige differentialdiagnoser er PTNP, myofascial smerte og trigeminusneuralgi. PIDAP og PIFP adskiller sig især fra PTNP ved at have en uklar tidsmæssig relation til et lokalt traume.

Somatosensoriske forandringer kan optræde, men følger ikke innervationsområdet for nervus trigeminus og kan også forekomme uden for dette. Myofascial smerte er karakteriseret ved forøget smerte under kæbebevægelser og i forbindelse med palpation af tyggemusklérne, mens den primære smerte ved PIFP og PIDAP ikke øges nævneværdigt i disse situationer. Trigeminusneuralgi er almindeligvis karakteriseret ved kortvarige smerteanfald med smertefrie perioder indimellem, hvorimod konstant smerte er karakteristisk for PIFP og PIDAP.

### Epidemiologi

Prævalensen for PIFP er lav; typiske angivelser er på 0,03-1 % (24); men på specialklinikker for orofacial smerte kan patienter med PIFP eller PIDAP udgøre 10-21 % af klientellet (22). Alle køn og voksne aldersgrupper kan rammes, men tilstandene er især udbredt blandt kvinder sidst i 40'erne og først i 50'erne (25).

I en systematisk oversigt angives, at 3,4 % af patienterne klagede over nonodontogene smerter efter endodontisk behandling (26). De fleste af disse kunne formentlig diagnosticeres med PTNP. Hvis smerten ikke er tidsmæssigt relateret til behandlingen, eller hvis den ikke følger innervationsområdet for nervus trigeminus, vil en del af patienterne blive diagnosticeret med PIDAP. Generelt tyder tilgængelige data dog på, at tilstanden er sjælden.

### Ætiologi og patofysiologi

Eftersom patienter med PIFP eller PIDAP ofte angiver, at de har haft et traume, og at de har lette somatosensoriske forandringer, har man foreslået, at PIFP og PTNP kunne udgøre ekstremerne i et spektrum af neuropatiske smertetilstande (22,25). Dette understøttes af, at studier ved hjælp af QST har påvist, at nogle patienter med PIFP/PIDAP faktisk har somatosensoriske afvigelser (27,28). Andre studier har fundet ændret blinkerefleks eller forandret smertemodulering i centralnervesystemet hos disse patienter (29,30). I en dobbeltblind undersøgelse fandt man, at perifer blokade med lokalanalgetikum medførte smertelindring hos ca. halvdelen af patienterne med PIDAP, hvilket tyder på, at deres smerte ikke udelukkende afhænger af perifer input, men at sensibilisering af neuroner på et højere niveau kan være involveret (31). Et alternativt bud på patofysiologien ved PIFP og PIDAP er svækket central inhibition med nociplastisk smerte, der hænger sammen med forandringer i det modulerende, smertehæmmende system. Overordnet set er den patologiske baggrund uafklaret; men der er god dokumentation for, at nervesystemet udviser forøget neuron-excitabilitet (22).

Det er typisk for patienter med PIFP og PIDAP, at de har psykosocial komorbiditet (20), og derfor mente man tidligere, at PIFP/PIDAP udsprang af en sindslidelse (25,32). Nyere undersøgelser tyder imidlertid på, at den psykosociale komorbiditet ikke er anderledes end ved andre kroniske smertetilstande (23), hvor smerten som regel viser sig inden den psykosociale komorbiditet. Fx er angst eller depression en følge af smerte, ikke omvendt. Patienter angiver ofte, at ansigtssmerte er mere personlig end andre smerter. En forklaring herpå kan være, at der er en tæt forbindelse mellem ansigt og følelser, fordi ansigtet ofte afslører følelserne. ▶

