

Skarðatilfelli leyst með flutningi hluta kjálkabeins og ísetningu beinmassa og hvata



GÍSLI VILHJÁLMSÓN, CAND ODONT, MS, SÉRFRÆÐINGUR Í
TANNRÉTTINGUM, EINKAREKSTUR, REYKJAVÍK
ORCID ID: 0009-0007-3162-1095

TANNLÆKNABLAÐIÐ 2025; 43(2): 18-25
doi: 1033112/tann.43.2.2

TENGILL: GÍSLI VILHJÁLMSÓN, gisli@teinar.is

ÁGRIP

Klofin vör og/eða gómur er einn algengasti fæðingargalli í andliti um allan heim og er tíðni gallans einn af hverjum 500 eða 0,02% allra nýbura. Þessi grein sýnir fram á notkun endurmyndunarprótein úr mannabeini (Poros og rhBMP-2) sem staðgengils fyrir eigið bein fengið úr mjaðmakambi til viðgerðar á meðfæddu gómskarði. Að koma í veg fyrir þörf á að safna eigin beini úr mjaðmakambi leiðir til verulega minni aukaverkunar. Hið tilbúna bein virkar klínískt eins og eðlilegt bein hvað varðar tannkomu og tannréttingu. Vefjafræðilega virtist beinið vera eðlilegt og lífvænlegt. Þótt frekari rannsóknir séu nauðsynlegar til að ákvarða bestu aðferðafræði ætti að líta á tæknina sem raunhæfan meðferðarmöguleika þegar æskilegt er að að komast hjá að sækja bein úr mjaðmakambi. Bandaríski kjálkaskurðlæknirinn Martin Chin tók þátt í aðgerðinni til að kynna aðferðafræðina, sem hentar sérstaklega til að loka stóru skarði og jafnframt laga mikla miðlínuskekkju

Lykilorð: Beinmyndunarprotein Poros og rhbmp-2, viðgerð á gómskarði, beinigræðsla

INNGANGUR

Skarð í vör og/eða góm (SVG) er einn algengasti fæðingar-galli í andliti á heimsvísu og er talið að eitt af hverjum 500 eða 0.02% allra nýbura fæðist með þennan galla (1, 2).

Árlega fæðast um sjö til níu börn með skarð á Íslandi. Þessir einstaklingar þurfa að gangast undir mikið meðferðarferli frá fæðingu til fullorðinsára sem felur meðal annars í sér fjölmargar aðgerðir, viðamiklar tannréttingar og talþjálfun (3).

SVG eru tveir náskyldir fæðingargallar sem geta orðið þegar samruni á efri vör og/eða gómi fósturs verður fyrir truflun. Vör myndast ásamt nefi á fimmtu til sjöundu viku og getur truflunin orðið öðru megin eða báðum megin við miðnesisgrófina og skarðið ýmist eitt eða tvö. Oftast nær

skarðið í gegnum gómhvelvingu maxillu, en stundum er það eingöngu í vör. Gómhvelving myndast seinna, á sjöundu til tólftu viku. Hliðar hennar vaxa saman og mynda skil milli munnhols og nefhols, en ef vöxtur truflast verður gat þar á milli, svokallað gómskarð. Ef einstaklingur er með bæði góm- og vararskarð sem ná saman kallast það alskarð.

Nú á tímum er skarð í vör og gómi lagfært með skurð-aðgerð og þarf í flestum tilvikum nokkrar aðgerðir. Fyrsta aðgerð er oft gerð fljótlega eftir fæðingu til að auðvelda barninu að nærast og síðan eru fleiri aðgerðir gerðar á næstu mánuðum eða árum. Aðgerðir af þessu tagi takast yfirleitt mjög vel og örin verða lítið áberandi. Einstaklingar með skarð í vör eða gómi þurfa þó í mörgum tilvikum á umfangsmiklum tannréttingum að halda. Sýking í miðeyra

er líka mjög algeng sem getur valdið heyrnarleysi eða heyrnar- og talgöllum sem þarf að lagfæra (3).

