

ABSTRACT

BAGGRUND - Patienter med kraniofaciale misdannelser er en meget heterogen gruppe, langt oftest med syndromal baggrund, og patienterne ses ofte med ekstreme skeletale vækstafvigelse. De nødvendige korrektive behandlinger er tilsvarende omfattende og forskellige. Traditionelt opdeles de syndromale patienter i to hovedgrupper baseret på tilstedeværelse af kraniosynose. Generelt omfatter behandlingen af kraniofaciale anomalier gentagne kirurgiske korrektioner og ortodontisk-kirurgisk korrektion efter endt vækst uafhængigt af syndromtypen.

PATIENTTILFÆLDE - To patienter henvist til Afdeling for Kæbekirurgi og Kraniofaciale Team, Rigshospitalet, for udredning og behandling grundet henholdsvis Treacher Collins syndrom og Crouzon syndrom. Hos begge patienter udgjorde udtalt maksillær og mandibulær retrognati indikation for de behandlinger, der blev planlagt og udført virtuelt guidede.

KONKLUSION - Virtuel kirurgisk planlægning og brugen af patientspecifikke guides og implantater muliggør behandling af kraniofaciale anomalier med stor nøjagtighed.

EMNEORD Virtual surgical planning | abnormalities, craniofacial | surgery | patient specific implant | Treacher Collins syndrome | Crouzon syndrome



Korrespondanceansvarlig førsteforfatter:
THOMAS KOFOD
thomas.steengaard@regionh.dk

Virtuel kirurgisk planlægning ved behandling af kraniofaciale anomalier

THOMAS KOFOD, ledende overtandlæge, specialtandlæge i kæbekirurgi, ph.d., Afdeling for Kæbekirurgi, Rigshospitalet, Københavns Universitetshospital

LOUISE BARNECHOW, specialtandlæge i ortodonti, Afdeling for Kæbekirurgi, Rigshospitalet, Københavns Universitetshospital

► Accepteret til publikation den 9. juni 2021

Tandlægebladet 2021;125:xxx-xxx

PATIENTER MED KRANIOFACIALE MISDANNELSER har ofte så strukturelle anatomiske forandringer, at deres luftveje og respiration enten kræver støtte i form af typisk natlig CPAP (Continuous Positive Airway Pressure)-behandling og/eller nødvendiggør tidlig trakeostomi (1). Mange af patienterne har behov for komplekse osteotomier på såvel neurokraniet som ansigtskraniet samt rekonstruktion af medfødte ossøse defekter og/eller underudviklede dele af ansigtsskelettet. Patienterne gennemgår typisk faseopdelte behandlingsforløb.

Patienter med multiple kraniosynostoser som en del af syndromkomplekset som ved Crouzon og Apert syndrom gennemgår ekspanderende og korrektive kranieplastikker i 0-2-årsalderen. Dette efterfølges typisk af fremføring af mellemansigtet (8-12 år) samt afsluttende ortodontisk-kirurgisk skeletal korrektion, når skeletal modenhed tillader dette (16-18 år) (2-3).

Den anden hovedgruppe af kraniofaciale patientgrupper omfatter syndromer, der giver anledning til små kæber, og omfatter typisk syndromer som Treacher Collins syndrom og hemifacial microsom. Patienterne har ofte misdannelser svarende til øre, kindben samt spaltetdannelse i varierende grad. Patienterne gennemgår typisk gentagne korrektioner for dels det underudviklede ansigtsskelet, dels korrektion af eventuelle spalter, øvrige bløddelsanomalier og sikring af høreevne.

Utilstrækkelig eller påvirket respiration er ofte udslagsgivende for timingen i behandling (4).

Ved brug af virtuelt planlægningsværktøj kan kraniofaciale abnormaliteter tydeligt visualiseres, og det kan præcist vurderes, hvilke rekonstruktive behov der skal til for at genopbygge patienternes anatomi og funktion. Anvendelsen af virtuel behandlingsplanlægning muliggør simulering og visualisering af den samlede behandling af patienten på trods af, at den ofte er opdelt i flere faser.

PATIENTTILFÆLDE 1

Patienten henvistes til Afdeling for Kæbekirurgi på Rigshospitalet i 2013 og er på henvisningstidspunktet 18 måneder gammel. Det drejer sig om en dreng, som er født med Treacher Collins syndrom og isoleret ganespalte. Behandlingsindikation er drevet af mandibulær retrognati og behovet for lukning af bred ganespalte. Patienten ses klinisk med klassiske tegn på ▶

