

ABSTRACT

Tanddannelsesforstyrrelser og tandsundhed hos børn med læbe-gane-spalte

Læbe-gane-spalte (LGS) er med en forekomst på 1:500 nyfødte den hyppigst forekommende ansigtsmisdannelse i Danmark. Danmark har verdens ældste centraliserede og standardiserede gratis behandlingssystem for LGS-patienter, hvilket er udmøntet i, at den specialiserede behandling og kirurgi planlægges og udføres på de to læbe-gane-spalte-centre og de relaterede universitetshospitaler. Dette betyder høj ensartet behandlingskvalitet og unikke forskningsmuligheder inden for området. LGS klassificeres i undergrupper relateret til deres oprindelse og placering (fx isoleret læbespalte, isoleret ganespalte, kombineret læbe-gane-spalte). I artiklen beskrives og diskuteres tanddannelsesforstyrrelser samt tandsundheden hos individer med LGS.

Tanddannelsesforstyrrelser og tandsundhed hos børn med læbe-gane-spalte

Nuno Vibe Hermann, lektor, ph.d., dr.odont., Pædagogik og Klinisk Genetik, Sektion 2, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet

Accepteret til publikation den 26. februar 2016

Læbe-gane-spalte (LGS) er med en forekomst i den danske befolkning på 0,02 % (1:500) af alle nyfødte den hyppigst forekommende medfødte ansigtsmisdannelse (1,2). LGS kan ud over at give kosmetiske problemer have stor indflydelse på det ramte individs evne til at indtage føde og tale, og det er derfor vigtigt, at den normale anatomi i området rekonstrueres så vidt muligt (2).

Danmark er det land i verden, hvor behandlingen af LGS længst har været såvel gratis som standardiseret og centraliseret. Det betyder, at al tandbehandling af patienten, som er relateret til spalteområdet (også indsættelse af fx tanderstatning i spalteområder), foretages på et af landets to læbe-gane-spalte-centre. Sideløbende følges patienten hos egen tandlæge, som varetager almindeligt tandeftersyn og vedligeholdelse, herunder fx mundhygiejnekontrol og cariesterapi. Dette har ført til en høj ensartet behandlingskvalitet og pålidelig registrering af alle individer født med en spaltemisdannelse. Da den danske befolkning yderligere stadig er meget genetisk homogen, gør alle disse faktorer i kombination Danmark til et af de mest velgennede steder i verden at forske indenfor området (2).

I denne artikel opridses de overordnede principper for læbe-gane-spalte-behandlingen i Danmark samt viden omkring tandudvikling og tandsundhed hos børn med LGS. Artiklen er baseret på et udvalg af engelsksproget international litteratur inden for emnet.

Klassifikation og ætiologi

LGS klassificeres i henhold til deres oprindelse og deraf følgende placering. Således kategoriseres ca. 1/3 af tilfældene som isoleret læbespalte (26 % unilateral, 2 % bilateral),

EMNEORD

Cleft lip-palate; congenital abnormalities; tooth abnormalities; dental care



Henvendelse til forfatter:

Nuno Vibe Hermann, email: nuno@sund.ku.dk

Forskellige udtryk af læbe-gane-spalte



Fig. 1. Eksempler på forskellige udtryk af LGS. **A.** Enkeltstående inkomplet læbespalte, **B.** Enkeltstående komplet læbeganespalte og **C.** Dobbeltstående komplet læbeganespalte.

Fig. 1. Different expressions of cleft lip and palate. **A.** Unilateral Incomplete Cleft Lip, **B.** Unilateral Complete Cleft Lip and Palate, and **C.** Bilateral Complete Cleft Lip and Palate.

39 % er både læbe- og ganespalte (26 % unilateral, 13 % bilateral), og 33 % er isoleret ganespalte (3). Fig. 1 illustrerer eksempler på forskellige spaltetyper.

LGS kan også optræde som led i en syndrom-/kromosomafvigelse fx trisomi 13, 18 og 21 (syndromal LGS), men den non-syndromale (ikke syndromrelaterede) LGS er langt den hyppigst forekommende (4).

Non-syndromal LGS er regnes for at være af multifaktoriell oprindelse, dvs. både genetiske og miljømæssige faktorer spiller en rolle (5). Men trods omfattende forskning inden for området er det endnu ukendt, hvad eller hvilke(n) faktor(er) der udløser udviklingen af spaltedannelsen hos det enkelte individ (2).