Fyrsta tilfelli sem vitað er um að skarð í vör sé saumað saman var gerð á Þorgils Skarða Böðvarssyni af lækni við norsku hirðina 1245 og er það fyrsta lýtaskurðagerð sem vitað er til að gerð hafi verið á Íslendingi (4, 5).

Pálmi Möller rannsakaði tíðni SVG á Íslandi á tímabilinu 1956–1962 út frá skurðlækningaskýrslum, mæðradagbókum og fæðingarskýrslum. Á tímabilinu fæddust sextíu og fjögur börn með skarð í vör og/eða í góm af 32.979 fæðingum á Íslandi. Þetta er hlutfallið eitt barn fyrir hverja 515 fæðingar, eða 1,94 prósent barna voru drengir. Algengasta skarðgerð meðal drengja var einhliða (vinstri hlið) skarð í vör með klofinn góm og algengasta skarð kvenna, einangraður klofinn gómur. Einhliða klofnar varir voru mun algengari en tvíhliða klofnar og komu fram þrisvar sinnum fleiri vinstra megin en hægra megin. Sterk fjölskyldutengsl komu fram. Börn með skarð í vör og gómi sýndu hæsta stig fjölskyldutengsla (6). Niðurstöður rannsókna Árna Björnssonar lýtalæknis og félaga sýndu einnig sterk fjölskyldutengsl (7).

SAMSTARF TANNRÉTTINGASÉRFRÆÐINGS, KJÁLKASKURÐLÆKNIS OG LÝTALÆKNIS

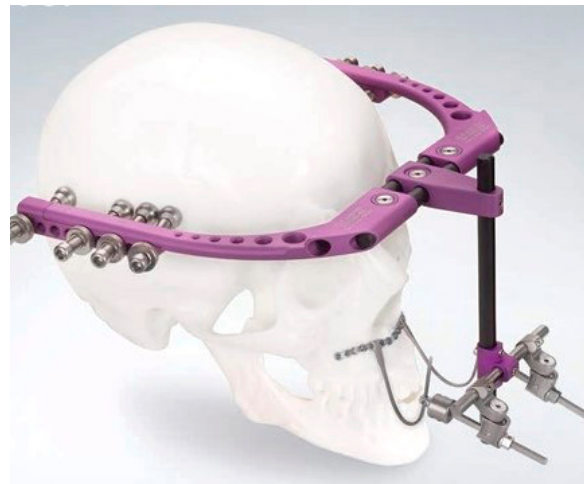
Lokun gómskarðs í beini

Skarðameðferð barna er ferli sem stendur yfir oft alla æsku barnsins og jafnvel fram yfir tvítugt. Yfirleitt koma tannlæknar ekki að lækningu skarðs eða skarða í munnholi fyrr en barnið er komið á tannskiptaaldur um 6-7 ára. Vegna þrýstings örvefjar á gómhelminga eftir viðgerð á vör og/eða gómi eru gómhlutar oft aflagaðir þegar meðferð hefst. Sett eru oft upp sérstakar víkkunarskrúfur eða þvergóm-bogar til að spenna tannboga aftur til baka í betri afstöðu innbyrðis til að líkast eðlilegu gómlagi. Eftir að því er lokið af hendi tannréttingasérfræðings setur lýtalæknir eða kjálkaskurðlæknir bein frá viðkomandi í skarðið sem tekið er úr mjaðmakambi, crista ilica, eða notað gjafabein með hvata, Puros® (10) og rhBMP (11). Með beinflutningi er vonast til að beinið fylli upp skarðið og beinhelmingar grói saman.

Skörð skarðabarna eru mjög mistór, bæði á breidd og lengd í gómi. Til þess að bein það sem sett er í skarðið grói og þroskist þarf að nota þann mjúkvef sem er til staðar í nágrenni skarðsins og teygja það yfir svæðið til að loka glufunni, þannig að holrúmið sé næstum vatnshelt þannig að beinið nái ekki að leka út úr svæðinu milli sauma. Því miður tekst það ekki alltaf og í flestum tilfellum lekur eitthvað út af beini og krefst oft endurtekningu á aðgerð ef reyna á að fylla allt skarðið af beini. Ef skarð er mjög



Mynd 1. Gjafabein, Puros® Particulate Allograft (10).
Figure 1. Allograft, Puros® Particulate Allograft (10).



