

Aus der

Universitätsklinik für Zahn-, Mund- und Kieferheilkunde
Abteilung Poliklinik für Kieferorthopädie

**Retrospektive Untersuchung über die Langzeiteffekte
bei Kindern im Schulalter mit Robin-Sequenz nach der
TPP-Therapie**

**Inaugural-Dissertation
zur Erlangung des Doktorgrades
der Zahnheilkunde**

**der Medizinischen Fakultät
der Eberhard Karls Universität
zu Tübingen**

**vorgelegt von
Effert, Josephine**

2024

Dekan: Professor Dr. B. Pichler

1. Berichterstatter: Professor Dr. B. Koos

2. Berichterstatter: Professor Dr. Dr. A. Godt

Tag der Disputation: 21.03.2024

Meinen Eltern und Großeltern

Inhaltsverzeichnis

I. Inhaltsverzeichnis

I.	Inhaltsverzeichnis	1
II.	Abkürzungsverzeichnis	3
1	Einleitung	5
1.1	Die Robin-Sequenz (RS)	5
1.1.1	Definition und Inzidenz	5
1.1.2	Ätiologie und Pathogenese	5
1.1.3	Klinik	6
1.1.4	Diagnostik	7
1.2	Therapiekonzepte	8
1.2.1	Nichtoperative Verfahren	8
1.2.2	Operative Verfahren	9
1.2.3	Die Tübinger Atmungsplatte	11
1.2.4	Unterkieferwachstum	15
1.3	Studienziele und Nullhypothesen	15
2	Patienten und Methoden	17
2.1	Studiendesign	17
2.2	Genehmigung durch die Ethik-Kommission	17
2.3	Patienten/-innen (Ein- und Ausschlusskriterien)	17
2.4	Studienablauf und Datenerfassung	18
2.5	Zielparameter und Auswertung	20
2.5.1	Klinischer kieferorthopädischer Basisbefund	20
2.5.2	Jaw Index	21
2.5.3	Modellanalyse anhand OnyxCeph® ^{3TM}	22
2.5.4	Index of orthodontic treatment need (IOTN)	25
2.5.5	Fotostat-Analyse anhand OnyxCeph® ^{3TM}	27
2.5.6	FRS-Analyse anhand OnyxCeph® ^{3TM}	31
2.5.7	Orthopantomogramm-Analyse	35
2.6	Statistische Methoden	37

Inhaltsverzeichnis

3	Ergebnisse	38
3.1	Charakteristika des Studienkollektivs	38
3.2	Kieferorthopädischer Basisbefund	38
3.3	Modellanalyse	43
3.4	IOTN	44
3.5	Fotostatanalyse	49
3.5.1	Fotostat lateral	49
3.5.2	Fotostat Analyse Enface	50
3.5.3	Morphologischer Gesichtsinde (MGI)	52
3.6	FRS-Analyse	52
3.7	PSA-Analyse und TAC	56
4	Diskussion	58
4.1	Diskussion der Therapieoptionen	58
4.2	Kieferorthopädische Basisdiagnostik	61
4.3	Modellanalyse, IOTN und TAC	63
4.4	Fotostatanalyse	67
4.5	FRS-Analyse	68
4.6	Schlussfolgerung	71
5	Zusammenfassung	74
6	Abbildungsverzeichnis	76
7	Tabellenverzeichnis	77
8	Literaturverzeichnis	79
9	Erklärung zum Eigenanteil	89
10	Publikationen	90
11	Danksagung	91

II. Abkürzungsverzeichnis

RS	Robin-Sequenz
K	Kontrollgruppe
TPP	Tübingen Palatal Plate
LKG	Lippen-Kiefer-Gaumen
LKG-S	Lippen-Kiefer-Gaumenspalte
FRS	Fernröntgenseitenbild
OPG	Orthopantomogramm
PSA	Panoramaschichtaufnahme
UK	Unterkiefer
OK	Oberkiefer
Sag.	Sagittal
v.a.	vor allem
z.B.	zum Beispiel
bzw.	beziehungsweise
mm	Millimeter
zw.	zwischen
HNO	Hals-Nasen-Ohren-Heilkunde
vZB	Vordere Zahnbogenbreite
hZB	Hintere Zahnbogenbreite
SI/si	Summa incisivorum
si UK	Summe der Schneidezahnbreiten im Unterkiefer
SI OK	Summe der Schneidezahnbreiten im Oberkiefer
MGI	Morphologischer Gesichtsinde
PB	Prämolarenbreite
MLV	Mittellinienverschiebung
ggf.	gegebenenfalls

Abkürzungsverzeichnis

Tab.	Tabelle
Abb.	Abbildung
CVMS	Cervikal vertebral maturation stage
TAC	Tooth Agensis Code
o.g.	oben genannt
IOTN	Index of Orthodontic Treatment Need
DHC	Dental Health Component
AC	Aesthetic Component
(n)CPAP	(Nasal) continuous positive airway pressure
PEEP	Positive end-expiratory pressure
NPT	Nasopharyngealer Tubus
CT	Computertomographie
MRT	Magnetresonanztomographie
WG-Phase	Wechselgebiss-Phase
KG	Kiefergelenk
Min.	Minimum
Max.	Maximum
Wahrsch.	Wahrscheinlichkeit
SKD	Schneidekantendistanz
HWS	Halswirbelsäule
RKP/RCP	Retrale Kontaktposition
IKP/ICP	Interkuspидale Kontaktposition
pathol.	pathologisch
WTM	Wachstumsmuster
Abk.	Abkürzung
ca.	circa
s.	siehe

1 Einleitung

1.1 Die Robin-Sequenz (RS)

1.1.1 Definition und Inzidenz

Die Robin-Sequenz (früher Pierre-Robin-Sequenz) ist eine kraniofaziale Fehlbildungstrias, bestehend aus mandibulärer Retrognathie, Glossoptose (zurückfallender Zunge) und eine daraus resultierende erhebliche Obstruktion der oberen Atemwege (Fletcher et al., 1969). In 80 – 90 % der Fälle ist fakultativ eine U-förmige Weich- und/oder Hartgaumenspalte vorhanden (Benjamin and Walker, 1991, Robin, 1994). Aus der Trias folgen häufig Ernährungsschwierigkeiten und daraus resultierende Gedeihstörungen der neugeborenen Betroffenen. Meist muss daher unmittelbar nach der Geburt mit der Therapie der RS begonnen werden, welche sich bis ins Jugendalter und auch darüber hinaus erstrecken kann (Evans et al., 2011).

Der Name der Erkrankung stammt von dem französischen Stomatologen Pierre Robin (Paris 1867 – 1950), der sich 1923 und 1934 in zwei Artikeln mit der Sequenz befasste (ROBIN, 1934, Robin, 1923). Somit setzte er sich erstmalig mit der seltenen und der bis dahin noch unbekanntem Symptomatik auseinander.

Die RS kommt mit einer Inzidenz von 1:8.500 bis 1:14.000 Lebendgeburten vor (Bush and Williams, 1983, Printzlau and Andersen, 2004). In Deutschland wurde eine Häufigkeit von 11,3 bei 100.000 lebenden Geburten festgestellt (Maas and Poets, 2014). In der Literatur wird ein 1,5x häufigeres Vorkommen des weiblichen Geschlechts beschrieben (Jahn, 2003). Bei etwa der Hälfte aller RS-Kindern geht die Krankheit in Kombination mit einer syndromalen Grunderkrankung einher. Durch Monitorüberwachung und moderner Intensivversorgung konnte die Mortalitätsrate reduziert werden.

1.1.2 Ätiologie und Pathogenese

Die Ätiopathogenese der RS wird durch verschiedene Theorien begründet, ist aber bis heute nicht abschließend geklärt. Vorherrschend ist in der aktuellen Literatur die Meinung, dass die RS von einem multifaktoriellen Geschehen ausgeht, in welches exogene als auch endogene Faktoren einfließen. Zwei

wesentliche Theorien sind in der Literatur immer wieder zu finden. Zum einen eine genetisch bedingte Wachstumsstörung, durch welche die drei Hauptsymptome entstehen. So wird bei nicht syndromalen Patienten/-innen mit isolierter RS vermehrt eine Veränderung des SOX9 Gens gefunden, dessen Genprodukt für die Entwicklung des Skeletts, also auch für den Unterkiefer von Bedeutung ist (Jakobsen et al., 2007, Selvi, 2013). Die zweite Theorie ist, dass durch eine intrauterine Fehllage des Fetus oder eine Interposition der Zunge ein vermindertes Kieferwachstum die Folge ist (Schubert et al., 2005).

1.1.3 Klinik

Deutlich auffällig ist bei den Neugeborenen mit RS die Symptomtrias mit einer fakultativen Spalte des Gaumens, die sich in schwerwiegenden Gedeih- und Ernährungsschwierigkeiten äußert. Die Säuglinge können einerseits aufgrund der Gaumenspalte keinen Unterdruck zum Saugen oder Schlucken aufbauen und andererseits besteht eine Fehlkoordination von Zunge, Ösophagus und Pharynx (Baudon et al., 2002). Während des Trinkens ist auch das Atmen aufgrund der fehlenden Trennung von Mund- und Nasenhöhle nicht möglich. Dadurch ist das Füttern, wenn es überhaupt möglich ist, deutlich uneffektiver und ermüdend, da es ständig von Atempausen unterbrochen werden muss. So werden im Zweifel nicht genügend Kalorien aufgenommen. Daher muss initial nach der Geburt die Therapie eingeleitet werden. Die Wachstumsstörungen können nur innerhalb des ersten Lebensjahres bei erfolgreicher Therapie wieder aufgeholt werden (Laitinen et al., 1994).

Selten können die primär auftretenden Symptome einer RS auch in respiratorische Unterversorgungen mit einhergehendem Sauerstoffmangel und daraus resultierenden zum Teil schwerwiegenden neurologischen Folgen oder in Sterblichkeit enden (Logjes et al., 2018).

Nicht immer tritt die Obstruktion direkt nach der Geburt oder in den folgenden Tagen auf, sondern gelegentlich auch erst innerhalb den ersten vier Wochen nach der Geburt (Wilson et al., 2000). Die Ausprägung ist nicht immer gleich stark und zeigt sich in typischen Dys- oder Apnoe-Zeichen bei den Säuglingen. Beispielsweise Zyanose, Nasenflügeln, interkostale, juguläre und substernale

Einleitung

Einziehungen, inspiratorischer Stridor oder auch in weniger schweren Fällen mit unruhigem, unterbrochenem Schlaf.

Nach Ausprägung der Symptome kann die RS in drei Klassen eingeteilt werden, welche oft fließend ineinander übergehen (Caouette-Laberge et al., 1994):

- Klasse I: Adäquate suffiziente respiratorische Situation in der Bauchlage und keine Trinkschwierigkeiten
- Klasse II: Suffiziente respiratorische Situation in der Bauchlage, Ernährungsschwierigkeiten, meist Einsatz einer Magensonde notwendig
- Klasse III: Insuffiziente respiratorische Situation mit kontinuierlich vorliegender Atemstörung, endotracheale Intubation und Ernährung mit einer Magensonde notwendig

Langfristig kann die RS auch Auswirkungen auf die Sprachentwicklung und auf andere funktionelle Aspekte des stomathognathen Systems haben. Auffällig sind häufig auftretende, rezidivierende Innenohrentzündungen, welche in Zusammenhang mit der Gaumenspalte gebracht werden. Die Ästhetik kann im Sinne einer wahrgenommenen Retrogenie negativ beeinflusst sein und im Alltag auffallen.

1.1.4 Diagnostik

Die Diagnose wird in der Regel gleich nach der Geburt gestellt und wird durch das Vorhandensein der bereits zuvor genannten Leitsymptome, der mandibulären Retrognathie, die daraus resultierende Glossoptose, der oberen Atemwegsobstruktion und fakultativ auch einer Spalte des Gaumens (Benjamin and Walker, 1991, Robin, 1994) gestellt. Oft findet sich eine Assoziation mit weiteren Syndromen.

Mittlerweile kann durch die moderne Ultraschalltechnik bei ausgeprägten Fällen schon eine pränatale Diagnose der RS erfolgen (Linz et al., 2011b, Macé et al., 2013).

Vorerst kann eine Racheninspektion die Zungenlage beurteilen. Endoskopisch kann dann die Ausprägung der Obstruktion beurteilt werden, welche frühzeitig detailliert in einem Schlaflabor untersucht werden muss, indem eine Polygraphie

bzw. Polysomnographie durchgeführt wird (Gilhooly et al., 1993). So kann auch der Therapieverlauf beobachtet und gegebenenfalls optimiert werden. Man bewertet diese international gleich. Ein gemischt-obstruktiver Apnoe-Index (MOAI-Wert) von $> 3/h$ sollte therapiert werden (Linz et al., 2011b, Poets et al., 2022).

1.2 Therapiekonzepte

Der oft lebensgefährliche Zustand durch die Atemwegsobstruktion muss meist direkt nach der Geburt therapiert werden. Weltweit sind die Behandlungskonzepte sehr unterschiedlich (Côte et al., 2015, van Lieshout et al., 2015). Es existieren verschiedene folgend aufgeführte konservative oder chirurgische Therapiekonzepte.

1.2.1 Nichtoperative Verfahren

Als häufigste primäre Maßnahme, schon von Pierre Robin selbst entwickelt, ist die Bauchlagerung. So kann das Kind mit RS besser atmen und auch gefüttert werden. Wenn das Kind auf dem Bauch liegt folgt die Zunge der Schwerkraft automatisch nach vorne, wodurch der Atemweg offen bleibt (ROBIN, 1934). Dabei muss auf eine konsequente Lagerung mit dem Kopf nach vorne geachtet werden. Die Therapieform ist allerdings nur bei leichten bis mittelschweren Ausprägungen der Erkrankung anwendbar, bei schweren Formen versagt sie. Außerdem steigt durch diese Therapiemethode das Risiko eines plötzlichen Kindstods (Rambaud and Guilleminault, 2004) und kann daher nicht als dauerhafte Therapie und lediglich unter strenger Beobachtung Anwendung finden.

Als weitere nichtinvasive Maßnahme kann bei Obstruktion der oberen Atemwege eine langfristige nCPAP-Atemwegshilfe (nasal continuous positive airway pressure) angewandt werden. Hier werden durch einen dauerhaft bei Ein- und Ausatmung erhöhten Überdruck (PEEP, positive end-expiratory pressure) die Atemwege offengehalten. Auch bei schweren Obstruktionen ist die konventionelle Methode bei ausgewählten Patienten/-innen erfolgreich (Amaddeo et al., 2016). Außerdem wird sogar über ein Unterkieferaufholwachstum bei erfolgreicher CPAP-Therapie berichtet, wodurch

das Gerät dann nicht mehr benötigt wird (Kiely et al., 1998). Bei langfristiger Anwendung kann es allerdings zu Mittelgesichtshypoplasien, wie eine Abflachung des Gesichts oder zur Hypoplasie des Oberkiefers kommen (Fauroux et al., 2005).

Wenn die oben genannten nichtinvasiven Therapien ohne Erfolg sind, kann das Einlegen eines Wendl-Tubus behilflich sein. Der nasopharyngeale Tubus (NPT) verhindert das Zurückfallen des Zungengrundes, wodurch er die Atemwege offenhält. Das distale Ende kommt etwa 1 cm über der Epiglottis zum Liegen (Heaf et al., 1982). Durch das Einführen durch die Nase besteht ein geringerer Würgereiz. Diese Methode wird allerdings wie die Bauchlagerung nur vorübergehend angewandt, da diese viele Nebenwirkungen mit sich bringt. Es kann zu Schleimhautulzerationen kommen, zu einer Hypersekretion, mit einem erhöhten pflegerischen Aufwand durch ständiges Absaugen und auch zu einer Dislokation des Tubus, was im schlimmsten Fall erneut zu einer kompletten Verlegung der Atemwege führt. Daher ist eine intensive Überwachung der Kinder notwendig und die Entlassung aus dem Krankenhaus kann riskant sein.

1.2.2 Operative Verfahren

Weltweit werden verschiedene operative Verfahren bei der RS angewendet. Zu nennen ist die Labioglossopexie, um die Glossoptose zu beheben (Kremer et al., 2004). Ein kleines Schleimhautareal der Unterseite der Zunge wird hierbei vorübergehend intraoral an der Unterlippe festgenäht (Douglas, 1946, Kirschner et al., 2003), wodurch der Zungengrund von der Pharynxhinterwand weggezogen wird. Das Verfahren ist heute allerdings in Deutschland nahezu obsolet, da die Nachteile bedeutend groß sind. In Kombination zur Labioglossopexie ist die im Folgenden beschriebene Distraction nötig, da die Neugeborenen nur initial von der Therapie profitieren. Des Weiteren sind Nebenwirkungen zu nennen, wie Wundinfektionen, die Dehiszenzen der Naht, welche dann zum Einreißen der Zunge und zu deformierenden Narbenbildungen intra- und extraoral führen können (Denny et al., 2004, Argamaso, 1992). Außerdem sind erhebliche funktionelle Einschränkungen zu nennen, da die Beweglichkeit der Zunge und somit die Ernährung durch die Fixierung deutlich erschwert ist, was die eventuell

Einleitung

schon vorhandene Gedeihstörung zusätzlich verschlimmert und die Sprachentwicklung beeinträchtigt (Pasyayan and Lewis, 1984, Sher, 1992). Viele Modifikationen der Glossopexie wurden als Verbesserungsversuch von Chirurgen angewandt, bei allen blieben aber die Komplikationen bestehen. Nicht zu vernachlässigen sind außerdem Risiken der Anästhesie und die allgemeinen Risiken einer Operation.

Als optionales Verfahren kann eine Rollenextension des Unterkiefers angewandt werden. Im Bereich der Symphyse wird eine Drahtschlinge um den Unterkiefer gelegt, welcher dann straff nach extraoral über ein Rollenextensionsgerät geführt wird und mit Gewichten (50-200 mg) nach anterior gezogen wird (Pradel et al., 2009). Nach 4 bis 6 Wochen kann das Gerät entfernt werden, wenn sich der Unterkiefer wie gewünscht nach anterior entwickelt hat.

Eine weitere häufig durchgeführte operative Maßnahme zur Vermeidung oder als Folgetherapie nach einer Tracheotomie ist die osteoplastische Kallusdistraction, um einen operativen Ausgleich der Unterkieferhypoplasie zu erzeugen (Kessler et al., 2000, Molina, 2009, Paes et al., 2016). In der Kieferwinkelregion wird die Kortikalis vestibulär mit einem chirurgischen Bohrer durchtrennt, die linguale Kortikalis durchlöchert und der dazwischen liegende Nerv geschont. Danach wird ein Distraktor eingesetzt. Nach 5 – 7 Tagen Wundheilung wird der Distraktor pro Tag um 1 mm bis zu durchschnittlich 20 mm gedehnt (McCarthy, 1994). Wenn die gewünschte Dehnung erreicht ist, folgt eine Retentionsphase um den gebildeten Kallus zu stabilisieren (Molina, 2009). Das Ergebnis zeigt eine vergrößerte und vorverlagerte Mandibula, wodurch die Obstruktion der oberen Atemwege nach wenigen Tagen verbessert ist (Denny and Amm, 2005, Hong, 2011, Murage et al., 2013). Die Distractionsosteogenese ist ein großer, invasiver Eingriff, der, wie jedes chirurgische Verfahren, Komplikationen mit sich bringt. Es kann neben intraoperativen Komplikationen wie Nervschäden, Zahnschäden, Blutungen oder falschen Osteotomien, zu Problemen mit dem Distraktor, Infektionen oder Schmerzen kommen. Nach dem Entfernen des Distraktors kommt es außerdem häufig zu Rezidiven oder zu skelettalen Fehlstellungen, wie ein frontal offener Biss (Van Strijen et al., 2003).

Wenn keine der oben genannten Therapien zum Erfolg führt, muss an einen chirurgischen Zugang zu der Trachea gedacht werden. Eine Tracheotomie ist eine sicher funktionierende Beatmungsmethode (Han et al., 2012), wenn der nasopharyngeale Tubus nicht mehr ausreicht (Sher, 1992, Heaf et al., 1982). Auch mit diesem Eingriff gehen viele Nebenwirkungen einher. Neben viel pflegerischem Aufwand, langen Krankenhausaufenthalten und damit verbundenen hohen Kosten, kommt es häufig zu Infektionen in der Trachea oder in der Lunge bis hin zu Trachealstenosen oder Fistelbildungen (Carr et al., 2001). Zudem beeinflusst es die Sprachentwicklung der Kinder negativ (Singer et al., 1989).

1.2.3 Die Tübinger Atmungsplatte

Die frühzeitige funktionskieferorthopädische Therapie ist eine deutlich weniger belastende und risikoärmere Therapie als die bisher aufgeführten chirurgischen Konzepte. Eine einfache Gaumenplatte ermöglicht und erleichtert durch die Trennung von Mund- und Nasenhöhle den Säuglingen das Trinken aber behebt nicht die Symptomtrias der RS (Rathee et al., 2010).

Daher wurde von Pielou erstmals für die Therapie von Kindern mit RS eine Gaumenplatte mit zwei dorsalen Extensionen hergestellt, um das Zurückfallen der Zunge zu verringern und somit die Obstruktion der oberen Atemwege zu mindern (Pielou, 1967).

Die heute in Tübingen verwendete Tübinger Atmungsplatte mit velopharyngealer Verlängerung (Tübingen Palatal Plate = „TPP“, oder veraltet Spornplatte, s. Abb. 1) stellt eine optimal angepasste Variante der Gaumenplatte von Pielou dar. Sie wurde im Tübinger Zentrum für Lippen-Kiefer-Gaumenspalten und Kraniofazialen Fehlbildungen am Universitätsklinikum Tübingen entwickelt. Die Therapie beginnt üblicherweise initial nach der Geburt und erstreckt sich durchschnittlich über 6 – 9 Monate, abhängig von dem Schweregrad der RS, der skelettalen Manifestation und den damit einhergehenden Folgen. Die TPP wird mit Hilfe eines intraoralen Scans der Säuglinge hergestellt, welcher im Vergleich zum konventionellen Abdruck ein risikoarmes und schnelles Verfahren darstellt, bei dem das Auftreten einer Atemwegsobstruktion oder eine Aspiration von

Einleitung

Abdruckmaterialien vermieden wird (Weise et al., 2021). Die Ausdehnung der TPP entspricht die der üblichen Gaumenplatte, die den weichen und harten Gaumen sowie die Alveolarfortsätze bedeckt und besitzt zusätzlich eine disto-kaudale velare Verlängerung um am Zungengrund Druck auf die Zunge auszuüben, wodurch der obere Atemweg geöffnet wird und die Atemwegsenge beseitigt wird (Bacher et al., 2011). Durch eine endoskopische Überprüfung, welche nur etwa 1 – 2 Minuten dauert, kann die velopharyngeale Verlängerung optimal und patientenindividuell angepasst werden, sodass diese direkt über der Epiglottis liegt. Bei Bedarf kann die Verlängerung als so genannte „Flöte“ gestaltet werden, welche den Säuglingen das Atmen durch eine Röhre, im Sinne eines Tubus, ermöglicht (Krimmel et al., 2019). Befestigt wird die Tübinger Atmungsplatte dann einerseits intraoral mit gewöhnlicher Haftcreme und von extraoral mit Drahtbügeln (s. Abb. 1), die dann am Gesicht mit Hilfe von medizinischen Tapes festgeklebt werden.

Neben der positiven Auswirkung auf die Atemwegsobstruktion wird auch, wie bei der normalen Gaumenplatte, der Schluckakt und das Trinken durch Saugen erleichtert, da die Kinder Unterdruck aufbauen können und Nasen- und Mundhöhle getrennt werden.

Außer möglichen Druckstellen sind keine Komplikationen oder Nebenwirkungen durch das Tragen der TPP bekannt. Diese können jederzeit problemlos durch ein Ausschleifen der Platte behoben werden.

Ergänzend zu der frühzeitig beginnenden Therapie mit der TPP beinhaltet das Tübinger Therapiekonzept eine Begleittherapie aus, falls diese vorhanden, dem Verschluss der Gaumenspalte in der Mund-Kiefer-Gesichtschirurgie nach erfolgreicher Therapie mit der TPP und einem kontinuierlichen Schluck- und Trinktraining durch Physiotherapie und Logopädie. So wird die orale Muskulatur nach dem Castillo-Morales-Konzept trainiert, welches eine neurologische-motorische Entwicklungstherapie und eine orofaziale Regulationstherapie beinhaltet, wodurch auch das Unterkieferwachstum stimuliert werden soll (Hohoff and Ehmer, 1999, Limbrock et al., 1993).

Einleitung

Ein großer Vorteil ist der pflegerisch nicht sehr aufwendige und auch der einfache Umgang mit der Atmungsplatte für die Eltern (Poets et al., 2019). Die Eltern werden frühzeitig in die Behandlung eingeschlossen und erlernen den Umgang und die Pflege mit der TPP. Nach erfolgreicher Anpassung der TPP, das heißt einer Öffnung des oberen Atemwegs durch die velopharyngeale Verlängerung, intraoral keine sichtbaren Druckstellen, ein Schlaflaborergebnis mit einem MOAI < 3, ein gutes Trinkverhalten der Patienten/-innen mit eingesetzter Platte und die Gewährleistung des sicheren Umgangs der Eltern mit der TPP, können die Kinder nach Hause entlassen werden. Dies ist in der Regel nach ca. 2 – 6 Wochen nach Scan des Oberkiefers zur Plattenanpassung der Fall und abhängig davon, ob eine syndromale Assoziation vorliegt oder nicht.

Nach etwa drei bis vier Monaten muss eine neue Atmungsplatte aufgrund des physiologischen Wachstums angepasst werden. Meist ist eine Anpassung nötig. Im Rahmen dessen werden die Patienten/-innen mit mindestens einem Elternteil erneut am Universitätsklinikum Tübingen für ca. 6 Tage aufgenommen. Es wird ein neuer Scan des Oberkiefers angefertigt, anhand dessen eine neue Atmungsplatte hergestellt und die velopharyngeale Verlängerung mittels Endoskopie angepasst wird. Bei einem gutem Trinkverhalten, einer reizfreien Gingiva und einem guten Polysomnographie Ergebnis mit einem MOAI < 3, kann das Kind wiedernach Hause entlassen werden.

Der Erfolg und die Wirksamkeit der TPP konnte bereits in Studien nachgewiesen werden. So zeigt sich schon 2007 in einer Vergleichsstudie von Atmungs- und Gaumenplatte, dass die TPP signifikant bessere Ergebnisse in der Therapie gegen die Obstruktion der oberen Atemwege zeigt (Buchenau et al., 2007). Auch durch Studien aus den Jahren 2017, 2019 und 2021 bestätigt sich immer wieder die Verbesserung der Atemwegsenge bei Behandlung mit einer TPP (Poets et al., 2017, Schmidt et al., 2021, Poets et al., 2019). Folgen der RS, wie Ernährungsschwierigkeiten und Gedeihstörungen konnten nachweislich vermieden werden (Poets et al., 2019, Wiechers et al., 2019).

Durch die Bestimmung des Jaw-Index in einer 2019 am Universitätsklinikum Tübingen durchgeführten Studie (Wiechers et al., 2019) wird die Stimulation des

Einleitung

Unterkieferwachstums durch die TPP vermutet, sodass es eventuell sogar zum Nach- und Aufholwachstum des Unterkiefers kommt. Röntgenologisch konnte dieses Aufholwachstum durch die TPP aufgrund der Strahlenbelastung bislang noch nicht objektiv bewiesen werden (Poets et al., 2019).

Weitere Modifikationen der TPP haben mittlerweile innerhalb Deutschlands Anwendung gefunden (Schmidt et al., 2021, Kochel et al., 2011, Maas and Poets, 2014, Wiechers et al., 2021). International konnte die Anwendung einer TPP mit velopharyngealer Verlängerung bisher nur in den USA oder Hong-Kong etabliert werden (Choo et al., 2022, Ho et al., 2019), da sonst die chirurgischen invasiven Verfahren mit erheblichen Nebenwirkungen dominieren.