Virtuel kirurgisk planlægning - Treacher Collins syndrom

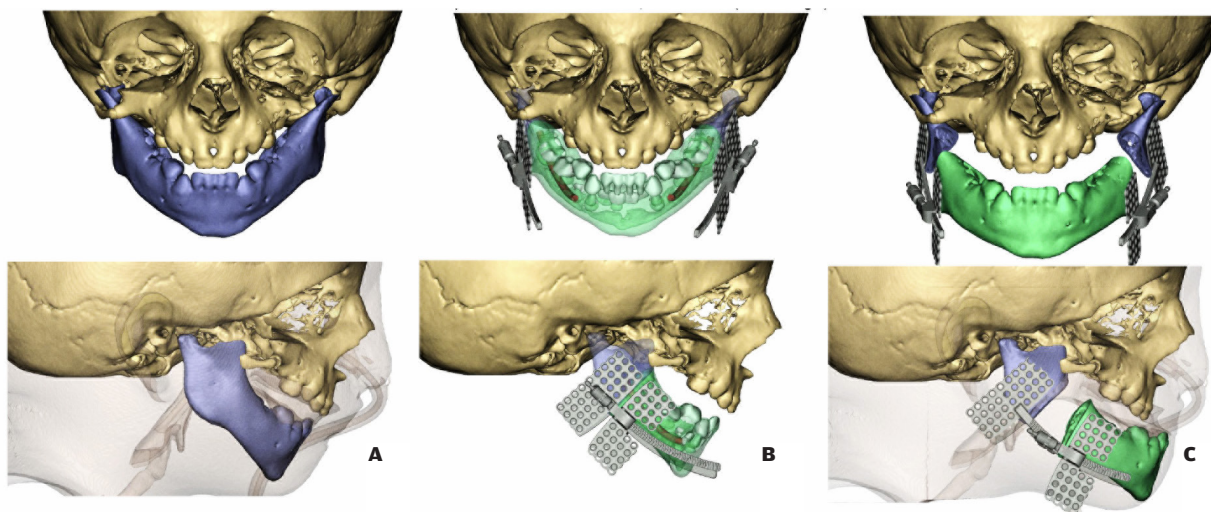


Fig. 1. Brug af virtuel kirurgisk behandlingsplanlægning ved korrektion af mandibulær retrognati. **A.** Præoperativ situation. **B.** Præoperativ situation med distractionsapparat *in situ* (rød). **C.** Simulering af planlagt forlængelse med osseodiversion.

Fig. 1. Use of virtual surgical planning for correction of mandibular retrognathia. **A.** Preoperative situation. **B.** Preoperative situation with distraction apparatus *in situ* (red). **C.** Simulation of planned elongation by distraction osteogenesis.

Foto af 3d-modeller

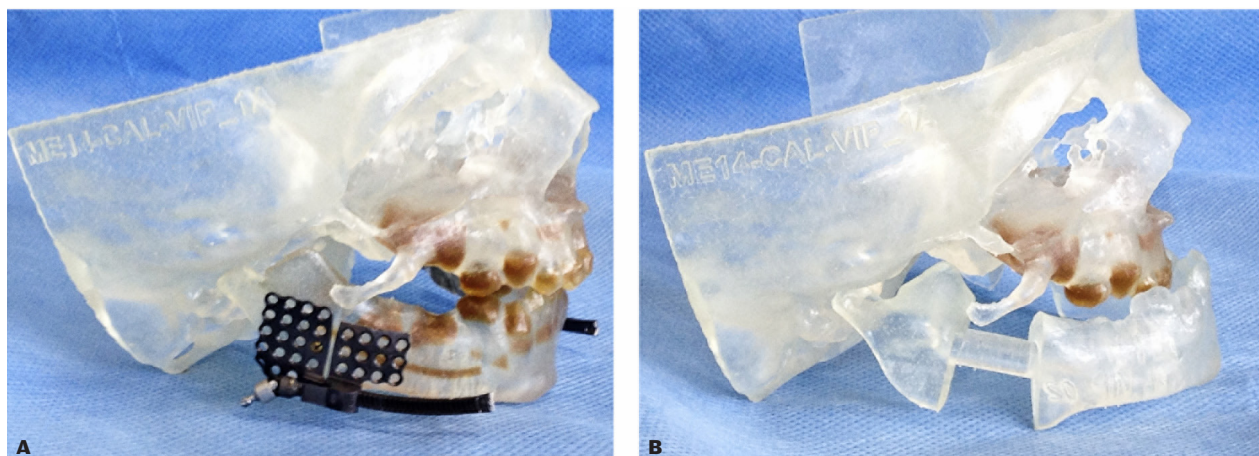


Fig. 2. A. Distractionsapparat tilpasset patientspecifikt. **B.** Model af placering af endt behandling.

Fig. 2. A. Patient-specific adaptation of distraction apparatus. **B.** Outcome model (planned treatment).

Treacher Collins syndrom i form af hypoplasi og retrognati svarende til kindben og maksil og mandibel. Patienten ses klassisk med nedadskrånede øjenspalter. Patienten blev CT-scannet og efterfølgende planlagt virtuelt for forlængelse af underkæben for sikring af funktionel luftvej forud for lukning af ganespalte, idet tungen grundet underkæbens position var beliggende med sin top svarende til spalten. Det blev da vurderet, at det ellers ville være nødvendigt at foretage trakeostomi for at sikre luft-

vejen. Patienten blev behandlet med forlængelse af underkæben i toårsalderen.