Overordnede principper for læbe-gane-spalte-behandlingen i Danmark

I Danmark er der som ovenfor nævnt lang tradition tilbage til 1930'erne for centraliseret og specialiseret omsorg og behandling af individer født med LGS (Sundhedsloven (LOV nr. 546 af 24/06/2005) (6,7)). Således vil en specialsundhedsplejerske allerede besøge familien inden for 24 timer efter fødslen af et barn med LGS. Under besøget vil specialsundhedsplejersken fortælle forældrene om LGS og besvare de spørgsmål, der måtte melde sig hos barnets forældre samt efterfølgende besøge familien igen med jævne mellemrum for at hjælpe forældrene godt på vej.

Da LGS typisk er en tilstand, som kan betyde såvel æstetiske som funktionelle udfordringer i ansigt, kæber og mundhule, vil familien kort efter fødslen (udover specialsundhedsplejersken) blive kontaktet af det specialteam af plastikkirurger, øre-næsehals-læger, specialtandlæger (ortodonti), talepædagoger og psykologer fra et af de to læbe-gane-spalte-centre i Danmark

(København og Aarhus), som registrerer LGS-patienter, og hvor de individuelle behandlingsforløb, der er relateret til selve spaltetemisdannelsen, planlægges.

Læbe-gane-spalte-centrene er således "tovholdere" på al behandling af spalteområdet, ortodonti, taleundervisning/vurdering/planlægning af operationer osv., og alle patienter indkaldes til rutinemæssig ortodontisk undersøgelse ved tre, fem, otte, 12, 16 og 21 år. Almindelig tandbehandling, som ikke er relateret til spalteområdet, foregår hos egen tandlæge og betales som vanlig af patienten selv fra det 18. år. Der vil som regel efter enhver rutinemæssig undersøgelse i læbe-gane-spaltecenteret være skriftlig kommunikation/orientering tilbage til patientens egen tandlæge.

Antallet af behandlingsforløb (herunder kirurgi), den enkelte patient gennemgår, varierer alt efter omfanget af spalten og succesen af behandlingen, men fælles for alle patienter er, at det første kirurgiske indgreb foretages allerede i spædbarnsalderen, og at patienter herefter fortsat vil have kontakt til specialteamet i barne- og ungdomsårene. Da der er tale om et livslangt behandlingstilbud, betyder systemet desuden, at man selv som voksen kan få foretaget operationer, hvis der er behov herfor.

Tanddannelsesforstyrrelser hos børn med læbe-gane-spalte

Sammenlignet med normalpopulationen har individer med LGS en noget højere prævalens end normalt af dentale afvigelser, herunder variation af antal, form og placering i tandbuen, samt forsinket eruption af incisiver, hjørnetænder og præmolarer (8-10). Afvigelserne er hyppigst lokaliseret til selve spalteområdet, især den laterale incisiv er rapporteret som værende hyppigt afficeret i forbindelse med LGS (8,11,12-14).

Faktaboks

Forhold omkring dentition og mundhygiejne, man især skal være opmærksom på ved LGS

- Undertal/overtal af tandanlæg/tænder
- Manglende/forsinket frembrud af primære inciser/hjørnetænder i maksillen
- Manglende/forsinket frembrud af permanente inciser/hjørnetænder i maksillen
- Mundhygiejne, som kompromitteres af den lokale morfologi i spalteområdet
- Mundhygiejne, som kompromitteres af mundånding
- Mundhygiejne, som kompromitteres af hyppige hospitalindlæggelser, samt primært familiært fokus på andre forhold såsom specialundervisning osv.

Der synes at være en vis sammenhæng mellem graden af LGS og graden af dentale afvigelser, idet der findes flere dentale afvigelser ved bilateral end ved unilateral LGS og ligeledes hyppigere ved komplet end ved inkomplet LGS (8,10).

Den forhøjede frekvens af dentale afvigelser også uden for spalteområdet er i litteraturen forklaret med at være knyttet til de genetiske ætiologiske faktorer, der sandsynligvis også er relateret til selve spaltedannelsen (8-9). Gener som fx MSX1, IRF6, TGFB3, TGFA, PAX9 og FGFR1 er i denne sammenhæng blevet foreslået som potentielt delte ætiologiske faktorer (10).

I tillæg er det forventeligt, at også den kirurgiske korrektion af LGS kan medføre diverse typer af dentale afvigelser, ændringer i processus alveolaris samt malokklusion (9).

Der vil i det følgende blive redegjort for de hyppigst forekommende antals-, morfologi- og eruptionsafvigelser.