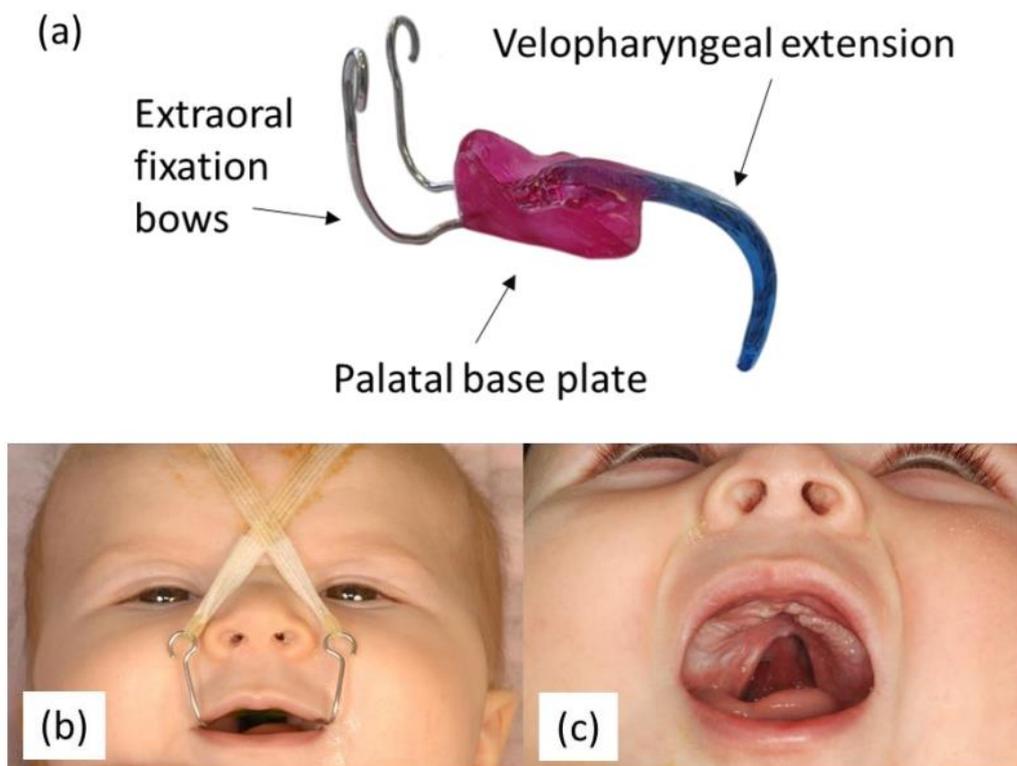


Abb. 1: a) Die Tübinger Atmungsplatte (Tübingen Palatal Plate – TPP) mit extraoralen Drahtbögen, einer velopharyngealen Extension (blau) und der Gaumenabdeckplatte (pink); b) Kind mit RS mit eingesetzter TPP und Fixation mittels Tapes; c) Darstellung der Gaumenspalte ohne eingesetzte TPP (Effert et al., 2023a).

1.2.4 Unterkieferwachstum

Wünschenswert für ein optimales langfristiges Ergebnis ist ein Aufholwachstum des Unterkiefers, sodass das Gesichtsprofil harmonisch erscheint und die Diskrepanz zwischen Ober- und Unterkiefer, die aufgrund der mandibulären Retrognathie besteht, ausgeglichen wird.

Um das Unterkieferwachstum beurteilen zu können, werden in der Literatur meist laterale Fernröntgenseitenbilder (FRS) verwendet. Als anderes bildgebendes Verfahren kann auch eine Computertomographie (CT) angewandt werden. Nachteil an einem FRS oder einem CT ist das Auftreten von ionisierender Röntgenstrahlung. Eine Magnetresonanztomographie (MRT), welche auch Anwendung findet und keine ionisierende Strahlung hat, ist sehr aufwendig, teuer und wird erfahrungsgemäß als unangenehm für die Patienten/innen empfunden.

Die Weichteile können als Profil- oder Enface-Aufnahme durch eine 2D- oder 3D-Fotografie ausgewertet werden.

1.3 Studienziele und Nullhypothesen

Durch die Entwicklung der TPP, können die deutlich invasiveren chirurgischen Verfahren vermieden werden und damit die daraus entstehenden schwerwiegenden Komplikationen. Die klinische Wirksamkeit der TPP konnte in verschiedenen Studien bewiesen werden (Poets et al., 2019, Wiechers et al., 2019, Buchenau et al., 2007, Poets et al., 2017, Schmidt et al., 2021, Wiechers et al., 2021).

Zielsetzung dieser Studie ist daher die Auswertung und Analyse von retrospektiven Ergebnissen bei initialer Therapie nach der Geburt der Kinder mit dem Tübinger Behandlungskonzept. Die Patienten/-innen sind zum Zeitpunkt der Untersuchung im Schulalter (Median 9,9 Jahre) und werden mit einer alters- und geschlechtsgleichen gesunden Kontrollgruppe verglichen, die keine RS oder sonstige Anomalien im Mund-, Kiefer-, Gesichtsbereich aufweisen.

Die Ergebnisse der Studie sollen die langfristige Wirksamkeit der TPP als Mittelpunkt des Tübinger Therapiekonzeptes wissenschaftlich darstellen und auswerten. Als Fokus wird ein mögliches Unterkiefernachholwachstum durch die

Einleitung

TPP bei Schulkindern erforscht, welches in der Literatur kontrovers diskutiert wird (Purnell et al., 2019). Zudem sollen die damit einhergehenden Auswirkungen in Funktion und Ästhetik untersucht und mit gesunden Kindern verglichen werden. Zusätzlich soll die langfristige kieferorthopädische Behandlungsnotwendigkeit der Kinder mit RS nach einer Behandlung mit der der TPP objektiv dargestellt werden, da diese mit Hilfe des „Index of Orthodontic Treatment Need“ (IOTN) bislang nur in wenigen Studien an Kindern mit kraniofazialen Anomalien und noch nie spezifisch an Kindern mit RS ermittelt wurde (Hobson et al., 2005, Kleint et al., 2002, Taddei et al., 2016).

Die folgenden Nullhypothesen sollen mit der vorliegenden Studie überprüft werden und beziehen sich immer auf einen Vergleich zwischen den Patienten/-innen mit RS und der gesunden Referenzgruppe:

- Es gibt keine Diskrepanz in den beiden Gruppen in der nach Hasund/Segner kephalometrisch ausgewerteten skelettalen sagittalen und vertikalen Entwicklungen. Auch die dentale- und Weichteilbewertung sowie das Wachstumsmuster sind vergleichbar. Es findet bei den Kindern mit RS ein Aufholwachstum der Mandibula statt und es liegt eine mandibuläre Orthognathie vor.
- Die Patienten/-innen mit RS sind funktionell unauffällig, ebenso wie die gesunden Kinder (Habits, Zwangsbisse, Zungenruhelage, Schluckmuster, Mundatmung, Kurzcheck Kiefergelenk, myofunktionell, Aussprache, Lippenhaltung).
- Es liegt kein Unterschied in der Entwicklung des stomatognathen Systems vor (Platzverhältnisse, Zahnzahl, Zahnformanomalien, Kieferhöhle, Kiefergelenke).
- Disproportionen und Asymmetrien des Gesichts finden sich in beiden Gruppen gleichermaßen häufig in der Fotostatanalyse von frontal und von lateral.
- Es liegt kein Unterschied im posterior airway space auf Höhe des Spinaplanums, der Okklusionsebene und des Mandibularplanums vor.
- Eine kieferorthopädische Behandlungsnotwendigkeit tritt gleich häufig in beiden Gruppen auf.

2 Patienten und Methoden

2.1 Studiendesign

In der vorliegenden Arbeit handelt es sich um eine retrospektive Studie, um die Langzeitergebnisse bei Kindern mit RS nach initialer Therapie im Säuglingsalter mit der TPP zu untersuchen. Hierzu wurden 23 Kinder mit RS und 21 einer gesunden Referenzgruppe in der Poliklinik für Kieferorthopädie am Zentrum für Zahn-, Mund und Kieferheilkunde des Universitätsklinikum Tübingen kieferorthopädisch untersucht. Die beiden Gruppen sind in Bezug auf das Alter (beide Gruppen durchschnittlich 9,9 Jahre) und Geschlecht (RS: 11 weibliche- und 12 männliche Kinder; K: 10 weibliche- und 11 männliche Kinder) gematcht. Die Erhebung der Daten fand von 09/2019 bis 10/2020 im Rahmen einer Studie der Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin statt, bei der das Auftreten einer obstruktiven Schlafapnoe, die kognitiven Fähigkeiten und die Wachstumsmuster im Mund-Kiefer-Gesichtsbereich von Kindern im Schulalter untersucht wurden. Alle Probanden/-innen sind zwischen dem 01.01.2008 und dem 31.12.2012 geboren.

2.2 Genehmigung durch die Ethik-Kommission

Die Studie mit der Projektnummer 361/2019BO1 vom 01.04.2019 wurde der Ethikkommission der Medizinischen Fakultät der Eberhard Karls Universität Tübingen von mit positivem Votum bewilligt.

2.3 Patienten/-innen (Ein- und Ausschlusskriterien)

In der Untersuchung wurden insgesamt 23 Kinder mit RS, die in Tübingen mit der TPP behandelt wurden, sowie korrespondierend eine Kontrollgruppe mit 21 Kindern ohne kraniofaziale Anomalien eingeschlossen. 19 der Kinder haben eine nicht-syndromale also eine isolierte RS, 4 eine syndromale RS.

Eine Fallzahlberechnung wurde nicht durchgeführt, da durch das seltene Auftreten der RS-Erkrankung nicht erheblich mehr Probanden/-innen in der Altersklasse für die Studie verfügbar gewesen wären. Die Anzahl der zwischen 2008 und 2012 in Tübingen geborenen Kinder mit RS beträgt 93, wovon nur 69 mit der TPP behandelt wurden. 18 davon wurden nicht erreicht, 28 weitere

wollten aus verschiedenen Gründen nicht teilnehmen. Daher ergibt sich die Probanden/-innen Anzahl von 23 Kindern mit RS, die außerdem alle weiteren Kriterien erfüllen. Alle erkrankten Probanden/-innen sind Patienten/-innen der Poliklinik für Kieferorthopädie Tübingen und der Neonatologie Tübingen. Die gesunden Kinder wurden über Mundpropaganda und den hausinternen E-Mail-Verteiler rekrutiert.

Die RS-Gruppe und die Kontrollgruppe sind alters- und geschlechtsgleich, sodass sie besser verglichen werden können (s. Tab. 1).

Als Ausschlusskriterium gilt das fehlende Einverständnis der Eltern bei den Minderjährigen, sowie die fehlende Zustimmung seitens der Kinder. Außerdem darf die gesunde Kontrollgruppe keine kraniofazialen Anomalien aufweisen und die Kinder mit RS dürfen nicht mit anderen Behandlungskonzepten außer dem Tübinger Konzept (TPP) behandelt worden sein.

	RS-Gruppe Median (Min.-Max.)	n	Kontrollgruppe Median (Min.-Max.)	n
Alter in Jahren*	9,9 (7,8-12,1)	23	9,9 (7,6-12,1)	21
Alter in Tagen*	3618 (2842-4433)	23	3623 (2774-4433)	21
Geschlecht	11 weiblich, 12 männlich	23	10 weiblich, 11 männlich	21

*Tab. 1: Alters- und Geschlechtsverteilung der Probanden/-innen; *zum Zeitpunkt der Untersuchung*

2.4 Studienablauf und Datenerfassung

Die Untersuchungen wurden unmittelbar nach positivem Votum der Ethikkommission und der zuvor erfolgten Patienten/-innen-Rekrutierung im Zeitraum zwischen September 2019 und Oktober 2020 von den Prüfarzten der Neonatologie und Kieferorthopädie in Tübingen durchgeführt. Es wurden Fotostat-Aufnahmen in Form von Enface-, Profil- und intraoralen Aufnahmen des Zahnstatus mittels 2D-Fotographie mit einer Spiegelreflexkamera (Canon Deutschland GmbH, Krefeld, Deutschland) im hausinternen Fotolabor nach der Idealfototechnik des American Board of Orthodontics angefertigt. Außerdem wurde ein 3D-Intraloralscan (Trios 3® 3Shape,

Copenhagen, Denmark) des Ober- und Unterkiefers durchgeführt (inkl. Bissregistrator). Bei Patienten/-innen, bei welchen aufgrund der Compliance kein 3D-Intraoralscan möglich war, wurden konventionell, mittels Alginat-Abdruck und Hartgips, Modelle hergestellt. Diese wurden in einem Modellhalter fixiert und durch ein Scan-Gerät (ceramill® map 400) digitalisiert.

Zuletzt wurde eine kieferorthopädische Basisuntersuchung mit extraoralem-, intraoralem- und myofunktionellem Befund und CMD-Screening durchgeführt. Zusätzlich wurden von den behandelnden Kieferorthopäden/-innen und Zahnärzten/-innen Röntgenbilder (Panoramaschichtaufnahme und Fernröntgenseitenbild) mittels Schweigepflicht entbindenden und von den Erziehungsberechtigten unterschriebenen Einwilligungserklärungen angefordert, sodass keine Gefahr einer Mehrfachanfertigung bestand und der Strahlenschutz eingehalten wurde.

Jedes Kind erhielt eine pseudonymisierte Studiennummer, sodass die klinischen Daten ohne direkten Bezug zum Namen gespeichert und ausgewertet sind. Eine Liste, die Kontaktdaten der Eltern, der behandelnden Kieferorthopäden/-innen und Zahnärzten/-innen enthält, ist auf dem UKT-Server, ausschließlich für Mitarbeiter der Studie zugänglich, für 10 Jahre gespeichert und ermöglicht eine nachträgliche Zuordnung der Daten. Die Daten sind so vor fremden Zugriffen geschützt.

Die Einverständniserklärung zur Teilnahme an der Studie wurde von Erziehungsberechtigten minderjähriger Teilnehmer unterschrieben. Die unterschriebenen Dokumente werden in Papierform in der Poliklinik für Kieferorthopädie des Zentrums für Zahn-, Mund- und Kieferheilkunde des Universitätsklinikums Tübingen aufbewahrt.

Mit Hilfe des Programmes Excel (Microsoft, Redmond, WA, USA) erfolgte eine Zusammenfassung aller gesammelten Daten, welche zur Auswertung in das statistische Softwareprogramm JMP (SAS Institute GmbH, Cary, North Carolina, USA) importiert wurden.

2.5 Zielparameter und Auswertung

2.5.1 Klinischer kieferorthopädischer Basisbefund

Jede Untersuchung wurde in handschriftlicher Form auf dem Bogen des klinischen Befundes der Poliklinik für Kieferorthopädie dokumentiert. Hierbei wurde folgendes untersucht (einzelne Parameter s. Tab. 2):

- Extraoraler Befund
- Intraoraler Befund
- Myofunktioneller Befund
- CMD-Screening

Zudem wurde die Klassifikation nach Edward Hartley Angle als Analyse der okklusalen Beziehungen in Angle-Klasse I – III durchgeführt (Angle, 1899).

Körperhaltung physiologisch	ja, nein
HWS-Rotation unauffällig	ja, nein
Schulterstand unauffällig	ja, nein
Lippenhaltung kompetent	ja, nein
M. Mentalis unauffällig	ja, nein
Habits	ja, nein
Zahnstatus	erste WG-Phase, Ruhephase, zweite WG-Phase, permanentes Gebiss
Bisslage rechts	Angle Klasse I, Angle Klasse II, Angle Klasse III
Bisslage links	Angle Klasse I, Angle Klasse II, Angle Klasse III
Overjet	mm
Overbite	mm
PSI	primär gesund, primär nicht gesund
Zahnhartsubstanzdefekt	ja, nein
Mundschleimhautveränderungen	ja, nein
OK sagittal apikale Basis	physiologisch, kurz
OK transversal apikale Basis	physiologisch, schmal, ausgeprägt
UK sagittal apikale Basis	physiologisch, kurz, ausgeprägt
UK transversal apikale Basis	physiologisch, schmal, ausgeprägt
OK MLV dental	übereinstimmend, abweichend 1-5 mm, abweichend > 5 mm
UK MLV dental	übereinstimmend, abweichend 1-5 mm, abweichend > 5 mm
UK MLV mandibulär	übereinstimmend, abweichend 1-5 mm, abweichend > 5 mm
Zwangsführung	nein, dorsal, links, rechts
Lippenlinie	mm zur Inzisalkante
Lachlinie	mm zur Inzisalkante
Lippenbändchen im OK	unauffällig, auffällig
Zungenbändchen	unauffällig, auffällig

Patienten und Methoden

Wangen- und Lippenbändchen	unauffällig, auffällig
Aussprache/Phonation	unauffällig, Sigmatismus, nasal
Atmung	Nasenatmung, Mundatmung, Schnarchen
Tonsillen HNO	unauffällig, verkleinert, vergrößert
Schluckmuster	somatisch, viszeral
Zungenruhelage	regelrecht, tief
Kopf-/Nackenschmerz	nein, < 1x/Woche, > 1x/Woche
Mundöffnung SKD	mm
Kurzcheck Auffälligkeiten KG	ja, nein

Tab. 2: Erhobene Parameter des kieferorthopädischen Basisbefundes

2.5.2 Jaw Index

Im Rahmen der Studie der Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin wurde der maxilläre Bogen subnasal vom linken zum rechten Tragus und der mandibuläre Bogen über das Pogonion vom linken zum rechten Tragus in Millimetern mit einem Maßband gemessen. Mithilfe unseres in Millimetern gemessenen alveolären Überbisses im Rahmen der kieferorthopädischen Basisuntersuchung, lässt sich mit diesen drei Werten der Jaw-Index errechnen. Definiert wird er als: $O \times U/L$ (alveolärer Überbiss \times maxillärer/mandibulärer Bogen) (s. Abb. 2).

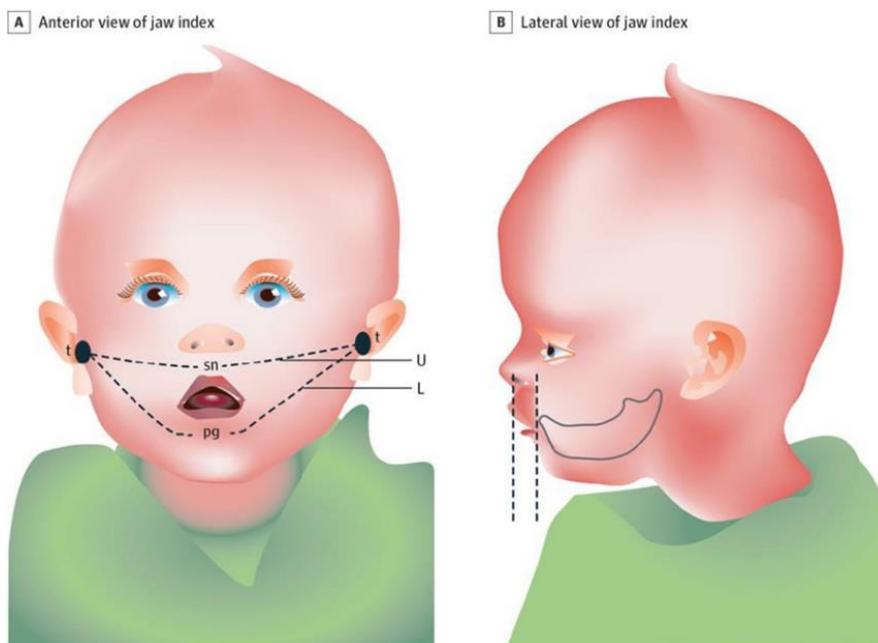


Abb. 2: Bestimmung des Jaw Index: $O \times U/L$ (alveolärer Überbiss \times maxillärer/mandibulärer Bogen) (F. Nötzel, 2001, Mermans et al., 2020)

2.5.3 Modellanalyse anhand OnyxCeph®^{3TM}

Die Auswertung der digitalen 3D-Modelle erfolgte mit dem Programm OnyxCeph®^{3TM} (Image Instruments GmbH, Chemnitz, Deutschland, Version 3).

Genutzt wurden die in OnyxCeph gespeicherten und im Folgenden genauer erläuterten Analyseverfahren von „Tonn“, „Pont/Harth“ und „Brune-Moyers“ (s. Tab. 3).

Analyseverfahren nach Brune-Moyers	
si UK (in mm)	Summe der Schneidezahnbreiten im UK
PB Szo (in mm)	Stützzonenschätzung OK
PB Szu (in mm)	Stützzonenschätzung UK
Szro (in mm)	Platzangebot obere rechte Stützzone
D Szro (in mm)	Diskrepanz obere rechte Stützzone
Szlo (in mm)	Platzangebot obere linke Stützzone
D Szlo (in mm)	Diskrepanz obere linke Stützzone
Szru (in mm)	Platzangebot untere rechte Stützzone
D Szru (in mm)	Diskrepanz untere rechte Stützzone
Szlu (in mm)	Platzangebot untere linke Stützzone
D Szlu (in mm)	Diskrepanz untere linke Stützzone
Modellanalyse Tonn-Index	
SI OK (in mm)	Summe der Schneidezahnbreiten im OK
si UK (in mm)	Summe der Schneidezahnbreiten im UK
Index (in %)	Verhältnis der Schneidezahnbreiten OK/UK
Modellanalyse Pont/Harth	
SI OK (in mm)	Summe der Schneidezahnbreiten im OK
vZBBo (in mm)	vordere Zahnbogenbreite im OK
vZBBu (in mm)	vordere Zahnbogenbreite im UK
hZBBo (in mm)	hintere Zahnbogenbreite im OK
hZBBu (in mm)	hintere Zahnbogenbreite im UK

Tab. 3: Definitionen der Referenzpunkte, -linien und Winkel in den Modellanalysen nach „Brune-Moyers“, „Tonn“ und „Pont“

2.5.3.1 Wechselgebissanalyse nach Brune-Moyers

Die Stützonenanalyse nach Brune-Moyers definiert die Stützzone als Abstand zwischen dem distalen Kontaktpunkt des seitlichen Inzisivus und dem mesialen Kontaktpunkt des 6-Jahresmolaren. Sie entspricht in einem harmonischen Zahnbogen eines Wechselgebisses der Summe der Milchzahnbreiten 3, 4 und 5 und hat eine Platzhalterfunktion für die bleibenden Eckzähne und Prämolaren. Bei der Beurteilung der Platzverhältnisse im Wechselgebiss wird die Summe der unteren Schneidezähne (si UK) in Korrelation mit der Breitensumme von Eckzahn und Prämolaren gesetzt.

So wird zuerst si UK und SI OK berechnet, dann alle vier Stützonen in allen 4 Quadranten gemessen und anschließend der in Tabelle 4 abgebildete und hervorgehobene 75 %-Wert abgelesen. Die Differenz aus dem gemessenen und dem vorhergesagten Wert aus der Tabelle ergibt dann entweder einen Platzmangel (Minus-Differenz) oder eine Platzreserve (Plus-Differenz) für jede der 4 Stützonen.

Oberkiefer												
siUK	19,5	20,0	20,5	21,0	21,5	22,0	22,5	23,0	23,5	24,0	24,5	25,0
95 %	21,6	21,8	22,1	22,4	22,7	22,9	23,2	23,5	23,8	24,0	24,3	24,6
85 %	21,0	21,3	21,5	21,8	22,1	22,4	22,6	22,9	23,2	23,5	23,7	24,0
75 %	20,6	20,9	21,2	21,5	21,8	22,0	22,3	22,6	22,9	23,1	23,4	23,7
65 %	20,4	20,6	20,9	21,2	21,5	21,8	22,0	22,3	22,6	22,8	23,1	23,4
Unterkiefer												
siUK	19,5	20,0	20,5	21,0	21,5	22,0	22,5	23,0	23,5	24,0	24,5	25,0
95 %	21,1	21,4	21,7	22,0	22,3	22,6	22,9	23,2	23,5	23,8	24,1	24,4
85 %	20,5	20,8	21,1	21,4	21,7	22,0	22,3	22,6	22,9	23,2	23,5	23,7
75 %	20,1	20,4	20,7	21,0	21,3	21,6	21,9	22,2	22,5	22,8	23,1	23,4
65 %	19,8	20,1	20,4	20,7	21,0	21,3	21,6	21,9	22,2	22,5	22,8	23,1

Tab. 4: Wechselgebissanalyse nach Brune-Moyers, Sollwerte OK und UK (mm) mit hervorgehobenen 75 % Niveau (Moyers, 1988)

2.5.3.2 Beurteilung nach Tonn

Die Summe der größten mesio-distalen Breiten der oberen bleibenden Schneidezahnkronen (SI) wird zur Beurteilung der Harmonie zwischen oberen und der unteren Frontzahnbögen verwendet. Nach Tonn besteht eine Korrelation zwischen der Breitensumme der bleibenden Schneidezähne des Oberkiefers und des Unterkiefers mit 4:3 (SI OK:si UK). So sollte bei der Division das Ergebnis als Richtlinie 74 % betragen. Weicht es davon ab, besteht eine Tonn-Diskrepanz und es kann eine Disharmonie von oberem und unterem Schneidezahnbereich festgestellt werden. Ein Prozentwert über 74 % bedeutet Überschuss im Unterkiefer, während ein Index unter 74 % auf einen zu breite Oberkieferschneidezähne hinweist.

2.5.3.3 Beurteilung der Zahnbogenbreite nach Pont/Harth

Zur Beurteilung der vorderen und hinteren Zahnbogenbreite und -länge hat Pont Punkte definiert, sodass vergleichbare Werte ermittelt werden können. Die vordere Zahnbogenbreite im Unterkiefer (vzB) ist die Verbindungslinie, ausgehend vom distalen Kontaktpunkt der ersten Prämolaren zu den zweiten Prämolaren und im Wechselgebiss vom distobukkalen Höcker der ersten Milchmolaren. Die hintere Zahnbogenbreite im Unterkiefer (hZB) ist die Verbindungslinie, ausgehend vom distobukkalen Höcker bzw. im Wechselgebiss vom mittleren Höcker bei 6-Jahresmolaren mit fünf Höckern. Im Oberkiefer ist die vZB die Verbindungslinie ausgehend von der mittleren Fissur der ersten Prämolaren und im Wechselgebiss vom distalen Grübchen der ersten Milchmolaren. Die hZB im Oberkiefer ist die Verbindungslinie ausgehen von der tiefsten Stelle der Hauptfissur bzw. der vorderen Kreuzung der H-Fissur der 6-Jahresmolaren.

Der Pont-Index wird dann als Relation zwischen der Breite der oberen Schneidezähne und der vorderen und hinteren Zahnbogenbreite hergestellt. Die deutsche Bevölkerung spiegelt sich dabei in den Index-Zahlen von Harth wider. Dabei wird der SI OK mit 100 multipliziert und dann für die anteriore Breite durch 85 dividiert und für die posteriore Breite durch 65. Diese transversalen Sollwerte, in Tabelle 5 dargestellt, werden dann mit den gemessenen Ist-Werten

am Modell verglichen. So kann eine Diskrepanz der transversalen Breite in Oberkiefer und Unterkiefer festgestellt werden.

SIOK	27	27,5	28	28,5	29	29,5	30	30,5	31	31,5	32
VZB	32	32,5	33	33,5	34	35	35,5	36	37	37,5	38
HZB	41,5	42,5	43	44	44,5	45,5	46	47	47,5	48,5	49
LO	16	16,5	16,5	17	17	17,5	17,5	18	18	18,5	18,5

Tab. 5: Transversale Sollwerte für die vZB und hZB nach Pont (mm) (Pont, 1909)

2.5.4 Index of orthodontic treatment need (IOTN)

Zur Ermittlung des kieferorthopädischen Behandlungsbedarfs wurde der IOTN bestimmt, da dieser in der kieferorthopädischen Fachliteratur der mitunter meistverwendete Index darstellt (Bellot-Arcís et al., 2012b). Er stellt eine non-parametrische Wertung dar, welche aus den zwei Methoden der „Aesthetic Component“ (AC) und der „Dental Health Component“ (DHC) besteht. Die AC zeigt eine subjektive ästhetische Wahrnehmung durch die Patienten/-innen, während die DHC die klinische Situation beschreibt.