Behandlingsplanlægning

Behandlingsplanlægning blev foretaget på baggrund af de kliniske fund og CT-scanning foretaget i samarbejde mellem klinisk ingeniør og kæbekirurg via TRUMATCH CMF Personalized Solutions DePuySynthes & Materialise.

Klinisk foto af kirurgisk behandling

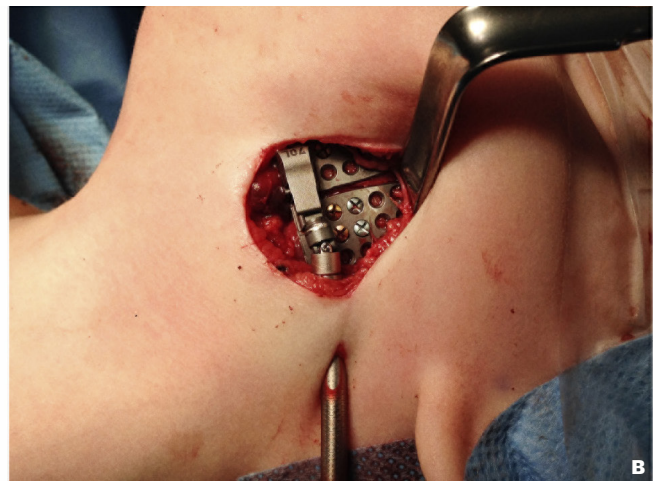


Fig. 3. A. Patient specifikke guides indsat via submandibulær adgang. **B.** Indsat distraktionsapparat med aktiveringsarm påsat.
Fig. 3. A. Patient-specific guides fixed via submandibular approach. **B.** Distraction apparatus fixed with activation pin attached.

Postoperativ scanning

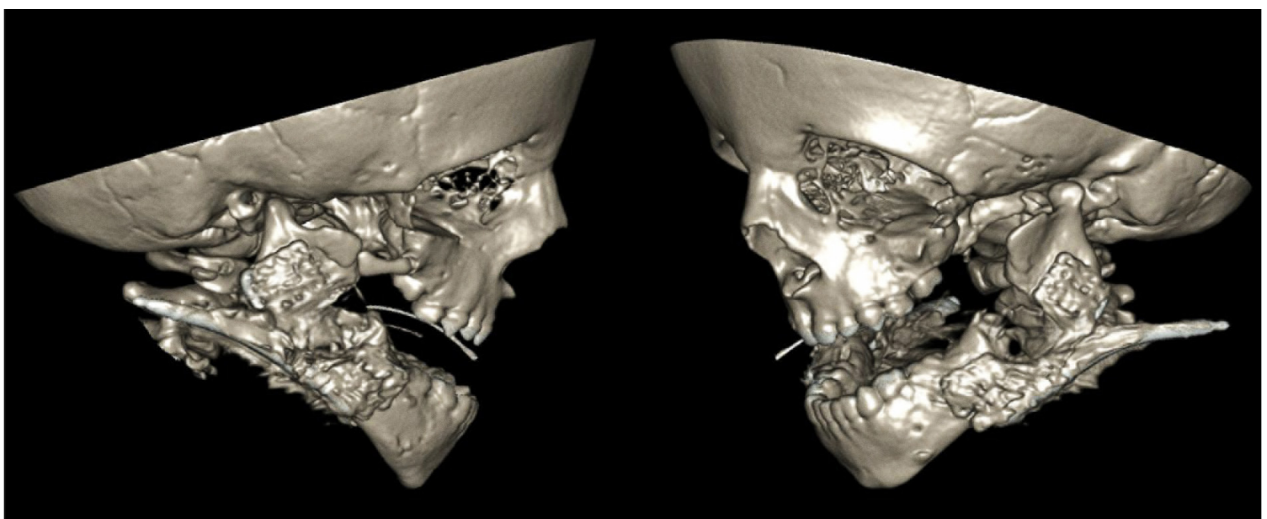


Fig. 4. 3d-CT efter endt distraktion.
Fig. 4. 3D after end of distraction.

I det aktuelle tilfælde anvendtes virtuel kirurgisk planlægning til bilateral fremføring af underkæben ved hjælp af osseodistraktion (Fig. 1). Patienten planlagdes til kurvelineær distraktionsbehandling og på baggrund af simuleringen fremstilledes efterfølgende guides til placering af distraktionsapparaturer intraoperativt samt 3d-model til patient specifikke tilpasninger af distraktionsapparaturer.