## Behandling og prognose

For den alment praktiserende tandlæge er første trin i behandlingen af disse patienter at udelukke andre odontologiske tilstande eller ICOP-diagnoser gennem grundig klinisk undersøgelse og relevante supplerende tests (Tabel 2). I mange tilfælde har patienten allerede konsulteret flere behandlere og fået flere irreversible behandlinger som fx tandekstraktioner ved PIDAP eller neurokirurgiske indgreb ved PIFP. Mange patienter er overbeviste om, at deres smerte skyldes infektion eller inflammation i tanden eller støttevævet, og at utilstrækkelig diagnostik er årsagen til, at smerten er blevet kronisk. Man kan derfor ikke kraftigt nok understrege betydningen af en god relation mellem patient og behandler og effektiv kommunikation i de tidlige stadier af ansigtssmerter, da disse forhold kan bremse udviklingen af langvarige problemer. Tandlægen skal være opmærksom på, at den bedste måde at hjælpe patienterne til at undgå unødvendig behandlershopping og uvirksomme invasive indgreb kan være at tage patienternes bekymringer alvorligt, lytte til deres forestillinger om smertens årsag og informere dem om årsagsforholdene ved smerte (33).

Påvisning af somatosensoriske forandringer kan være et godt pædagogisk redskab til at vise patienten, at smerten skyldes en dårlig tand, men en forøget excitabilitet i nervesystemet. Kun ca. halvdelen af patienterne med PIFP eller PIDAP opnår væsentlig smertereduktion ved diagnostisk nerveblokade (31), og dette kan også hjælpe med til at forklare patienten, at årsagen til smerten ikke skal søges i en sygdom i tanden. En sådan forklaringsmodel kan også gøre det klart for patienten, at det ikke giver mening at fortsætte med invasive indgreb i tænderne. Derefter bør patienten henvises til et orofacialt smerterecenter for videre udredning og behandling.

Opgaven for den orofaciale smertespecialist er at udelukke alle andre relevante ICOP-diagnoser. Patienterne har ofte subjektive og objektive symptomer, der overlapper med PTNP, og hvis PIFP og PIDAP ellers er smertevoldende neuropatier, må en tilsvarende konserverende behandlingsstrategi indtil videre være at foretrække.

Der findes ingen systematiske, longitudinelle epidemiologiske undersøgelser af PIFP og PIDAP, så vi ved ikke, om tilstandene er livsvarige. En undersøgelse med syv års observationstid på PIDAP angav, at 35 % af patienterne oplevede en klar bedring, men dog stadig havde smerter i et vist omfang selv efter mange år (34). Mange patienter med PIDAP får det bedre med tiden; men tilstanden synes at persistere og at være behandlingsresistent. Forbedringer kan være et udtryk for, at man med tiden lærer at affinde sig med tingenes tilstand.

Der findes meget lidt videnskabelig dokumentation for effekt af behandling ved PIFP/PIDAP (22). Nogle studier har vist, at lokalbehandling med capsaicin eller et lokalanalgetikum i gelform kan give en vis smertelindring hos nogle patienter (35). Capsaicin- eller lidocaingel administreres til det smertende område i en skinne (neurostent). Der er ikke beskrevet væsentlige bivirkninger ved denne procedure. Behandling af PIFP og PIDAP er flerstrengt med anbefaling af lægemidler (antidepressiva og antiepileptika), CBT, fysioterapi og sensorisk stimulation (22). Der er kun svag evidens for kirurgisk

behandling. Sandsynligvis vil gentagne operationer kun forøge hyperexcitabiliteten i området, og de må derfor frarådes.

## KONSTANT UNILATERAL ANSIGTSSMERTE MED EKSTRA ANFALD

### Diagnostiske kriterier og kliniske karakteristika

I ICOP beskrives CUFPA som en kontinuerlig, dump, unilateral ansigtssmerte med let til moderat intensitet, som har varet i mere end tre måneder og ledsages af distinkte smerteanfald af moderat til stærk intensitet i samme område; disse anfald varer 10-30 minutter og forekommer op til seks gange pr. dag. Alle lokale årsager skal kunne udelukkes, og kliniske og radiologiske fund skal være normale. Hverken den kontinuerlige smerte eller anfaldene udviser autonome eller migrænerelaterede symptomer (2). I de fleste tilfælde optræder anfaldene spontant; men hos nogle patienter kan de udløses af faktorer som fx tygning eller varme drikke (36).