In der vorliegenden Studie wurde ausschließlich die wissenschaftlich objektive und qualitative, in der Literatur meist verwendete Methode, die DHC zur Bewertung des IOTN bestimmt, da die AC als Selbstbewertungsparameter nur in etwa 30 – 35 % der Fälle mit der externen Beurteilung des Kieferorthopäden übereinstimmt (Ho-A-Yun et al., 2009). Sie wird rein aus der Perspektive des Behandlers durchgeführt, ohne einen Einfluss einer psychosozialen oder ästhetischen Komponente. An digitalen Modellen kann die DHC mit Hilfe von OnyxCeph®³™ (Image Instruments GmbH, Chemnitz, Deutschland) analysiert werden. Zusätzlich können nach der Idealfototechnik angefertigte 2D-Fotografien bei der Auswertung mit einbezogen werden. Es wird eine Einteilung in fünf aufsteigende Grade nach Brook und Shaw vorgenommen. Die Fehlstellungen werden an 15 Qualifikationsmerkmalen kategorisiert und bewertet. Jedem Merkmal wird ein Buchstabe mit entsprechenden Graden zwischen 1 und 5 zugeordnet, welche die Behandlungsnotwendigkeit beschreiben (s. Tab. 6).

Patienten und Methoden

Grad 1: Keine Behandlungsnotwendigkeit
1: Sehr kleine Zahnfehlstellungen (inklusive einer Kontaktpunktverschiebung unter 1 mm)
Grad 2: Geringe Behandlungsnotwendigkeit
2a: Overjet > 3,5 mm und ≤ 6 mm (mit kompetentem Lippenschluss)
2b: Verkehrter sagittaler Überbiss zwischen 0 and ≤ 1 mm (ohne Kau-/Sprachproblemen)
2c: Anteriorer oder posteriorer Kreuzbiss mit 1 mm Diskrepanz zw. RCP and ICP
2d: Kontaktpunktverschiebung > 1 mm and ≤ 2 mm
2e: Offener Biss > 1 mm und ≤ 2 mm
2f: Tiefbiss über ≥ 3.5 mm mit Überdeckung des antagonistischen Schneidezahns (ohne Kontakt zur Gingiva)
2g: Klasse II oder Klasse III Okklusion ohne andere Anomalien (bis zu einem halben Prämolarenbreite in der sagittalen Relation)
Grad 3: Mäßige Behandlungsnotwendigkeit
3a: Overjet > 3.5 mm und ≤ 6 mm (mit inkompetentem Lippenschluss)
3b: Verkehrter sagittaler Überbiss zwischen 1 and ≤ 3.5 mm (ohne Kau-/Sprachproblemen)
3c: Anteriorer oder posteriorer Kreuzbiss mit > 1 mm und ≤ 2 mm Diskrepanz zw. RCP/ICP
3d: Kontaktpunktverschiebung > 2 mm und ≤ 4 mm
3e: Offener Biss > 2 mm und ≤ 4 mm
3f: Tiefbiss mit Berührung der antagonistischen palatinalen oder labialen Gingiva (ohne Trauma)
Grad 4: Große Behandlungsnotwendigkeit
4h: Nichtanlage von nicht mehr als einem Zahn pro Quadranten
4a: Overjet > 6 mm und ≤ 9 mm
4b: Verkehrter sagittaler Überbiss > 3.5 mm (ohne Kau-/Sprachproblemen)
4m: Anteriorer oder posteriorer Kreuzbiss mit > 1 mm und ≤ 3.5 mm (mit Kau-/Sprachproblemen)
4c: Anteriorer oder posteriorer Kreuzbiss mit > 2 mm Diskrepanz zw. RCP/ICP
4l: Scherenbiss ohne funktionalen Okklusionskontakt im gesamten Seit Zahnsegment einer oder beider Seiten
4d: Kontaktpunktverschiebung > 4 mm
4e: Extrem offener Biss > 4 mm
4f: Tiefbiss mit traumatischem Einbiss der antagonistischen palatinalen oder labialen Gingiva
4t: Teilweise durchgebrochener Zahn, gekippt zum benachbarten Zahn
4x: Überzähliger bleibender Zahn, nach dessen Entfernung eine Ausformung des Zahnbogens oder ein Lückenschluss durchgeführt werden muss
Grad 5: Sehr große Behandlungsnotwendigkeit
5i: Behinderung des regelrechten Zahndurchbruchs (außer 3. Molaren) wegen Platzmangel, Verlagerung, überzähliger Zahn, persistierender Milchzahn, andere pathologische Ursache
5h: Nichtanlage von mehr als einem Zahn in mindestens einem Quadranten
5a: positiver sagittaler Overjet > 9 mm
5m: Verkehrter sagittaler Überbiss > 3,5 mm (mit Kau-/Sprachproblemen)
5p: Defekte wie LKG-S und/oder anderen kraniofazialen Anomalien mit Auswirkungen auf die Zahnstellung
5s: Versunkene Milchzähne mit entweder nur 2 sichtbaren Höckern verbleibend oder die Nachbarzähne sind stark über den Milchzahn gekippt

Tab. 6: IOTN DHC Einteilung nach Grad 1 – 5 nach Brook und Shaw bei den jeweiligen Untergruppen als Merkmale (Brook and Shaw, 1989)

Da zur Einstufung der Grade nur ein einzelner Wert, nämlich der höchste Grad, die Behandlungsnotwendigkeit bestimmt, muss eine Reihung der Merkmale erfolgen (Richmond and Andrews, 1993). Hierfür gibt es beim Vorliegen von mehreren Qualifikationsmerkmalen, die den höchsten Grad erfüllen, das MOCDO-Schema nach Richmond et al.:

1. **Missing teeth** (fehlende Zähne): Merkmale i, h
2. **Overjet** bzw. **reverse Overjet** (sagittaler Überbiss; positiver Overjet, negative Overjet): Merkmale a, b, m
3. **Crossbite** (Kreuzbiss): Merkmal c
4. **Displacement** (Kontaktpunktverschiebung): Merkmal d
5. **Overbite** bzw. **open bite** (vertikaler Überbiss; positiver Overbite oder offener Biss): Merkmale e, f
6. **Andere**: Merkmale g, l, p, s, t, x

So entsteht aus den Anfangsbuchstaben die Reihenfolge „MOCDO“. Die Einteilung der DHC erfolgt dann absteigend. Der höchste Wert bestimmt die kieferorthopädische Behandlungsnotwendigkeit (s. Tab. 6).

2.5.5 Fotostat-Analyse anhand OnyxCeph®^{3TM}

Zur Beurteilung von Schädelproportionen und zur Feststellung größerer Disproportionen und Asymmetrien, wurden Enface- und seitliche Profilbilder angefertigt.

Die Beurteilung des Gesichtsprofils in der 2D-Fotografie ist eine klinische Ergänzung zur Fernröntgenanalyse, wodurch die Lage der beiden Kiefer im Verhältnis zur Schädelbasis eingeschätzt werden kann. Die Fotos wurden im hausinternen Fotolabor angefertigt. Die Aufnahmen wurden immer in der gleichen reproduzierbaren Position und in dem gleichen Abstand zum/zur Patienten/-in gemacht, sodass Vergleichsmessungen möglich waren. Es wurde für optimale Lichtverhältnisse ein Ringblitzsystem verwendet. Die Fotos wurden in das Programm OnyxCeph®^{3TM} (Image Instruments GmbH, Chemnitz, Deutschland) importiert und dort über die vorinstallierten Vermessungsverfahren analysiert. Jede Analyse beinhaltet einen vorgegebenen Satz an diagnostisch aussagekräftigen Variablen, die aus der Position von Referenzpunkten auf dem Foto berechnet werden. Bei den Enface-Aufnahmen wurden die vorgegebenen

Patienten und Methoden

Verfahren der „Divine Proportion“ verwendet und zusätzlich noch die im Folgenden erläuterten weiteren Messungen durchgeführt. Bei den Profilaufnahmen, Verfahren nach „A. M. Schwarz“ (Schwarz, 1958) und „Tübingen“. In Tabelle 7 sind die Messungen der oben genannten Verfahren genauer erläutert. Die Abkürzungen sind in Tabelle 8 dargestellt und in Abbildung 3 sind die verschiedenen Profiltypen nach A.M. Schwarz abgebildet.

Fotostat lateral	
Gl'-Sn-Pog' (in Grad)	Fazialkonvexität
SnPog'-Pn (in Grad)	Profilwinkel nach A.M. Schwarz
Z-Winkel nach Merrifield (in Grad)	Z-Winkel nach Merrifield
Gl'-N'-Ns (in Grad)	Nasofrontalwinkel
Cotg-Sn-Ls (in Grad)	Nasolabialwinkel
N'-MN-Ns (in Grad)	Nasenrückenwinkel
Sn-Cotg/N'-Ns (in Grad)	Nasalwinkel
Li-Sm-Pog' (in Grad)	Mentolabialwinkel
Gl'-Pog'/H-Me' (in Grad)	Cervicomentalwinkel
N'-Tra-Sn (in Grad)	Mittelgesichtswinkel
Sn-Tra-Me' (in Grad)	Untergesichtswinkel
Enface - Divine proportion	
Tri-NR/NL (in mm)	Abstand zwischen Haaransatz und breitester Stelle Nase
NR/NL-f-Me (in mm)	Abstand zwischen breitester Stelle der Nase und Kinn
AR/AL-MR/ML (in mm)	Abstand zwischen Augen und Mund
MR/ML-f-Me (in mm)	Abstand zwischen Mund und Kinn
WR-WL (in mm)	Breite des Gesichts
NR-NL (in mm)	Breite der Nase
AR-AL (in mm)	Abstand der Augen
MR-ML (in mm)	Breite des Mundes
Tri-NR/NL:NR/NL-f-Me (in %)	Verhältnis zwischen Ober- und Untergesicht
A-M:M-f-Me (in %)	Verhältnis der Abstände zwischen Augen, Mund und Kinn
MV (in mm)	Verschiebung der Kinnmitte aus der Gesichtsmitte
Enface - weitere Messungen	
f-GI-Sub (in mm)	Größe des Mittelgesichts
Sub-f-Me (in mm)	Größe des Untergesichts
f-GI-Sub: Sub-f-Me (in %)	Verhältnis zw. Mittel und Untergesicht
Sub-Stom: Stom-f-Me (in %)	Verhältnis zw. Ober- zu Unterlippenlänge
GoL-f-Me-GoR (in Grad)	Kinnwinkel

Tab. 7: Definitionen der Referenzpunkte, -linien und Winkel in der den Fotostatanalysen bei Enface- und Profilaufnahmen; Abkürzungen s. Tabelle 8

Patienten und Methoden

Abk.	Erläuterungen Abkürzungen
Gl'	Hautglabella (Vorderster Punkt zwischen den Augenbrauen)
Ls	Labrale superius (Oberlippenkante, Übergang Lippenrot zu Lippenweiß)
Pog'	Pogonion (Vorderster Punkt des Weichteilkinns)
Sn	Subnasale (Übergang Nasensteg zur Oberlippe)
Pn	Perpendiculare nasale (Nasionenkrechte, Senkrechte durch das Weichteilnasion auf die Frankfurter Horizontale)
N'	Nasion/Hautnasion (Tiefste Einziehung zwischen Stirn und Nase)
Ns	Nasenspitze (Ventralster Punkt der Weichteilnase)
Cotg	Columella-Tangentenpunkt (Punkt am Übergang des geraden anteils der Columella in die Konvexität der Nasenspitze, Anlagepunkt einer Tangente von Sn an Nasensteg)
Li	Labrale inferius (Unterlippenkante, Übergang Lippenrot zu Lippenweiß)
Sm	Submentale (Tiefste Einziehung des Weichteilkinns)
H	Halspunkt (Übergang zwischen horizontaler und vertikaler Kontur des Halses)
Me/Me'	Menton (Kaudalster Punkt des Weichteilkinns)
Tra	Tragion (Punkt zwischen Tragus und Ohrmuschel)
Tri	Trichion (Haaransatz)
NR/NL	Rechter/linker Nasenflügel
f-Me	Frontales Menton molle (Frontales Weichteilmenton, Kinnmitte)
AR/AL	Rechter/linker Augenwinkel
MR/ML	Rechter/linker Mundwinkel
WR/WL	Rechte/linke Wange
MSE	Gesichtsmitte
Stom	Stomion (Mitte der Mundspalte)
BPE	Bipupillarlinie
GoR/GoL	Rechter/linker Kieferwinkel
Sub	Subnasale
Pn	Perpendiculare nasale (Senkrechte Hautnasion auf die Frankfurter Horizontale)

Tab. 8: Bezugspunkte und deren Abkürzungen bei Fotostatanalysen der Enface- und Profilaufnahmen

Patienten und Methoden

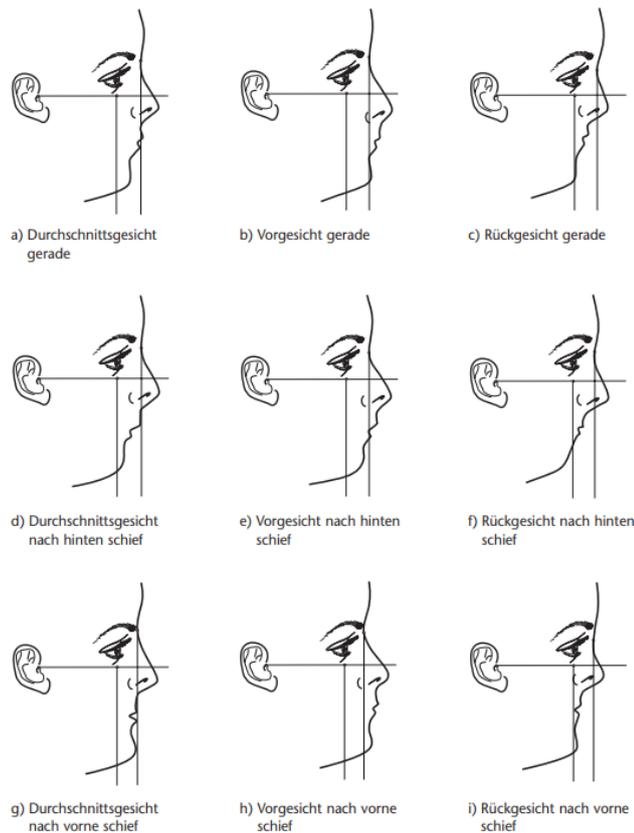


Abb. 3: Profiltypen und Profilverlauf nach A.M. Schwarz (Schultz, 2001)

Der Morphologische Gesichtsskellindex (s. Tab. 9) wurde anhand der Enface-Fotos errechnet. Er gibt eine Gegenüberstellung von Gesichtshöhe zu Jochbogenbreite. Je höher der Wert, desto höher lässt sich das Gesichtsskelett einstufen.

< 78,9 %	hypereuryprosop	Niedriges Gesichtsskelett
79 – 83,9 %	euryprosop	
84 – 87,9 %	mesoprosop	Mittelhohes Gesichtsskelett
88 – 92,9 %	leptoprosop	
≥ 93 %	hyperleptoprosop	Hohes Gesichtsskelett

Tab. 9: Beurteilung des MGI = Gesichtshöhe (Nasion-Menton) x 100 / Jochbogenbreite (%)

2.5.6 FRS-Analyse anhand OnyxCeph®³™

Die Fernröntgenanalyse wurde mittels OnyxCeph®³™ (Image Instruments GmbH, Chemnitz, Deutschland) durchgeführt. Die Referenzpunkte und die gemessenen Linien, Strecken und Winkel sind in Tabelle 10 und 11 und auf Abbildung 4 dargestellt.

Abk.	Erläuterungen Abkürzungen
S	Sella turcica (Größten Durchmesser der Sella halbieren)
N	Nasion (Vorderster Punkt der Spina nasofrontalis)
Ba	Basion (Am weitesten posterior und kaudal gelegene Punkt des Clivus)
Ar	Articulare (Schnittpunkt des Unterrandes der Schädelbasis mit der dorsalen Kontur des Condylus)
Sp/Spa	Spina nasalis anterior (Vorderster Punkt der Spina nasalis)
Pm/Spp	Pterygomaxillare/Spina nasalis posterior (Hinterster Punkt der Kontur des harten Gaumens)
Sp'	Spina Strich (Schnittpunkt der Linie Nasion-Gnathion mit NL)
A	A-Punkt (Scheitelpunkt der Krümmung des OK-Alveolarfortsatzes)
B	B-Punkt (Scheitelpunkt der Krümmung des UK-Alveolarfortsatzes)
Pg/Pog	Pogonion (Am weitesten anterior gelegener Punkt des knöchernen Kinns)
Me	Menton (Kaudalster Punkt der Unterkiefersymphyse)
Gn	Gnathion (Vorderster Punkt des knöchernen Kinns)
Isa	Apicale superior (Apikalster Punkt der Wurzel des am anteriorsten stehenden mittleren OK-Schneidezahnes)
Iss	Inzision superior (Inzisalster Punkt des am anteriorsten OK-Schneidezahnes)
Iis	Inzision inferior (Inzisalster Punkt des am anteriorsten stehenden mittleren UK-Schneidezahnes)
lia	Apicale inferior (Apikalster Punkt der Wurzel des am anteriorsten stehenden mittleren UK-Schneidezahnes)
Go/tgo	Gonion-Tangentenpunkt (Schnittpunkt der Ramus-Linie der ML)
Pog'	Weichteilpogonion (Anteriorster Punkt des Weichteil-Kinns)
Ls	Oberlippenpunkt (Am weitesten anterior liegende Punkt der Oberlippe)
Sn	Subnasale (Zwischen Kontur Nase und Kontur des Philtrums)
ctg	Columella Tangentenpunkt
Cond'	Condylion (Senkrecht zum Ramus mandibulae konstruierter dorsocranialster Punkt des Condylus)
NL	Nasal-Linie (Verbindungsline Spa und Pm) = Spinaplanum
ML	Mandibular-Linie (Verbindungsline Gn-tgo) = Mandibularplanum
NSL	Nasion-Sella-Linie (Verbindung Nasion-Sella) = vordere Schädelbasislänge

Tab. 10: gemessene Referenzpunkte und -linien im FRS und deren Abkürzungserklärungen (s. Abb. 4)

Patienten und Methoden

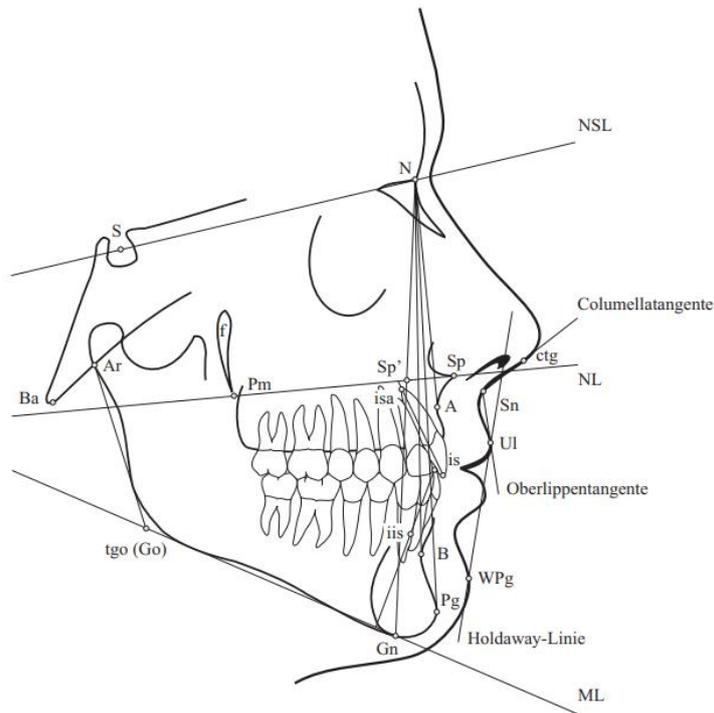


Abb. 4: Kephalemtrie nach Segner/Hasund (F. Nötzel, 2001, Hasund and Bøe, 1984)

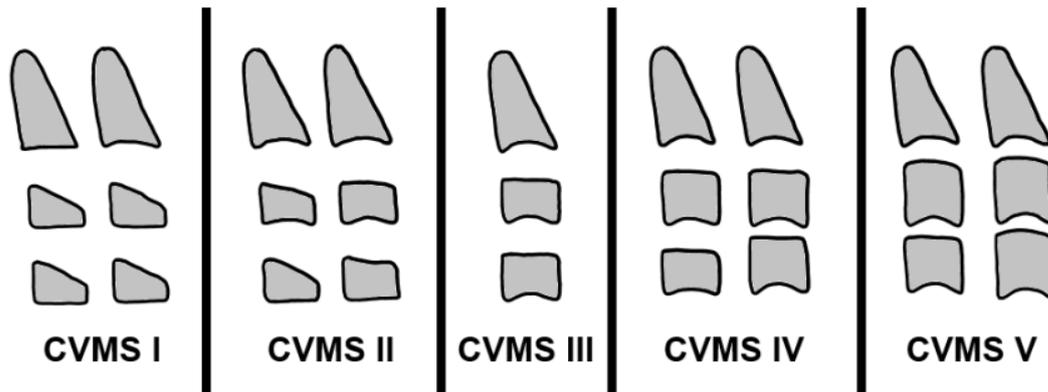
Winkel	Erläuterung [Normwerte]
SNA	SNA-Winkel [82±3°]
SNB	SNB-Winkel [80±3°]
ANB (SNA-SNB)	sagittale Position des OKs in Relation zum UK [2±2°]
Individualisierter ANB	= (-35,16)+0,4xSNA+0,2x(ML-NSL)
ANB-Differenz	ANB - Individ. ANB [0°±1°]
SNPog	sagittale Position der Mandibula bzw. des Kinns [81°±8°]
SNBa	Basion-Schädelbasiswinkel; Profiltyp [130±6°]
Kieferwinkel (Ar-Go-Gn)	Kieferwinkel [122°±10°]
NL-NSL	Winkel zw. vorderer Schädelbasis und OK-Basis [8±2°]
ML-NSL	Winkel zw. vorderer Schädelbasis und UK-Basis [28°±2°]
ML-NL	Winkel zw. OK- und UK-Grundebene [20°±3°]
Björk-Summenwinkel	Summe der Winkel NSAr, SArGo, ArGoMe zur Beschreibung des Wachstumsmusters [396±4°] (< horizontal, > vertikale Wachstumsrichtung)
Go1-Winkel (N-Go-Ar)	[53,5±1,5]
Go2-Winkel (N-Go-Me)	[72,5±2,5°]
Sellawinkel (N-S-Ar)	[123±5°]
Gelenkwinkel (S-Ar-Go)	[143±6°]
Frontzähne	
OK1-NA	Winkel zw. Achse der oberen 1er und NA [21±1°]
UK1-NB	Winkel zw. Achse der unteren 1er und NB [24±1°]
Interinzisalwinkel	Winkel zw. Achse der oberen und unteren 1er [133±5°]

Patienten und Methoden

OK1-NA-Strecke	Abstand der Schneidekante der oberen 1er zu NA [4±0,5 mm]
UK1-NB-Strecke	Abstand der Schneidekante der unteren 1er zu NB [4±0,5 mm]
Strecken	
Pog-NB-Strecke	Abstand des Pogonion zu NB [2 mm]
N-Sp'	Obere vordere Gesichtshöhe [mm]
Sp'-Gn	Untere vordere Gesichtshöhe [mm]
N-Gn	Obere + untere vordere Gesichtshöhe [mm]
Wits-Strecke	Abstand der Senkrechten durch Punkt A und B als Lot auf die Okklusionsebene [-1 bis +2 mm]
Go-Pog'	Unterkieferlänge [mm]
Go-Cond'	Ramuslänge [mm]
Spp-A	Oberkieferlänge [mm]
Indices	
Verhältnis obere zu untere Gesichtshöhe	[79,5 %]
Verhältnis hintere zu vordere Gesichtshöhe	[63,5±1,5 %]
Weichteilprofil	
Holdaway-Winkel	zwischen N-B und Holdaway-Linie (Ls-Pog') [8°]
Nasolabialwinkel	zwischen Columella- und Oberlippentangente [109,8°]
Schwarz-Profilanalyse	Durchschnittsgesicht, Rückgesicht, Vorgesicht
Sn-Pn	Gesichtstyp (Gerade, nach vorne schief, nach hinten schief)

Tab. 11: Durchgeführte Messungen im FRS mit klinischen Richtwerten nach Hasund (Hasund and Bøe, 1984)

Die in Abbildung 5 dargestellten CVM-Stadien (cervikal vertebral maturation stage) wurden nach Franchi und Baccetti 2002 erneuert und optimiert (Baccetti et al., 2002, Franchi et al., 2000). Zur Beurteilung der Halswirbelkörper C2, C3 und C4 in Zusammenhang mit dem Status des Unterkieferwachstums wurden diese nach der verbesserten Methode bestimmt. Die Wirbelkörper unterliegen während der Pubertät und den Wachstumsschüben morphologische Veränderungen, wodurch Rückschlüsse auf das individuelle skelettale Alter gezogen werden können. Durch diese Einschätzung kann auf eine zusätzliche Röntgenaufnahme im Sinne eines Handröntgens verzichtet werden.



CVMS1	mindestens 2 Jahre bis zum Wachstumsgipfel des UKs
CVMS2	1 Jahr oder weniger bis zum Wachstumsgipfel des UKs
CVMS3	Wachstumsspurt des UKs innerhalb diesen Jahres
CVMS4	mindestens 1 Jahr nach Wachstumsgipfel des UKs
CVMS5	mindestens 2 Jahre nach Wachstumsgipfel des UKs

Abb. 5: Stadieneinstufung der morphologischen Merkmale in den Wirbelkörpern C2, C3 und C4 nach entsprechenden Entwicklungsstadien im Zusammenhang mit dem Unterkieferwachstum

Der posterior airway space (PAS) wurde vermessen (s. Abb. 6), da Kinder mit RS häufig bei der Geburt klinisch aufgrund eines verminderten Volumens im PAS unter einer oberen Atemwegsobstruktion leiden. Zur Beurteilung des Rachenraums und zur metrischen Erfassung werden Fernröntgenbilder vermessen, da dies eine einfache, reproduzierbare Methode zur Beurteilung des Rachenraums darstellt. Gemessen wird der PAS auf drei verschiedenen Ebenen: auf Höhe des Spinaplanums (NL), auf Höhe der Okklusionsebene (Oc) und auf Höhe des Mandibularplanums (ML). Durchschnittliche Richtwerte liegen nach Rose et al. bei ca. 20 mm auf Höhe von NL, 8 mm auf Höhe der Okklusionsebene und 12 mm auf Höhe von ML (Rose et al., 2002).

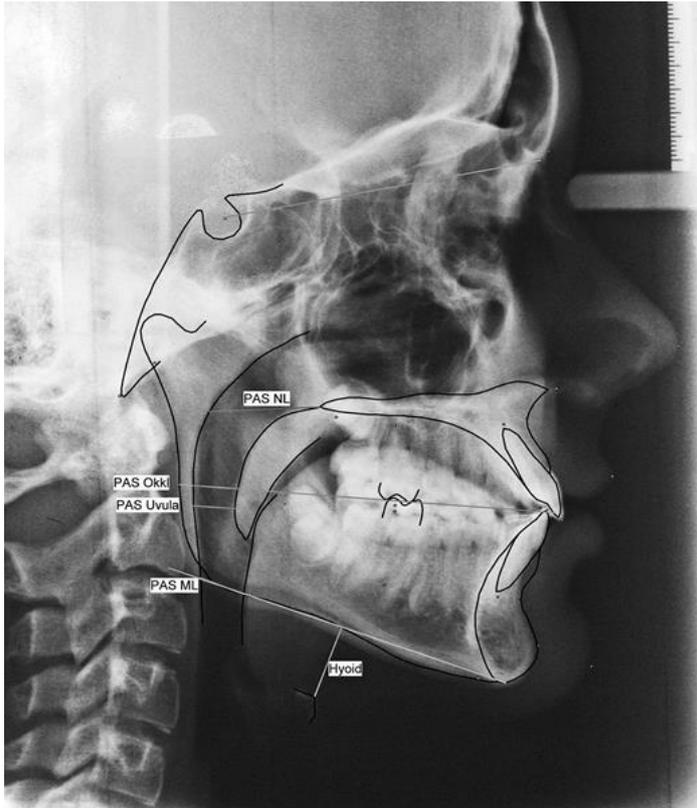


Abb. 6: Vorgehen Messung des PAS auf Höhe des Spinaplanums (NL), auf Höhe der Okklusionsebene (Okkl) und auf Höhe des Mandibularplanums (ML) (Godt et al., 2011)

2.5.7 Orthopantomogramm-Analyse

Der Panoramaschichtaufnahme (PSA) ist eine Übersichtsaufnahme, der folgende Befunde entnommen wurden:

- Vollständigkeit aller Zahnanlagen oder zusätzliche Anlagen im OK und UK
- Symmetrie und Auffälligkeiten der Kiefergelenke und Kieferhöhlen
- Sonstige Anomalien (z.B. im Knochen, Tonsillen)

Nichtanlagen des Ober- und Unterkiefers wurden durch den „Tooth Agenesis Code“ (TAC) beschrieben (s. Tab. 12). Dieser wurde 2006 von van Wijk und Tan veröffentlicht und erleichtert die Beschreibung von Nichtanlagemustern (Van Wijk and Tan, 2006). Durch einen durch den TAC entstehenden numerischen Code, kann die genaue Anzahl und Position nicht angelegter Zähne für jeden Quadranten beschrieben werden. Jedem Einzelzahn eines Quadranten wird eine bestimmte Zahl zugeordnet (s. Tab. 12).