Behandling

Den kirurgiske behandling omfattede bilateralt submandibulær ekstraoral adgang. Basis af corpus og ramus mandibulae blev frilagt under anvendelse af nervestimulatur. Guides blev indsat og anvendtes til entydig placering af det tilpassede distraktionsapparat (Fig. 2). Arm til aktivering tunneleres retromandibulært (Fig. 3). Patienten ventede efterfølgende en uge forud for opstart af knogleforlængelse med 1 mm i døgn. Efter endt

Klinisk relevans

Brugen af computerassisteret kirurgi til visualisering, virtuel kirurgisk planlægning og behandling af kraniofaciale misdannelser muliggør tidlig simulering af samlet behandling på trods af, at behandlinger ofte er opdelt i 3-4 behandlingstrin afhængigt af sværhedsgrad og patientens skeletale modenhed. Virtuel planlægning muliggør endvidere mulighed for differentieret valg af osteotomier, nødvendige rekonstruktive metoder og materialer. Behandlingerne gennemføres guidede, hvilket øger præcisionen og kvaliteten af de udførte rekonstruktioner. Ved korrektion og rekonstruktion af ansigts skelettet i forbindelse med kraniofaciale misdannelser er det vigtigt i størst muligt omfang at sikre funktionelle rekonstruktioner, der sikrer hjernens udvikling, funktion af øjne, respiration, tale- og synkefunktion.

Superimposition planlagt versus gennemført

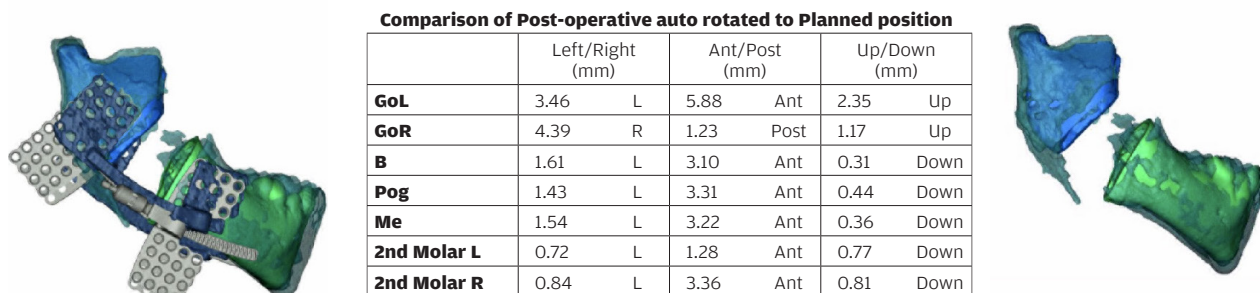


Fig. 5. 3d cefalometriske mål efter guidede osseodistraktionsbehandling. Segmenterede data postoperativt er superimponeret på virtuelt planlagt position. Fig. 5. 3D cephalometric measurements after guided distraction treatment. Postoperative result is superimposed on planned position.

Virtuel kirurgisk planlægning - Treacher Collins syndrom

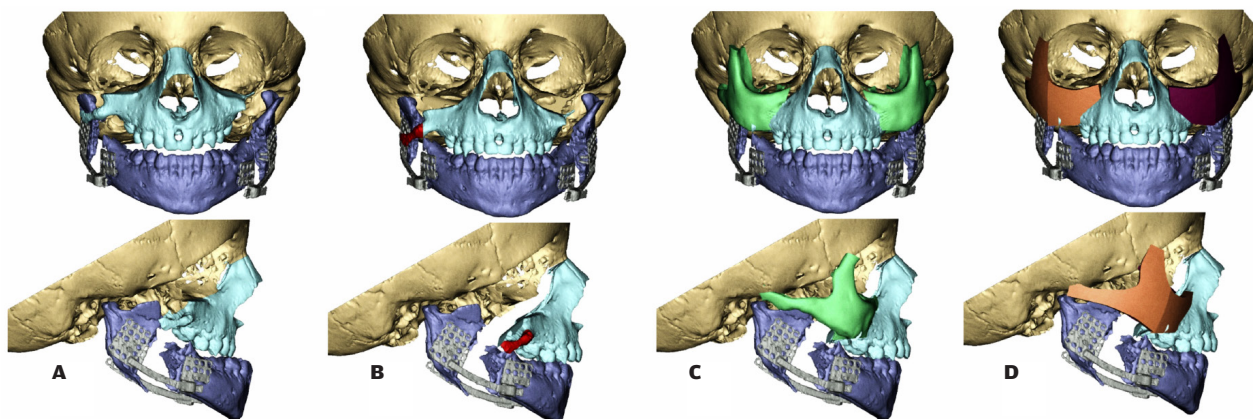


Fig. 6. Brug af virtuel kirurgisk behandlingsplanlægning ved resterende korrektion af afvigelse ved Treacher Collins. A. situation efter endt distraktion B. Simulering af korrektiv Le Fort II. C. Simulering med generiske kindben. D. Simulering af rekonstruktion med knogletransplantater fra kalvariet. Fig. 6. Use of virtual surgical treatment planning for residual correction of defects and malformation in Treacher Collins. A. Situation after distraction. B. Simulation of corrective Le Fort II. C. simulation with generic cheekbones. D. Simulation of reconstruction with calvarial bone grafts.

distraction blev der foretaget CT-scanning i forbindelse med planlagt fjernelse af aktiveringsarme. Postoperativ scanning (Fig. 4) anvendtes til superimponering af det postoperative resultat imod plan (Fig. 5). Desuden planlagdes opfølgende nødvendig korrektion af patientens afvigelser omfattende korrektiv Le Fort II-osteotomi og rekonstruktion af kindben med knogletransplantater fra kraniet. Denne behandling gennemføres planmæssigt typisk i 10-12-årsalderen afhængigt af skeletal modenhed og respiration (Fig. 6).

