

Distraction Osteogenesis in Cleidocranial Dysostosis: A Case Report

Wipapun Ritthagol* Thongchai Nuntanarant**

Abstract

Cleidocranial dysostosis is one of the congenital deformities that involved both teeth and their bone support. The deformities often present with complexity of disorder in the multiple regions. Base on the clinical evidence, the result of orthodontic treatment providing in the younger age groups revealed better outcome than in the older age patient groups. In addition, the treatment protocols are varied depend on the severity of deformities, age, developmental stage of the permanent dentition, periodontal status and budgets of treatment due to the long and multiple surgical operations. The orthodontic treatment protocol of cleidocranial dysplasia in the growing age could be started with the selected serial extraction of the deciduous teeth and removed the supernumerary teeth. This performance stimulates the spontaneous eruption of related permanent teeth to erupt in the alveolar bone with the proper position. The unerupted permanent teeth could only be achieved by artificial orthodontic force. The permanent dentition then will be aligned to get the optimal occlusion. Nevertheless, the surgical operation of jaw bones may be needed especially in patients with severe discrepancy of bony structures that beyond the orthodontic compensation. These guidelines of treatment provided the satisfied outcome of occlusion, masticatory function and facial esthetics in cleidocranial dysostosis patients.

Keywords: Cleidocranial dysostosis, Distraction osteogenesis, Orthodontic forced eruption, Orthodontic treatment

Received: 3-Jan-2023 **Revised:** 27-Jun-2023 **Accepted:** 4-Aug-2023

Corresponding author: Wipapun Ritthagol

E-mail: wipapunkeng@gmail.com

* Assistant Professor, Faculty of Dentistry, Prince of Songkla University, Hat Yai, Songkhla, Thailand

** Professor, Private dental clinic, Pak Kret, Nonthaburi, Thailand

การผ่าตัดยึดกระดูกในผู้ป่วย โรคโคลโดเครเนียลดิสออสโตซิส: รายงานผู้ป่วย

วิภาพรรณ ฤทธิกุล* ธงชัย นันทนรานนท์**

บทคัดย่อ

โรคโคลโดเครเนียลดิสออสโตซิส เป็นความผิดปกติแต่กำเนิดที่มีความซับซ้อนทั้งในส่วนของกระดูกและฟัน การเริ่มต้นให้การรักษาทันทีตั้งแต่ผู้ป่วยยังเป็นเด็กจะทำให้ได้ผลการรักษาที่ดีกว่าการรักษาในผู้ใหญ่ การวางแผนการรักษาจะขึ้นกับความรุนแรงของความผิดปกติ อายุ ระยะพัฒนาการของฟันแท้ ภาวะปริทันต์ในช่องปาก รวมถึงปัญหาค่าใช้จ่ายเนื่องจากการรักษาที่ต้องใช้ระยะเวลาที่ยาวนานและจำเป็นต้องได้รับการผ่าตัดหลายครั้ง แนวทางในการรักษาทางทันตกรรมจัดฟันผู้ป่วยเด็กที่เป็นโรคโคลโดเครเนียลดิสออสโตซิส จะสามารถทำได้โดยการถอนฟันน้ำนมและฟันเกินเพื่อกระตุ้นในฟันแท้ที่งอกขึ้นสู่ช่องปาก ซึ่งในผู้ใหญ่จะไม่สามารถทำได้ ต้องทำการดึงฟันแท้ที่ฝังอยู่ด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟันเท่านั้น และเมื่อฟันแท้ขึ้นครบอาจจำเป็นต้องให้การรักษาร่วมกับการผ่าตัดกระดูกขากรรไกรในกรณีที่เกิดความสัมพันธ์ที่ผิดปกติของขากรรไกรบนและล่าง เพื่อให้ผู้ป่วยมีลักษณะใบหน้าปกติ มีการสบฟันและการทำงานของระบบการบดเคี้ยวที่ดี รวมทั้งมีความสวยงามต่อไป