Differentialdiagnoserne er bl.a. kronisk paroxysmal hemikrani og PIFP. Hvis der er positivt respons på behandling med indomethacin, tyder det på diagnosen kronisk paroxysmal hemikrani (2).

### Epidemiologi

Man ved meget lidt om CUFPA; men tilstanden menes at være ekstremt sjælden. I et retrospektivt studie af 2.912 patienter, som søgte behandling på en klinik for hovedpine og ansigtssmerte, fandt man kun seks tilfælde af CUFPA (36).

### Ætiologi og patofysiologi

Patofysiologien ved CUFPA er meget dårligt belyst. I det ovennævnte retrospektive studie (36) var der fire ud af de seks patienter med CUFPA, som havde traumeanamnese, og hos to af dem var traumet sket kort før smertedebuten. Dette kunne pege i retning af en neuropatisk ætiologi; men indtil videre er der ingen somatosensoriske data, der kan understøtte denne hypotese.

### Behandling og prognose

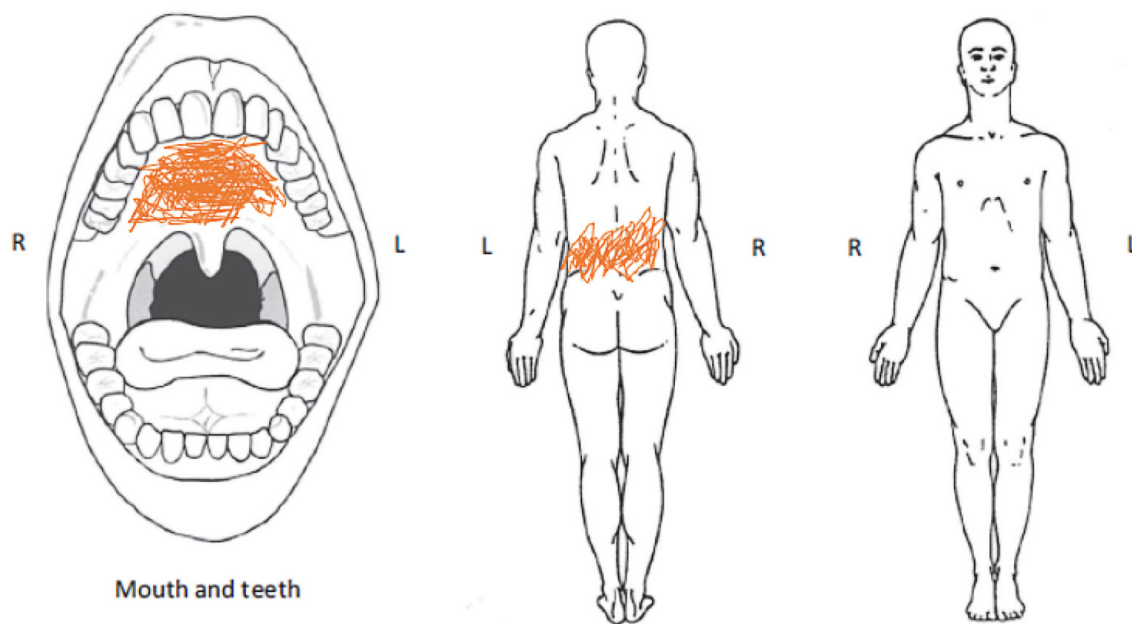
Det er vigtigt, at den alment praktiserende tandlæge starter udredningen med en grundig undersøgelse med henblik på at udelukke lokale årsagsfaktorer. Undersøgelse af kæbeled, tyggemuskel, lymfeknuder og andre ekstraorale væv efterfølges af intraoral undersøgelse af tænder, parodontier og slimhinder. Herefter bør patienten henvises til en specialist i orofacial smerte, så øvrige ICOP-diagnoser kan udelukkes efter klinisk og radiologisk undersøgelse.

Nogle patienter opnår hel eller delvis smertelindring efter behandling med pregabalin, ibuprofen eller metamizol (36). Dags dato findes der ingen data om langtidsprognosen for CUFPA.