PATIENTTILFÆLDE 2

13-årig dreng er tilknyttet det Kraniofaciale Team på Rigshospitalet, han har Crouzon syndrom. Patienten havde tidligere gennemgået korrigerende kranieplastik på grund af syndromal afektion med multiple kraniosynostoser. Patienten sås objektivt med ekstreme vækstafvigelser dels svarende til mellemansigtet, dels svarende til underkæben i form af bl.a. stort frontalt åbent bid. Radiologisk sås udtalt korte øjenhuler kaudalt, udtalt mellemansigtsretrognati og hypoplasi svarende til kindben bilateralt med reduceret næsesvælgrum til følge. Svarende til underkæben ses vertikalt vækstmønster med stort frontalt åbent bid til følge (Fig. 7A). Patienten planlagdes virtuelt til korrektion af den ekstreme mellemansigtsretrognati og afvigende vækst på underkæben. Patienten planlagdes virtuelt med mellemansigtsfremføring med osseodistraktion og korrektion af underkæben med C-osteotomier og patient specifikke implantater

(PSI). Patienten blev samtidig planlagt til efterfølgende korrektiv Le Fort I-osteotomi.

Behandlingsplanlægning

Behandlingsplanlægning blev foretaget på baggrund af de kliniske fund og CT-scanning foretaget i samarbejde mellem klinisk ingeniør og kæbekirurg via TRUMATCH CMF Personalized Solutions DePuySynthes & Materialise.

I det aktuelle tilfælde var det relevant at anvende virtuel kirurgisk planlægning af fremføring af Le Fort III-osteotomi med internt og eksternt osseodistraktionsapparat samt bilaterale osteotomier svarende til underkæben for rotation og fremføring (Fig. 8).

Behandling

Behandlingen omfattede kirurgisk ekstraorale adgange til dels mellemansigtet, dels underkæben (koronalt, bilateralt submandibulært) samt vestibulær adgang i overkæben. Guides blev isat svarende til kindben efter frilægning for orientering og placering af internt osseodistraktionsapparat. Efterfølgende blev der foretaget Le Fort III-osteotomi med mobilisering. Herefter monteredes de interne distraktionsapparaturer og halo til eksternt distraktionsapparat. Via den vestibulære adgang i overkæben (Le Fort I-niveau) blev der isat PSI til skeletalt træk via transkutane ståltråde fra det eksterne distraktionsapparat (Fig. 8A). Efterfølgende blev ramus mandibulae frilagt

Radiologi før og efter behandling

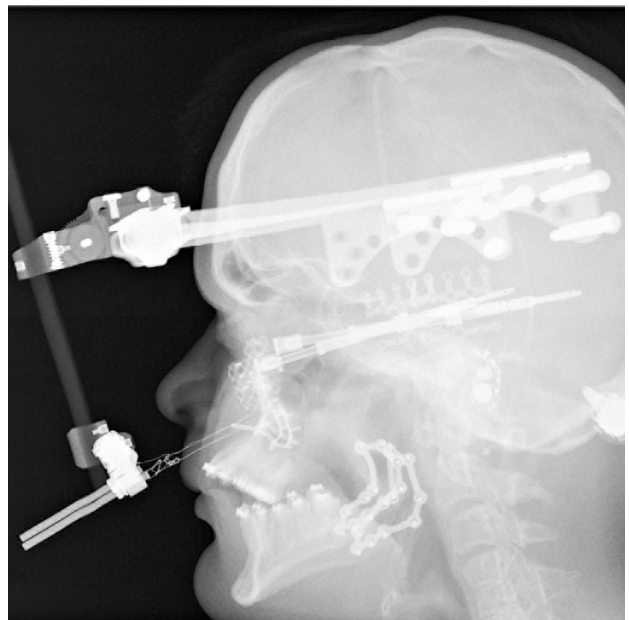
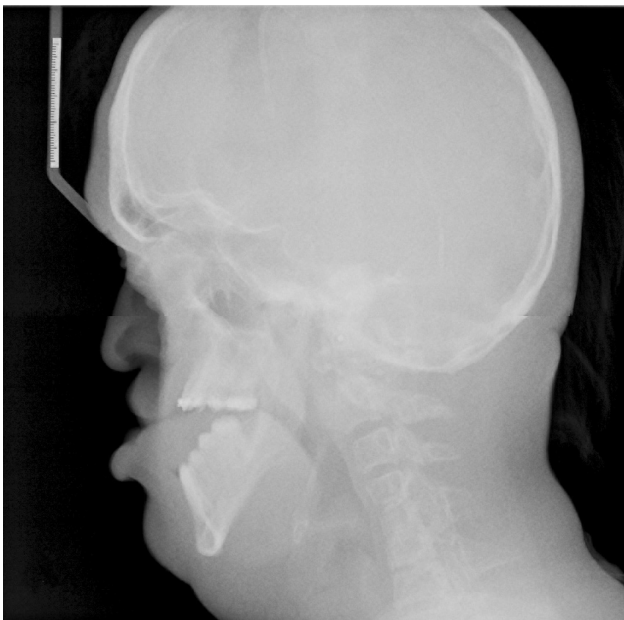


Fig. 7. Laterale cefalogrammer: A. Før behandling. B. Efter behandling.
Fig. 7. Lateral cephalograms: A. Before treatment. B. After treatment.