Tandstørrelse

Flere undersøgelser tyder på, at individer med LGS har mindre tænder end normalpopulationen (uden LGS) (12,15-16). En enkelt undersøgelse synes endvidere at vise, at tænderne i spaltensiden hos individer med læbespalte med eller uden kombination med ganespalte har tendens til at være mindre end i ikke-spaltensiden (15).

Afvigelser af antal tænder

Hos LGS patienter ses såvel undertal som overtal hyppigere end normalt i begge dentitioner, dog er antalsvariationen oftest relateret til spalteregionen (9,17-19). Undertal ses oftest i det permanente tandsæt i form af manglende lateral incisiv i maksillen på spaltensiden. Overtal ses derimod oftest i det primære tandsæt i form af en overtallig lateral primær incisiv i spalteområdet.

Eruptionsafvigelser

Litteraturen viser, at tanddannelse og eruption af det permanente tandsæt hos individer med LGS generelt er forsinket ca. 6-12 mdr. i forhold til normalbefolkningen, og at forsinkelse gælder i både over- og underkæbe og derfor ikke er relateret til spalteregionen som sådan (20-21). Derimod er der uenighed om, hvorvidt samme tendens gælder det primære tandsæt (20-22).

Emaljehyppoplasier

Generelt ses øget forekomst af emaljedefekter i form af emaljehyppoplasier i såvel det primære som permanente tandsæt i maksillen hos individer med LGS, og denne er højest i spaltensiden (23). Især er emaljehyppoplasien relateret til de centrale inciser, men også de laterale inciser og hjørnetænder afficerer (23-25).

Indflydelse af kirurgien på dentitionen

Det kirurgiske indgreb, som udføres i den tidlige barnealder i tæt relation til det spæde stadium og endnu ikke færdigdannede tænder, synes at kunne skade tændernes udvikling i varierende grad. Dette kunne tyde på, at en mekanisk ødelæggelse af tandkimen under den kirurgiske procedure eller manglende blodtilførsel til tandkimen kunne tænkes at være årsag til undertal (9). Denne teori støttes af studier af uopererede individer med LGS, hvor frekvensen af undertal i maksillen er sammenlignelig med normalbefolkningens (2-10 %) (26). Det skal dog nævnes, at andre teorier går ud på, at undertal i selve spalteområdet kan skyldes mangel på mesenkymalt væv pga. den manglende fusion af de mediale nasale og maksillære processer (9,17,19). Mens undertal af tænder uden for spalteområdet er blevet tilskrevet de samme ætiologiske faktorer, som har medført spaltedannelse (9,19). Også overtallige tænder er hyppige i forbindelse med LGS (7 %-16 %) (9,17), typisk i form af en overtallig lateral incisiv (8-9,19-20,28). I denne sammenhæng menes kirurgien at kunne påvirke tandkimen således, at det deler sig. Andre studier derimod peger på, at overtal kan skyldes en fragmentation af den dentale lamina i forbindelse med spalteprocessen (8-9), hvilket vil betyde udvikling af tandkimen og dermed laterale inciser på hver side af spalten. I lighed med antalsforstyrrelser ses emaljehyppoplasier oftere hos individer med LGS, og her er det sandsynligt, at dette kan skyldes selve den mekaniske procedure ved det kirurgiske indgreb som manglede blodtilførsel til tandkimen, evt. efterfølgende inflammation og metaboliske ændringer i operationsområdet (21,23-24).

Tandsundhed og læbe-gane-spalte

I litteraturen hersker der stor uenighed om, i hvor høj grad tandsundheden påvirkes af LGS, og om det gælder begge eller blot den ene dentition. Nogle studier finder således øget cariesforekomst og gingivitis i både det primære og permanente tandsæt, mens andre alene finder øget cariesforekomst i det permanente tandsæt, mens andre igen slet ikke finder en sådan sammenhæng (29-35). Generelt synes der dog at være enighed om, at spaltemisdannelsen øger risikoen for udvikling af plakre-



laterede sygdomme i mundhulen (29-35). Se i øvrigt Faktaboks. Den forøgende risiko må anses for at være relateret til de lokalt ændrede anatomiske forhold i mundhulen såsom arvævsdannelse, antals/frembrudsforstyrrelser, som kan vanskeliggøre renholdelse samt den ofte øgede tendens til mundånding. Men også selve situationen omkring de talrige hospitalsindlæggelser kan tænkes at influere negativt på/vanskeliggøre opretholdelse af rutinerne omkring sufficient mundhygiejne. Det er således ekstra vigtigt med individuelle profylakseprogrammer og tæt opfølgning for denne patientgruppe.

