

Streszczenie w języku polskim:

Zaburzenia budowy twarzy i układu stomatognatycznego u dzieci ze Spektrum Alkoholowych Zaburzeń Płodu.

Wstęp

Spektrum Płodowych Zaburzeń Alkoholowych (*Foetal Alcohol Syndrome Disorders, FASD*) to złożony zespół wad rozwojowych spowodowanych prenatalną ekspozycją na alkohol. W ostatnich latach istnieje tendencja wzrostu spożycia alkoholu wśród kobiet, szczególnie w wieku od 18 do 29 lat, co może prowadzić do zwiększenia liczby urodzeń dzieci z FASD. Ponieważ jedną z cech charakterystycznych zespołu wad rozwojowych FASD są anomalie w budowie twarzoczaszki, może to skutkować zaburzeniami rozwojowymi w obrębie szczęki i żuchwy, a także obecnością wad zgryzu o etiologii wyrostkowo-zębowej. W piśmiennictwie światowym jest niewiele badań dotyczących diagnostyki ortodontycznej u dzieci z FASD, zaś w piśmiennictwie polskim nie prowadzono do tej pory takich badań. Głównym powodem są problemy ze zgromadzeniem reprezentatywnych prób badawczych, ponieważ dzieci z FASD przebywają w rodzinach zastępczych i adopcyjnych oraz domach dziecka rozproszonych na terenie całego kraju. Dzieci z FASD nie są objęte refundacją leczenia ortodontycznego w ramach NFZ jako odrębna jednostka chorobowa.

Celami badań było:

1. Ocena stanu zębów mlecznych i stałych oraz czasu ich wyrzynania.
2. Ocena częstości występowania oraz typów wad zgryzu w zależności od prenatalnej ekspozycji na alkohol.
3. Ocena częstości występowania oraz typu wad zgryzu u dzieci i młodzieży z potwierdzonym Alkoholowym Zespołem Płodowym (FAS).
4. Określenie korelacji występowania dysfunkcji i parafunkcji w odniesieniu do występującej wady zgryzu.

Material i metody

W pierwszej pracy przeprowadzono przegląd piśmiennictwa dotyczący oceny stomatologicznej i ortodontycznej u dzieci i młodzieży ze Spektrum Płodowych Zaburzeń Alkoholowych (*Foetal Alcohol Syndrome Disorders, FASD*). Na podstawie analizy danych bibliometrycznych stwierdzono, że w piśmiennictwie istnieje niewiele publikacji dotyczącej tej tematyki i istnieje potrzeba przeprowadzenia szczegółowych badań układu stomatognatycznego wśród dzieci i młodzieży z FASD. Kryteria włączenia do badania obejmowały pisemną diagnozę potwierdzającą występowanie Spektrum Alkoholowych Zaburzeń Płodu tj. 4-cyfrowy kwestionariusz diagnostyczny z Seattle oraz kwestionariusz kanadyjski z 2005 roku. Przed rozpoczęciem projektu badawczego uzyskano zgodę Komisji Bioetycznej Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego nr KB/204/2016. Grupę badaną zebrano dzięki wykorzystaniu wszystkich dostępnych możliwości dotarcia do dzieci z diagnozą FASD na terenie województwa pomorskiego, mazowieckiego, kujawsko-pomorskiego, świętokrzyskiego i śląskiego, których ludność stanowi łącznie około 41% populacji polskiej. Badani zostali podzieleni na 3 podgrupy: Alkoholowy Zespół Płodowy (*Foetal Alcohol Syndrome, FAS*)(34 osoby), Częściowy Alkoholowy Zespół Płodowy (*Partial Fetal Alcohol Syndrome, PFAS*) (11 osób) i Zaburzenia Neurorozwojowe Spowodowane Alkoholem (*Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorders, ARND*)(22 osoby). U wszystkich badanych przeprowadzono wywiad medyczny oraz stomatologiczny. Badanie kliniczne obejmowało ocenę występowania próchnicy i stanu higieny jamy ustnej, zaburzeń w budowie szkliva, występowania rozszczepu wargi i/lub podniebienia, obecności dysfunkcji i parafunkcji oraz obecności wad zgryzu. U dzieci poniżej 6 roku życia z dużym stopniem upośledzenia umysłowego, u których nie można było pobrać wycisków do modeli diagnostycznych oceniono klasę Bauma, obecność zgryzu otwartego oraz występowanie stłoczeń zębów w badaniu klinicznym. U wszystkich dzieci wykonano fotografie zewnątrz- i wewnątrzustne. U badanych powyżej 6 roku życia wykonano modele diagnostyczne na podstawie których oceniano relacje zębowe w odniesieniu do 3 płaszczyzn tj. strzałkowej (klasa Angle'a, klasa kłowa, nagryz poziomy), pionowej (nagryz pionowy) oraz poprzecznej (obecność zgryzu krzyżowego lub przewieszzonego oraz zgodność linii pośrodkowej między górnym, a dolnym łukiem zębowym). Ponadto oceniano zaburzenia miejsca dla zębów stałych w górnym i dolnym łuku zębowym oraz wskaźnik ortodontycznych potrzeb leczniczych (*Index of Orthodontic Treatment Needs, IOTN*)(cele 1 i 2). Wyniki badań porównano z dostępnymi wynikami monitoringu stanu jamy ustnej u dzieci w populacji polskiej. W kolejnym badaniu z