Simulering af behandling

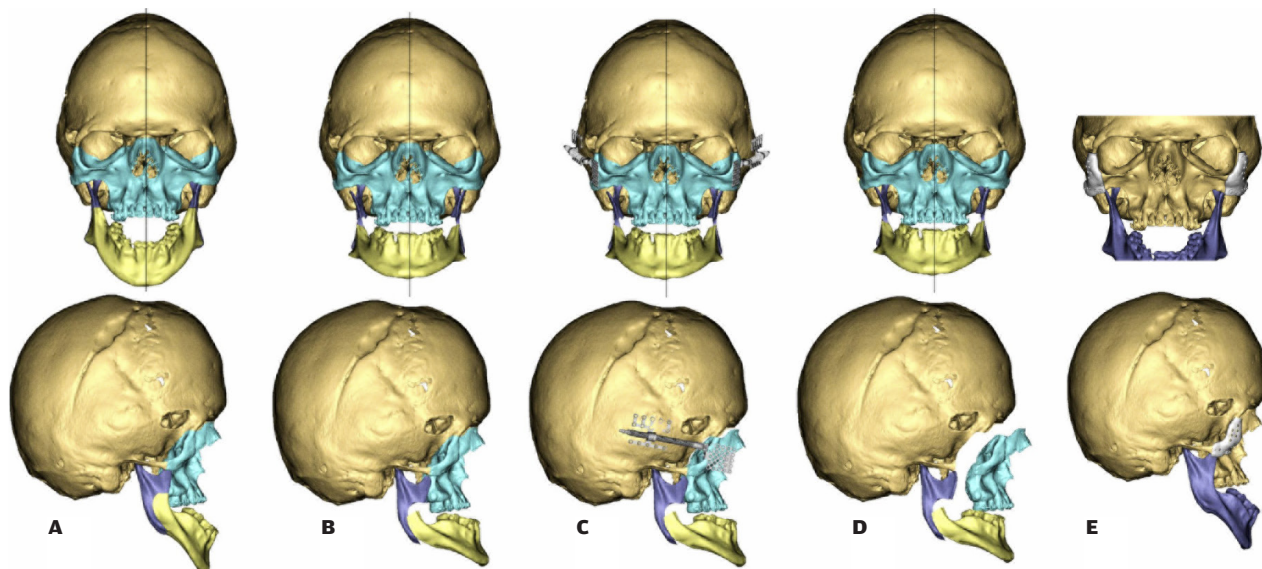


Fig. 8. A. Korrektiv Le Fort III- og C-osteotomier svarende til underkæben markeret. **B.** Rotation af underkæbe via C-osteotomier. **C.** Interne distraktionsapparaturer påsat før aktivering. **D.** Simulering efter endt distraktion af mellemansigtet. **E.** Guides til placering af distraktionsapparat.

Fig. 8. A. Corrective Le Fort III and planned C-osteotomies marked. **B.** Rotation of mandible via C-osteotomies. **C.** Internal distractors positioned prior to activation. **D.** Simulation of midface distraction. **E.** Guides for the placement of internal distractors.

bilateral, og der blev foretaget guidede C-osteotomi bilateralt. Segmenterne mobiliseredes og fremstillede PSI indsat (Fig. 9). Patienten afventede syv dage før montering af de resterende dele af det eksterne distraktionsapparat og opstartede aktivering med 1 mm i døgnet. Aktiveringen af apparaturerne forløb ukompliceret. Efter planlagt aktivering sås behov for yderligere fremføring af kindben, hvorfor der blev aktiveret yderligere, til tilstrækkelig projektion svarende til kindben var opnået. Patienten afventede heling i seks måneder forud for korrektiv Le Fort I-osteotomi (Fig. 10). Det eksterne apparatur blev fjernet efter otte uger.

DISKUSSION

Behandling af patienter med kraniofacial misdannelse omfatter ofte gentagne korrektioner på såvel neurokraniet som ansigtskraniet for at sikre hjernens udvikling, funktion af øjne, forbedring af respiration, tale-, høre- og synkefunktion (3-4). Ved begge de viste patienttilfælde omfatter behandlingen derfor adskillige behandlinger og kontroller i relevante nabospecialer for at sikre et samlet behandlingstilbud til patienterne. Virtuel simulering af den samlede behandling anvendes i dag til såvel intern kommunikation i behandlerteamet omkring patienten samt til kommunikation med patient og pårørende om behandlingen.