Konklusion

LGS er den hyppigst forekommende medfødte ansigtsmisdannelse, og alle tandlæger vil derfor møde patienter med LGS i løbet af deres karrierer. Da spalttemisdannelsen typisk opereres i meget tidlig barnealder, vil man uhyre sjældent i Danmark i den almindelige børne- og voksentandpleje møde patienter med uopereret spalttemisdannelse. Derimod vil man almindeligvis i børn-unge-populationen møde patienter, der er under/venter på ortodontisk behandling og/eller skal have lavet mindre korrigerende operationer, der er relateret til spalttemisdannelsen, og vil i denne sammenhæng skulle samarbejde med/understøtte den behandling, som foregår ved et af de to læbe-gane-spalte-centre, der følger alle patienterne rutinemæssigt indtil op til 21-årsalderen.

Antals-, eruptionsforstyrrelser og emaljehypoplasier er hyppigere forekommende blandt individer med LGS. Hvorvidt dette er et medfødt træk eller udløst/påført i forbindelse med det kirurgiske indgreb, diskuteres stadig. Endvidere er der i litteraturen enighed om, at individer med LGS har større risiko for at udvikle plakinducerede tandsygdomme som fx caries og gingi-

KLINISK RELEVANS

Læbe-gane-spalte (LGS) er vor hyppigst forekommende ansigtsmisdannelse, hvilket betyder, at næsten alle tandlæger kommer til at møde og behandle mennesker med LGS. LGS påvirker både kæber og tænder.

Selve rehabiliteringen af spalttemisdannelsen, den ortodontiske behandling, tale-

træning m.m. varetages af et specialiseret behandlerteam i forbindelse med et af landets to læbe-gane-spalte-centre. Den almindelige tandbehandling foregår i samarbejde med bl.a. patientens egen (børne) tandlæge. Det er derfor vigtigt at have kendskab til tilstanden og de udfordringer, der kan være relateret hertil.

vititis. Dette er i høj grad forårsaget af de lokale fysiske forhold i mundhulen, som kan vanskeliggøre renhold samt øget tendens til mundånding, men kan også være relateret til selve situationen omkring det at være barn med en medfødt misdannelse, der kan kræve talrige hospitalsindlæggelser og specialundersøgelse, og hvor der i perioder måske ikke er kræfter i familien til at fokusere på mundhygiejnen. Det er derfor som almindelig tandlæge/børnetandlæge vigtigt at være ekstra opmærksom på forhold omkring tanddannelsesforstyrrelser relateret til tænderne i spalteområdet (fx hypomineralisering og form/størrelse) og forhold, som gør det specielt vanskeligt at opretholde en sufficient mundhygiejne samt løbende understøtte og uddanne patienten og dennes forældre i at opnå dette.

ABSTRACT (ENGLISH)

Developmental disturbances in dentition and oral health in children with cleft lip and palate

Cleft lip and palate (CLP) is the most common congenital malformation of the face (occurrence in Denmark 1:500 newborns). The Danish Health Care has a long standing tradition for support of standardized, centralized, and free treatment for patients born with a cleft malformation (The two Cleft Lip and Palate Centers and related university hospitals). These centers organize all treatment related to the cleft condi-

tion such as e.g. plastic surgery, orthodontics, and speech training, whereas "ordinary" dental treatment and what may follow is related to the patients' private dentist (in adult or pediatric dentistry). These special conditions have caused a unique high standard of treatment and exceptional possibilities for research in CLP. This paper will summarize the above mentioned treatment system, the most common cleft types, as well as developmental disturbances in the dentition and oral health in children with cleft lip and palate.