Mynd 2. Hausbeisli til beintogs, Red II (8).
Figure 2. Red II System Rigid Distraction (8).

breitt tekst ef til vill aldrei að fylla skarðið af beini nema nota aðra tækni sem fæddist síðar með komu hausbeislis RED II um árið 2000 (Mynd 2).

Á fyrstu 10-20 árum mínum í starfi frá upb. 1982 til 2000 var ekki verið að hafa miklar áhyggjur af því hvort skarðið myndi algjörlega fyllast af beini. Það var talið vel heppnað ef beinbrúin sem tengdi beinstykkinn var það öflug og breið að beinhelmingarnir sem að skarðinu lágu urðu það stöðugir, að þeir hreyfðust ekki innbyrðist. Sett var postulínsbrýr til að bæta viðkomandi tannmissi. Eftir að tannplantar komu til sögunnar og hægt var að loka skörðunum betur með notkun beintogs (e. osseus distraction) og hausbeislis sem undirritaður ásamt Guðmundi Á. Björnssyni kjálkaskurðtannlækni höfum þróað saman, þarf minna að nota tannbrýr og krónur til að bæta viðkomandi tannmissi vegna skarðsins.



Myndir 3. Upphafsmýndir 7.4.2016.
 Figures 3. Initial photographs 7.4.2016.

Beintogaðferðin byggist á því að nota hausbeisli sem móttog til að toga hluta af efri kjálka sem í hliðunum situr fram á við svo skarðið minnki og er þá auðveldara að fylla glufuna sem eftir er með beini sem síður lekur út.

SJÚKLINGATILFELLI

Um er að ræða íslenskan pilt fæddan árið 2005 sem hefur ekki önnur heilbrigðisvandamál. Hann var með einhliða skarð hægra megin í vör og skarð í gómi. Hann var enn í vexti.

Í þessu sjúklingatilfelli sem hér verður lýst stóð til að beita beintogaðferðinni sem áður er lýst.

Martin Chin kjálkaskurðlækni frá San Fransisco sem ég kynntist í BNA heimsótti okkur til Íslands og kenndi okkur nýja aðferð til að færa til beinstykki með tönnum innan kjálkans til að loka stóru skarði og jafnframt laga mikla miðlínuskekkju sem var til staðar. Þannig var hægt að

framkvæma flutning í aðgerð án hausbeislis (9). Jafnframt sýndi hann okkur hvernig beinmassi, Puros® er hrærður saman við hvata, rhBMP, getur algjörleg komið í staðinn fyrir gjafabein úr mjaðmakambi sjúklings. Skarði var lokað og glufan sem myndaðist fyrir aftan þar sem flutningsbeinhluti var losaður frá kjálka var fyllt með beinmassa og hvata. Þar myndaðist nýtt bein sem hægt var síðar að færa tennur í svo viðkomandi þurfti ekki á tannplanta að halda.

Upphafsgögn 7.4.2016

Spíssaður frammjór efri kjálki með krossbiti og undirbiti. Skarð í hægri hlið. Miðlína efri er nokkuð rétt miðað við andlit, en sú neðri er ca. 3mm til hægri (ósamhverfur neðri kjálki). Tönn 13 hefur náð að komast niður úr kjálkabeini (Myndir 3).



Myndir 4. Áfangamyndir teknar 7.3.2017.
 Figures 4. Stage photos taken 7.3.2017.

Meðferðaráætlun í byrjun: Ákveðið að fjarlægja tönn 22, svo tönn 23 geti komist niður í stað tannar 22 og þannig verði tennur 13 og 23 hliðarframtennur í framtíðinni. Jafnframt setja upp v-laga hyrax víkkunarskrúfu til að breidd efri kjálka samsvari U-laga neðri kjálka. Beðið uppkomu 23.