Patienten und Methoden

Aus der Addition der einzelnen TAC-Werte aller nicht angelegten Zähne des Quadranten, erhält man für ein bestimmtes Nichtanlagemuster den entsprechenden TAC. So ergibt sich der TAC-Quadrantenwert. Sind zum Beispiel die Zähne 6 und 5 eines Quadranten nicht angelegt, so hat dieser Quadrant den TAC $32 + 16 = 48$. Die Quadranten werden in aufsteigender Reihenfolge angegeben: TAC = [1.Quadrant], [2.Quadrant], [3.Quadrant], [4.Quadrant]. Wenn also nur in Quadrant 2 der Zahn 6 und 5 fehlt (TAC = 48) so ist dann TAC = 0 48 0 0. Ausgenommen wurden die Zähne 18, 28, 38 und 48, da die Anlagen im Durchschnittsalter der untersuchten Probanden/-innen noch nicht zwingend zu erkennen sind. So könnte fälschlicherweise die Annahme einer Nichtanlage entstehen.

Q1									Q2							
Zahn	18	17	16	15	14	13	12	11	21	22	23	24	25	26	27	28
Zahn	M3	M2	M1	P2	P1	C	I2	I1	I1	I2	C	P1	P2	M1	M2	M3
Score	128	64	32	16	8	4	2	1	1	2	4	8	16	32	64	128
Zahn	M3	M2	M1	P2	P1	C	I2	I1	I1	I2	C	P1	P2	M1	M2	M3
Zahn	48	47	46	45	44	43	42	41	31	32	33	34	35	36	37	38
Q3									Q4							

Tab. 12: Tooth Agenesis Code nach van Wijk und Tan (Van Wijk and Tan, 2006)

2.6 Statistische Methoden

Um einzelne Parameter statistisch zu vergleichen, wurde zunächst mit Hilfe des statistischen Softwareprogramms JMP (Version 15.2.0, SAS Institute Inc., Cary, North Carolina, USA) die Berechnung der statistischen Kenngrößen wie Median, Mittelwert, Maximum, Minimum, Standardabweichung oder Prozentsatz durchgeführt.

Zur Überprüfung der Signifikanz der Daten wurden folgende Tests durchgeführt:

- Gepoolter t-Test für normalverteilte und gepaarte Stichproben
- Wilcoxon-Vorzeichen-Rang-Test als nichtparametrischer Test für gepaarte Stichproben
- Pearson Chi-Quadrat-Test um den Zusammenhang zwischen den beiden Gruppen zu untersuchen

Die im Abschnitt 1.3 genannten Nullhypothesen sagen aus, dass keine Unterschiede zwischen den Verteilungen innerhalb beider Gruppen gibt. Die Unterteilung erfolgte dann in:

- nicht signifikant $p > 0,05$
- signifikant $p < 0,05$
- hochsignifikant $p \leq 0,001$

3 Ergebnisse

3.1 Charakteristika des Studienkollektivs

Im Zeitraum von 2009 bis 2012 sind am Universitätsklinikum Tübingen 93 Kinder mit RS behandelt worden. Davon wurden 69 Kinder initial nach der Geburt mit der TPP im Zentrum für Lippen-Kiefer-Gaumenspalten und kraniofazialen Fehlbildungen in Tübingen behandelt. 18 davon waren nicht erreichbar, 28 verweigerten die Teilnahme an der Studie (Einschränkungen aufgrund der Corona Pandemie, kein Interesse, weite Anreise, Nichterscheinen am Tag der Untersuchung). So entsteht eine Anzahl an RS-Studienteilnehmer/-innen von 23 Kindern (Altersdurchschnitt 9,9 Jahre; Min. 7,8 – Max. 12,1 Jahre; 11 weibliche, 12 männliche Kinder), welche im Zeitraum von September 2019 bis Oktober 2020 kieferorthopädisch untersucht wurden. Davon sind 4 Kinder (ca. 17 %) mit Syndrom und RS geboren (2 mit Stickler Syndrom, ein Kind mit Katzenaugensyndrom und ein Kind mit 4q-Deletion), 19 mit isolierter RS. Alle der erkrankten Kinder sind mit einer Gaumenspalte geboren. Eine gesunde altersgleiche (Durchschnitt 9,9 Jahre; Min. 7,6 – Max. 12,1 Jahre) und geschlechtsgleiche (10 weibliche, 11 männliche) Kontrollgruppe von 21 Patienten/-innen wurde rekrutiert und untersucht.

3.2 Kieferorthopädischer Basisbefund

Die Ergebnisse des kieferorthopädischen Basisbefundes gehen aus Tabelle 13 hervor. Vollständig unauffällig waren in beiden Gruppen der Schulterstand als auch die Rotationsfähigkeit der HWS. Die Körperhaltung war in beiden Gruppen ausgeglichen bei über 85 % hypoton. Die Kinder mit RS zeigten mit 35,3 % häufiger einen angespannten M. mentalis, während die Kontrollgruppe zu 90 % eine normale Muskelaktivität aufwies. In der Kontrollgruppe hatten alle Kinder einen kompetenten Lippenschluss, während dieser bei 14,3 % der RS-Kinder inkompetent war. Habits, wie zum Beispiel Daumenlutschen, waren bei den erkrankten Kindern nur in 30,8 % der Fälle zu finden, in der Kontrollgruppe dagegen in 52,6 %. Es befanden sich mehr RS-Patienten/-innen in der zweiten Wechselgebiss-Phase (53,3 %) als gesunde Kinder (36,8 %). Ein vollständiges Permanentgebiss war in beiden Gruppen gleich selten zu finden.

Ergebnisse

Beide Gruppen zeigten links und rechts am häufigsten eine dentale Angle Klasse II. Die apikale Basis in der Sagittalen war im Oberkiefer und im Unterkiefer in beiden Gruppen häufiger zu kurz als physiologisch. Die apikale Basis des Oberkiefers und des Unterkiefers war bei den RS-Kindern zu 28,6 % in der Transversalen zu schmal, während dies bei der Kontrollgruppe zu 10,5 % (OK) und 15,8 % (UK) der Fall war. Eine dentale Mittellinienverschiebung kam in beiden Gruppen im Unterkiefer häufig vor (RS: 58,8 %; K: 50 %), wobei diese in der RS-Gruppe zu 5,9 % sogar über 5 mm betrug. Im Oberkiefer war in beiden Gruppen deutlich seltener eine dentale Mittellinienverschiebung zu finden. Bei den Kindern mit RS fand sich etwas häufiger eine mandibuläre Mittellinienverschiebung als in der gesunden Gruppe (14,3 % und 10,5 %). Eine Zwangsführung des Unterkiefers war in der gesunden Gruppe zu 94,7 % nicht vorhanden, während die RS-Kinder zu 7,1 % eine Zwangsführung nach dorsal und zu 7,1 % nach rechts aufwiesen. Das Schluckmuster aller Kinder war meist somatisch also physiologisch (RS: 71,4 %; K: 68,4 %) und deutlich seltener viszeral. Die Zungenruhelage befand sich bei der RS-Gruppe in 78,6 % in regelrechter Position, im Vergleich zu nur 73,7 % bei der gesunden Gruppe. Die RS-Patienten/-innen hatten weniger häufig vergrößerte Tonsillen (33,3 %) als die gesunden Probanden/-innen (42,1 %). Phonetisch fiel bei den erkrankten Kindern mit 14,3 % ein gehäuftes Auftreten von Sigmatismus auf, während bei der Kontrollgruppe nur 5,3 % eine interdendale Aussprache hatten und zusätzlich 10,5 % eine nasale. Die gesunden Kinder zeigten beim PSI häufiger einen primär nicht gesunden Zahnstatus (46,7 % im Vergleich RS: 35,3 %), hatten dafür aber etwas weniger häufig Zahnhartsubstanzdefekte (25 % im Vergleich RS: 29,4 %). Kein gesundes Kind hatte Mundschleimhautveränderungen, bei den RS-Kindern waren mit 6,3 % nur selten solche zu erkennen. Die Wangen- und Lippenbändchen sowie das Zungenbändchen waren bei den gesamten Studienteilnehmern/-innen unauffällig und regelrecht inserierend. Kopf- und Nackenschmerzen traten in beiden Gruppen nicht regelmäßig auf. Alle zuvor aufgezählten Parameter waren statistisch nicht signifikant.

Nur 60 % der Kinder mit RS atmeten regelrecht und ohne Auffälligkeiten durch die Nase, während 13,3 % Mundatmer waren und 26,7 % schnarchten.

Ergebnisse

In der Kontrollgruppe atmeten 26,3 % durch den Mund und alle anderen atmeten physiologisch durch die Nase, es trat also kein Schnarchen auf. Der Unterschied bei der Atmung war statistisch signifikant ($p: 0,05$). Auch der Kiefergelenks-Kurzcheck war bei den RS-Patienten/-innen mit 31,6 % auffällig und statistisch signifikant (p -Wert: 0,009) gegenüber 0,0 % in der Kontrollgruppe. Das Verhältnis der Frontzähne zueinander wies bei dem Overjet (Median RS: 4 mm; K: 3 mm) statistisch signifikante Unterschiede auf, wie auch die Mundöffnung (SKD), welche bei den RS-Kindern mit 36 mm im Vergleich zu 44 mm bei den Gesunden deutlich kleiner war. Der gemessene und mit Hilfe des Overjets berechnete Jaw-Index war bei RS-Patienten/-innen mit 4,2 signifikant höher als in der Kontrollgruppe mit einem Medianwert von 3.

Messung	RS-Kinder (%)	Gesunde Gruppe (%)	Unterschied (K - RS)	Chi ²	Wahrsch. > Chi ²
Körperhaltung	[n=14]	[n=19]		0,06	0,80
- Physiologisch	13,3	10,5	-2,8		
- Hypoton	86,7	89,5	2,8		
HWS-Rotation	[n=13]	[n=19]		0,00	-
- Unauffällig	100,0	100,0	0,0		
- Auffällig	0,0	0,0	0,0		
Schulterstand	[n=13]	[n=19]		0,00	-
- Unauffällig	100,0	100,0	0,0		
- Auffällig	0,0	0,0	0,0		
Lippenhaltung	[n=14]	[n=19]		2,89	0,09
- Kompetent	85,7	100,0	14,3		
- Inkompetent	14,3	0,0	-14,3		
M. Mentalis Aktivität	[n=17]	[n=19]		3,18	0,07
- Normal	64,7	89,5	24,8		
- Verstärkt	35,3	10,5	-24,8		
Habits	[n=13]	[n=19]		0,88	0,35
- Ja	30,8	52,6	21,8		
- Nein	69,2	47,4	-21,8		
Zahnstatus	[n=15]	[n=19]		2,41	0,49
- Erste WG-Phase	26,7	21,1	-5,6		
- Ruhephase	13,3	36,8	23,5		
- Zweite WG-Phase	53,3	36,8	-16,5		
- Permanentes Gebiss	6,7	5,3	-1,4		
Bisslage (Angle Klasse) rechts	[n=15]	[n=20]		0,10	0,95
- Klasse I	38,6	40,0	1,6		
- Klasse II	53,8	55,0	1,2		
- Klasse III	7,7	5,0	-2,7		
Bisslage (Angle Klasse) links	[n=15]	[n=20]		1,47	0,48
- Klasse I	28,7	45,0	16,3		
- Klasse II	57,2	50,0	-7,2		
- Klasse III	14,3	5,0	-9,3		

Ergebnisse

PSI	[n=17]	[n=15]		0,43	0,51
- Primär gesund	64,7	53,3	-11,4		
- Primär nicht gesund	35,3	46,7	11,4		
Zahnhartsubstanzdefekte	[n=17]	[n=20]		0,09	0,76
- Keine	70,6	75,0	4,4		
- Vorhanden	29,4	25,0	-4,4		
Mundschleimhautveränderungen	[n=16]	[n=19]		1,22	0,27
- Keine	93,8	100,0	6,2		
- Vorhanden	6,3	0,0	-6,2		
OK sagittale apikale Basis	[n=13]	[n=19]		0,13	0,72
- Physiologisch	30,8	36,8	6,0		
- Kurz	69,2	63,2	-6,0		
UK sagittale apikale Basis	[n=13]	[n=19]		0,25	0,61
- Physiologisch	38,5	47,4	8,9		
- Kurz	61,5	52,6	-8,9		
OK transversale apikale Basis	[n=14]	[n=19]		1,78	0,41
- Physiologisch	64,3	79,0	14,7		
- Schmal	28,6	10,5	-18,0		
- Ausgeprägt	7,1	10,5	3,4		
UK transversale apikale Basis	[n=14]	[n=19]		1,42	0,49
- Physiologisch	71,4	79,0	7,5		
- Schmal	28,6	15,8	-12,8		
- Ausgeprägt	0,0	5,3	5,3		
OK MLV dental	[n=17]	[n=20]		0,08	0,77
- Übereinstimmend	88,2	85,0	4,4		
- Abweichung < 5 mm	11,8	15,0	2,7		
- Abweichung > 5 mm	0,0	0,0	0,0		
UK MLV dental	[n=17]	[n=20]		1,35	0,51
- Übereinstimmend	41,2	50,0	27,0		
- Abweichung < 5 mm	52,9	50,0	27,0		
- Abweichung > 5 mm	5,9	0,0	0,0		
UK MLV mandibulär	[n=17]	[n=20]		0,11	0,74
- Übereinstimmend	85,7	89,5	3,8		
- Abweichung < 5 mm	14,3	10,5	-3,8		
- Abweichung > 5 mm	0,0	0,0	0,0		
Zwangsführung	[n=14]	[n=19]		1,48	0,48
- Nein	85,7	94,7	9,0		
- Dorsal	7,1	0,0	-7,1		
- Links	0,0	0,0	0,0		
- Rechts	7,1	5,3	-1,9		
Zungenbändchen	[n=13]	[n=19]		0,00	-
- Unauffällig	100,0	100,0	0,0		
- Auffällig	0,0	0,0	0,0		
Wangen- und Lippenbändchen	[n=13]	[n=19]		0,00	-
- Unauffällig	100,0	100,0	0,0		
- Auffällig	0,0	0,0	0,0		
Aussprache/Phonation	[n=14]	[n=19]		2,20	0,33
- Normal	85,7	84,2	-1,5		
- Sigmatismus	14,3	5,3	61,0		
- Nasal	0,0	10,5	-10,5		
Atmung	[n=15]	[n=19]		5,99	0,05*
- Nasenatmung	60,0	73,7	13,7		
- Mundatmung	13,3	26,3	13,0		
- Schnarchen	26,7	0,0	-26,7		

Ergebnisse

Tonsillen HNO	[n=14]	[n=19]		1,44	0,49
- Normal	60,0	57,9	-2,1		
- Klein	6,7	0,0	-6,7		
- Vergrößert	33,3	42,1	8,8		
Schluckmuster	[n=14]	[n=19]		0,04	0,85
- Somatisch	71,4	68,4	-3,0		
- Viszeral	28,6	31,6	3,0		
Zungenruhelage	[n=14]	[n=19]		0,11	0,75
- Regelrecht	78,6	73,7	-4,9		
- Tief	21,4	26,3	4,9		
Kopf- und Nackenschmerz	[n=13]	[n=19]		0,22	0,90
- Nicht regelmäßig	76,9	78,9	2,0		
- < 1x pro Woche	15,4	10,5	-4,9		
- > 1x pro Woche	7,7	10,5	2,8		
KG Kurzcheck Auffälligkeiten	[n=19]	[n=19]		7,13	0,01*
- Auffällig	31,6	0,0	-31,58		
- Unauffällig	68,4	100,0	31,58		
	Median (Min- Max)	Median (Min- Max)	p-Wert		
Mundöffnung SKD (mm)	[n=16] 36,0 (28-51)	[n=12] 44,0 (36-55)	0,01*		
Lippenschlusslinie (mm zur Inzisalkante)	[n=4] 4,0 (4-4)	[n=5] 6,0 (0-9)	0,12		
Lachlinie (mm zur Inzisalkante)	[n=9] 8,0 (6-12)	[n=12] 7,0 (2-11)	0,14		
Overjet (mm)	[n=17] 4,0 (2-10)	[n=20] 3,0 (0-9)	0,01*		
Overbite (mm)	[n=16] 4,3 (2-6)	[n=19] 3,0 (-3-6)	0,07		
Jaw Index	[n=16] 4,2 (2- 10)	[n=20] 3 (0-9)	0,02*		

Tab. 13: Kieferorthopädische Anamnese: RS-Kinder im Vergleich mit der Kontrollgruppe; Signifikanzlevel $p < 0,05$

Ergebnisse

3.3 Modellanalyse

Tabelle 14 im Anhang zeigt die Modellanalysen nach Brune-Moyers, Tonn und Pont.

Die Wechselgebissanalyse nach Brune-Moyers zeigte, dass die Platzverhältnisse in beiden Gruppen ausgeglichen waren. Lediglich im 3. Quadranten gab es einen signifikanten Unterschied, bei dem in der RS-Gruppe ein Platzmangel von -1 mm vorhanden war, während bei der Kontrollgruppe ein Platzüberschuss von 0,6 mm zu finden war.

Der größte signifikante Unterschied zwischen beiden Gruppen ergab sich bei der Bestimmung des Tonn-Index. In der gesunden Gruppe errechnete sich ein Indexwert von 76 %, also ein relativ zu großer si UK, während die erkrankten Kinder einen Wert von 72,5 % hatten, also einen relativ zu kleinen si UK.

Die Analyse der Zahnbogenbreite nach Pont/Harth ergab eine signifikant größere transversale Breite des hinteren Zahnbogens (hZBBo) im Oberkiefer der Kinder mit RS mit einem Median-Wert von 48 mm im Vergleich zu 46 mm bei der Kontrollgruppe. Sonst konnten keine signifikanten Unterschiede in der transversalen Breite festgestellt werden.

Messung	RS-Kinder (n=23)	Kontrollgruppe (n=21)	p-Wert
Brune-Moyers (mm)	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	
si UK	22,9 (20,3-24,2)	23,2 (19,3-25,7)	0,28
PB Szo	22,6 (21,3-23,1)	22,7 (20,6-24)	0,31
PB Szu	22,2 (20,7-22,8)	22,4 (20,1-23,7)	0,31
Szro	21,6 (16,3-25,3)	22,1 (2,1-26,8)	0,14
D Szro	-0,4 (-6,3-2,4)	-0,2 (-20,8-3,9)	0,65
Szlo	21,4 (19,1-26)	22,5 (20,2-25,4)	0,10
D Szlo	0,0 (-3,4-4,2)	0,2 (-2,4-2,3)	0,39
Szru	21,9 (17,6-24,7)	22,9 (20,5-25,1)	0,14
D Szru	0,5 (-5,2-2,5)	0,6 (-7,5-3,4)	0,53
Szlu	20,4 (11,8-25,7)	22,7 (20,6-24,8)	0,08
D Szlu	-0,9 (-11-3,5)	0,6 (0,8-2,3)	0,19
Tonn-Index	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	
SI OK (mm)	30,0 (22,9-34)	30,2 (25,7-35,6)	0,85
Index (%)	72,5 (69-80)	76,0 (66-90)	0,03*

Ergebnisse

Analyse Pont/Harth (mm)	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	
vZBBo (Soll=35,5 mm)	36,0 (32-40)	36,0 (32-40)	0,53
vZBBu (Soll=35,5 mm)	35,0 (31-39)	36,0 (31-47)	0,57
hZBBo (Soll=46 mm)	48,0 (42-55)	46,0 (35-51)	0,01*
hZBBu (Soll=46 mm)	48,0 (36-55)	49,0 (42-56)	0,36

Tab. 14: Auswertung der Modellanalysen nach „Brune-Moyers“, „Tonn“ und „Pont“ im Vergleich RS-Gruppe und Kontrollgruppe (Abkürzungen s. Tab. 3)

3.4 IOTN

Die Analyse der DHC des IOTN anhand der digitalen Modelle ergab, dass die Kinder mit RS einen erhöhten kieferorthopädischen Behandlungsbedarf aufwiesen (s. Tab. 15). Nur 8,7 % (n = 2) der Kinder mit RS zeigten eine geringe Behandlungsnotwendigkeit (Grad 2), während die meisten mit 91,3 % (n = 21) sehr großen Behandlungsbedarf hatten (Grad 5). In der gesunden Kontrollgruppe dagegen wurden 42,9 % (n = 9) in Grad 2 eingeteilt, gefolgt von 38,1 % in Grad 3 (n = 8). Großen Behandlungsbedarf (Grad 4) hatten 14,3 % und nur ein Kind (4,8 %) wurde in Grad 5 klassifiziert.

Einen signifikanten Unterschied zwischen der männlichen und weiblichen Verteilung in der RS-Gruppe gab es nicht. In der gesunden Kontrollgruppe waren mit 28,6 % doppelt so viele (n = 6) männliche Patienten wie weibliche (14,3 %) in Grad 2 eingestuft. Einen mäßigen Behandlungsbedarf in Grad 3 hatten mehr weibliche Patientinnen der Kontrollgruppe (23,8 %). Ebenso waren mit 9,5 % mehr weibliche als männliche (4,8 %) Kinder in Grad 4 eingeteilt. Tabelle 16 zeigt die einzelne Einteilung der Grade bei den 15 vorhandenen Merkmalen und im speziellen die auftretenden Malokklusionen.

Der Overjet (Merkmal a) betrug in der RS-Gruppe bei 34,8 % und in der Kontrollgruppe bei 28,6 % der Kinder zwischen 3,5 mm und 6 mm, wobei diese alle einen kompetenten Lippenschluss aufwiesen (Merkmal 2a). Lediglich ein Kind der Kontrollgruppe hatte dabei einen inkompetenten Lippenschluss (Merkmal 3a: 4,8 %).

Ergebnisse

Ein Overjet über 6 mm aber unter 9 mm (Merkmal 4a) kam in der RS-Gruppe bei 26,1 % der Kinder vor, in der Kontrollgruppe bei nur einem Kind (4,8 %). Keiner der Studienteilnehmer/-innen zeigte einen negativen Overjet (Merkmal b). Einen anterioren oder posterioren Kreuzbiss (Merkmal c) zeigten insgesamt sechs Kinder mit RS (26 %) und nur ein Kind der Kontrollgruppe (4,8 %). In beiden Gruppen war das Merkmal d häufig zu finden. Bei insgesamt 89,4 % der RS-Kinder und 80,9 % der gesunden Kinder gab es eine Kontaktpunktverschiebung. Auffällig war, dass es in der RS-Gruppe deutlich mehr Patienten/-innen gab, welche in Grad 4d eingestuft wurden, also eine Kontaktpunktverschiebung > 4 mm zu finden war (RS: 30,4 %; K: 9,5 %). Dies kann mit der alveolären Retrusion der Oberkiefer- und Unterkiefer-Frontzähne in Verbindung gebracht werden, welche im FRS ersichtlich wird und damit auf einen frontalen Engstand hinweist. Ein anteriorer oder posteriorer offener Biss (Merkmal e) war mit insgesamt 56,5 % häufiger bei den Patienten/-innen mit RS zu finden als bei den gesunden Kindern (23,9 %). Grad 4e, ein offener Biss von über 4 mm war in der RS-Gruppe bei 17,4 % der Kinder zu finden. Einen frontalen Tiefbiss (Merkmal f) von mindestens 3,5 mm hatten mehr Kinder mit RS (47,8 %) aber auch 33,3 % der Kontrollgruppe. In der sagittalen Relation hatten die meisten (85,7 %) der gesunden Kinder eine gute Okklusion (Merkmal g), also eine Klasse II oder III, welche maximal bis zu einer halben Prämolarenbreite von einer idealen Okklusion abwich. In der RS-Gruppe erfüllt dieses Merkmal nur 69,6 % der Kinder. Deutlich mehr Kinder mit RS zeigten eine Nichtanlage in der PSA (Merkmal h; genauer erläutert Abschnitt 3.7). Von 13 Aufnahmen hatten 30,8 % der Kinder eine Nichtanlage von nicht mehr als einem Zahn pro Quadranten (Grad 4h) und 15,4 % sogar eine Nichtanlage von mehr als einem Zahn in mindestens einem Quadranten (Grad 5h). In der Kontrollgruppe gab es lediglich ein Kind (12,5 %; n = 8) mit dem Grad 5h. Zu beachten ist die geringere Anzahl (RS: n = 13; K: n = 8) der vorhandenen Panoramaschichtaufnahmen. Aufgrund Platzmangels, Verlagerungen und anderen pathologischen Ursachen gab es bei 8 Kindern mit RS (34,8 %) mindestens einen impaktierten Zahn (Merkmal i). Gesunde Kinder waren nicht davon betroffen. Grad und Merkmal „4i“ also ein Scherenbiss in einem oder beiden Seitenzahnsegmenten, sodass kein

Ergebnisse

funktionaler Okklusionskontakt mehr besteht, und auch ein verkehrter sagittaler Overjet mit Sprach- oder Kauproblemen (Merkmal m) trat jeweils nur einmal in der RS-Gruppe auf (4,3 %) und in der Kontrollgruppe gar nicht. Ebenso wie Merkmal t, teilweise durchgebrochene Zähne. Einen verkehrten sagittalen Overjet ohne Sprach- oder Kauprobleme, infraokklusal stehende Milchzähne oder überzählige Zähne (Merkmal b, s und x) gab es bei keinen der Patienten/-innen.

Auffällig ist, dass 91,3 % (n = 21) der RS-Patienten/-innen in 5p klassifiziert wurden, durch Auswirkungen ihrer Lippen-Kiefer-Gaumenspalte auf die Zahnfehlstellungen. Da das Merkmal p im MOCDO-Schema weit oben aufgeführt ist und damit über den anderen steht, erhielten die meisten die Diagnose über eine sehr große Behandlungsnotwendigkeit.

Ohne Berücksichtigung des Auftretens einer Gaumenspalte (Merkmal 5p) bestand bei den Patienten/-innen mit RS trotzdem ein deutlich höherer Bedarf einer kieferorthopädischen Behandlung als bei den gesunden Kindern. Noch 69,6 % der erkrankten Kinder hatten eine große- (Grad 4: n = 8) oder sehr große Behandlungsnotwendigkeit (Grad 5: n = 8). In der Kontrollgruppe wurden nur 19,1 % in Grad 4 (n = 3) oder Grad 5 (n = 1) eingeordnet.

Zusätzlich lässt sich feststellen, dass Grad 4 und 5, also eine definitive Notwendigkeit einer kieferorthopädischen Behandlung, summiert von allen Merkmalen bei den Kindern mit RS 57-mal vorkam (Grad 4: 25x, Grad 5: 32x). Bei der gesunden Kontrollgruppe wurden nur 5-mal Grad 4 und einmal Grad 5 klassifiziert. Auch ohne Beachtung und Reihung durch das MOCDO-Schema haben die RS-Patienten/-innen also eine höhere kieferorthopädische Behandlungsnotwendigkeit.