grupy badanej wyodrębniono podgrupę dzieci i młodzieży u których istniała możliwość wykonania teloradiogramów bocznych czaszki, na podstawie których przeprowadzono analizę cefalometryczną. Wykorzystano 18 pomiarów liniowych i kątowych wykorzystując do tego 19 punktów cefalometrycznych. Zdjęcia radiologiczne zostały ręcznie zdigitalizowane przy użyciu programu komputerowego WebCeph Image™. Oceniano wielkość, kształt i relacje w obrębie twarzoczaszki (15 pomiarów) oraz profil tkanek miękkich (3 pomiary)(cel 3). Grupę kontrolną stanowiły dzieci i młodzież z prawidłowym zgryzem (dopasowane pod względem wieku i płci do grupy badanej) z bazy danych Zakładu Ortodoncji, Uniwersytetu w Göteborgu w Szwecji, u których wykonano telefadiogramy boczne głowy. W grupie kontrolnej przeprowadzono taką samą analizę cefalometryczną jak w grupie badanej.

Analiza statystyczna

Wyniki 18 pomiarów cefalometrycznych wykonanych u 35 dzieci i młodzieży ze Spektrum Alkoholowych Zaburzeń Płodu porównano z wynikami analizy cefalometrycznej w grupie kontrolnej. Różnice między pomiarami ($\text{diff} = \text{FASD} - \text{kontrola}$) analizowano jako główny punkt końcowy. Główny efekt został przetestowany przy użyciu ogólnionego modelu liniowego (GLM) dla wielokrotnych pomiarów związanych z płcią, wiekiem i typem FASD jako zmiennymi przedmiotowymi. Zmienna wieku została skategoryzowana: wiek dla dwóch kategorii: 0: ≤ 12 i 1: > 12 . Zmienna typu FAS została zakodowana jako 0: ARND, 1: FAS, 2: pFAS. Istotność statystyczną różnic dla poszczególnych pomiarów zbadano testem t-studenta. Do opisu materiału wykorzystano standardowe narzędzia statystyki opisowej. Wszystkie analizy statystyczne przeprowadzono przy użyciu pakietu IBM SPSS Statistics 23.