Milligögn 7.3.2017

Tönn 23 er farin að skila sér. Nokkuð aukarými myndast, svo óhætt er að snúa tönn 11 án þess að rót fari inn í skarð

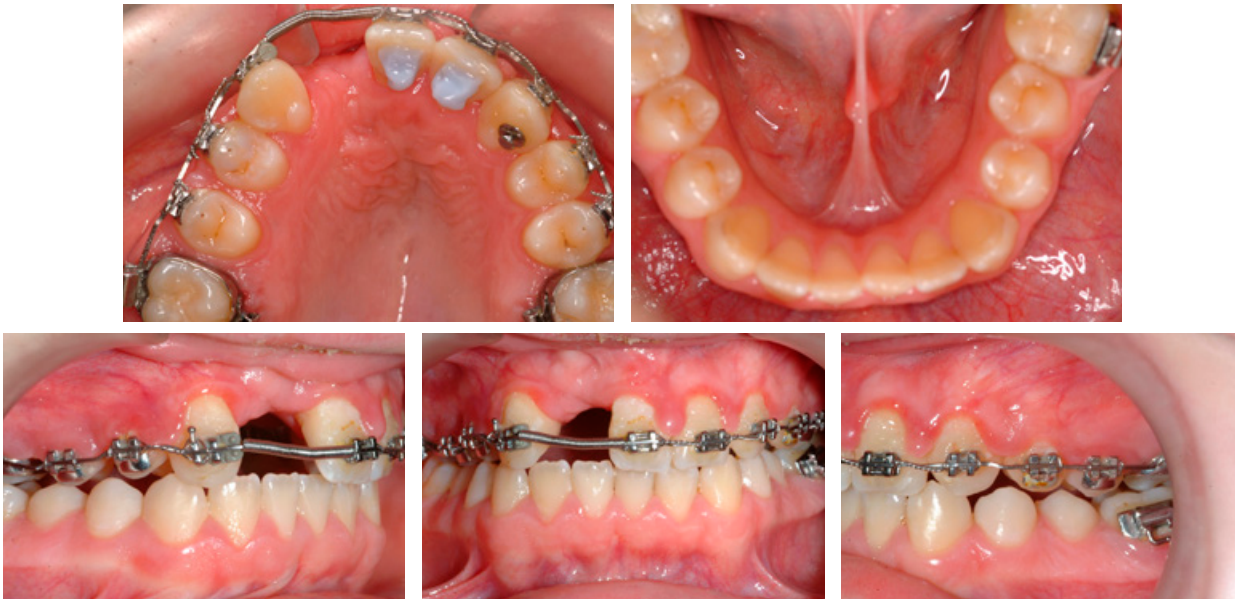
(Myndir 4). Ætíð þarf að gæta að slíku. Í sumum tilfellum má ekki snúa framtönnum fyrr en bein er komið í skarðið svo aðliggjandi tönn eyðileggist ekki.

Meðferðaráætlun: Setja upp föst tannréttingatæki á efri góm til að raða upp tönnum.

Aukaljósmyndir teknar í maí 2018 sýna verulegt skarð (Myndir 5). Miðlína efri góms er aðeins til vinstri miðað við andlit og ósamhverfa neðri kjálka hefur versnað með auknum þroska viðkomandi. Skarði verður ekki lokað með



Myndir 5. Áfangamyndir teknar 15.5.2018.
 Figures 5. Stage photos taken 15.5.2018.



Myndir 6. Áfangamyndir teknar 18.1.2019.
Figures 6. Stage photos taken 18.1.2019.

hefðbundinni beinflutningi úr mjöðm. Annað hvort þarf að nota hausbeisli (RED II) og beintogsmeðferð til að færa alla vinstri hliðina fram á við og til hægri og loka þannig skarðinu, eða reyna að setja beinmylsnu í skarðið og setja tannplanta í stæðið, en það gæti orðið erfitt vegna stærðar skarðsins. Síðasta úrræði væri að setja postulínsbrú í stæðið eins og gert var á árum áður en tannplantar komu til sögunnar og ekki reyna að ná fullkominni beinbrú í skarðið.