Ergebnisse

Grad	RS-Kinder			Kontrollgruppe		
	Gesamt (n=23)	Männlich (n=12)	Weiblich (n=11)	Gesamt (n=21)	Männlich (n=11)	Weiblich (n=10)
1	0	0	0	0	0	0
2	2 (8,7 %)	1 (4,3 %)	1 (4,3 %)	9 (42,9 %)	6 (28,6 %)	3 (14,3 %)
3	0	0	0	8 (38,1 %)	3 (14,3 %)	5 (23,8 %)
4	0	0	0	3 (14,3 %)	1 (4,8 %)	2 (9,5 %)
5	21 (91,3 %)	11 (47,8 %)	10 (45,5 %)	1 (4,8 %)	1 (4,8 %)	0

Tab. 15: Einteilung in Grade der Dental Health Component des IOTN der gesamten, männlichen und weiblichen Patienten/-innen mit RS und der gesunden Kontrollgruppe (Grad 1 = keine Behandlungsnotwendigkeit, Grad 2 = geringe Behandlungsnotwendigkeit, Grad 3 = mäßige Behandlungsnotwendigkeit, Grad 4 = große Behandlungsnotwendigkeit, Grad 5 = sehr große Behandlungsnotwendigkeit)

Merkmale	Einzelne Grade der Merkmale	RS-Kinder (n=23) n (%)	Kontrollgruppe (n=21) n (%)
Positiver sagittaler Überbiss (Overjet) (a)	2a: Overjet > 3,5 mm und ≤ 6 mm (mit kompetentem Lippenschluss) 3a: Overjet > 3,5 mm und ≤ 6 mm (mit inkompetentem Lippenschluss) 4a: Overjet > 6 mm und ≤ 9 mm 5a: Overjet > 9 mm	2a: 8 (34,8 %) 4a: 6 (26,1 %)	2a: 6 (28,6 %) 3a: 1 (4,8 %) 4a: 1 (4,8 %)
Verkehrter sagittaler Überbiss ohne Sprach- oder Kauprobleme (Overjet) (b)	2b: zwischen 0 und ≤ -1 mm 3b: zwischen -1 und ≤ -3,5 mm 4b: > -3,5 mm	-	-
Anteriorer oder posteriorer Kreuzbiss (c)	2c: Kreuzbiss mit 1 mm Diskrepanz zw. RCP/ICP 3c: Kreuzbiss mit > 1 mm und ≤ 2 mm Diskrepanz zw. RCP/ICP 4c: Kreuzbiss mit > 2 mm Diskrepanz zw. RCP/ICP	2c: 2 (8,7 %) 3c: 3 (13,0 %) 4c: 1 (4,3 %)	4c: 1 (4,8 %)
Kontaktpunktverschiebung (d)	2d: > 1 mm und ≤ 2 mm 3d: > 2 mm und ≤ 4 mm 4d: > 4 mm	2d: 7 (30,4 %) 3d: 6 (28,6 %) 4d: 7 (30,4 %)	2d: 7 (33,3 %) 3d: 8 (38,1 %) 4d: 2 (9,5 %)
Anteriorer oder posteriorer offener Biss (e)	2e: > 1 mm und ≤ 2 mm 3e: > 2 mm und ≤ 4 mm 4e: > 4 mm	2e: 3 (13,0 %) 3e: 6 (26,1 %) 4e: 4 (17,4 %)	2e: 3 (14,3 %) 3e: 1 (4,8 %) 4e: 1 (4,8 %)
Tiefbiss (f)	2f: ≥ 3,5 mm mit Überdeckung des antagonistischen Schneidezahns (ohne Kontakt zur Gingiva) 3f: 1 (4,3 %)	2f: 11 (47,8 %) 3f: 1 (4,3 %)	2f: 7 (33,3 %)

Ergebnisse

	<p>3f: Tiefbiss mit Berührung der antagonistischen palatinalen oder labialen Gingiva (ohne Trauma)</p> <p>4f: Tiefbiss mit traumatischem Einbiss der antagonistischen palatinalen oder labialen Gingiva</p>		
Gute Okklusion (g)	2g: Klasse II oder Klasse III Okklusion ohne andere Anomalien (bis zu einem halben Prämolarenbreite in der sagittalen Relation)	2g: 16 (69,6 %)	2g: 18 (85,7 %)
Hypodontie (h)	<p>4h: Nichtanlage von nicht mehr als einem Zahn pro Quadranten</p> <p>5h: Nichtanlage von mehr als einem Zahn in mindestens einem Quadranten</p>	<p>4h: 4 (30,8 %)</p> <p>5h: 2 (15,4 %)</p> <p>→ n = 13</p>	<p>5h: 1 (12,5 %)</p> <p>→ n = 8</p>
Impaktierter Zahn (i)	5i: Behinderung des regelrechten Zahndurchbruchs (außer 3. Molaren) wegen Platzmangel, Verlagerung, überzähliger Zahn, persistierender Milchzahn, andere pathol. Ursache	5i: 8 (34,8 %)	-
Posteriorer lingualer Kreuzbiss (l)	4l: Scherenbiss ohne funktionalen Okklusionskontakt im gesamten Seitzahnsegment einer/beider Seiten	4l: 1 (4,3 %)	-
Verkehrter sagittaler Overjet mit Sprach- oder Kauproblemen (m)	<p>4m: > -1 mm und ≤ -3,5 mm</p> <p>5m: > -3,5 mm</p>	5m: 1 (4,3 %)	-
Lippen-Kiefer-Gaumenspalten (p)	5p: Defekte wie Lippen-Kiefer-Gaumen-Spalten oder andere kraniofaziale Anomalien mit Auswirkungen auf die Zahnstellung	5p: 21 (91,3 %)	-
Versunkene Milchzähne (s)	5s: Versunkene Milchzähne mit entweder nur 2 sichtbaren Höckern verbleibend oder die Nachbarzähne sind stark über den Milchzahn gekippt	-	-
Teilweise durchgebrochene Zähne (t)	4t: Teilweise durchgebrochener Zahn, gekippt zum benachbarten Zahn	4t: 1 (4,3 %)	-
Überzählige Zähne (x)	4x: Überzähliger bleibender Zahn, nach dessen Entfernung eine Ausformung des Zahnbogens oder ein Lückenschluss nötig ist	-	-

Tab. 16: Einteilung und Häufigkeit der einzelnen Merkmale und Grade der DHC des IOTN von Patienten/-innen mit RS und der gesunden Kontrollgruppe

3.5 Fotostatanalyse

3.5.1 *Fotostat lateral*

Die Ergebnisse der Weichteilanalyse über 2D-Profilaufnahmen (Tab. 17) zeigten, dass Patienten/-innen mit RS im Vergleich zu der Kontrollgruppe ein signifikant konvexeres Gesichtsprofil hatten (Fazialkonvexität-Winkel $GI'-Sn-Pog'$: 157°). Der Profilwinkel nach A.M. Schwarz ($SnPog'-Pn$) zeigte mit 23° einen hochsignifikant höheren Medianwert als die Kontrollgruppe mit 11° und ist ein Hinweis für eine bestehende mandibuläre Retrognathie. Der Z-Winkel nach Merrifield war bei den Kindern mit RS mit einem Medianwert von $61,2^\circ$ signifikant kleiner als der Normwert und der Wert der gesunden Kinder ($71,3\%$) und weist ebenfalls auf ein konvexeres Profil oder prominentere Lippen hin. In beiden Gruppen war der Nasolabialwinkel etwas vergrößert, zwischen den beiden Gruppen gab es aber keine signifikanten Unterschiede. Der Mentolabialwinkel war in der RS-Gruppe mit $143,8^\circ$ größer als in der Kontrollgruppe ($136,6^\circ$) und damit stark ausgeprägt. Signifikante Unterschiede zwischen den Gruppen konnten bei dem Cervikomentalwinkel, Mittelgesichtswinkel und Untergesichtswinkel festgestellt werden. Die Kinder mit RS hatten einen zur Kontrollgruppe und zum Normwert vergrößerten Cervikomentalwinkel (102°). Der Mittelgesichtswinkel ($N'-Tra-Sn$) der Kontrollgruppenkinder war mit $25,5^\circ$ verkleinert und der Untergesichtswinkel war in beiden Gruppen kleiner als der klinische Richtwert, allerdings bei den RS-Patienten/-innen größer ($39,6^\circ$) als bei der Vergleichsgruppe ($35,8^\circ$).

Ergebnisse

Messungen	RS-Kinder (n=21)	Kontroll- gruppe (n=22)	p-Wert
Fotostatanalyse lateral [Normwerte]	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	
Fazialkonvexität [167,0±5,4°]	157 (149-173)	159 (149-170)	0,01*
Profilwinkel nach A.M. Schwarz [10°]	23 (14-29)	11 (9-23)	< 0,001*
Z-Winkel nach Merrifield [71,8°]	62,1 (42-82,3)	71,3 (60,4-84,4)	< 0,001*
Nasofrontalwinkel [142,0±6,1]	146,9 (127,3-162,8)	142,9 (136,3-161)	0,22
Nasolabialwinkel [109,8°]	112,6 (100-132,3)	114,5 (102,7-138,4)	0,90
Nasenrückenwinkel [172,6±5,9°]	176 (152-180)	176,45 (161,3-180)	0,83
Nasalwinkel [76,3±5,8°]	85,4 (77,1-103,1)	89,7 (78,8-103,1)	0,16
Mentolabialwinkel [131,4±11°]	143,8 (69,1-171,3)	136,6 (110,6-158,6)	0,19
Cervicomentalwinkel [84,2±6,7°]	102 (83,6-139,2)	91,2 (76,6-110,9)	0,01*
Mittelgesichtswinkel [28.2 ± 2.6°]	27,1 (21,5-31,5)	25,5 (19,6-30)	0,01*
Untergesichtswinkel [44.8 ± 3.1°]	39,6 (28,8-48,9)	35,8 (31,7-39,5)	0,01*

Tab. 17: Ergebnisse der lateralen Fotostatanalyse in der gesunden Gruppe und bei den Kindern mit RS; Abkürzungen s. Tab. 8; Erläuterungen der Messpunkte s. Tab. 7

3.5.2 Fotostat Analyse Enface

Die in Tabelle 18 dargestellte Auswertung der Enface-Fotos, zeigten keine signifikanten Unterschiede ($p < 0,05$) zwischen den beiden Gruppen. Die gemessenen Werte waren in beiden Gruppen sehr ausgeglichen. Das Verhältnis zwischen Ober- und Untergesicht war bei den Patienten/-innen mit RS im Vergleich zum Normwert 161,8° leicht verkleinert (157,5°), während es in der Kontrollgruppe leicht vergrößert war (168,3°). Die Kinnmitte war in beiden Gruppen häufig zur Gesichtsmitte verschoben. Bei nur 7,7 % der Kinder mit RS und bei 22,2 % der Kontrollgruppe war sie übereinstimmend. Das Verhältnis von Mittelgesicht (f-GI-Sub) zu Untergesicht (Sub-f-Me) lag mit 100 % in beiden Gruppen im Bereich des klinischen Richtwerts.

Ergebnisse

Dabei war in der RS-Gruppe das Mittelgesicht (RS: 59 mm; K: 57 mm) und das Untergesicht (RS: 60 mm; K: 56 mm) etwas größer als in der Kontrollgruppe. Der Kinnwinkel betrug in beiden Gruppen 111° und war damit im Vergleich zum klinischen Richtwert von 66° vergrößert.

Messungen	RS-Kinder (n=21)	Kontrollgruppe (n=22)	
Fotostat frontal - Divine proportion [Normwerte]	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	p-Wert
Abstand zw. Haaransatz und breitester Stelle der Nase (in mm)	101 (91-119)	107 (94-121)	0,64
Abstand zw. breitester Stelle der Nase und Kinn (in mm)	65 (48-75)	63 (58-72)	0,53
Abstand zw. Augen und Mund (in mm)	61 (49-66)	57,5 (51-69)	0,22
Abstand zw. Mund und Kinn (in mm)	37 (26-43)	37,5 (30-39)	0,39
Breite des Gesichts (in mm)	128 (94-143)	125 (112-139)	0,13
Breite der Nase (in mm)	31 (28-35)	32 (28-36)	0,81
Abstand der Augen (in mm)	84 (68-91)	85 (77-90)	1,00
Breite des Mundes (in mm)	42 (30-49)	41,5 (36-50)	0,95
Verhältnis zwischen Ober- und Untergesicht [161,80 %]	157,5 (147,1-211,8)	168,3 (147,3-193,2)	0,26
Verhältnis der Abstände zwischen Augen, Mund und Kinn [161,8 %]	159,6 (133,8-183)	159,1 (122,5-198)	0,89
Verschiebung der Kinnmitte aus der Gesichtsmitte - MV (in %)			
- Nicht verschoben	7,7	22,2	
- Nach links verschoben	46,2	33,3	
- Nach rechts verschoben	46,2	44,4	
Fotostat frontal – weitere Messungen	Median (Min-Max)	Median (Min-Max)	p-Wert
Größe des Mittelgesichts (in mm)	59 (51-69)	57 (53-62)	0,51
Größe des Untergesichts (in mm)	60 (39-69)	56 (51-66)	0,57
Verhältnis zw. Mittel- und Untergesicht [100 %]	100 (84-147)	100 (90-110)	0,86
Verhältnis zw. Ober- zu Unterlippenlänge (in %)	56 (30-71)	51 (44-63)	0,27
Kinnwinkel [66 %]	111 (98-131)	111 (97-124)	0,97

Tab. 18: Ergebnisse der Analyse der Enface-Fotos der gesunden Gruppe und bei den Kindern mit RS; Abkürzungen s. Tab. 8; Erläuterungen der Messpunkte s. Tab. 7

3.5.3 Morphologischer Gesichtssindex (MGI)

Der in Tabelle 19 ausgewertete morphologische Gesichtssindex zeigt in beiden Gruppen einen Medianwert, welcher im leptoprosopen Bereich liegt (RS: 92,7 %; K: 91,7 %). Ein niedriges Gesichtsskelett (euryprosop) hatten 23 % aller Kinder mit RS (n = 13) und nur 11 % (n = 18) aller gesunden Kinder. Keiner hatte ein hypereuryprosopes Gesichtsskelett. Ein mesoprosopes Gesichtsskelett gab es in der RS-Gruppe zu 8 %, in der Vergleichsgruppe zu 6 %. Der Großteil beider Gruppen hatte ein hohes Gesichtsskelett: 69 % der RS-Gruppe (23 % leptoprosop; 46 % hyperleptoprosop) und 83 % der Kontrollgruppe (44 % leptoprosop; 39 % hyperleptoprosop).

Messungen	RS-Kinder (n=21)	Kontrollgruppe (n=22)
MGI - Median (Min-Max)	92,7 % (81,2-102,1)	91,7 % (81,5-100)
Niedriges Gesichtsskelett	23 %	11 %
- hypereuryprosop < 78,9	0 %	0 %
- euryprosop 79-83,9	23 %	11 %
Mittelhohes Gesichtsskelett	8 %	6 %
- mesoprosop 84-87,9	8 %	6 %
Hohes Gesichtsskelett	69 %	83 %
- leptoprosop 88-92,9	23 %	44 %
- hyperleptoprosop ≥ 93	46 %	39 %

Tab. 19: Morphologischer Gesichtssindex (= morphologische Gesichtshöhe x 100 / Jochbogenbreite) bei RS-Kindern und in der Kontrollgruppe

3.6 FRS-Analyse

Bei 13 Kindern mit RS und bei 7 Kindern der Kontrollgruppe lag durch die klinische Routine bei den behandelnden Zahnärzten/-ärztinnen oder Kieferorthopäden/-innen ein FRS zur Auswertung vor. Aufgrund des geringen Stichprobenumfangs wurden die Ergebnisse in Tabelle 20 rein deskriptiv dargestellt und mit den klinischen Richtwerten (Normwerten) nach Segner und Hasund verglichen (Segner, 1994).

Das CVM-Stadium (cervikal vertebral maturation stage; s. Abb. 5) zeigte, dass in beiden Gruppen prozentual etwa gleich viele Kinder (RS: 31 %, K: 33 %) im ersten CVM-Stadium waren. Der Großteil der RS-Gruppe (69 %) und auch der Kontrollgruppe (50 %) befand sich im CVM-Stadium zwei, waren also maximal

Ergebnisse

ein Jahr vom Wachstumsgipfel des Unterkiefers entfernt. 17 % der gesunden Kinder waren schon im dritten CVM-Stadium und damit höchstens zwei Jahre vom maximalen Unterkiefer-Wachstum entfernt. Kein Kind befand sich im CVM-Stadium 4 oder 5.

Die Werte des PAS auf Höhe des Spinaplanums lagen mit 12,5 mm bei den RS-Kindern deutlich unter dem Normwert vom 20 mm. Auch der Wert der Kontrollgruppe (17,1 mm) war verringert. Auf Höhe der Okklusionsebene und des Mandibularplanums war der PAS in der Kontrollgruppe leicht verkleinert.

Die sagittalen Messwerte der Hasund-Analyse ließen in der RS-Gruppe auf eine maxilläre und mandibuläre Retrognathie schließen (SNA, SNB verkleinert). In der Vergleichsgruppe lag ebenfalls ein verkleinerter SNB-Winkel vor als Hinweis auf eine Retrognathie der Mandibula, während SNA, als Referenzpunkt des Oberkiefers, im Normbereich lag. Der vergrößerte ANB-Wert (RS: 4,8°; K: 4,9°) deutete in beiden Gruppen durchschnittlich auf eine skelettale Klasse II hin. Auch der individualisierte ANB (3,3°) der RS-Gruppe war ein Hinweis dafür, während dieser in der Kontrollgruppe mit 4,1° auf eine skelettale Klasse I hinwies. Die Wits-Strecke war nur in der Kontrollgruppe vergrößert (2,6 mm) und deutete somit dort ebenfalls auf eine skelettale Klasse II hin. Der in der RS-Gruppe verkleinerte SN-Pog-Winkel (68,8°) ließ im Gegensatz zur Kontrollgruppe (77,4°) und zum Normwert (81°) auf eine retrale Kinnlage schließen.

Die vertikalen Parameter der FRS-Analyse zeigten die folgenden Auffälligkeiten. Der Kieferwinkel der RS-Gruppe war mit 131,6° größer als der, der Kontrollgruppe (126,9°) und im Vergleich zum Normwert von $122^{\circ} \pm 8^{\circ}$ vergrößert und deutete damit auf ein vertikales Wachstumsmuster hin. Auch der vergrößerte NL-NSL- (14,5°) und ML-NSL-Winkel (37,9°) bei den Kindern mit RS, also eine posteriore Rotation der Maxilla und Mandibula sowie der vergrößerte ML-NL-Winkel (23,9°), wies auf ein offenes, vertikales Wachstumsmuster hin. Ebenso wie der vergrößerte Go2-Winkel (N-Go-Me) mit 77,9°. Der ML-NSL-Winkel zeigte in der Vergleichsgruppe auch eine Vergrößerung und damit eine posteriore Rotation der Mandibula, wobei die Maxilla nicht rotiert war.

Ergebnisse

Auch bei den gesunden Kindern ergab sich daraus ein vergrößerter Kieferbasiswinkel (ML-NL: $26,5^\circ$) und deutete auf eine Divergenz der Kieferbasen hin und somit auf eine Tendenz zum offenen, vertikalen Wachstum.

Die Analyse der dentalen Parameter im FRS zeigte größtenteils in der RS-Gruppe Abweichungen von der klinischen Norm. Ein stark verkleinerter OK1-NA- und OK1-NB-Winkel ($15,8^\circ$ und $15,2^\circ$) zeigte, dass es häufig eine Retroinklination der Oberkiefer- und Unterkiefer-Frontzähne gab. Beide standen zusätzlich auch in Retroposition (OK1-NA- und UK1-NB-Strecke: 0,7 mm und 0,6 mm). Bei den Kindern mit RS fand sich zudem einen vergrößerten Interinzisalwinkel ($144,2^\circ$), welcher auf eine bilateralveoläre Retrusion hindeutete. In der Kontrollgruppe fiel eine Retroposition der Oberkiefer-Frontzähne auf (OK1-NA-Strecke: 1 mm), zusätzlich leichte Retroinklination dieser (OK1-NA-Winkel: 19°) sowie eine leichte Retroposition der Unterkiefer-Frontzähne (UK1-NB-Strecke 5,3 mm).

Auffällig war die deutlich verkürzte Unterkieferlänge (69,9 mm) in der RS-Gruppe im Vergleich zur Kontrollgruppe (76,9 mm), während die Länge des Unterkiefer-Ramus der RS-Kinder (51,3 mm) und des Oberkiefers (62,1 mm) nur etwas kürzer als die Länge der Kontrollkinder (Ramus: 52,2 mm; OK: 63,4 mm).

Die Verhältnisse der skelettalen Gesichtsproportionen zueinander, also obere- zu unterer Gesichtshöhe und hintere- zu vorderer Gesichtshöhe waren in beiden Gruppen sehr ähnlich und unauffällig.

Die Analyse des Weichteilprofils am FRS zeigte in der RS-Gruppe einen auffällig verkleinerten Nasolabialwinkel ($103,2^\circ$), welcher für eine maxilläre Hypoplasie sprechen kann, wie sie meist bei Lippen-Kiefer-Gaumenspalten auftritt. Die Weichteil-Profilanalyse nach Schwarz zeigte im FRS bei den Kindern mit RS zu 54,6 % ein Vorgesicht, bei 36,4 % ein Rückgesicht und nur bei 9,1 % ein Durchschnittsgesicht. Dieses war in 72,7 % nach hinten schief und nur zu 27,3 % gerade. Bei der Vergleichsgruppe hatten 100 % ein Vorgesicht, welches zu 80 % nach hinten schief war und zu 20 % gerade.

Ergebnisse

Messungen [Normwerte]	RS-Kinder (n=13) Median (Min-Max) / %	Kontrollgruppe (n=7) Median (Min-Max) / %
CVM-Stadium (%)		
- CVMS1	31 %	33 %
- CVMS2	69 %	50 %
- CVMS3	0 %	17 %
- CVMS4	0 %	0 %
- CVMS5	0 %	0 %
PAS (mm)		
- Spinaplanum [20 mm]	- 12,5 (6,2-18,4)	- 17,1 (9,2-22,3)
- Okklusionsebene [8 mm]	- 8 (3-14)	- 7,5 (6-10)
- Mandibularplanum [12 mm]	- 11 (4-12)	- 9 (5-13)
SNA [82±3]	77 (70,6-82,4)	80,5 (76,6-82,3)
SNB [80±3°]	73,8 (63-80,7)	75,9 (67,3-79)
ANB (SNA-SNB) [2±2°]	4,8 (1-8,7)	4,9 (1,4-9,7)
Individualisierte ANB (°)	3,3 (1,4-7,4)	4,1 (0,9-6,8)
ANB-Differenz [0°±1°]	1,5 (-2,3-4,4)	0,8 (-1,1-5,5)
SN-Pog [81°±8°]	68,8 (62,4-77,9)	77,4 (66,6-79,8)
SN-Ba [130±6°]	128,7 (113,3-135,38)	127,3 (122,1-139,2)
Kieferwinkel (Ar-Go-Gn) [122°±8°]	131,6 (118-142,4)	126,9 (120,3-143,8)
NL-NSL [8±2°]	14,5 (6,1-22,1)	6,4 (4,2-19,7)
ML-NSL [28°±2°]	37,9 (20,9-69,1)	33,1 (25,3-48,7)
ML-NL [20°±3°]	23,9 (14,8-50,4)	26,5 (16,1-38)
Björk-Summenwinkel [396±4°]	397,9 (380,9-413,7)	393,1 (385,3-408,7)
Go1-Winkel (N-Go-Ar) [53,5±1,5]	54,2 (39,6-56,8)	56,4 (50,4-60,2)
Go2-Winkel (N-Go-Me) [72,5±2,5°]	77,9 (62,4-97,4)	74,3 (67,4-83,7)
Sellawinkel (N-S-Ar) [123±5°]	123,1 (105-140,6)	128,9 (116,6-141,5)
Gelenkwinkel (S-Ar-Go) [143±6°]	142,2 (126,2-149,7)	138 (131,1-144,5)
Frontzähne		
OK1-NA [21±1°]	15,8 (6,3-26,1)	19 (13,4-39,1)
UK1-NB [24±1°]	15,2 (5,2-29,5)	23,6 (14,7-29,8)
Interinzisalwinkel [133±5°]	144,2 (125,2-161,7)	129,7 (116,4-140,7)
OK1-NA-Strecke [4±0,5 mm]	0,7 (-3,6-4)	1 (-2,1-4,6)
UK1-NB-Strecke [4±0,5 mm]	0,6 (-1,6-7)	5,3 (0,3-6,8)
Strecken		
Pog-NB-Strecke [2 mm]	1,2 (-1,2-2,7)	1,6 (-1,3-2,6)
Obere Gesichtshöhe (N-Sp') (mm)	46,3 (41-52,5)	45,2 (43,4-52,9)
Untere Gesichtshöhe (Sp'-Gn) (mm)	58,8 (51,2-68,6)	59,1 (48,6-68,6)
Vordere Gesichtshöhe (N-Gn) (mm)	105,1 (93,6-118,7)	104,3 (92-113,8)
Wits-Strecke [-1 bis +2 mm]	0,9 (-4,7-5,6)	2,6 (-0,6-4)
Unterkieferlänge (Go-Pog')	69,9 (51,4-78,9)	76,9 (74,7-83,7)
Ramuslänge (Go-Cond')	51,3 (41,9-63,5)	52,2 (44,8-56)
Oberkieferlänge (Spp-A)	62,1 (51,7-70,4)	63,4 (61,7-69,2)
Indices		
Hasund Index - Verhältnis obere zu untere Gesichtshöhe [79,5 %]	78 (69,9-84,8)	81,2 (65,9-89,3)

Ergebnisse

Verhältnis hintere zu vordere Gesichtshöhe [63,5 %]	62,1 (39,1-71,5)	64,8 (52,7-73,1)
Weichteilprofil		
Holdaway-Winkel [8°]	15,9 (5,8-24,7)	15,2 (6,7-24,1)
Nasolabialwinkel [109,8°]	103,2 (94-121,5)	106,7 (97,5-124,1)
Schwarz-Profilanalyse		
- In mm	- 2 (-2-9)	- 7 (5-11)
- Durchschnittsgesicht	- 9,1 %	- 0,0 %
- Vorgesicht	- 54,6 %	- 100,0 %
- Rückgesicht	- 36,4 %	- 0,0 %
Sn-Pn		
- In mm	4 (-5-18)	9 (-2-16)
- Gerade	27,3 %	20 %
- Nach hinten schief	72,7 %	80 %
- Nach vorne schief	0 %	0 %

Tab. 20: Sagittale, vertikale und dentale durchgeführte Messungen sowie die Bewertung der Weichteile am FRS

3.7 PSA-Analyse und TAC

Die Auswertung der Panoramaschichtaufnahme und damit die Erstellung des Tooth Agensis Codes (TAC; Tab. 12) ergab, dass 6 Kinder der RS-Gruppe (46,2 %) eine Nichtanlage hatten. Insgesamt hatten die betroffenen Kinder der RS-Gruppe 20 Nichtanlagen, davon waren 9 im Oberkiefer und 11 im Unterkiefer lokalisiert. Am häufigsten betroffen waren hierbei die Oberkiefer-Inzisiven (n = 6) und die Unterkiefer-Inzisiven (n = 5) sowie die Unterkiefer-Prämolaren (n = 4). In der Kontrollgruppe war Oberkiefer und Unterkiefer gleichermaßen bei nur einem Kind (12,5 %) betroffen.

Zusätzliche Anlagen gab es bei keinem Kind. Ebenso waren in der PSA keine Auffälligkeiten in den Kieferhöhlen, Kiefergelenken, in der Knochenstruktur oder sonstigem umliegenden Gewebe ersichtlich.