Wyniki

1. Do badania włączono 67 dzieci i młodzieży obojga płci, w tym 29 chłopców i 38 dziewcząt, w wieku 2-17 lat. U 34 badanych zdiagnozowano występowanie Alkoholowego Zespołu Płodowego (FAS), Częściowy Alkoholowy Zespół Płodowy (pFAS) stwierdzono u 11, zaś Zaburzenia Neurorozwojowe Spowodowane Alkoholem (ARND) u 22 badanych. Najczęściej obserwowano występowanie zaburzeń ze strony układu pokarmowego i alergii pokarmowych. W grupie dzieci i młodzieży z FAS i ARND stwierdzono zaburzenia napięcia mięśniowego oraz choroby neurologiczne. W grupie badanej obserwowano zwiększone

2. występowanie dysfunkcji i parafunkcji takich jak oddychanie ustami, ssanie kciuka oraz obgryzanie paznokci. Opiekunowie ponad 1/3 dzieci zgłaszali charakterystyczne przechylenie głowy do tyłu w trakcie snu. Większość dzieci z FASD nie była leczona ortodontycznie w przeszłości. Rozszczepy nie były zdiagnozowane u nikogo w grupie badanej. U około połowy badanych stan higieny jamy ustnej był dobry, zaś aktywną chorobę próchnicową stwierdzono u 53% badanych. U większości dzieci z FASD występowały wady klasy II (76%) oraz stwierdzono obecność zgryzów krzyżowych, pogłębionego nagryzu pionowego oraz niezgodność linii pośrodkowej między górnym, a dolnym łukiem zębowym. Stłoczenia zębów dotyczyły połowy pacjentów z FASD. Według wskaźnika IOTN większość badanych wykazywała graniczną lub dużą potrzebę leczenia ortodontycznego. Istotną potrzebę leczenia odnotowano u dzieci z pełnoobjawowym FAS.
3. W grupie badanej ze względu na możliwość wykonania teleradiogramu bocznego czaszki wyodrębniono grupę 35 osób obojga płci (14 chłopców i 21 dziewcząt) w wieku od 7 do 18 lat. Badani zostali podzieleni na 3 podgrupy tj. FAS (21 osoby), PFAS (7 osób) and ARND (7 osób). Stwierdzono istotne statystycznie różnice dla większości pomiarów cefalometrycznych między grupą badaną, a kontrolną (SNPog, SNB, ANPog, ANB, SN-GoGn, ANS-PNS-GoGn, Gonial Angle, U1-ANS-PNS, L1-Go-Gn, L1-APog, Nagryz Pionowy, Interincisal Angle, Nasolabial Angle, Upper lip-E-plane, Lower lip-E-plane), kąty SNPog i SNB były istotnie mniejsze w grupie dzieci i młodzieży z FASD, podczas gdy kąty ANPog i ANB były zwiększone. U dzieci i młodzieży FASD pozycja żuchwy była bardziej dotylna, zęby sieczne górne i dolne były bardziej wychylone, zaś kąt międzysieczny i kąt nosowo-wargowy były zmniejszone. Nagryz pionowy był zmniejszony w grupie badanej w porównaniu z grupą kontrolną, zaś nagryz poziomy nie różnił się pomiędzy grupami. Nie stwierdzono istotnego wpływu wieku pacjentów, płci i typu podgrupy FASD (FAS, pFAS, ARND) na uzyskane różnice w pomiarach cefalometrycznych. Nie stwierdzono również istotnych różnic między podgrupami FASD w odniesieniu do żadnego z pomiarów cefalometrycznych.

Wnioski:

1. Stwierdzono znacznie wyższy poziom próchnicy i wskaźnika DMFT (wskaźnik intensywności próchnicy określający zapadalność na próchnicę: decayed, missing and filled teeth; polski skrót: PUWZ) oraz wysoki odsetek powierzchni zębów pokrytych płytką nazębną u dzieci z FASD, natomiast w badaniu nie określono czasu wyrzynania zębów stałych u dzieci i młodzieży z FASD.
2. U dzieci ze Spektrum Alkoholowych Zaburzeń Płodu stwierdzono częstsze występowanie wad zgryzu, szczególnie wad dotylnych oraz zgryzów krzyżowych w odniesieniu do populacji ogólnej. Dodatkowo porównując występowanie różnych odchyłeń od normy zgryzowej pomiędzy różnymi postaciami FASD tj. FAS, PFAS i ARND nie wyodrębniono wyraźnych różnic pomiędzy grupami.
3. U dzieci i młodzieży z FAS stwierdzono częstsze występowanie wad zgryzu, szczególnie wad dotylnych oraz zgryzów krzyżowych w odniesieniu do populacji ogólnej. Dodatkowo zaobserwowano znaczne nasilenie występowania zaburzeń zgryzowych u pacjentów z FAS w porównaniu do całej badanej grupy FASD.
4. Stwierdzono zdecydowanie zwiększone występowanie parafunkcji, szczególnie oddychanie przez usta oraz dysfunkcji głównie ssanie kciuka i obgryzanie paznokci, a tym samym zwiększone występowanie wad zgryzu.