## KONKLUSION

Der er stadig meget, vi ikke ved om idiopatiske orofaciale smertetilstande; men vores viden om og indsigt i tilstandene er vokset betragteligt de seneste 15 år. Efter at disse tilstande er blevet optaget i ICOP, er vi kommet bort fra den antikverede opfattelse, at tilstandene er skraldespandsdiagnoser, og vi kan dermed bedre hjælpe patienter, der lider af idiopatisk orofa-

## Smertetegning



**Fig. 2.** Smertetegning af en 77-årig patient med burning mouth syndrome.  
**Fig. 2.** Pain drawing of a 77-year-old patient with burning mouth syndrome.

cial smerte. Tandlæger har en nøglerolle med at identificere og diagnosticere disse patienter korrekt, så man undgår invasive behandlinger, der kun tjener til at forøge patienternes lidelser.

### PATIENTTILFÆLDE

#### Patienten

En 77-årig kvinde er af sin tandlæge henvist til specialist i orofaciale smerter på grund af brændende fornemmelse i ganen. Tilstanden debuterede i 2015 og har været i seks år.

#### Sygdomme

Hjertestop i 2015, få uger før debut af den brændende fornemmelse i munden. Hiatus hernia. Kroniske rygsmarter. Regelmæssig kontrol hos egen læge.

#### Lægemidler

Metoprolol, Trombyl, Ezetimibe og Rosuvastatin mod hjertekar-sygdomme Omeprazol mod hiatus hernia.

#### Psykosocial anamnese

Pensionist, gift, har fire voksne børn, tre børnebørn og et oldebarn. Patienten gennemlever en psykologisk svær periode på grund af ægtefællens demens og deraf følgende kognitiv deroute. Hun overvejer at søge professional hjælp på grund af den psykosociale situation.

#### Symptomer

Brændende smerte bilateralt i ganen (Fig. 2). Smerteintensiteten er stærk (7 på en skala fra 0-10). Smerten er konstant, selv under søvn, og patienten vågner flere gange i løbet af natten på grund af smerte. Smerten ledsages af en ru fornemmelse i ganen samt xerostomi. Tilstanden forværres ved indtagelse af grove fødevarer som fx svensk knækbrød, men kan lindres af tyggegummi, kolde drikke og vin samt ved anbringelse af honning i ganen. Egen tandlæge og specialist i oral medicin har udelukket lokale årsager. Blod- og spytpøver samt kliniske og laboratoriemæssige tests er normale.

#### Ekstraoral status

Ingen asymmetrier. Normale somatosensoriske fund. Normale kæbebevægelser uden smerte. Ingen muskelsmerter ved palpation eller bevægelse. Ingen smerter fra kæbeled.

#### Intraoral status

Tænder, parodontier og slimhinder i.a. Ingen tegn på para-funktion af tungen. Diagnostisk test med lokal applikation af analgetikum (EMLA creme) medfører 50 % smertereduktion efter fem minutter.

#### Diagnose

Burning mouth syndrome. ▶



**Sammenfatning**

Anamnese og klinik tyder på burning mouth syndrome. Der er tegn på perifer sensibilisering. Patientens psykosociale situation er sandsynligvis en medvirkende faktor.

**Behandlingsplan og behandlingsmål**

Information med henblik på at berolige, informere og motivere patienten.

Mundskylning med capsaicinopløsning: patienten instrueres i at skylle munden i tre minutter fire gange daglig med to dråber tabasco opløst i en spiseskefuld vand. Patienten øger gradvist antallet af dråber, indtil der opnås en sufficient, men samtidig tålelig koncentration af tabasco. Behandlingen evalueres efter en måned.

**Behandlingsresultat**

Efter en måneds behandling med capsaicinskylning oplyste patienten, at symptomerne var reduceret betydeligt. Patienten endte med en dosering på seks dråber i en spiseskefuld vand. Umiddelbart efter skylningen var hun fuldstændig symptomfri i to timer, hvorefter smerten langsomt og gradvist tog til. Patientens nattesøvn forbedredes også markant, idet hun for første gang siden 2015 kunne sove uafbrudt en hel nat igennem.