Ergebnisse

Messungen	RS-Kinder (n=13)	Kontrollgruppe (n=8)
1. Quadrant		
- 0	76,9 % (n=10)	100 % (n=8)
- 2	23,1 % (n=3)	0,0 % (n=0)
- 16	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
2. Quadrant		
- 0	76,9 % (n=10)	87,5 % (n=7)
- 2	15,4 % (n=2)	0,0 % (n=0)
- 6	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
- 16	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
- 20	0,0 % (n=0)	12,5 % (n=1)
3. Quadrant		
- 0	84,6 % (n=11)	87,5 % (n=7)
- 7	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
- 16	15,8 % (n=2)	12,5 % (n=1)
4. Quadrant		
- 0	76,9 % (n=10)	87,5 % (n=7)
- 1	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
- 7	7,7 % (n=1)	0,0 % (n=0)
- 16	0,0 % (n=0)	12,5 % (n=1)
Betroffene Zähne		
Gesamtanzahl Nichtanlagen	20 (n=6 Kinder)	3 (n=1 Kind)
- Inzisiven OK (12-22)	6 (n=4)	0 (n=0)
- Eckzähne OK (13,23)	1 (n=1)	0 (n=0)
- Prämolaren OK (14,15,24,25)	2 (n=1)	1 (n=1)
- Inzisiven UK (32-42)	5 (n=2)	0 (n=0)
- Eckzähne UK (33,43)	2 (n=1)	0 (n=0)
- Prämolaren UK (34,35,44,45)	4 (n=3)	2 (n=1)

Tab. 21: Auswertung des Tooth Agenesis Code (TAC) anhand von PSA zur Beschreibung von Nichtanlagen bei Kindern mit RS und der gesunden Kontrollgruppe

4 Diskussion

Ziel der vorliegenden Arbeit war es, das Langzeitergebnis und den kieferorthopädischen Behandlungsbedarf nach der Behandlung mit der TPP bei Kindern im Schulalter mit RS kieferorthopädisch zu bewerten und mit einer alters- und geschlechtsgleichen gesunden Kontrollgruppe zu vergleichen. In der aktuellen Literatur liegen bisher keine Daten vor, in denen die Langzeitwirkung der TPP im Schulalter kieferorthopädisch untersucht wurde. Auch der kieferorthopädische Behandlungsbedarf in Form des IOTNs wurde bisher weder an Kindern mit syndromaler RS oder mit nicht-syndromaler RS erhoben. Die Ergebnisse zeigen insbesondere bei den funktionellen Parametern und den sagittalen und transversalen dentoalveolären Verhältnissen wenig signifikante Unterschiede in beiden Gruppen. Diese erlauben die Aussage, dass die TPP eine minimalinvasive und wirksame Therapieform darstellt, auch wenn das Weichteilprofil dem skelettalen Wachstum nicht komplett folgt und extraoral Auffälligkeiten zu finden sind. Der langfristig kieferorthopädische Behandlungsbedarf ist bei den Kindern mit RS signifikant erhöht.

4.1 Diskussion der Therapieoptionen

Um die Folgen der klassischen Symptomtrias der RS beheben bzw. minimieren zu können, gibt es konservative als auch chirurgische Therapieansätze.

Nach Caouette-Laberge et al. ist die Ausprägung der RS in drei Klassen eingeteilt, welche somit auch die Art der Behandlung bestimmen soll. Während die Behandlung von Klasse I mit konservativer Therapie erfolgen kann, sollte diese in Klasse II oder III, mit fortschreitender Zunahme der Schwere und Symptomatik der Erkrankung, mit immer invasiveren Methoden erfolgen (Caouette-Laberge et al., 1994). Die aus der Einteilung folgenden Therapiemöglichkeiten werden in den folgenden Abschnitten diskutiert.

Die konservativen Maßnahmen haben den Vorteil deutlich schonender und weniger invasiv zu sein. Die konservative häufigste durchgeführte Maßnahme ist die Bauchlage, welche allerdings das Risiko für einen plötzlichen Kindstod deutlich steigert und daher keine Therapieoption mehr darstellen sollte (Rambaud and Guilleminault, 2004, Poets et al., 2019).

Diskussion

Das Anwenden von nCPAP-Atemwegshilfen oder das Einlegen eines nasopharyngealen Tubus sind zwar erfolgreiche Therapieoptionen, bringen aber auch viele unerwünschte Nebeneffekte mit sich. Während es bei der Anwendung der nCPAP-Therapie bei langfristiger Anwendung zu Mittelgesichtshypoplasien, einer Abflachung des Gesichts oder zu einer Retrusion des Oberkiefers kommen kann, kann es durch einen nasopharyngealen Tubus zu Schleimhautulzerationen und Hypersekretionen kommen (Fauroux et al., 2005). Diese können im schlimmsten Fall zu einer erneuten Verlegung der Atemwege führen. Die intensive Überwachung der Kinder ist hierbei wichtig und notwendig und die Entlassung kann meist erst nach Therapieabschluss erfolgen.

Operative Verfahren sind, wie nachfolgend erläutert, mit beachtlichen Risiken verbunden, weshalb diese im Zentrum für Lippen-Kiefer-Gaumenspalten und kraniofazialen Fehlbildungen in Tübingen nicht als Therapieoption angesehen werden und generell als Therapie kritisch hinterfragt werden sollten. Neben allgemeinen Gefahren einer Operation und der Anästhesie, gestaltet sich die Intubation oder Maskenbeatmung bei Kindern mit RS oft schon durch die anatomischen Gegebenheiten schwierig (Benjamin and Walker, 1991). Bei operativen Verfahren wie der Glossopexie kommt es häufig zu Wundinfektionen, Dehiszenzen der Naht, Einreißen der Zunge oder zu deformierenden Narbenbildungen (Denny et al., 2004, Argamaso, 1992). Bei der Kallusdistraction des Unterkiefers kann es zusätzlich zu Nervschäden, Zahnverletzungen- bzw. späteren Fehlstellungen und langfristig zu Rezidiven kommen (Van Strijen et al., 2003, Paes et al., 2016). Außerdem muss ggf. eine mit Strahlen verbundene CT-Diagnostik erfolgen, um die Operation vollständig zu planen (Paes et al., 2016, Hong et al., 2012). Die Tracheotomie sollte möglichst vermieden werden, da dabei die meisten Nebenwirkungen zu erwarten sind. Es kann zu Infektionen in der Trachea oder Lunge, bis hin zu Trachealstenosen oder Fistelbildungen kommen (Carr et al., 2001). Durch chirurgische Verfahren kann auch die Sprachentwicklung gestört sein (Sher, 1992, Pasyayan and Lewis, 1984, Singer et al., 1989).

Seit 1967 gibt es die Idee der Atmungsplatte zur Therapie von Gaumenspalten und der oberen Atemwegsobstruktion. Anfangs wurde die velopharyngeale

Diskussion

Verlängerung allerdings noch nicht ausreichend lang ausgedehnt, da man davon ausging die Gefahren seien geringer bei einer zu kurzen Verlängerung als bei einer zu langen (Pielou, 1967). Die Ausdehnung war ausschließlich auf die Uvula beschränkt und damit nicht ausreichend lang, um die Atemwegobstruktion zu beseitigen. Es entstanden viele Modifikationen und schlussendlich aus den Erfahrungen die weiterentwickelte Tübinger Atmungsplatte (Tübingen Palatal Plate = „TPP“), welche heutzutage mit Hilfe einer Endoskopie, welche lediglich ein bis zwei Minuten in Anspruch nimmt, in Form und Länge perfekt angepasst werden kann (Poets et al., 2019). Bei der konservativen, minimalinvasiven Behandlung mit der TPP ist die Belastung für die Familie und für das Kind selbst vergleichsweise gering und der Aufenthalt im Krankenhaus kurz. Nach der Einteilung nach Caouette-Laberge kann die Therapieentscheidung nach Klasse I – III erfolgen, wobei die Therapie aufsteigend immer invasiver werden soll. Diese Einteilung bezüglich der Therapiefolge kann mit dem Tübinger Therapiekonzept und der TPP bei Kindern mit nicht-syndromaler RS als obsolet betrachtet werden. Nur selten muss zusätzlich noch eine chirurgische Therapie, im Sinne einer Tracheostomie, bei Kindern mit einer syndromalen RS erfolgen, während bislang bei keinem der Kinder mit isolierter RS chirurgisch weiterbehandelt werden musste (Poets et al., 2019). Der Anteil der Kinder bei Poets et al. mit syndromaler RS, welche noch zusätzlich tracheostomiert werden mussten, liegt bei 17 % und ist damit zwar größer als der Anteil der bei einer Übersichtsstudie von Breik et al. nach einer Kallusdistraction des Unterkiefers noch tracheostomiert werden mussten (9,3 %), allerdings wurden hierbei auch keine peri- oder postoperativen Risiken und Folgen miteinbezogen (Breik et al., 2016). Andere weiterführende chirurgische Maßnahmen als eine Tracheostomie wurde bei keinem der syndromalen RS-Kinder angewandt. Neben der vergleichsweise kostengünstigen Herstellung der TPP, sind in mehr als 25 Jahren bei mehr als 500 Patienten/-innen noch keine schwerwiegenden Nebenwirkungen aufgetreten und die Länge des Krankenhausaufenthalts ist mit durchschnittlich zwei bis drei Wochen vergleichsweise viel kürzer als bei den anderen Therapieoptionen (Bacher, 2004, Poets et al., 2019).

Daher sollte die TPP als Therapiemittel der Wahl bei Neugeborenen mit RS gelten. Eine invasive Therapie als primäre Maßnahme bei isolierter RS ist nicht gerechtfertigt. Das Ziel ist eine annähernd gleiche Funktion zu gewährleisten, wie ein/e Patient/-in ohne RS oder sonstige Erkrankungen oder Anomalien im Mund-, Kiefer-, Gesichtsbereich.

Trotz der nachgewiesenen Wirksamkeit der TPP (Buchenau et al., 2007, Wiechers et al., 2019, Poets et al., 2017, Poets et al., 2019, Schmidt et al., 2021, Gerzanic et al., 2012) und der Anwendung von Modifikationen in Deutschland aber auch in den USA oder Hong-Kong (Schmidt et al., 2021, Kochel et al., 2011, Maas and Poets, 2014, Wiechers et al., 2021, Choo et al., 2022, Ho et al., 2019), werden immernoch häufiger invasive als nichtinvasive Verfahren empfohlen und angewendet (Resnick et al., 2019).

4.2 Kieferorthopädische Basisdiagnostik

Die TPP ist im Sinne einer funktionskieferorthopädischen Apparatur zu bewerten, die einen Wachstumsreiz auslöst, welcher durch eine funktionelle Adaptation ausgelöst wird (Enlow, 1966, Enlow, 1990). Der Unterkiefer und die Kiefergelenke erfahren so einen ventro-kaudalen Wachstumsreiz. Kombiniert mit der orofazialen Regulationstherapie nach Castillo Morales und intensivem Ernährungstraining werden die orofazialen Funktionen der Kinder unterstützt und die Muskulatur trainiert (Limbrock et al., 1993, Hohoff and Ehmer, 1999). Diese Annahmen werden in der vorliegenden Studie vielfach bestätigt. Die Kinder mit RS haben keine signifikant unterschiedlichen Funktionsmuster zur Kontrollgruppe. Dies zeigt sich an dem viszeral-physiologischen Schluckmuster, der größtenteils kompetenten Lippenhaltung und auch an der Phonation bzw. Aussprache, welche in Tübingen durch intensives Sprachtraining durch Logopäden zusätzlich therapiert wird. Die Nullhypothese kann damit teilweise bestätigt werden, da die Kinder mit RS in den diskutierten orofazialen Funktionen funktionell nicht auffälliger sind als die Kontrollgruppe und nahezu die gleichen Ergebnisse zeigen.

Die intraorale Beurteilung zeigt in der RS-Gruppe einen höheren Prozentsatz an Angle-Klasse-III Bisslagen, welche auf einen weiter anterioren dentoalveolären

Komplex im Unterkiefer hinweisen und die Theorie des Konzepts der TPP unterstützt. Auch in einer Studie von 2019 bestätigt sich die häufig auftretende Klasse III bei 22 Kindern mit RS im Schulkindalter, welche alle konservativ behandelt wurden (Do et al., 2019). Trotzdem haben in beiden Gruppen mindestens die Hälfte der Kinder eine Klasse-II-Anomalie. Diese kann wie auch bei Do et al. in der RS-Gruppe mit der immer noch dominierenden mandibulären Retrognathie in Verbindung gebracht werden und erklärt den erhöhten Anteil an Probanden/-innen mit RS und angespannter Mentalismuskulatur. Die Angle-Klasse-II-Malokklusion stellt aber, in der Literatur mit bis zu 32 % angegeben (Lippold et al., 2003), innerhalb von Europa die am meisten verbreitete Anomalie dar (Bažant and Miksa, 1960). Damit lässt sich die hohe Prozentzahl an Klasse-II-Malokklusionen in der Kontrollgruppe erklären, in der zudem über die Hälfte der Kinder ein Habit aufweist, welches oftmals zu einer Klasse-II-Anomalie führen kann (Rita and Sadat, 2014).

Auffällig und signifikant unterschiedlich in beiden Gruppen ist aber, dass laut elterlichen Angaben über ein Viertel der Kinder mit RS im Schlaf schnarchen, während in der Kontrollgruppe keines davon betroffen ist. Dies kann ein Hinweis auf eine fortbestehende Obstruktion der oberen Atemwege sein (Linz et al., 2011a). Da Schnarchen aber multifaktoriell bedingt sein kann, lässt sich nicht gleich auf ein Fortbestehen dieser schließen. Ein funktionelles Gleichgewicht ist aber in jedem Falle wichtig und sollte ab dem ersten Therapietag unterstützt werden, sodass der Obstruktion entgegengewirkt werden kann. Bei fortbestehender Rhonchopathie sind außerdem regelmäßige Untersuchungen im Schlaflabor angeraten.

Studien zeigen, dass die Bestimmung des Jaw-Index ein zuverlässiges Instrument zur objektiven Messung der Größe des Unterkiefers bei Neugeborenen ist (Lippold et al., 2003, Mermans et al., 2020). Zudem ist es eine strahlenfreie, kostengünstige Methode und eine Alternative zu kephalometrischen Messungen. Hohe Werte weisen auf eine schwerere mandibuläre Retrognathie hin (Van Der Haven et al., 1997, Wiechers et al., 2019). In der vorliegenden Studie weisen Patienten/-innen mit RS einen signifikant größeren Jaw-Index auf, bei einem zu kleinen Unterkieferbogen und

einem signifikant vergrößertem Overjet. Die mandibuläre Retrognathie in der RS kann in einem erhöhten Overjet resultieren, welcher dann den Jaw-Index-Wert maßgeblich beeinflusst. Der Vergleich mit der aktuellen Literatur ist schwierig, da der Jaw-Index bislang nur an Neugeborenen bestimmt wurde und nicht, wie in der vorliegenden Arbeit, an älteren Kindern mit einem Alter von ca. 10 Jahren (Vegter et al., 1999, Wiechers et al., 2019, Van Der Haven et al., 1997). Trotzdem kann anhand der in dieser Studie erhobenen Daten empfohlen werden, dass die Auswertung des Jaw-Index auch bei älteren Patienten/-innen als Beschreibung zwischen Oberkiefer- und Unterkiefer-Verhältnis verwendet werden kann.

Etwa ein Drittel der RS-Patienten/-innen sind beim Kiefergelenks-Kurzcheck signifikant auffällig, assoziiert mit gehäuft auftretenden Kopf- oder Nackenschmerzen und einer verringerten Mundöffnung und damit kann vermutet werden, dass diese myofunktionell auffälliger sind als die Kontrollgruppe. Es ist nicht auszuschließen, dass diese muskulären Auffälligkeiten durch bestehende dentale bzw. mandibuläre Mittellinienverschiebungen im Oberkiefer oder im Unterkiefer und Zwangsführungen verstärkt oder verursacht werden.

4.3 Modellanalyse, IOTN und TAC

Zur virtuellen Auswertung werden digitalisierte Modelle schon seit über 25 Jahren erfolgreich verwendet (Joffe, 2004). In der Literatur gibt es zahlreiche Validitäts-Studien über digitale Modelle und Gipsmodelle (Fleming et al., 2011, De Luca Canto et al., 2015, Peluso et al., 2004).

Die Modellanalyse, insbesondere die Analyse nach Brune-Moyers stellt sich in der RS-Gruppe im Vergleich zur Kontrollgruppe größtenteils unauffällig dar. Es fällt bei der Bestimmung des Tonn-Index ein signifikanter Unterschied auf, da die Kinder mit RS eine relativ zu kleine Unterkiefer-Frontzahnbreitensumme (si UK) zu der Oberkiefer-Frontzahnbreitensumme (SI OK) aufweisen, während die Kontrollgruppe eine relativ zu große Unterkiefer-Frontzahnbreite hat. In der Literatur gibt es keine Bestimmungen des Tonn-Index bei Kindern oder Erwachsenen mit RS, weshalb auf keine Referenzwerte Bezug genommen werden kann. Es lässt sich aber vermuten, dass eine Disharmonie im unteren Schneidezahnbereich mit der RS zusammenhängt.

Diskussion

In der Literatur werden bei Patienten/-innen mit RS und einer Kontrollgruppe die transversalen Zahnbogenbreiten nicht signifikant unterschiedlich beschrieben (Laitinen and Ranta, 1998). Es werden also keine bzw. wie bei Laitinen et al. nur leichte, aber nicht signifikante Diskrepanzen bei den Patienten/-innen mit RS festgestellt, was sich teilweise in der vorliegenden Studie bestätigt. In einer anderen Studie werden verringerte transversale Breiten bei Patienten/-innen mit RS im Vergleich zu einer Kontrollgruppe festgestellt (Ohashi et al., 2018). Die obere hintere Zahnbogenbreite der RS-Kinder in der vorliegenden Studie ist sogar signifikant größer als die der Kontrollgruppe, ansonsten sind die transversalen Breiten der beiden Gruppen ähnlich groß. In den Studien von Laitinen et al. und Ohashi et al. ist nicht bekannt wie die RS der Probanden/-innen initial behandelt wurden.

Es kann also darauf geschlossen werden, dass durch die TPP-Therapie im höheren Alter sagittale oder transversale, dentoalveoläre Platzdiskrepanzen vermieden werden. Dennoch besteht ein signifikant höherer Behandlungsbedarf bei den Kindern mit RS. Die Nullhypothese, dass kein höherer kieferorthopädischer Behandlungsbedarf bei diesen besteht, wird widerlegt.

Die DHC des IOTN kann in mehreren Studien als zuverlässiger Index der Kieferorthopädie nachgewiesen werden und ist einer der meistverwendeten Indices in der Kieferorthopädie (Bellot-Arcís et al., 2012a, Järvinen, 2001, PRUZANSKY and RICHMOND, 1954, Burden et al., 2001, Cardoso et al., 2011). Die Auswertung an Modellen ist durchführbar (Ovsenik and Primožič, 2007, Beglin et al., 2001), allerdings zeigt die vorliegende Studie, dass zur vollständigen Erhebung von bestimmten Merkmalen, wie bei dem anterioren oder posterioren Kreuzbiss mit Diskrepanz zwischen RCP und ICP (Merkmal c), noch 2D-Fotografien als zusätzliche Information benötigt werden. Es reicht also nicht aus nur die Informationen aus digitalen Modellen oder Gipsmodellen zu bewerten, um die DHC des IOTN zu bestimmen.

Laut aktueller Literatur tritt ein mit dieser Studie vergleichbar häufiges Auftreten von Grad 4 oder 5 bei Schulkindern in der Auswertung des IOTN auf, also einem großen oder sehr großen kieferorthopädischen Behandlungsbedarf.

Diskussion

In Frankreich zeigt eine Studienpopulation von 511 Kindern im Alter von 9 – 12 Jahren eine Häufigkeit von 21 % in Grad 4 oder 5 (Souames et al., 2006). In Italien sind dies 27 % bei 703 Kindern im Alter von 12 Jahren (Perillo et al., 2010), in Spanien 24 % bei 655 Kindern im Alter von 12 – 16 Jahren (Manzanera et al., 2009), in Österreich 31 % bei 157 Patienten/-innen im Alter von 8 – 10 Jahren (Steinmassl et al., 2017) und im Vereinigten Königreich sogar 30 – 35 % (Brook and Shaw, 1989, Burden et al., 2001, Chestnutt et al., 2006). Es muss beachtet werden, dass in den vorherigen Studien Kinder mit kraniofazialen Fehlbildungen nicht explizit ausgeschlossen waren, daher ist der Vergleich erschwert. Die in der vorliegenden Arbeit etwas geringere Prozentzahl an Kindern in Grad 4 oder 5 (19 %) kann dadurch begründet werden.

Bislang gibt es keine Studien, bei welcher explizit Kinder mit syndromaler oder nicht-syndromaler RS mit Hilfe des IOTN untersucht wurden. Lediglich bei 50 Kindern mit kraniofazialen Anomalien oder Syndromen wird bei Taddei et al. der IOTN bestimmt und mit einer alters- und geschlechtsgleichen Gruppe verglichen. Die Studienpopulation besteht aus 36 Kindern mit Down-Syndrom, zwei mit Goldenhar-Syndrom, zwei mit Treacher-Collins-Syndrom, zwei mit Gorlin-Goltz-Syndrom, zwei mit Apert-Syndrom und sieben mit Lippen-Kiefer-Gaumenspalten. Das Ergebnis zeigt, dass die erkrankte Gruppe im Durchschnitt einen Grad 4 aufweist und die Kontrollgruppe einen Grad 3 (Taddei et al., 2016). Dieses bestätigt sich auch in der vorliegenden Studie, bei der 91 % der Kinder mit RS in Grad 4 oder 5 eingestuft sind.

Außerdem weisen die Kinder mit RS mehr Zahnanomalien, wie Hypodontie oder am regelrechten Durchbruch behinderte Zähne auf, wodurch der kieferorthopädische Behandlungsbedarf und ein späterer Bedarf an prothetischer Versorgung erhöht ist. Die Hypodontie ist deutlich häufiger in der RS-Gruppe als in der Kontrollgruppe zu finden und wird auch in der Literatur als typisches Merkmal von Patienten/-innen mit RS oder LKG-S beschrieben (Andersson et al., 2015). Die unteren Prämolaren werden hierbei als die häufigsten fehlenden Zähne in dieser Gruppe beschrieben. In der vorliegenden Studie haben die meisten Kinder mit RS eine Nichtanlage der Oberkiefer-Inzisivi, wie es häufig für Patienten/-innen mit LKG-Spalte beschrieben wird (Shapira et al., 2000).

Diskussion

Am zweithäufigsten treten in der vorliegenden Studie, bei Andersson et al. und Matsuda et al. als häufigste Nichtanlage bei Kindern mit RS beschrieben, Hypodontien der unteren Prämolaren auf (Andersson et al., 2015, Matsuda et al., 2006).

Insgesamt liegt die Prävalenz für Nichtanlagen bei Kindern mit Gaumenspalte bei 28 – 48 %, wobei die Weisheitszähne nicht berücksichtigt werden (Margareta et al., 1998, Brattström and McWilliam, 1989, Byloff-Clar and Droschl, 1972, Weise et al., 2022). Bei etwa einem Drittel der Kinder mit RS ist der regelrechte Durchbruch von Zähnen wegen Platzmangels, Verlagerung, persistierender Milchzähne oder anderen pathologischen Ursachen behindert, während dies in der Kontrollgruppe nicht vorkommt. Der ektopische Durchbruch wird in der Literatur in Zusammenhang mit einer Gaumenspalte gebracht, welche alle Kinder dieser Studie mit RS ebenfalls aufweisen (Margareta et al., 1998, Van Dyck et al., 2019). Die Kontaktpunktverschiebung der Zähne, welche bei fast 90 % der Kinder mit RS in der vorliegenden Studie vorkommt und in über einem Drittel über 4 mm beträgt, wird auch in anderen Studien mit einem frontalen Engstand und in dieser Studie insbesondere mit dem besonderen skelettalen Wachstum bei der RS verbunden (Palaska et al., 2022, Okada et al., 2000).

Durch die vorhandene Gaumenspalte bei allen Kindern der RS-Gruppe, welche in über 90 % Auswirkungen auf die Zahnstellung hat, werden diese größtenteils in der DHC in Merkmal 5p eingestuft und es wird damit eine sehr große Behandlungsnotwendigkeit diagnostiziert. Es muss hinterfragt werden, ob das Ergebnis aussagekräftig ist, weshalb eine zusätzliche Einstufung ohne Berücksichtigung des Auftretens einer Gaumenspalte durchgeführt wurde. Das Ergebnis zeigt dann trotzdem einen deutlich höheren Behandlungsbedarf in der RS-Gruppe als bei den Kontrollkindern. Das Vorhandensein einer Gaumenspalte in Zusammenhang mit RS bedeutet also zwar nicht direkt die Notwendigkeit einer kieferorthopädischen Behandlung, beeinflusst aber die Parameter, welche zu einer solchen Behandlungsnotwendigkeit führen.

Es gibt Länder, in denen die DHC oder eine modifizierte Variante des IOTN zur Beurteilung verwendet wird, ob eine kieferorthopädische Behandlung notwendig

ist. Hierbei werden die Kosten der Behandlung eines Kindes mit Grad 4 oder 5 von den Krankenkassen übernommen (Steinmassl et al., 2017). Die Ästhetik wird hier der Funktion untergeordnet, wenngleich diese trotzdem nicht vernachlässigt werden soll.

Es ist nachgewiesen, dass Zahnfehlstellungen, welche bei den Kindern mit RS gehäuft auftreten (wie ein offener Biss, ein Tiefbiss, ein Kreuzbiss usw.), den Kindern die Integration in die Gesellschaft erschweren (Olsen and Inglehart, 2011). Funktionelle Probleme durch Zahnfehlstellungen, gehen also oft mit einer schlechteren Ästhetik einher. Das Ziel der Behandlung bei einem Kind mit kraniofazialer Fehlbildung ist ein ausreichendes funktionelles Ergebnis, welches dem eines/einer gesunden Patienten/-in gleicht. Es ist wichtig das Auftreten einer kraniofazialen Fehlbildung, wie die RS, im Allgemeinen und nicht nur das Auftreten einer LKG-, Lippen- oder Gaumenspalte bei der Beurteilung der kieferorthopädischen Behandlungsnotwendigkeit zu berücksichtigen.

4.4 Fotostatanalyse

Bei den Kindern mit RS sind mehr Disproportionen zu finden als in der Kontrollgruppe, weshalb die Nullhypothese, dass zwischen den beiden Gruppen keine Unterschiede zu finden sind, nicht bestätigt werden kann. Das Weichteil-Gesichtsprofil ist signifikant konvexer als in der Vergleichsgruppe und auch der hochsignifikant unterschiedliche Profilwinkel nach A.M. Schwarz weist auf eine mandibuläre Retrognathie hin (Laitinen et al., 1997). Außerdem ist der Lippenschluss tendenziell inkompetent und der M. mentalis häufig angespannt, was ausgeprägte Zahnfehlstellungen zur Folge hat. Dieser Befund spiegelt sich ebenfalls in der aktuellen Literatur wider. So zeigt sich in einer Studie 2012, in der 60 Patienten mit RS und 23 gesunde Kinder im Alter zwischen 5 und 10 Jahren miteinander verglichen wurden, dass die Profilkonvexität bei RS-Patienten/-innen meist größer ist und durch den Unterkiefer hervorgerufen wird, welcher sich weiter retrognath befindet (Ozawa et al., 2012). Auch Matsuda et al. stellte fest, dass das Erscheinungsbild der Kinder mit RS im Wachstum retrognath bleibt (Matsuda et al., 2006). Es herrscht also ein Weichgewebsdefizit im unteren Gesichtsdrittel.

Die signifikant größeren Winkel des Untergesichts und des Mittelgesichts der RS-Kinder lassen auf ein tendenziell offenes, vertikales Wachstumsmuster dieser schließen. In der Literatur und auch in der vorliegenden Studie wird dieses als häufig auftretendes Merkmal einer RS in der FRS-Auswertung beschrieben (Suri et al., 2010) und ist hier auch im Weichteilprofil auffällig. Dazu passt der im Morphologische Gesichtsindex ermittelte Median-Index, welcher auf ein durchschnittlich hohes Gesichtsskelett in der RS-Gruppe und auch in der Kontrollgruppe hinweist.