Som beskrevet med de to patienttilfælde er der ofte tale om komplekse osteotomier og betydelige flytninger af de ske-

letale segmenter med eller uden brug af osseodistraktion. Netop muligheden for på forhånd at tilpasse osteotomier og gentage simulering er en stor fordel hos kraniofaciale patienter. Tilsvarende giver virtuel kirurgisk planlægning optimal mulighed for opfølgning af behandlingsresultater ved superimponering af det postoperative resultat imod planlagt position og sikrer derigennem større præcision trods store skeletale flytninger.

Simuleringsværktøjet har endvidere klart forbedret forståelsen og omfanget af de reelle deformiteter og defekter. Den anatomiske visualisering er klart forbedret, hvilket vil forbedre dels de planlagte korrektioner, men forventeligt muliggøre, at nogle indgreb kan planlægges og samles, således at det samlede antal operationer mindskes i fremtiden (5). De virtuelle simuleringsværktøjer er klart mest præcise på skeletale forskydninger, og derfor er præcisionen af de skeletale forskydninger gennem brug af guides og PSI forbedret. Der mangler en del fortsat udviklingsarbejde for at kunne anvende værktøjets blødtvævssimuleringer med tilsvarende præcision til de nødvendige blødtvævskorrektioner og rekonstruktioner hos patientgruppen.

Brug af virtuel kirurgisk planlægning ved kraniofaciale misdannelser fører til stor nøjagtighed ved rekonstruktion af neuro- og ansigtskraniet ved kranieplastikker, ligesom den samlede operationstid afkortes og blodtab derved reduceres (6-7). ♦ ▶

Patientspecifikke implantater anvendt ved behandling

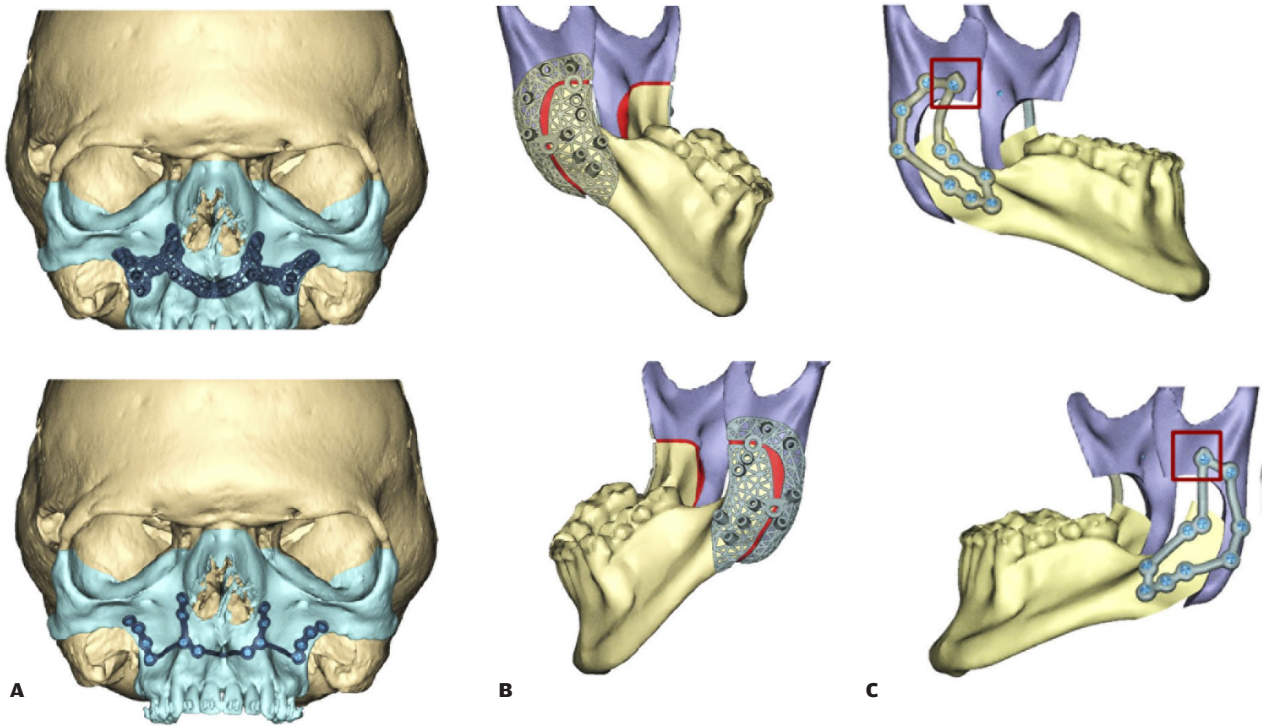


Fig. 9. A. Guide og PSI til træk i Le Fort I-niveau via eksternt distraktionsapparat. **B.** Guides til underkæben for placering af osteotomier og fiksatoren. **C.** PSI til fiksatoren af C-osteotomier.

Fig. 9. A. Guide and PSI (traction plate) at Le Fort I level via external distraction apparatus. **B.** Guides to the lower jaw for placement of osteotomies and osteosynthesis. **C.** Guides PSI for fixation of C-osteotomies.