**Prognose og opfølgning**

Langtidsprognosen for smertelindring skulle være god; men det er vanskeligt at afgøre, om patientens forbedrede tilstand vil vare ved, når behandlingen udfases.

Der er aftalt kontrol og evaluering om tre måneder. ♦

**ABSTRACT (ENGLISH)****IDIOPATHIC OROFACIAL PAIN**

The general dentist is likely to be the first health care professional to face the challenge of diagnosing patients with idiopathic orofacial conditions. These conditions are relatively rare, and their etiology and pathophysiology are not fully understood. The International Classification of Orofacial Pain (ICOP) defines four idiopathic orofacial pain diagnoses: burning mouth syndrome, persistent idiopathic facial pain, persistent idiopathic dentoalveolar pain, and persistent unilateral facial pain with additional attacks. The first step in the management of these conditions is a thorough clinical examination to ex-

clude other causative lesions and ICOP diagnoses. An adequate knowledge of these conditions and a systematic diagnostic process are essential for avoiding unnecessary invasive and irreversible treatments that may exacerbate symptoms. Treatment is symptomatic and can be topical or systemic medication, or behavioral approaches. The role of the general dentist varies according to the condition, clinician knowledge, and experience, but an initial examination and exclusion of local causative pathology should be done before the patient is referred to a specialist. This article summarizes the various idiopathic orofacial pain conditions and concludes with a brief clinical case.

**LITTERATUR**

1. Forssell H, Jääskeläinen S, List T et al. An update on pathophysiological mechanisms related to idiopathic oro-facial pain conditions with implications for management. *J Oral Rehabil* 2015;42:300-22.
2. INTERNATIONAL CLASSIFICATION OF OROFACIAL PAIN. 1st ed. (ICOP). Cephalalgia 2020;40:129-221.
3. Jääskeläinen SK, Woda A. Burning mouth syndrome. *Cephalalgia* 2017;37:627-47.
4. Grushka M, Epstein JB, Gorsky M. Burning mouth syndrome. *Am Fam Physician* 2002;65:615-20.
5. Acharya S, Carlén A, Wenneberg B et al. Clinical characterization of women with burning mouth syndrome in a case-control study. *Acta Odontol Scand* 2018;76:279-86.
6. Forssell H, Teerijoki-Oksa T, Kotiranta U et al. Pain and pain behavior in burning mouth syndrome: a pain diary study. *J Orofac Pain* 2012;26:117-25.
7. Currie CC, Ohrbach R, De Leeuw R et al. Developing a research diagnostic criteria for burning mouth syndrome: Results from an international Delphi process. *J Oral Rehabil* 2021;48:308-31.
8. Wu S, Zhang W, Yan J et al. Worldwide prevalence estimates of burning mouth syndrome: A systematic review and meta-analysis. *Oral Diseases* 2021;doi: 10.1177/00220345940730021301 [Online ahead of press].
9. Eli I, Kleinhauz M, Baht R et al. Antecedents of burning mouth syndrome (glossodynia) – recent life events vs. psychopathologic aspects. *J Dent Res* 1994;73:567-72.
10. Jääskeläinen SK. Pathophysiology of primary burning mouth syndrome. *Clin Neurophysiol* 2012;123:71-7.
11. Dersh J, Polatin PB, Gatchel RJ. Chronic pain and psychopathology: research findings and theoretical considerations. *Psychosom Med* 2002;64:773-86.
12. Jääskeläinen SK. Is burning mouth syndrome a neuropathic pain condition? *Pain* 2018;159:610-3.
13. Kolkka-Palomaa M, Jääskeläinen SK, Laine MA et al. Pathophysiology of primary burning mouth syndrome with special focus on taste dysfunction: a review. *Oral Dis* 2015;21:937-48.
14. McMillan R, Forssell H, Buchanan JA et al. Interventions for treating burning mouth syndrome. *Cochrane Database Syst Rev* 2016;11:CD002779.
15. Häggman-Henrikson B, Alstergren P, Davidson T et al. Pharmacological treatment of oro-facial pain – health technology assessment including a systematic review with network meta-analysis. *J Oral Rehabil* 2017;44:800-26.
16. Cui Y, Xu H, Chen FM et al. Efficacy evaluation of clonazepam for symptom remission in burning mouth syndrome: a meta-analysis. *Oral Dis* 2016;22:503-11.