4.5 FRS-Analyse

Die kephalometrischen Auswertungen zeigen, dass sich die sagittalen und vertikalen Werte zur Schädelbasis in den beiden Gruppen nur teilweise unterscheiden und damit die Nullhypothese der skelettalen Entwicklung zum Teil bestätigt werden kann. Zu beachten ist die geringe Fallzahl von gesunden Patienten/-innen ohne RS, von denen ein FRS vorliegt. Daher werden vor allem die Messungen an den Röntgenbildern der Kinder mit RS diskutiert und mit den Normwerten nach Segner/Hasund verglichen (Segner, 1994, Hasund and Bøe, 1984). Wie bereits in mehreren Studien festgestellt, ist bei den Patienten/-innen mit RS eine bimaxilläre Retrognathie auch noch im Schulkindalter vorhanden (Suri et al., 2010). Die Oberkiefer- und Unterkiefer-Schneidezähne stehen in bimaxillärer Retrusion nach lingual gekippt (Matsuda et al., 2006). Durch die vorhandene bimaxilläre Retrognathie sind die Oberkiefer-Unterkiefer-Beziehungen, also die sagittale Verzahnung (Angle-Klasse) im Vergleich dann auch nicht signifikant anders als die der Kontrollgruppe. Trotzdem haben die Kinder mit RS eine Tendenz zur skelettalen Klasse II und eine retrale Kinnlage. Wie auch in den Studien von Daskalogiannakis et al. und Suri et al. beschrieben, in denen ein mögliches Aufholwachstum diskutiert wird, bleibt die Länge des Unterkiefers bei Kindern mit RS nach dem fünften Lebensjahr verkürzt (Daskalogiannakis et al., 2001, Suri et al., 2006). Es ist also kein vollständiges Aufholwachstum der Mandibula zu beobachten. Zusätzlich sind auch Oberkiefer und der Ramus mandibulae etwas verkürzt, was ebenso in der Literatur beschrieben wird und im Oberkiefer auf den operativen Verschluss der Gaumenspalte und die dadurch vorhandene Narbenbildung zurückzuführen ist

(Suri et al., 2010, Matsuda et al., 2006). Denkbar wäre, dass die Schädel der Kinder mit RS generell kleiner sind als die der Kontrollgruppe und dadurch die Strecken verkürzt. Dagegen spricht allerdings, dass die vertikalen kephalometrischen Parameter, wie die Gesichtshöhe, in der RS-Gruppe sogar etwas größer sind als die der Kontrollgruppe. Ein Beispiel dafür ist die vordere Gesichtshöhe, welche auch schon bei Laitinen et al. als vergrößert bei Kindern mit RS beschrieben wird (Laitinen et al., 1997). Auch die Größenmessungen in der Fotostatanalyse, bei der ausreichend Fotos zur Bewertung vorhanden waren, zeigen häufig größere Werte in der RS-Gruppe. Ebenso sind im Vergleich die transversalen Breiten des Oberkiefers und die sagittalen Platzverhältnisse nach Brune-Moyers ohne Auffälligkeiten. Daher ist davon auszugehen, dass nur die charakteristischen Strukturen, wie Unterkiefer und Oberkiefer, in sagittaler Länge bei den Kindern mit RS verkürzt sind (Suri et al., 2010). Das Wachstumsmuster bei den Kindern mit RS ist tendenziell vertikal, der Interbasalwinkel und der Kieferwinkel vergrößert (Suri et al., 2010). Wie mehrfach in der Literatur beschrieben und in der vorliegenden Studie bestätigt ist, ist der Grund dafür der posterior rotierte Unterkiefer (Matsuda et al., 2006, Suri et al., 2010, Daskalogiannakis et al., 2001, Laitinen et al., 1997). Die posteriore Rotation des Unterkiefers entsteht durch den Versuch die verkürzte Länge des Unterkiefers zu kompensieren (Purnell et al., 2019).

Der Atemweg ist auf Höhe des Spinaplanums verengt (PAS), wie es auch in der Studie von Rose et al. beschrieben wird, in der die FRS von Kindern mit RS ausgewertet werden (Rose et al., 2003). Der Atemweg kann dort durch die aus der Gaumenspalte resultierenden maxillären Retrognathie eingeschränkt sein (Rose et al., 2003). Auf Höhe des Mandibularplanums ist der PAS im Normbereich und sogar größer als der der Kontrollgruppe, während er in anderen Studien nach wie vor bei Kindern im Schulalter verengt bleibt (Laitinen et al., 1997). Dies deutet darauf hin, dass die TPP durch die Verlängerung, welche vom weichen Gaumen bis zur Epiglottis reicht und die Zunge und Unterkiefer nach vorne drückt, einen langfristig funktionellen Einfluss auf die Erweiterung und Öffnung des oberen Atemwegs auf Höhe der Mandibula hat und nicht nur

Diskussion

während der Therapie wirksam ist, sondern Auswirkungen auf das darauffolgende Wachstum hat.

Eine Studie von Paes et al. zeigt kephalometrische Langzeitergebnisse von Patienten/-innen mit RS, bei denen zur Behandlung der Atemwegsobstruktion eine Distractionsosteogenese durchgeführt wurde (Paes et al., 2016). Sie werden mit einer RS-Gruppe verglichen, welche nicht operativ behandelt wurden, und mit einer gesunden Kontrollgruppe. Die Kinder mit RS bei Paes et al. zeigen ebenfalls alle einen zu kurzen Unterkiefer, wobei der Unterkiefer der konservativ behandelten Kinder länger ist, als der der operativ Behandelten. Die mit einer Unterkiefer-DISTRAKTION operativ behandelten Patienten/-innen zeigen außerdem ein verstärkt offenes, vertikales Wachstumsmuster mit einem größeren Kieferwinkel und einer größeren vorderen Gesichtshöhe. Die Studie zeigt auch, dass die Unterkieferdistraktion keinen Einfluss auf das Wachstum des Oberkiefers hat. Somit lässt es sich auf deutliche Wachstumsdefizite des Gesichtsschädels nach Distractionsosteogenese schließen, die sich in der nicht-invasiven Therapie mittels Tübinger Konzept nicht zeigen.

4.6 Schlussfolgerung

Auf den Grundlagen der vorliegenden Untersuchung kann hinsichtlich den Langzeiteffekten der TPP und zu der kontrovers diskutierten Frage über ein Vorhandensein des Unterkieferaufholwachstums bei Kindern mit RS das folgende ausgesagt werden:

Das konvexe Weichteilprofil, das Defizit im unteren Gesichtsdrittel, der signifikant vergrößerte Jaw-Index, der vergrößerte Overjet und die verkürzte Unterkieferlänge im FRS, lassen darauf schließen, dass kein vollständiges Aufholwachstum des Weichgewebes des Unterkiefers stattgefunden hat. Dieses kann auch in den meisten Studien nicht festgestellt werden und äußert sich, wie auch in der vorliegenden Arbeit, in der weiterbestehenden mandibulären Retrognathie (Daskalogiannakis et al., 2001, Suri et al., 2010, Laitinen and Ranta, 1992, Suri et al., 2006, Vegter et al., 1999, Eriksen et al., 2006). Es wird deutlich, dass die RS-Studienprobanden/-innen ein tendenziell vertikales, offenes Wachstumsmuster aufweisen, welches sich im FRS an einem vergrößerten Interbasalwinkel und einer vergrößerten anterioren Gesichtshöhe, aber auch im Weichteilprofil und dem MGI äußert. Dies Tendenz wird in der Literatur bestätigt und wird vor allem auf die posteriore Rotation des Unterkiefers zurückgeführt (Laitinen et al., 1997, Suri et al., 2010, Daskalogiannakis et al., 2001, Matsuda et al., 2006). Es ist bewiesen, dass durch operative Therapieoptionen wie die Distractionsosteogenese, das Unterkieferaufholwachstum nicht vorhanden ist und das vertikale Wachstumsmuster aufgrund der operativen Nebenwirkungen verstärkt wird (Paes et al., 2016).

Die initiale Therapie mittels TPP nach der Geburt hat bei den Kindern mit RS das skelettale Unterkieferwachstum gefördert und die Verengung des oberen Atemwegs auf Höhe des Mandibularplanums beseitigt. Auch dentoalveoläre Diskrepanzen werden durch den Therapieablauf mit der TPP korrigiert. Zudem wird deutlich, dass aus funktioneller Sicht vergleichbare Parameter der RS-Gruppe mit der Kontrollgruppe vorhanden sind, welche langfristige Vorteile der TPP aufzeigen. Funktionell zeigt sich, dass die TPP in Kombination mit interdisziplinärem Training, Logopädie und der orofazialen Regulationstherapie, positive Auswirkungen auf ein physiologisches, viszerales Schluckmuster und

Diskussion

eine gute Phonation hat. Dentoalveolär sind außerdem sind bis auf einen frontalen Engstand im Oberkiefer und Unterkiefer mit folglich Kontaktpunktverschiebungen, welcher durch eine Retroinklination der Frontzähne hervorgerufen wird, die dentalen Platzverhältnisse in der Sagittalen und in der Transversalen ausreichend. Somit lässt sich ausschließen, dass der von der TPP ausgeübte Druck, der während Therapie auf den Oberkiefer wirkt, negativen Auswirkungen, im Sinne eines Wachstumshindernisses, auf die späteren Platzverhältnisse hat.

Die Studie liefert außerdem erste Daten zum kieferorthopädischen Behandlungsbedarf bei den Kindern mit RS, die kurz nach der Geburt mit der TPP behandelt wurden. Der kieferorthopädische Behandlungsbedarf ist bedeutend größer als in der Kontrollgruppe, unabhängig vom Vorhandensein einer Gaumenspalte. Der Grund dafür ist, dass RS mit besonderen skelettalen Wachstumsmustern einhergeht, welche das Auftreten von Zahnfehlstellungen und Zahnanomalien verstärkt. Diese können dann in myofunktionellen Auffälligkeiten resultieren, so wie es in der vorliegenden Studienpopulation deutlich wird. Außerdem sind Kinder mit RS und einer Gaumenspalte häufiger von Hypodontien betroffen. Die IOTN-Werte der Kontrollgruppe entsprechen den Durchschnittswerten der meisten europäischen Studien.

Kraniofaziale Anomalien wie die RS, sollten in weiteren Studien mit Zahnanomalien und -fehlstellungen in Verbindung gebracht werden und untersucht werden.

Einschränkungen der Studie sind trotz der gewonnenen Erkenntnisse nicht zu vernachlässigen. In der Literatur werden zwei Wachstumsschübe erwähnt: der juvenile Wachstumsschub im Alter von ca. 6 – 8 Jahren und der pubertäre Wachstumsgipfel, der ein- bis zwei Jahre nach dem juvenilen einsetzt (Harzer, 1999). Das durchschnittliche Alter der Kinder dieser Studie liegt mit 9,9 Jahren eventuell noch zwischen diesen beiden Phasen und damit ggf. noch vor dem zweiten Wachstumsschub. In dieser Zeit kann noch eine funktionskieferorthopädische Therapie erfolgen, sodass eine Verbesserung und ein Wachstum des Unterkiefers nicht auszuschließen sind. In Zukunft sollte also eine

Diskussion

längere Nachbeobachtung erfolgen, um das Wachstum der Kinder mit RS in den verschiedenen Phasen des Wachstums zu bewerten. Weitere Einschränkungen sind, dass nur ca. 41 % der kontaktierten Patienten/-innen an der Studie teilnahmen und ca. 26 % die Studienkriterien nicht erfüllten oder nicht erreicht wurden.

Um die Kinder keiner unnötigen Strahlenbelastung auszusetzen, können außerdem nur die FRS-Bilder der Patienten/-innen ausgewertet werden, von welchen im Rahmen ihrer üblichen kieferorthopädischen Therapie solche angefertigt wurden. Dies führt zu einer kleinen Stichprobe (n = 13 bei Kindern mit RS; n = 7 in der Kontrollgruppe), welche es nicht erlaubt, eine zuverlässige statistische Analyse durchzuführen, weshalb vorwiegend ein Vergleich zwischen den Kindern mit RS und des Normwerten nach Hasund (Segner, 1994, Hasund and Bøe, 1984) gezogen wurde.

Schlussendlich können die Einschränkungen aber durch die gewonnenen Erkenntnisse aufgewogen werden, da dies die erste Studie über die kieferorthopädischen langfristig funktionellen Behandlungsergebnisse von Kindern mit RS ist, die kurz nach ihrer Geburt mit einer TPP und dem Tübinger Therapiekonzept behandelt wurden und mit einer alters- und geschlechtsgleichen Gruppe verglichen werden.

5 Zusammenfassung

Die RS ist eine seltene kraniofaziale Fehlbildung, welche aus der Symptomtrias der mandibulären Retrognathie, Glossoptose und daraus resultierenden erheblichen Obstruktionen der oberen Atemwege besteht, weshalb initial nach der Geburt behandelt werden muss. Ziel der vorliegenden Studie war es von den in Tübingen mit der TPP behandelten Kinder die kieferorthopädisch skelettalen und dentalen Parameter zu erheben und auf die Langzeiteffekte dieser Therapie zu untersuchen. Zusätzlich wurde die kieferorthopädische Behandlungsnotwendigkeit bestimmt. Es wurde ein Vergleich zu einer gesunden alters- und geschlechtsgleichen Kontrollgruppe, ohne RS oder andere kraniofaziale Anomalien, gezogen.

Dafür wurde ein kieferorthopädischer Basisbefund erhoben, eine Modellanalyse an digitalen Modellen und eine Fotostatanalyse durchgeführt, Fernröntgenseitenbilder und Panoramaschichtaufnahmen ausgewertet und der IOTN erhoben.

Insgesamt ist festzustellen, dass die viele funktionelle Parameter und dentoalveolären Platzverhältnisse bei Kindern im Schulalter mit RS nach der Behandlung mit der TPP mit den gesunden Kontrollkindern vergleichbar sind. Trotz des vermehrten auftretenden Schnarchens war der PAS-Wert auf Höhe des Mandibularplanums uneingeschränkt, sodass die Wahrscheinlichkeit für eine Obstruktion der oberen Atemwege, durch den retrognathen Unterkiefer verursacht, minimiert werden kann. Die vertikalen und sagittalen skelettalen Parameter im FRS sind auffällig in der RS-Gruppe und auf das besondere skelettale Wachstumsmuster der RS zurückzuführen. Am Weichgewebe ist die Erkrankung der RS ebenso weiterhin feststellbar, da dieses dem restlichen skelettalen Wachstum nicht vollständig folgen konnte. Das Weichteilprofil ist weiterhin konvex und die unteren Gesichtsproportionen weisen Defizite auf.

Bei der Auswertung des IOTN ist ein erhöhter kieferorthopädischer Behandlungsbedarf bei den Kindern mit RS festzustellen, welcher nicht auf das Vorhandensein der Spalte, sondern auf Zahnanomalien und Zahnfehlstellungen zurückzuführen ist. Diese Ergebnisse sollten das Verständnis von

Zusammenfassung

Kieferorthopäden/-innen für diese kraniofaziale Fehlbildung verbessern und zeigen, dass der Behandlungsschwerpunkt auf einem funktionell guten Ergebnis liegen muss, welches dem der gesunden Kinder gleicht oder zumindest ähnlich ist. Bei RS-Patienten/-innen sollte daher immer ein möglicher kieferorthopädischer Behandlungsbedarf überprüft werden.

Die Einteilung nach Caouette-Laberge zur Therapieentscheidung kann als obsolet angesehen werden, da bei einer nicht-syndromalen RS jeder Schweregrad mit dem Tübinger Therapiekonzept und der TPP behandelt werden kann (Caouette-Laberge et al., 1994).

Abschließend kann festgestellt werden, dass die TPP-Behandlung durch die funktionelle Anpassung des stomatognathen Systems einen Wachstumsstimulus für den Unterkiefer und das Kiefergelenk verursacht. Dies wirkt sich einerseits auf ein positiv gefördertes ventro-kaudales Wachstum der Mandibula initial nach der Geburt aus, aber auch langfristig.

6 Abbildungsverzeichnis

Abb. 1: a) Die Tübinger Atmungsplatte (Tübingen Palatal Plate – TPP) mit extraoralen Drahtbügeln, einer velopharyngealen Extension (blau) und der Gaumenabdeckplatte (pink); b) Kind mit RS mit eingesetzter TPP und Fixation mittels Tapes; c) Darstellung der Gaumenspalte ohne eingesetzte TPP (Effert et al., 2023a).....	14
Abb. 2: Bestimmung des Jaw Index: O x U/L (alveolärer Überbiss x maxillärer/mandibulärer Bogen) (F. Nötzel, 2001, Mermans et al., 2020)	21
Abb. 3: Profiltypen und Profilverlauf nach A.M. Schwarz (Schultz, 2001)	30
Abb. 4: Kephalometrie nach Segner/Hasund (F. Nötzel, 2001, Hasund and Bøe, 1984).....	32
Abb. 5: Stadieneinstufung der morphologischen Merkmale in den Wirbelkörpern C2, C3 und C4 nach entsprechenden Entwicklungsstadien im Zusammenhang mit dem Unterkieferwachstum	34
Abb. 6: Vorgehen Messung des PAS auf Höhe des Spinaplanums (NL), auf Höhe der Okklusionsebene (Okkl) und auf Höhe des Mandibularplanums (ML) (Godt et al., 2011)	35

7 Tabellenverzeichnis

Tab. 1: Alters- und Geschlechtsverteilung der Probanden/-innen; *zum Zeitpunkt der Untersuchung	18
Tab. 2: Erhobene Parameter des kieferorthopädischen Basisbefundes.....	21
Tab. 3: Definitionen der Referenzpunkte, -linien und Winkel in den Modellanalysen nach „Brune-Moyers“, „Tonn“ und „Pont“	22
Tab. 4: Wechselgebissanalyse nach Brune-Moyers, Sollwerte OK und UK (mm) mit hervorgehobenen 75 % Niveau (Moyers, 1988)	23
Tab. 5: Transversale Sollwerte für die vZB und hZB nach Pont (mm) (Pont, 1909)	25
Tab. 6: IOTN DHC Einteilung nach Grad 1 – 5 nach Brook und Shaw bei den jeweiligen Untergruppen als Merkmale (Brook and Shaw, 1989)	26
Tab. 7: Definitionen der Referenzpunkte, -linien und Winkel in der den Fotostatanalysen bei Enface- und Profilaufnahmen; Abkürzungen s. Tabelle 8.....	28
Tab. 8: Bezugspunkte und deren Abkürzungen bei Fotostatanalysen der Enface- und Profilaufnahmen	29
Tab. 9: Beurteilung des MGI = Gesichtshöhe (Nasion-Menton) x 100 / Jochbogenbreite (%).....	30
Tab. 10: gemessene Referenzpunkte und -linien im FRS und deren Abkürzungserklärungen (s. Abb. 4)	31
Tab. 11: Durchgeführte Messungen im FRS mit klinischen Richtwerten nach Hasund (Hasund and Bøe, 1984)	33
Tab. 12: Tooth Agenesis Code nach van Wijk und Tan (Van Wijk and Tan, 2006)	36
Tab. 13: Kieferorthopädische Anamnese: RS-Kinder im Vergleich mit der Kontrollgruppe; Signifikanzlevel $p < 0,05$	42
Tab. 14: Auswertung der Modellanalysen nach „Brune-Moyers“, „Tonn“ und „Pont“ im Vergleich RS-Gruppe und Kontrollgruppe (Abkürzungen s. Tab. 3)	44
Tab. 15: Einteilung in Grade der Dental Health Component des IOTN der gesamten, männlichen und weiblichen Patienten/-innen mit RS und der gesunden Kontrollgruppe (Grad 1 = keine Behandlungsnotwendigkeit, Grad 2 = geringe Behandlungsnotwendigkeit, Grad 3 = mäßige Behandlungsnotwendigkeit, Grad 4 = große Behandlungsnotwendigkeit, Grad 5 = sehr große Behandlungsnotwendigkeit).....	47

Tabellenverzeichnis

Tab. 16: Einteilung und Häufigkeit der einzelnen Merkmale und Grade der DHC des IOTN von Patienten/-innen mit RS und der gesunden Kontrollgruppe	48
Tab. 17: Ergebnisse der lateralen Fotostatanalyse in der gesunden Gruppe und bei den Kindern mit RS; Abkürzungen s. Tab. 8; Erläuterungen der Messpunkte s. Tab. 7	50
Tab. 18: Ergebnisse der Analyse der Enface-Fotos der gesunden Gruppe und bei den Kindern mit RS; Abkürzungen s. Tab. 8; Erläuterungen der Messpunkte s. Tab. 7	51
Tab. 19: Morphologischer GesichtsindeX (= morphologische Gesichtshöhe x 100 / Jochbogenbreite) bei RS-Kindern und in der Kontrollgruppe ...	52
Tab. 20: Sagittale, vertikale und dentale durchgeführte Messungen sowie die Bewertung der Weichteile am FRS	56
Tab. 21: Auswertung des Tooth Agensis Code (TAC) anhand von PSA zur Beschreibung von Nichtanlagen bei Kindern mit RS und der gesunden Kontrollgruppe.....	57

8 Literaturverzeichnis

- American Board of Orthodontics. Photograph Requirements.* [Online]. Available: <https://ntiiby.americanboardortho.com/media/krghpdg/example-photos-radiographs.pdf> [Accessed].
- AMADDEO, A., ABADIE, V., CHALOUHI, C., KADLUB, N., FRAPIN, A., LAPILLONNE, A., LÉBOULANGER, N., GARABÉDIAN, E. N., PICARD, A. & FAUROUX, B. 2016. Continuous positive airway pressure for upper airway obstruction in infants with Pierre Robin sequence. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 137, 609-612.
- ANDERSSON, E.-M., FERAGEN, K. B., MIKALSEN, D., KAUL, J., HOLLA, T. M. & FILIP, C. 2015. Bilateral hypodontia in adolescents with Pierre Robin sequence. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 52, 452-457.
- ANGLE, E. H. 1899. Classification of malocclusion. *Dent. Cosmos*, 41, 350-357.
- ARGAMASO, R. V. 1992. Glossopexy for upper airway obstruction in Robin sequence. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 29, 232-238.
- BACCETTI, T., FRANCHI, L. & MCNAMARA JR, J. A. 2002. An improved version of the cervical vertebral maturation (CVM) method for the assessment of mandibular growth. *The Angle Orthodontist*, 72, 316-323.
- BACHER, M. 2004. The preepiglottic baton plate. An intraoral appliance for treatment of respiratory distress in infants with Pierre Robin sequence. *Cleft Palate Craniofac J (in Druck)*.
- BACHER, M., SAUTERMEISTER, J., URSCHITZ, M. S., BUCHENAU, W., ARAND, J. & POETS, C. F. 2011. An oral appliance with velar extension for treatment of obstructive sleep apnea in infants with Pierre Robin sequence. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 48, 331-336.
- BAUDON, J.-J., RENAULT, F., GOUTET, J.-M., FLORES-GUEVARA, R., SOUPRE, V., GOLD, F. & VAZQUEZ, M.-P. 2002. Motor dysfunction of the upper digestive tract in Pierre Robin sequence as assessed by sucking-swallowing electromyography and esophageal manometry. *The Journal of pediatrics*, 140, 719-723.
- BAŽANT, V. & MIKSA, J. 1960. Die Häufigkeit der Okklusionsanomalien in sagittaler Richtung in der Klassifikation nach Angle bei Erwachsenen. *Fortschritte der Kieferorthopädie*, 21, 328-338.
- B EGLIN, F. M., FIRESTONE, A. R., VIG, K. W., BECK, F. M., KUTHY, R. A. & WADE, D. 2001. A comparison of the reliability and validity of 3 occlusal indexes of orthodontic treatment need. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 120, 240-246.
- BELLOT-ARCÍS, C., ALMERICH-SILLA, J., PAREDES-GALLARDO, V. & GANDÍA-FRANCO, J. 2012a. The use of occlusal indices in high-impact literature. *Community dental health*, 29, 45-48.
- BELLOT-ARCÍS, C., MONTIEL-COMPANY, J. M., ALMERICH-SILLA, J. M., PAREDES-GALLARDO, V. & GANDÍA-FRANCO, J. L. 2012b. The use of occlusal indices in high-impact literature. *Community Dent Health*, 29, 45-8.
- BENJAMIN, B. & WALKER, P. 1991. Management of airway obstruction in the Pierre Robin sequence. *International journal of pediatric otorhinolaryngology*, 22, 29-37.

- BRATTSTRÖM, V. & MCWILLIAM, J. 1989. The influence of bone grafting age on dental abnormalities and alveolar bone height in patients with unilateral cleft lip and palate. *The European Journal of Orthodontics*, 11, 351-358.
- BREIK, O., TIVEY, D., UMAPATHYSIVAM, K. & ANDERSON, P. 2016. Mandibular distraction osteogenesis for the management of upper airway obstruction in children with micrognathia: a systematic review. *International journal of oral and maxillofacial surgery*, 45, 769-782.
- BROOK, P. H. & SHAW, W. C. 1989. The development of an index of orthodontic treatment priority. *The European Journal of Orthodontics*, 11, 309-320.
- BUCHENAU, W., URSCHITZ, M. S., SAUTERMEISTER, J., BACHER, M., HERBERTS, T., ARAND, J. & POETS, C. F. 2007. A Randomized Clinical Trial of a New Orthodontic Appliance to Improve Upper Airway Obstruction in Infants with Pierre Robin Sequence. *The Journal of Pediatrics*, 151, 145-149.
- BURDEN, D. J., PINE, C. M. & BURNSIDE, G. 2001. Modified IOTN: an orthodontic treatment need index for use in oral health surveys. *Community dentistry and oral epidemiology*, 29, 220-225.
- BUSH, P. & WILLIAMS, A. 1983. Incidence of the Robin anomalad (Pierre Robin syndrome). *British journal of plastic surgery*, 36, 434-437.
- BYLOFF-CLAR, H. & DROSCHL, H. 1972. Zahnzahl und zahnformen bei lippenkiefer-gaumenspalten. *Fortschritte der Kieferorthopädie*, 33, 417-446.
- CAOQUETTE-LABERGE, L., BAYET, B. & LAROCQUE, Y. 1994. The Pierre Robin sequence: review of 125 cases and evolution of treatment modalities. *Plastic and reconstructive surgery*, 93, 934-942.
- CARDOSO, C. F., DRUMMOND, A. F., LAGES, E. M., PRETTI, H., FERREIRA, E. F. & ABREU, M. H. N. 2011. The dental aesthetic index and dental health component of the index of orthodontic treatment need as tools in epidemiological studies. *International journal of environmental research and public health*, 8, 3277-3286.
- CARR, M. M., POJE, C. P., KINGSTON, L., KIELMA, D. & HEARD, C. 2001. Complications in pediatric tracheostomies. *The Laryngoscope*, 111, 1925-1928.
- CHESTNUTT, I. G., BURDEN, D., STEELE, J., PITTS, N., NUTTALL, N. & MORRIS, A. 2006. The orthodontic condition of children in the United Kingdom, 2003. *British dental journal*, 200, 609-612.
- CHOO, H., KHOSLA, R. K., MEISTER, K. D., WAN, D. C., LIN, H.-F. C., FECZKO, R., BRUCKMAN, K., HOPKINS, E., TRUONG, M. T. & LORENZ, H. P. 2022. Nonsurgical orthodontic airway plate treatment for newborns with Robin sequence. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 59, 403-410.
- CÔTE, A., FANOUS, A., ALMAJED, A. & LACROIX, Y. 2015. Pierre Robin sequence: review of diagnostic and treatment challenges. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 79, 451-464.
- DASKALOGIANNAKIS, J., ROSS, R. B. & TOMPSON, B. D. 2001. The mandibular catch-up growth controversy in Pierre Robin sequence. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics*, 120, 280-285.