Publikacja nr 1 wchodząca w skład cyklu rozprawy doktorskiej

Ludwików K, Zadurska M, Czochrowska E. Ocena stomatologiczna i ortodontyczna dzieci i młodzieży ze Spektrum Płodowych Zaburzeń Alkoholowych (FASD) – przegląd piśmiennictwa. Forum Ortod. 2021;17(3):237-244.

W pierwszej publikacji przeprowadzono przegląd piśmiennictwa w celu oceny stanu zdrowia jamy ustnej oraz występowania wad zgryzu i potrzeb leczenia ortodontycznego u dzieci z FASD.

Wykorzystano następujące bazy danych takie jak PubMed, Scopus, Dentistry&Oral Sciences Source, Polska Bibliografia Lekarska z wykorzystaniem słów kluczowych FAS, Foetal Alcohol Syndrome, facial abnormalities, prenatal alcohol exposure. Do analizy zakwalifikowano 35 publikacji z lat 1968-2020 w językach polskim i angielskim. Analizowano dane dotyczące

występowania próchnicy i stanu higieny jamy ustnej, zaburzeń budowy szkliwa, występowania rozszczepu wargi i/lub podniebienia, dysfunkcji i parafunkcji oraz występowania wad zgryzu. W badaniach stwierdzono znacznie wyższy poziom próchnicy i wskaźnika DMFT (wskaźnik intensywności próchnicy określający zapadalność na próchnicę; decayed, missing and filled teeth; polski skrót: PUWZ) oraz wysoki odsetek powierzchni zębów pokrytych płytką nazębną u dzieci z FASD, natomiast nie wykazano istotnych zmian w strukturze szkliwa. Ponadto wykazano brak współzależności występowania FASD z rozszczepem wargi i/lub podniebienia między matkami spożywającymi i niespożywającymi alkohol w trakcie ciąży. U większości badanych obserwowano występowanie parafunkcji i dysfunkcji, szczególnie oddychanie przez usta, co może mieć wpływ na rozwój wad zgryzu. Najczęściej obserwowano zgryzy krzyżowe oraz stłoczenia zębów, a także wady dotylne. Uzyskane wyniki wskazują na konieczność przeprowadzania wczesnej diagnostyki screeningowej w kierunku stanu zdrowia jamy u dzieci z FASD, w tym obecności dysfunkcji i parafunkcji w kontekście profilaktyki wad zgryzu. Ponadto wskazywano na konieczność objęcia tej grupy wad rozwojowych instytucjonalną opieką stomatologiczną i ortodontyczną.

Publikacja nr 2 wchodząca w skład cyklu rozprawy doktorskiej

Ludwików K, Zadurska M, Czochrowska E. Orthodontic evaluation of children and adolescents with different types of Foetal Alcohol Syndrome Disorders. Orthod Craniofac Res. 2022 Nov;25(4):459-467.