Litteratur

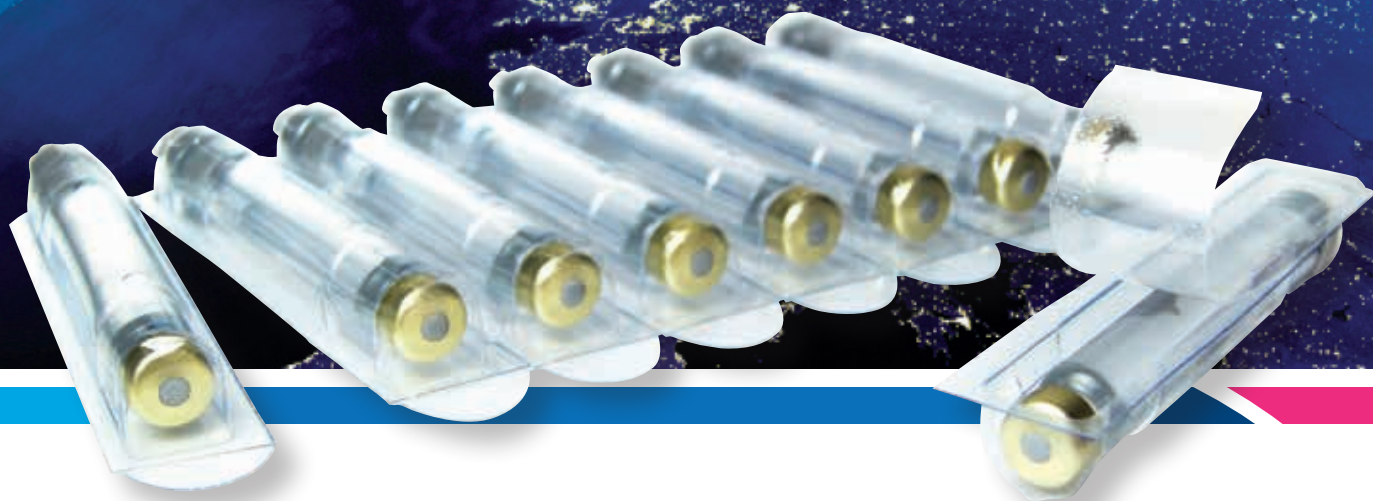
- Jacobsen LP, Mølsted K, Christensen K. Occurrence of cleft lip and palate in the Faroe Islands and Greenland from 1950 to 1999. *Cleft Palate Craniofac J* 2003;40:426-30.
- Hermann NV. Craniofacial morphology and growth in Danish infants with cleft lip and/or palate. Doctoral Thesis. Copenhagen: University of Copenhagen, Denmark, 2015:1-348.
- Jensen BL, Kreiborg S, Dahl E et al. Cleft lip and palate in Denmark, 1976-1981: epidemiology, variability, and early somatic development. *Cleft Palate J* 1988;25:258-69.
- Aylsworth AS. Genetic considerations in craniofacial birth defects. In: Turvey TA, Vig KWL, Fonseca RJ, eds. *Facial Clefts and Craniosynostosis. Principles and Management*. Philadelphia: W.B.