- DE LUCA CANTO, G., PACHÊCO-PEREIRA, C., LAGRAVERE, M. O., FLORES-MIR, C. & MAJOR, P. W. 2015. Intra-arch dimensional measurement validity of laser-scanned digital dental models compared with the original plaster models: a systematic review. *Orthod Craniofac Res*, 18, 65-76.
- DENNY, A. & AMM, C. 2005. New Technique for Airway Correction in Neonates with Severe Pierre Robin Sequence. *The Journal of Pediatrics*, 147, 97-101.
- DENNY, A. D., AMM, C. A. & SCHAEFER, R. B. 2004. Outcomes of tongue-lip adhesion for neonatal respiratory distress caused by Pierre Robin sequence. *Journal of Craniofacial Surgery*, 15, 819-823.
- DO, J. B. A., BELLERIVE, A., JULIEN, A.-S. & LECLERC, J. E. 2019. Cleft palates and occlusal outcomes in Pierre Robin sequence. *Otolaryngology–Head and Neck Surgery*, 160, 246-254.
- DOUGLAS, B. 1946. The treatment of micrognathia associated with obstruction by a plastic procedure. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 1, 300-308.
- EFFERT, J., UHLIG, S., WIECHERS, C., QUANTE, M., POETS, C. F., SCHULZ, M. C., REINERT, S., KRIMMEL, M., KOOS, B. & WEISE, C. 2023a. Prospective Evaluation of Children with Robin Sequence Following Tübingen Palatal Plate Therapy. *Journal of Clinical Medicine*, 12, 448.
- EFFERT, J., WIECHERS, C., KREUTZER, K., POETS, C. F., SCHULZ, M. C., KRIMMEL, M., ARETXABALETA, M., FINKE, H., KOOS, B. & WEISE, C. 2023b. Retrospective evaluation of the orthodontic treatment needs in primary school children with Robin sequence following Tübingen palatal plate therapy in infancy. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*.
- ENLOW, D. H. 1966. A morphogenetic analysis of facial growth. *American journal of orthodontics*, 52, 283-299.
- ENLOW, D. H. 1990. *Facial growth*, WB Saunders Company.
- ERIKSEN, J., HERMANN, N., DARVANN, T. A. & KREIBORG, S. 2006. Early postnatal development of the mandible in children with isolated cleft palate and children with nonsyndromic Robin sequence. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 43, 160-167.
- EVANS, K. N., SIE, K. C., HOPPER, R. A., GLASS, R. P., HING, A. V. & CUNNINGHAM, M. L. 2011. Robin sequence: from diagnosis to development of an effective management plan. *Pediatrics*, 127, 936-948.
- F. NÖTZEL, C. S. 2001. *Leitfaden der kieferorthopädischen Diagnostik, Analysen und Tabellen für die Praxis*, Köln Deutsche Zahnärzte Verlag
- FAUROUX, B., LAVIS, J.-F., NICOT, F., PICARD, A., BOELLE, P.-Y., CLÉMENT, A. & VAZQUEZ, M.-P. 2005. Facial side effects during noninvasive positive pressure ventilation in children. *Intensive care medicine*, 31, 965-969.
- FLEMING, P., MARINHO, V. & JOHAL, A. 2011. Orthodontic measurements on digital study models compared with plaster models: a systematic review. *Orthodontics & craniofacial research*, 14, 1-16.
- FLETCHER, M. M., BLUM, S. L. & BLANCHARD, C. L. 1969. Pierre Robin syndrome pathophysiology of obstructive episodes. *The Laryngoscope*, 79, 547-560.

- FRANCHI, L., BACCETTI, T. & MCNAMARA JR, J. A. 2000. Mandibular growth as related to cervical vertebral maturation and body height. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 118, 335-340.
- GERZANIC, L., FEICHTINGER, M. & KÄRCHER, H. 2012. The influence of the Tübingen soft palate plate and early cleft closure on the nasopharyngeal airway for the management of airway obstruction in an infant with Pierre Robin sequence: A case report. *International Journal of Surgery Case Reports*, 3, 608-610.
- GILHOOLY, J. T., SMITH, J. D., HOWELL, L. L., DESCHAIINE, B. L. & RICHEY, S. L. 1993. Bedside polysomnography as an adjunct in the management of infants with Robin sequence. *Plastic and reconstructive surgery*, 92, 23-27.
- GODT, A., KOOS, B., HAGEN, H. & GÖZ, G. 2011. Changes in upper airway width associated with Class II treatments (headgear vs activator) and different growth patterns. *The Angle Orthodontist*, 81, 440-446.
- HAN, K. D., SERUYA, M., OH, A. K., ZALZAL, G. H. & PRECIADO, D. A. 2012. "Natural" decannulation in patients with Robin sequence and severe airway obstruction. *Annals of Otolaryngology, Rhinology & Laryngology*, 121, 44-50.
- HARZER, W. 1999. *Lehrbuch der Kieferorthopädie*, Deutscher Ärzteverlag.
- HASUND, A. & BØE, O. E. 1984. *Klinische Kephalmetrie für die Bergen-Technik*, Kieferorthopädische Abt. des Zahnärztlichen Inst. der Univ.
- HEAF, D., HELMS, P., DINWIDDIE, R. & MATTHEW, D. 1982. Nasopharyngeal airways in Pierre Robin syndrome. *The Journal of pediatrics*, 100, 698-703.
- HO-A-YUN, J., CRAWFORD, F. & CLARKSON, J. 2009. The use of the Index of Orthodontic Treatment Need in dental primary care. *British Dental Journal*, 206, E16-E16.
- HO, A. C., WONG, R. W., CHEUNG, T., NG, D. K., SIU, K. & FUNG, S. 2019. Orthodontic plate for management of obstructive sleep apnoea in infants with Pierre Robin sequence: experience and protocol in Hong Kong. *Journal of Orthodontics*, 46, 367-373.
- HOBSON, R., NUNN, J. & COZMA, I. 2005. Orthodontic management of orofacial problems in young people with impairments: review of the literature and case reports. *International Journal of Paediatric Dentistry*, 15, 355-363.
- HOHOFF, A. & EHMER, U. 1999. Short-term and long-term results after early treatment with the castillo morales stimulating plate. *Journal of Orofacial Orthopedics / Fortschritte der Kieferorthopädie*, 60, 2-12.
- HONG, P. 2011. A clinical narrative review of mandibular distraction osteogenesis in neonates with Pierre Robin sequence. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 75, 985-991.
- HONG, P., GRAHAM, E., BELYEA, J., TAYLOR, S. M., KEARNS, D. B. & BEZUHLY, M. 2012. The long-term effects of mandibular distraction osteogenesis on developing deciduous molar teeth. *Plast Surg Int*, 2012, 913807.
- JAHN, H. 2003. *Neues und Bewährtes in der Ätiopathogenese und Therapie der Pierre-Robin-Sequenz*. Halle (Saale), Univ., Diss., 2003.

- JAKOBSEN, L. P., ULLMANN, R., CHRISTENSEN, S. B., JENSEN, K. E., MØLSTED, K., HENRIKSEN, K. F., HANSEN, C., KNUDSEN, M. A., LARSEN, L. A. & TOMMERUP, N. 2007. Pierre Robin sequence may be caused by dysregulation of SOX9 and KCNJ2. *Journal of medical genetics*, 44, 381-386.
- JÄRVINEN, S. 2001. Indexes for orthodontic treatment need. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 120, 237-239.
- JOFFE, L. 2004. Current products and practices OrthoCAD™: digital models for a digital era. *Journal of orthodontics*, 31, 344-347.
- KESSLER, P., WILTFANG, J., MERTEN, H.-A. & NEUKAM, F. 2000. Distractionsosteogenese der Mandibula bei kraniofazialen Fehlbildungen. *Mund-, Kiefer-und Gesichtschirurgie*, 4, 178-182.
- KIELY, J., DEEGAN, P. & MCNICHOLAS, W. 1998. Resolution of obstructive sleep apnoea with growth in the Robin sequence. *European Respiratory Journal*, 12, 499-501.
- KIRSCHNER, R. E., LOW, D. W., RANDALL, P., BARTLETT, S. P., MCDONALD-MCGINN, D. M., SCHULTZ, P. J., ZACKAI, E. H. & LAROSSA, D. 2003. Surgical airway management in Pierre Robin sequence: is there a role for tongue-lip adhesion? *The Cleft palate-craniofacial journal*, 40, 13-18.
- KLEINT, G., KANITZ, G. & HARZER, W. 2002. Orthodontic treatment in, handicapped children: Report of four cases. *Journal of dentistry for children*, 69, 31-38.
- KOCHEL, J., MEYER-MARCOTTY, P., WIRBELAUER, J., BÖHM, H., KOCHEL, M., THOMAS, W., BAREIS, U., HEBESTREIT, H., SPEER, C. & STELLZIG-EISENHAUER, A. 2011. Treatment modalities of infants with upper airway obstruction—review of the literature and presentation of novel orthopedic appliances. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 48, 44-55.
- KREMER, B., VAN WAARDENBURG, D., FRINTS, M. & DAMEN, A. 2004. Glossopexie als Therapie der ersten Wahl bei hochgradiger Glossoptosis. *Monatsschrift Kinderheilkunde*, 152, 1330-1335.
- KRIMMEL, M., BACHER, M., KOOS, B., POETS, C. & REINERT, S. 2019. Die Frühbehandlung der Pierre-Robin-Sequenz – einer speziellen Form der Gaumenspalte. *Der MKG-Chirurg*, 12, 11-19.
- LAITINEN, S., HELIÖVAARA, A., PERE, A. & RANTA, R. 1994. Growth in children with Pierre Robin sequence and isolated cleft palate. *Acta Paediatrica*, 83, 1161-1164.
- LAITINEN, S. H., HELIÖVAARA, A. & RANTA, R. E. 1997. Craniofacial morphology in young adults with the Pierre Robin sequence and isolated cleft palate. *Acta odontologica Scandinavica*, 55, 223-228.
- LAITINEN, S. H. & RANTA, R. 1998. Sizes of dental arches in young adult patients with Pierre Robin sequence and isolated cleft palate. *Acta Odontologica Scandinavica*, 56, 85-89.
- LAITINEN, S. H. & RANTA, R. E. 1992. Cephalometric measurements in patients with Pierre Robin syndrome and isolated cleft palate. *Scandinavian journal of plastic and reconstructive surgery and hand surgery*, 26, 177-183.

- LIMBROCK, G., CASTILLO-MORALES, R., HOYER, H., STÖVER, B. & ONUFER, C. 1993. The Castillo-Morales approach to orofacial pathology in Down syndrome. *The International journal of orofacial myology: official publication of the International Association of Orofacial Myology*, 19, 30-37.
- LINZ, A., BACHER, M., URSCHITZ, M., BUCHENAU, W., ARAND, J. & POETS, C. 2011a. Diagnostics and therapy of the Pierre Robin sequence. *Monatsschrift Kinderheilkunde*, 159, 1228-1233.
- LINZ, A., BACHER, M., URSCHITZ, M. S., BUCHENAU, W., ARAND, J. & POETS, C. F. 2011b. Diagnostik und Therapie der Pierre-Robin-Sequenz. *Monatsschrift Kinderheilkunde*, 159, 1228-1233.
- LIPPOLD, C., VAN DEN BOS, L., HOHOFF, A., DANESH, G. & EHMER, U. 2003. Interdisciplinary study of orthopedic and orthodontic findings in pre-school infants. *Journal of orofacial orthopedics= Fortschritte der Kieferorthopädie: Organ/official journal Deutsche Gesellschaft für Kieferorthopädie*, 64, 330-340.
- LOGJES, R. J., HAASNOOT, M., LEMMERS, P. M., NICOLAIJE, M. F., VAN DEN BOOGAARD, M.-J. H., MINK VAN DER MOLEN, A. B. & BREUGEM, C. C. 2018. Mortality in Robin sequence: identification of risk factors. *European Journal of Pediatrics*, 177, 781-789.
- MAAS, C. & POETS, C. F. 2014. Initial treatment and early weight gain of children with Robin Sequence in Germany: a prospective epidemiological study. *Archives of Disease in Childhood-Fetal and Neonatal Edition*, 99, F491-F494.
- MACÉ, G., SONIGO, P., CORMIER-DAIRE, V., AUBRY, M. C., MARTINOVIC, J., ELIE, C., GONZALES, M., CARBONNE, B., DUMEZ, Y. & LE MERRER, M. 2013. Three-dimensional helical computed tomography in prenatal diagnosis of fetal skeletal dysplasia. *Ultrasound in Obstetrics & Gynecology*, 42, 161-168.
- MANZANERA, D., MONTIEL-COMPANY, J. M., ALMERICHI-SILLA, J. M. & GANDÍA, J. L. 2009. Orthodontic treatment need in Spanish schoolchildren: an epidemiological study using the Index of Orthodontic Treatment Need. *The European Journal of Orthodontics*, 31, 180-183.
- MARGARETA, L., RUNE, H. & OLAFUR, P. J. 1998. Dental abnormalities and ectopic eruption in patients with isolated cleft palate. *Scandinavian journal of plastic and reconstructive surgery and hand surgery*, 32, 203-212.
- MATSUDA, A., SUDA, N., MOTOHASHI, N., TSUJI, M. & OHYAMA, K. 2006. Skeletal characteristics and treatment outcome of five patients with Robin sequence. *The Angle Orthodontist*, 76, 898-908.
- MCCARTHY, J. G. 1994. The Role of Distraction Osteogenesis in the Reconstruction of the Mandible in Unilateral Craniofacial Microsomia. *Clinics in Plastic Surgery*, 21, 625-631.
- MERMANS, J., GHASEMI, S., LISSEBERG-WITTE, B. & GRIOT, J. D. 2020. The Reproducibility of the Jaw Index in the Measurement of Healthy Newborns. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 57, 574-580.
- MOLINA, F. 2009. Mandibular Distraction Osteogenesis: A Clinical Experience of the Last 17 Years. *Journal of Craniofacial Surgery*, 20, 1794-1800.
- MOYERS, R. E. 1988. *Handbook of orthodontics*, Year Book Medical Pub.

- MURAGE, K. P., THOLPADY, S. S., FRIEL, M., HAVLIK, R. J. & FLORES, R. L. 2013. Outcomes analysis of mandibular distraction osteogenesis for the treatment of Pierre Robin sequence. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 132, 419-421.
- OHASHI, A., VARELA, T., MARQUES, I., BROSCO, T., OLIVEIRA, R., GARIB, D. G. & OZAWA, T. O. 2018. Analysis of Arch Widths in Patients With Isolated Pierre Robin Sequence. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 55, 70-73.
- OKADA, K., YAMASHIRO, T., TENSIN, S. & TAKANO-YAMAMOTO, T. 2000. Orthodontic treatment for a patient with Pierre-Robin sequence complicated by juvenile periodontitis. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 37, 318-324.
- OLSEN, J. A. & INGLEHART, M. R. 2011. Malocclusions and perceptions of attractiveness, intelligence, and personality, and behavioral intentions. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 140, 669-679.
- OVSENIK, M. & PRIMOŽIČ, J. 2007. Evaluation of 3 occlusal indexes: Eismann index, Eismann-Farčnik index, and index of orthodontic treatment need. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 131, 496-503.
- OZAWA, T. O., LORENZONI, D. C., DE OLIVEIRA, L. G. F. & DA SILVA FILHO, O. G. 2012. Facial profile evaluation of isolated Pierre Robin sequence. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 49, 546-552.
- PAES, E. C., BITTERMANN, G. K., BITTERMANN, D., MURADIN, M. M., VAN HOGEZAND, R., ETTY, E., VAN DER MOLEN, A. B. M., KON, M. & BREUGEM, C. C. 2016. Long-term results of mandibular distraction osteogenesis with a resorbable device in infants with Robin sequence: Effects on developing molars and mandibular growth. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 137, 375e-385e.
- PALASKA, P. K., ANTONARAKIS, G. S. & SURI, S. 2022. A retrospective longitudinal treatment review of multidisciplinary interventions in nonsyndromic robin sequence with cleft palate. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 59, 882-890.
- PASYAYAN, H. & LEWIS, M. B. 1984. Clinical experience with the Robin sequence. *The Cleft Palate Journal*, 21, 270-276.
- PELUSO, M. J., JOSELL, S. D., LEVINE, S. W. & LOREI, B. J. Digital models: an introduction. *Seminars in Orthodontics*, 2004. Elsevier, 226-238.
- PERILLO, L., MASUCCI, C., FERRO, F., APICELLA, D. & BACCETTI, T. 2010. Prevalence of orthodontic treatment need in southern Italian schoolchildren. *The European Journal of Orthodontics*, 32, 49-53.
- PIELOU, W. 1967. Non-surgical management of Pierre Robin syndrome. *Archives of Disease in Childhood*, 42, 20.
- POETS, C. F., KOOS, B., REINERT, S. & WIECHERS, C. 2019. The Tübingen palatal plate approach to Robin sequence: summary of current evidence. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 47, 1699-1705.
- POETS, C. F., MAAS, C., BUCHENAU, W., ARAND, J., VIERZIG, A., BRAUMANN, B. & MÜLLER-HAGEDORN, S. 2017. Multicenter study on the effectiveness of the pre-epiglottic baton plate for airway obstruction

- and feeding problems in Robin sequence. *Orphanet Journal of Rare Diseases*, 12, 1-6.
- POETS, C. F., WIECHERS, C., KOOS, B., MUZAFFAR, A. R. & GOZAL, D. 2022. Pierre Robin and breathing: what to do and when? *Pediatric Pulmonology*, 57, 1887-1896.
- PONT, A. 1909. Der zahn-index in der orthodontie. *Zahnartzliche Orthopadie*, 3, 306-321.
- PRADEL, W., LAUER, G., DINGER, J. & ECKELT, U. 2009. Mandibular traction—an alternative treatment in infants with Pierre Robin sequence. *Journal of oral and maxillofacial surgery*, 67, 2232-2237.
- PRINTZLAU, A. & ANDERSEN, M. 2004. Pierre Robin sequence in Denmark: a retrospective population-based epidemiological study. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 41, 47-52.
- PRUZANSKY, S. & RICHMOND, J. B. 1954. Growth of mandible in infants with micrognathia: clinical implications. *AMA American journal of diseases of children*, 88, 29-42.
- PURNELL, C. A., JANES, L. E., KLOSOWIAK, J. L. & GOSAIN, A. K. 2019. Mandibular catch-up growth in Pierre Robin sequence: a systematic review. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 56, 168-176.
- RAMBAUD, C. & GUILLEMINAULT, C. 2004. “Back to Sleep” and Unexplained Death in Infants. *Sleep*, 27, 1359-1366.
- RATHEE, M., HOODA, A., TAMARKAR, A. & YADAV, S. 2010. Role of feeding plate in cleft palate: Case report and review of literature. *Internet J Otorhinolaryngol*, 12, 123-128.
- RESNICK, C. M., LEVINE, J., CALABRESE, C. E., PADWA, B. L., HANSEN, A. & KATWA, U. 2019. Early management of infants with Robin sequence: an international survey and algorithm. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 77, 136-156.
- RICHMOND, S. & ANDREWS, M. 1993. Orthodontic treatment standards in Norway. *The European Journal of Orthodontics*, 15, 7-15.
- RITA, S. N. & SADAT, S. A. 2014. Growth modification in Class II Malocclusion: A review. *Update Dental College Journal*, 4, 23-26.
- ROBIN, P. 1923. La chute de la base de la langue considerée comme une nouvelle cause de gêne dans la respiration naso-pharyngienne. *Bull Acad Med (Paris)*, 89, 37-41.
- ROBIN, P. 1934. GLOSSOPTOSIS DUE TO ATRESIA AND HYPOTROPHY OF THE MANDIBLE. *American Journal of Diseases of Children*, 48, 541-547.
- ROBIN, P. 1994. A fall of the base of the tongue considered as a new cause of nasopharyngeal respiratory impairment: Pierre Robin sequence, a translation. 1923. *Plastic and reconstructive surgery*, 93, 1301-1303.
- ROSE, E., THISSEN, U., OTTEN, J.-E. & JONAS, I. 2003. Cephalometric assessment of the posterior airway space in patients with cleft palate after palatoplasty. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 40, 498-503.
- ROSE, E. C., STAATS, R., LEHNER, M. & JONAS, I. E. 2002. Cephalometric Analysis in Patients with Obstructive Sleep Apnea Part I: Diagnostic Value. *Journal of Orofacial Orthopedics / Fortschritte der Kieferorthopädie*, 63, 143-153.

- SCHMIDT, G., HIRSCHFELDER, A., HEILAND, M. & MATUSCHEK, C. 2021. Customized pre-epiglottic baton plate—a practical guide for successful, patient-specific, noninvasive treatment of neonates with Robin Sequence. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 58, 1063-1069.
- SCHUBERT, J., JAHN, H. & BERGINSKI, M. 2005. Experimental aspects of the pathogenesis of Robin sequence. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 42, 372-376.
- SCHULTZ, F. N. C. 2001. *Leitfaden der kieferorthopädischen Diagnostik, Analysen und Tabellen für die Praxis*, Köln Deutsche Zahnärzte Verlag
- SCHWARZ, A. 1958. Die Röntgenostatik Urban & Schwarzenberg. Wien-Innsbruck.
- SEGNER, D., HASUND, A. 1994. *Individualisierte Kephalometrie*, Hamburg, Dietmar Segner, Verlag und Vertrieb.
- SELVI, R. 2013. Role of SOX9 in the etiology of Pierre-Robin syndrome. *Iranian journal of basic medical sciences*, 16, 700.
- SHAPIRA, Y., LUBIT, E. & KUFTINEC, M. M. 2000. Hypodontia in children with various types of clefts. *The Angle Orthodontist*, 70, 16-21.
- SHER, A. E. 1992. Mechanisms of airway obstruction in Robin sequence: implications for treatment. *The Cleft palate-craniofacial journal*, 29, 224-231.
- SINGER, L. T., KERCSMAR, C., LEGRIS, G., ORLOWSKI, J. P., HILL, B. P. & DOERSHUK, C. 1989. Developmental sequelae of long-term infant tracheostomy. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 31, 224-230.
- SOUAMES, M., BASSIGNY, F., ZENATI, N., RIORDAN, P. J. & BOY-LEFEVRE, M. L. 2006. Orthodontic treatment need in French schoolchildren: an epidemiological study using the Index of Orthodontic Treatment Need. *The European Journal of Orthodontics*, 28, 605-609.
- STEINMASSL, O., STEINMASSL, P.-A., SCHWARZ, A. & CRISMANI, A. 2017. Orthodontic Treatment Need of Austrian Schoolchildren in the Mixed Dentition Stage. *Swiss dental journal*, 127, 122-128.
- SURI, S., ROSS, R. B. & TOMPSON, B. D. 2006. Mandibular morphology and growth with and without hypodontia in subjects with Pierre Robin sequence. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics*, 130, 37-46. e1.
- SURI, S., ROSS, R. B. & TOMPSON, B. D. 2010. Craniofacial morphology and adolescent facial growth in Pierre Robin sequence. *American journal of orthodontics and dentofacial orthopedics*, 137, 763-774.
- TADDEI, M., D'ALESSANDRO, G., AMUNNI, F. & PIANA, G. 2016. Orthodontic treatment of a particular subgroup of children with special health care needs, children with craniofacial anomalies: An analysis of treatment length and clinical outcome. *The Angle Orthodontist*, 86, 115-120.
- VAN DER HAVEN, I., MULDER, J. W., VAN DER WAL, K., HAGE, J. J., DE LANGE-DE KLERK, E. & HAUMANN, T. J. 1997. The jaw index: new guide defining micrognathia in newborns. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal: Official Publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association*, 34, 240-241.

- VAN DYCK, J., DE LLANO-PÉRULA, M. C., WILLEMS, G. & VERDONCK, A. 2019. Dental development in cleft lip and palate patients: A systematic review. *Forensic science international*, 300, 63-74.
- VAN LIESHOUT, M. J., JOOSTEN, K. F., MATHIJSSSEN, I. M., KOUDSTAAL, M. J., HOEVE, H. L., VAN DER SCHROEFF, M. P. & WOLVIUS, E. B. 2015. Robin sequence: a European survey on current practice patterns. *Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery*, 43, 1626-1631.
- VAN STRIJEN, P., BREUNING, K., BECKING, A., PERDIJK, F. & TUINZING, D. 2003. Complications in bilateral mandibular distraction osteogenesis using internal devices. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontology*, 96, 392-397.
- VAN WIJK, A. J. & TAN, S. P. 2006. A numeric code for identifying patterns of human tooth agenesis: a new approach. *European journal of oral sciences*, 114, 97-101.
- VEGTER, F., HAGE, J. J. & MULDER, J. W. 1999. Pierre Robin syndrome: mandibular growth during the first year of life. *Annals of plastic surgery*, 42, 154-157.
- WEISE, C., FRANK, K., WIECHERS, C., WEISE, H., REINERT, S., KOOS, B. & XEPAPADEAS, A. B. 2021. Intraoral scanning of neonates and infants with craniofacial disorders: feasibility, scanning duration, and clinical experience. *European Journal of Orthodontics*, 44, 279-286.
- WEISE, C., LEHMANN, M., SCHULZ, M., REINERT, S., KOOS, B. & WEISE, H. 2022. Tooth agenesis in German orthodontic patients with non-syndromic craniofacial disorder: a retrospective evaluation of panoramic radiographs. *Clinical Oral Investigations*, 26, 5823-5832.
- WIECHERS, C., ARAND, J., KOOS, B. & POETS, C. F. Evidence and practical aspects of treatment with the Tübingen palatal plate. *Seminars in Fetal and Neonatal Medicine*, 2021. Elsevier, 101281.
- WIECHERS, C., BUCHENAU, W., ARAND, J., OERTEL, A.-F., PETERS, K., MÜLLER-HAGEDORN, S., KOOS, B. & POETS, C. F. 2019. Mandibular growth in infants with Robin sequence treated with the Tübingen palatal plate. *Head & Face Medicine*, 15, 1-8.
- WILSON, A., MOORE, D., MOORE, M., MARTIN, A., STAUGAS, R. & KENNEDY, J. 2000. Late presentation of upper airway obstruction in Pierre Robin sequence. *Archives of disease in childhood*, 83, 435-438.

9 Erklärung zum Eigenanteil

Die Arbeit wurde in der Abteilung Poliklinik für Kieferorthopädie des Universitätsklinikums für Zahn-, Mund- und Kieferheilkunde Tübingen unter Betreuung von Professor Dr. Bernd Koos und Frau Dr. Christina Weise durchgeführt.

Die Konzeption der Studie erfolgte in Zusammenarbeit mit der Universitätsklinik für Kinder- und Jugendmedizin Tübingen (Abteilung Kinderheilkunde IV, Schwerpunkt: Neonatologie) zusammen mit Frau Dr. C. Wiechers.

Nach Beratung durch das Institut für Biometrie erfolgte mit Hilfe meiner Betreuerin Frau Dr. Christina Weise die statistische Auswertung eigenständig.

Ich versichere, das Manuskript selbstständig verfasst und erarbeitet zu haben und keine weiteren als die von mir angegebenen Quellen verwendet zu haben.

Tübingen, den 18.07.2023

Josephine Effert

10 Publikationen

Die Ergebnisse der vorliegenden Arbeiten konnten bereits in zwei Artikeln veröffentlicht werden:

1. Die Ergebnisse des kieferorthopädischen Basisbefundes, der Modellanalyse, der Fotostatanalyse und der röntgenologischen FRS-Analyse wurden in dem Artikel **„Prospective Evaluation of Children with Robin Sequence Following Tübingen Palatal Plate Therapy“** im Journal of Clinical Medicine veröffentlicht (Effert et al., 2023a).
 - **Impact Factor: 3,9**
 - DOI: <https://doi.org/10.3390/jcm12020448>
2. Die Ergebnisse der Bestimmung des kieferorthopädischen Behandlungsbedarfes durch den IOTN wurden in dem Artikel **„Retrospective evaluation of the orthodontic treatment needs in primary school children with Robin sequence following Tübingen palatal plate therapy in infancy“** im Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery veröffentlicht (Effert et al., 2023b).
 - **Impact Factor 3,1**
 - DOI: <https://doi.org/10.1016/j.jcms.2023.06.004>

Zudem wurden sie als **Poster** bei dem 98. European Orthodontic Society Congress (EOS) vom 11.-15. Juni 2023 in Oslo, Norwegen veröffentlicht.

11 Danksagung

An dieser Stelle möchte ich mich herzlich bei allen Menschen bedanken, die mir die Vollendung meiner Promotion ermöglichten und mich während dieser gesamten Zeit unterstützt haben.

Mein besonderer Dank gilt Herrn Professor Dr. B. Koos, der sich mir und meinem Thema als Doktorvater angenommen hat und mir die Möglichkeit gegeben hat, in dem überaus interessanten Fach der Kieferorthopädie meine Dissertation zu absolvieren.

Ein Dank gilt vor allem Frau Dr. Christina Weise, die bei allen Fragen und Problemen immer Zeit für mich fand, mich in das wissenschaftliche Arbeiten einführte und mir die Arbeit als Betreuerin erst möglich machte.

Danken möchte ich außerdem meinen Eltern Christine und Marcus und meiner Familie für die Unterstützung, Geduld und Zusprüche während meines Studiums. Zuletzt danke ich meinem Freund Daniel, der immer geduldig war und während der gesamten Dissertation an mich geglaubt und mich bestärkt hat.

Danke!