17. de Moraes M, do Amaral Bezerra BA, da Rocha Neto PC et al. Randomized trials for the treatment of burning mouth syndrome: an evidence-based review of the literature. *J Oral Pathol Med* 2012;41:281-7.
18. Bergdahl J, Anneroth G, Perris H. Cognitive therapy in the treatment of patients with resistant burning mouth syndrome: a controlled study. *J Oral Pathol Med* 1995;24:213-5.
19. Sukenaga N, Matsuki Y, Maeda L et al. Neuropathic characteristics in patients with persistent idiopathic facial pain. *J Pain Res* 2019;12:2801-5.
20. List T, Leijon G, Helkimo M et al. Clinical findings and psychosocial factors in patients with atypical odontalgia: a case-control study. *J Orofac Pain* 2007;21:89-98.
21. Maarbjerg S, Wolfram F, Heinskou TB et al. Persistent idiopathic facial pain – a prospective systematic study of clinical characteristics and neuroanatomical findings at 3.0 Tesla MRI. *Cephalalgia* 2017;37:123-40.
22. Benoliel R, Gaul C. Persistent idiopathic facial pain. *Cephalalgia* 2017;37:680-91.
23. Baad-Hansen L, Leijon G, Svensson P et al. Comparison of clinical findings and psychosocial factors in patients with atypical odontalgia and temporomandibular disorders. *J Orofac Pain* 2008;22:7-14.
24. Clarkson E, Jung E. Atypical facial pain. *Dent Clin North Am* 2020;64:249-53.
25. Baad-Hansen L. Atypical odontalgia – pathophysiology and clinical management. *J Oral Rehabil* 2008;35:1-11.
26. Nixdorf DR, Moana-Filho EJ, Law AS et al. Frequency of nonodontogenic pain after endodontic therapy: a systematic review and meta-analysis. *J Endod* 2010;36:1494-8.
27. Baad-Hansen L, Pigg M, Ivanovic SE et al. Intraoral somatosensory abnormalities in patients with atypical odontalgia – a controlled multicenter quantitative sensory testing study. *Pain* 2013;154:1287-94.
28. Siqueira SR, Siviero M, Alvarez FK et al. Quantitative sensory testing in trigeminal traumatic neuropathic pain and persistent idiopathic facial pain. *Arq Neuropsiquiatr* 2013;71:174-9.
29. Baad-Hansen L, List T, Kaube H et al. Blink reflexes in patients with atypical odontalgia and matched healthy controls. *Exp Brain Res* 2006;172:498-506.
30. Jääskeläinen SK, Forssell H, Tenovu O. Electrophysiological testing of the trigeminofacial system: aid in the diagnosis of atypical facial pain. *Pain* 1999;80:191-200.
31. List T, Leijon G, Helkimo M et al. Effect of local anesthesia on atypical odontalgia – a randomized controlled trial. *Pain* 2006;122:306-14.
32. Zakrzewska JM, Jensen TS. History of facial pain diagnosis. *Cephalalgia* 2017;37:604-8.
33. Hassona Y, El-Ma'aaita A, Amarin J et al. Diagnostic delay and suboptimal management in persistent idiopathic facial pain and persistent dentoalveolar pain; a cross-sectional study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2019;127:498-503.
34. Pigg M, Svensson P, Drangsholt M et al. Seven-year follow-up of patients diagnosed with atypical odontalgia: a prospective study. *J Orofac Pain* 2013;27:151-64.
35. Vickers ER, Cousins MJ, Walker S et al. Analysis of 50 patients with atypical odontalgia. A preliminary report on pharmacological procedures for diagnosis and treatment. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1998;85:24-32.
36. Ziegeler C, May A. Facial presentations of migraine, TACs, and other paroxysmal facial pain syndromes. *Neurology* 2019;93:e1138-47.