Áfangaljósmyndir teknar í janúar 2019 sýna að nú eru allar tennur komnar inn í tannbogann (Myndir 6). Önnur sería af ljósmyndum teknar í byrjun febrúar sýna að búið er að koma fyrir sterkum stálbogum og klippa í sundur boga við skarð. Piltur tilbúinn í aðgerð.

Endanleg meðferðaráætlun

Meðferðaráætlun var gerð með Dr. Martin Chin kjálkskurðtannlækni frá San Fransisco og Guðmundi Á. Björnssyni á stofu Guðmundar 19.2.2019. Í stað þess að nota beintog til að færa efri góms segment fram á við með hausbeisli, RED II, lagði Chin til að beitt yrði nýrri aðferðarfræði við færsluna. Settur var upp þykur stálrennibogi ofan á teina sem festur var í beislisrör á sexum (Mynd 8). Á renniboga var stopp sem haldið var á boganum með sexkantsskrúfu. Gerð var LeFort I segmental aðgerð með skurði milli 24 og 25. Segmentið (beinhluti) með tönnum 11, 21, 23 og 24 var því næst þvingað til hægri til að loka skarðinu og laga miðlínuskekkju. Vegna mjúkvæfjar sem teygist á í aðgerð var erfitt að hemja beinhlutann. Kom Chin með sérstaka

töng sem hann hannaði sjálfur og lét gera í smiðju til að halda beinhluta í skefjum á meðan stopp á stálrenniboga var fest við. Var því næst beinhluta fest við móttstætt bein með beinplötu og skrúfum. Var þá hægt að losa stálrenniboga og stopp án þess að beinhluti rynni tilbaka undan mjúkvæfstogi. Að lokum var sett í skarðið og nýja skarðasvæðið við 24 og 25 blöndu af rhbmp-2 og Puros®. Sú blanda myndar nýtt bein.

Áfangaljósmyndir í janúar 2019 (Myndir 6) sýna að nokkur afturför hefur orðið í biti. Ósamhverfa neðri kjálka hefur aukist og miðlína versnað. Piltur er enn í vexti. Árið



Mynd 7. Í aðgerð í febrúar 2019 myndadist stórt bil milli 24 og 25. Í júlí hefur orðið þó nokkur mesialfærsla á 25 í nýmyndað bein.
Figure 7. During surgery in February 2019, a large gap formed between 24 and 25. In July, there has been some mesial drift of 25 into newly formed bone.

2020 fór í að mesialfæra tennur inn skarðið 24 og 25 og beinþroski þar í góðu lagi eftir færslu en nokkur rótarstytting varð á svæðinu.

Á myndum í júlí 2019 sést að tönn 25 er byrjuð að mesialfærast inn í skarðið sem var búið til í aðgerðinni, inn í nýmyndað bein (Mynd 7). Bilið við skarðið er ekki alveg lokað. Það gerist síðar.



Mynd 8: Töng dr. Chin til að stilla af beinhluta ásamt renniboga.
Figure 8. Dr. Chin's forceps for adjusting a bone fragment together with a sliding archwire

Endurmat á meðferðaráætlun í byrjun árs 2021

Vegna ósamhverfu neðri kjálka var hugleitt að taka eina framtönn úr neðri gómi til að laga kant í kant bit. Bein á framtannasvæði neðra góms var ekki talið nógu gott og hætta á svörtum þríhyrningum og beinleysi við tennur sem eftir væru (Mynd 9) (12). Því var ákveðið að í staðinn taka úr tönn 35 og laga þannig bit. Var það gert í febrúar 2021. Restin af meðferð var hefðbundin, en strákur var líklega



Mynd 9. Svartur þríhyrningur. Lítil, dökkt þríhyrningslaga rými sem geta myndast á milli tanna, sérstaklega nálægt tannholdsbrún. Frá öðru sjúklingatilfelli (10).

Figure 9. Small, dark triangular spaces that can appear between teeth, particularly near the gumline. From another case (10).

búinn að fá nóg af mér því að mætingar urðu stopular á tímabili, en meðferð lauk loks í september-október 2024.