- Saunders, 1996;76-94.
5. Bille C, Knudsen LB, Christensen K. Changing lifestyles and oral clefts occurrence in Denmark. *Cleft Palate Craniofac J* 2005;42:255-9.
 6. INDENRIGS- OG SUNDHEDS-MINISTERIET. Sundhedsloven. LOV nr. 546 af 24/06/2005. (Set 2016 marts). Tilgængelig fra: URL: www.rhpharm.org/Sundhedsloven%202005.pdf
 7. Dahl E. Craniofacial morphology in congenital clefts of the lip and palate. An x-ray cephalometric study of young adult males. *Acta Odontol Scand* 1970;28 (Supp 57):11-160.
 8. Menezes R, Vieira AR. Dental anomalies as part of the cleft spectrum. *Cleft Palate Craniofac J* 2008;45:414-9.
 9. Akcam MO, Evirgen S, Uslu O et al. Dental anomalies in individuals with cleft lip and/or palate. *Eur J Orthod*; 2010;32:207-13.
 10. Qureshi WA, Beiraghi S, Leon-Salazar V. Dental anomalies associated with unilateral and bilateral cleft lip and palate. *J Dent Child (Chic.)* 2012;79:69-73.
 11. Dewinter G, Quiryren M, Heidebüchel K et al. Dental abnormalities, bone graft quality, and periodontal conditions in patients with unilateral cleft lip and palate at different phases of orthodontic treatment. *Cleft Palate Craniofac J* 2003;40:343-50.
 12. Hermann NV, Zargham M, Davann TA et al. Early postnatal development of the mandibular permanent first molar in infants with isolated cleft palate. *Int J Paediat Dent* 2012; 22; 280-5.
 13. Murray JC. Gene/environment causes of cleft lip and/or palate. *Clin Genet* 2002; 61: 248-56.
 14. Sofaer JA. Human Tooth-Size Asymmetry in cleft lip with or without cleft palate. *Arch Oral Biol* 1979;24:141-6.
 15. Walker SC, Mattick CR, Hobson RS et al. Abnormal tooth size and morphology in subjects with cleft lip and/or palate in the North of England. *Eur J Orthod* 2009;31:68-75.
 16. Rawashdeh MA, Bakir IF. The crown size and sexual dimorphism of permanent teeth in Jordanian cleft lip and palate patients. *Cleft Palate Craniofac J* 2007;44:155-62.
 17. Tsai TP, Huang CS, Huang CC et al. Distribution patterns of primary and permanent dentition in children with unilateral complete cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 1998;35:154-60.
 18. Tortora C, Meazzini MC, Garattini G et al. Prevalence of abnormalities in dental structure, position, and eruption pattern in a population of unilateral and bilateral cleft lip and palate patients. *Cleft Palate Craniofac J* 2008;45:154-62.
 19. Eerens K, Vlietinck R, Heidebüchel K et al. Hypodontia and tooth formation in groups of children with cleft, siblings without cleft, and nonrelated controls. *Cleft Palate Craniofac J* 2001;38:374-8.
 20. Ranta R. A review of tooth formation in children with cleft lip/palate. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1986;90:11-8.
 21. Harris EF, Hullings JG. Delayed dental development in children with isolated cleft lip and palate. *Arch Oral Biol* 1990;35:469-73.
 22. Kobayashi TY, Gomide MR, Carrara CF. Timing and sequence of primary tooth eruption in children with cleft lip and palate. *J Appl Oral Sci* 2010;18:220-4.
 23. Maciel SP, Costa B, Gomide MR. Difference in the prevalence of enamel alterations affecting central incisors of children with complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2005;42:392-5.
 24. Malanczuk T, Opitz C, Retzlaff R. Structural changes of dental enamel in both dentitions of cleft lip and palate patients. *J Orofac Orthop* 1999;60:259-68.
 25. Dixon DA. Defects of structure and formation of the teeth in persons with cleft palate and the effect of reparative surgery on the dental tissues. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1968;25:435-46.
 26. Lekkas C, Latief BS, ter Rahe SP et al. The adult unoperated cleft patient: absence of maxillary teeth outside the cleft area. *Cleft Palate Craniofac J* 2000;37:17-20.
 27. Tereza GP, Carrara CF, Costa B. Tooth abnormalities of number and position in the permanent dentition of patients with complete bilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2010;47:247-52.
 28. Bartzela TN, Carels CE, Bronkhorst EM et al. Tooth agenesis patterns in bilateral cleft lip and palate. *Eur J Oral Sci* 2010;118:47-52.
 29. Wong FW, King NM. The oral health of children with clefts – a review. *Cleft Palate Craniofac J* 1998;35:248-54.
 30. Hasslöf P, Twetman S. Caries prevalence in children with cleft lip and palate – a systematic review of case-control studies. *Int J Paediatr Dent* 2007;17:313-9.
 31. Parapanisiou V, Gizani S, Makou M et al. Oral health status and behaviour of Greek patients with cleft lip and palate. *Eur Arch Paediatr Dent*. 2009;10:85-9.
 32. Antonarakis GS, Palaska PK, Herzog G. Caries prevalence in non-syndromic patients with cleft lip and/or palate: a meta-analysis. *Caries Res* 2013;47:406-13.
 33. King NM, Wong WL, Wong HM. Caries experience of chinese children with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2013;50:448-55.
 34. Wells M. Oral health status of children with craniofacial anomalies. *Pediatr Dent* 2013;35:E79-86.
 35. Wells M. Review suggests that cleft lip and palate patients have more caries. *Evid Based Dent* 2014;15:79.



Hver tubule er pakket for sig i blisterpakninger, hvilket hjælper med at holde en god hygiejne.

Lægemidler skal bestilles på apoteket



Bedøvelse i singlepakninger – sikker opbevaring i skuffen

Septodont har fokus på hygiejne

Undgå kontaminering under opbevaring på klinikken

Septodont leverer alle tubuler i enkeltpakkede blisterpakninger. Du åbner først den enkelte blister, når bedøvelsen skal lægges. På denne måde forhindres en kontaminering af ydersiden af tubulen og gummimembranen, mens den ligger i skuffen. Husk stadig at afspritte membranen før brug.

Optimal sikkerhed for patienten

Septodont slutsteriliserer de fyldte tubuler, inden de pakkes. Dette er ikke et lovgivningskrav, men en ekstra hygiejnisk sikkerhedsforanstaltning.

Se produktinfo andetsteds i Tandlægebladet eller hent komplet produktresumé på www.produktresume.dk