Celem drugiej pracy była ocena stanu ogólnomedycznego oraz stanu jamy ustnej z uwzględnieniem obecności wad zgryzu i potrzeb leczenia ortodontycznego u dzieci i młodzieży z FASD. Do grupy badawczej zakwalifikowano 67 osób (29 chłopców i 38 dziewcząt) w wieku od 2 do 17 lat z potwierdzoną diagnozą FASD. Badani zostali podzieleni na 3 podgrupy, tj. Fetal Alcohol Syndrome (FAS), Partial Fetal Alcohol Syndrome (PFAS) and Alcohol-Related Neurodevelopmental Disorders (ARND). U wszystkich badanych przeprowadzono wywiad medyczny i stomatologiczny, badanie kliniczne oraz fotografie wewnątrz- i zewnątrzustne. Ponadto u dzieci powyżej 6 roku życia wykonano modele ortodontyczne. Wybrane parametry porównano z wynikami monitoringu zdrowia jamy ustnej przeprowadzonego w latach 2013-2015. Alergie pokarmowe, wady postawy, choroby neurologiczne oraz zaburzone napięcie mięśniowe występowały u około jednej czwartej badanych. Często stwierdzano występowanie parafunkcji, szczególnie oddychanie przez usta oraz dysfunkcji, głównie ssanie kciuka i obgryzanie paznokci. Stan higieny jamy ustnej był oceniony jako dobry u

połowy badanych. Wśród wad zgryzu u dzieci z FASD występowały wady klasy II (53%), zgryzy krzyżowe (28%), pogłębiony nagryz pionowy (42%), niezgodność linii pośrodkowej między górnym i dolnym łukiem zębowym (34%) oraz stłoczenia zębów (40%). U jednego pacjenta niezgodność linii pośrodkowej między górnym i dolnym łukiem zębowym spowodowana była występowaniem zespołu SMMCI (*Solitary Median Maxillary Incisor Syndrome*). Nie stwierdzono istotnych różnic pomiędzy różnymi typami FASD w odniesieniu do potrzeb leczenia ortodontycznego, zaś w porównaniu z grupą kontrolną stwierdzono częstsze występowanie umiarkowanej potrzeby leczenia ortodontycznego. Uzyskane wyniki wskazują na konieczność wczesnych badań w kierunku występowania dysfunkcji i parafunkcji oraz wad zgryzu u dzieci z FASD w celu wdrożenia instytucjonalnych programów profilaktyki i leczenia ortodontycznego w tej grupie.

Publikacja nr 3 wchodząca w skład cyklu rozprawy doktorskiej

Ludwików K., Westerlund A, Nameer Al-Taai, Zadurska M, Czochovska E. *Cephalometric evaluation of children and adolescents with Fetal Alcohol Syndrome Disorders: a comparison with matched controls.*

Celem trzeciej pracy była analiza wyników pomiarów cefalometrycznych u dzieci powyżej 7 roku życia z potwierdzoną diagnozą FASD oraz porównanie ich z grupą kontrolną. U wszystkich badanych wykonano teleroentgenogramy boczne głowy na podstawie których analizowano wyniki 18 pomiarów cefalometrycznych (5 liniowych i 13 kątowych). Do grupy badawczej zakwalifikowano 35 osób w wieku 7-18 lat z potwierdzoną diagnozą FASD (14 chłopców i 21 dziewcząt). Badani zostali podzieleni na 3 podgrupy FASD tj. FAS, PFAS i ARND. Grupa kontrolna została dobrana dokładnie pod względem wieku, płci, dodatkowo nie była leczona ortodontycznie oraz nie posiadała diagnozy FASD. Stwierdzono różnice istotne statystycznie dla 15 z 18 (83%) pomiarów cefalometrycznych: SNPog, SNB, AnPog, ANB, SN_GoGn, ANSPNS_GoGn, Gonial, U1_ANSPNS, L1_GoGn, L1APog, Overbite, InterIncisal, Nasolabial, Up_lip_Eplane, Lo_lip_Eplane. Dzieci z FASD miały bardziej dotylną pozycję żuchwy, bardziej wychylone zęby sieczne górne i dolne oraz bardziej doprzednią pozycję dolnych zębów siecznych i warg w porównaniu z grupą kontrolną. Nie stwierdzono różnic w odniesieniu do płci, wieku ani podgrupy FASD. Podsumowano, że wczesna diagnostyka ortodontyczna powinna być częścią interdyscyplinarnej opieki nad dziećmi z FASD.