Simulation af behandling

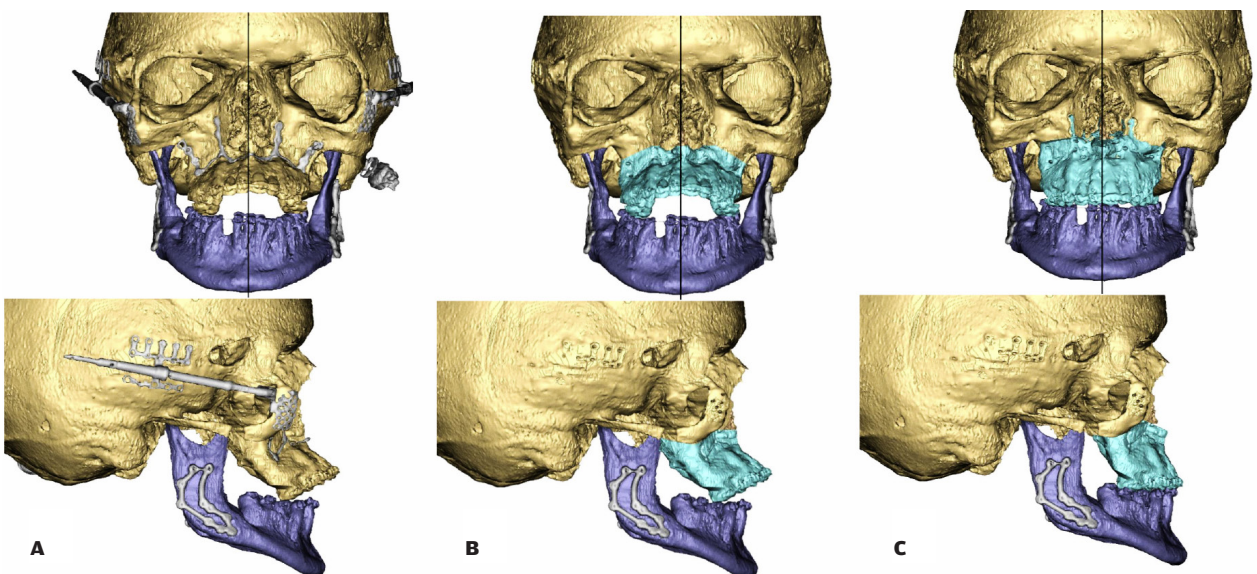


Fig. 10. A. Status efter korrektiv osteotomi svarende til Le Fort III- og C-osteotomi. **B.** Planlagt Le Fort I-osteotomi før flytning. **C.** Planlagt Le Fort I-osteotomi efter flytning.

Fig. 10. A. Status after corrective Le Fort III and C-osteotomies. **B.** Planned Le Fort I osteotomy prior to virtual repositioning. **C.** Planned Le Fort I after osteotomy.

ABSTRACT (ENGLISH)

VIRTUAL SURGICAL PLANNING IN CRANIOFACIAL SURGERY

BACKGROUND - Patients with craniofacial malformations are a very heterogeneous group, most often with a syndromic background and with extreme skeletal growth abnormalities. The necessary corrective treatments are similarly comprehensive and different. Traditionally, the patients are divided into two main groups based on the presence of craniosynostosis as part of their syndrome. In general, the treatment of craniofacial anomalies includes repeated surgical corrections and orthodontic-surgical correction at the end of growth, regardless of the type of syndrome.

STUDY CASES - Two patients referred to the Department of Maxillofacial Surgery, Craniofacial Team, Rigshospitalet for assessment and treatment of respectively Treacher Collins syndrome and Crouzon syndrome. The surgical correction of extreme retrognathia and abnormal growth in the patients were virtually planned and guided.

CONCLUSION - Virtual surgical planning and the use of patient-specific guides and implants enable treatment of craniofacial anomalies with great accuracy.

LITTERATUR

1. Mathijssen IMJ. Guideline for care of patients with the diagnoses of craniosynostosis: Working Group on Craniosynostosis. *J Craniofac Surg* 2015;26:1735-807.
2. McCarthy JG, Warren SM, Bernstein J et al. Parameters of care for craniosynostosis. *Cleft Palate Craniofac J* 2012;49 (Supp):S1-24.
3. Warren SM, Proctor MR, Bartlett SP et al. Parameters of care for craniosynostosis: craniofacial and neurologic surgery perspectives. *Plast Reconstr Surg* 2012;129:731-7.
4. Mathijssen IMJ. Updated guideline on treatment and management of craniosynostosis. *J Craniofac Surg* 2021;32:371-450.
5. Steinbacher DM. Three-dimensional analysis and surgical planning in craniomaxillofacial surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 2015;73 (Supp 12):S40-56.
6. Gray R, Gougoutas A, Nguyen V et al. Use of three-dimensional, CAD/CAM-assisted, virtual surgical simulation and planning in the pediatric craniofacial population. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2017;97:163-9.
7. Tahiri Y, Taylor JA. In support of using computer-aided design and modeling for periorbital osteotomies. *J Craniofac Surg* 2015;26:100-3.