Lokagögn 8.10.2024

Við fjarlægingu fastra tækja var bitafstaða góð. Með því að fjarlægja tönn 35 þá tókst að fá miðlínu framtanna neðra góms rétta miðað við miðlínu efri góms. Miðlína efri góms var rétt miðað við andlit. Það tókst með því að færa hluta af alveolar segmenti til hægri innan munns og þannig loka meðfæddu skarði. Við færsluna á kjálkabútnum opnaðist heilt tannbil milli 24 og 25 sem öllu jöfnu hefði þurft beinfærslu annarsstaðar frá höku, kjálkabeini, höfuðkúpubeini eða mjaðmabeini. Í stað slíks inngríps var notað gjafabeinmysna (Puros) blandað með rhBMP bein aukandi hvata. Í framhaldinu voru tennur fyrir aftan skurðsárið færðar mesialt og þannig var tannbilinu algjörlega lokað án notkunar tanngerva. Augntennur voru notaðar sem hliðarframtennur til að halda samhverfu. Puros og rhBMP var notað til að „líma“ saman bein helminga sitthvoru megin við skarðið.

SAMANTEKT

Meðferð skarðabarna er miserfið eftir því hvað fæðingargalli er alvarlegur með tilliti til umfangs skarðs. Sum skarðabörn eru með aðeins truflun á myndun tanngarðs, en því fylgir því miður oft gallar á tannkímum. Tannréttingameðferð þeirra er tiltölulega einföld ef ekki fylgja kjálkavaxtarvandamál sem aflagar bit. Oftast nær fylgir stærri skörðum vöntun eða smávaxnar hliðarframtennur sem ekki nýtast (11, 12). Þá er brugðið á það ráð að nýta augntennur sem hliðarframtennur. Skarðabörn geta einnig verið með aðra galla í vexti kjálka og frekari tannvöntun. Það flækir oft meðferðaáætlun.

Í þessu sjúklingatilfelli var mikil ósamhverfa á kjálkavexti bæði í efri og neðri gómi, auk skarðsins. Ef ekki hefði komið til ný skurðtækni Dr. Chins með og notkun ígræðsluefna og hvata, Puros® og rhBMP, hefði meðferðin krafist ásetningu hausbeislis og aðgerðar á mjaðmakambi til að ná í gjafabein. Báðar þessar aðgerðir eru ekki hættulausar og fylgir þeim oft aukaverkanir (9). Það er grátlegt að þrátt fyrir að höfundur hafi margsinnis bent heilbrigðisfyrirvöldum í næstum 18 ár þegar ég kynntist aðferð Dr. Chins, að ekki hafa tekist að fá stuðning ráðuneytis í að aflétta „gullhúðun“ íslenskra lögfræðinga á reglum ESB. Dr. Chin fullyrðir að hann hafi ekki þurft að fara í næstum 3 áratugi í mjaðmakamb barns vegna skurðaðgerða á skarðabörnum. Hvað þarf til að íslensk skarðabörn geti notið framfara við skurðlækningar á fæðingargalla sínum? Ólafur Jón Einarsson lýtalæknir nú



Myndir 9. Myndir teknar við lok meðferðar.
 Figures 9. Photographs taken at the end of treatment.

látinn sem sá um aðgerðir á skarðabörnum til tuga ára fór með undirrituðum til San Fransisco til að kynna sér aðferð Chins í nóvember 2007. Til stóð við heimkomu að nota aðferð Chins á skarðabörnum. Því miður varð ekkert úr því. Starf Ólafs var lagt niður vegna ósættis við yfirlækni Landspítalans skömmu síðar og varð ekkert úr að koma þessari tækni til Íslands. Og enn er staðan óbreytt vegna getuleysi heilbrigðisyfirvalda þrátt fyrir ítrekaðar ábendingar frá undirrituðum, aðstandendum skarðabarna og fundi í heilbrigðisráðuneyti síðustu tveggja heilbrigðisráðherra.

ÞAKKIR

Þakkir fær Dr. Martin Chin fyrir þátttöku í aðgerð og kynningu á aðferðafræði, Svend Richter, ritstjóri Tannlækna-
 blaðsins fyrir aðstoð að koma efni saman í grein, Ragnheiður
 Valdimarsdóttir aðstoðarkona á stofu fyrir utanumhald á myndum og Guðmundur Á. Björnsson kjálkaskurðlæknir fyrir samstarfið.

HEIMILDIR

- Jacobsen L, 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 N. Craniofacial morphology and growth in Danish infants with cleft lip and/or palate. Copenhagen, Denmark: University of Copenhagen; 2015.
- Þrastardóttir K. Hinn fullkomni stuðningur. Þarfir foreldra barna með skarð í vör og eða góm. Reykjavík: Háskóli Íslands; 2011.
- Björnsson Á. Þogils skarði, sjúkrasaga. *Læknablaðið*. 1995;81:622-24.
- Þogils saga skarða. In: Thorsson Ó, editor. *Sturlunga saga II*. Reykjavík: Svart á hvítu; 1988. p. 570-627
- Moller P. Cleft lip and cleft palate in Iceland. *Arch Oral Biol*. 1965;10(3):407-20.
- Björnsson A, Arnason A. Cleft Palate J. X-linked cleft palate and ankyloglossia in an Icelandic family. *Cleft Palate J*. 1989;26(1):3-8.
- Red II System Rigid Distraction. : KLS Martin SE & Co. KG. A company of the KLS Martin Group, Tuttlingen , Germany. https://www.klsmartin.com/mediathek/90-791-02-11_Rigid_External_Distraction_RED_II_System.pdf; [
- Chin M, Ng T, Tom W, Carstens M. Repair of alveolar clefts with recombinant human bone morphogenetic protein (rhBMP-2) in patients with clefts. *J Craniofac Surg*. 2005;16(5):778-89.
- Vilhjálmsón G, Zermeno J, Proffit W. Orthodontic treatment with removal of one mandibular incisor: Outcome data and the importance of extraction site preparation. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*. 2019;156(4):453-63.
- Lourenço Ribeiro L, Teixeira Das Neves L, Costa B, Ribeiro Gomide M. Dental anomalies of the permanent lateral incisors and prevalence of hypodontia outside the cleft area in complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J*. 2003;40(2):172-75.
- Rullo R, Festa V, Rullo RAF, Chiodini P, Vitale M, Perillo L. Prevalence of dental anomalies in children with cleft lip and unilateral and bilateral cleft lip and palate. *Eur J Paediatr Dent*. 2015;16(3):229-32.

English Summary

Repair of palatal alveolar clefts by transferring boneparts and use of recombinant human bone morphogenetic protein (rhBMP-2)

GÍSLI VILHJÁLMSÓN, MND, ORTHODONTIC SPECIALIST, PRIVATE PRACTICE, REYKJAVÍK, ICELAND.
ORCID: 0009-0007-3162-1095

ICELANDIC DENT J 2025; 43(2): 18-25
doi: 1033112/tann.43.2.2

Cleft lip and/or palate is one of the most common facial birth defects worldwide and is estimated to affect one in 500 or 0.02% of all newborns. This article demonstrates the use recombinant human bone morphogenetic protein (rhBMP-2) as a substitute for autogenous iliac crest bone for repair of congenital palatal clefts in humans. Eliminating the need to harvest autogenous iliac crest bone resulted in substantial decrease in morbidity. The constructed alveolus performed clinically as normal bone and responded to natural tooth eruption and orthodontic movement. Histology of the tissue constructed showed normal, vital bone. Although additional investigation is warranted to determine the optimum protocol for the use of this material in alveolar cleft repair, the technique should be considered as a viable treatment option in cases in which avoiding iliac crest harvesting is desirable. American maxillofacial surgeon Martin Chin participated in the operation to introduce the methodology to close a large gap and also correct a large midline deviation.

Keywords: Bone morphogenetic protein rhbmp-2, alveolar cleft repair, bone grafting

Correspondence: Gísli Vilhjálmsson, gisli@teinar.is