คำสำคัญ: โรคโคลโดเครเนียลดิสออสโตซิส การผ่าตัดยึดกระดูกขากรรไกร การดึงฟันด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟัน การรักษาทางทันตกรรมจัดฟัน

ผู้ติดต่อบทความ วิภาพรรณ ฤทธิกุล
อีเมล wipapunritthagol@gmail.com

* ผู้ช่วยศาสตราจารย์ คณะทันตแพทยศาสตร์ มหาวิทยาลัยสงขลานครินทร์ อำเภอหาดใหญ่ จังหวัดสงขลา ประเทศไทย
** ศาสตราจารย์ คลินิกเอกขน อำเภอปากเกร็ด จังหวัดนนทบุรี ประเทศไทย

บทนำ

โรคโคลโดเครเนียลดิสออสโตซิส (cleidocranial dysostosis หรือตัวย่อว่า CCD) เป็นโรคที่พบน้อยโดยมีอุบัติการณ์ของการเกิดโรค CCD เท่ากับ 1 : 1,000,000 พบในหลายกลุ่มเชื้อชาติและไม่พบความแตกต่างทางเพศ¹⁻³ CCD เป็นโรคที่ถ่ายทอดทางพันธุกรรมแบบยีนเด่น (autosomal dominant disorder) และมีอาการแสดงทางคลินิกที่มีความแตกต่างกันในหลายรูปแบบ² ลักษณะทางคลินิกที่พบบ่อยในผู้ป่วย CCD ได้แก่

1. ในส่วนของกระดูกทั่วไป ผู้ป่วยจะมีความสูงของร่างกายน้อยกว่าปกติ (short stature) และมีนิ้วที่สั้นกว่าสมาชิกคนอื่น ๆ ในครอบครัว มีการเจริญของกระดูกไหปลาร้า (clavicle) ที่น้อยกว่าปกติหรืออาจจะขาดหายไป ทำให้ผู้ป่วยสามารถขยับไหล่เข้ามาชิดทางด้านหน้าของร่างกายได้ กะโหลกศีรษะ

ส่วนหน้าโป่งนูน (prominent frontal bone) การเชื่อมปิดของรอยต่อกะโหลกศีรษะช้า (delayed ossification of the skull sutures) กระดูกสันหลังคด (scoliosis) กระดูกมีความหนาแน่นของเซลล์และการสร้างที่ผิดปกติ ทำให้มีความเปราะกว่ากระดูกของคนปกติทั่วไป²⁻⁴

2. ในส่วนของกระดูกโครงสร้างใบหน้า ขากรรไกรบนจะมีการเจริญที่น้อยกว่าปกติ (hypoplastic maxilla) ส่วนขากรรไกรล่างเจริญปกติหรือมากกว่าปกติ ทำให้พบความสัมพันธ์ของกระดูกขากรรไกรแบบที่ 3 ไม่พบร่วมกับภาวะปากแหว่งเพดานโหว่⁵ ใบหน้าส่วนกลางยุบ (mid face retrusion) และมีใบหน้าสั้น (diminished anterior facial height)⁶

3. ในส่วนของฟันและการสบฟัน ฟันน้ำนมจะพบมีการคงอยู่ (retained primary teeth) ไม่มีการละลายของ

รากฟันน้ำนมตามเวลาที่ปกติและไม่ถูกแทนที่ด้วยฟันแท้ ฟันแท้มีการสร้างอยู่ภายในกระดูกขากรรไกรและไม่งอกตามปกติ⁷ มีฟันซ้อนเก มีฟันเกินจำนวนมากที่ฝังอยู่ในกระดูกขากรรไกร (supernumerary teeth) ทั้งที่บริเวณฟันหน้าและฟันกรามน้อย^{8,9} ฟันเกินทั้งหมดอาจจะมีรูปร่างที่ปกติคล้ายฟันแท้หรือมีรูปร่างที่ผิดปกติ และพบมีการเรียงตัวเป็นแถวที่สองระหว่างใต้รากของฟันน้ำนมและฟันแท้ที่กำลังสร้างภายในกระดูกขากรรไกร มีการเจริญและพัฒนาของฟันที่ช้ากว่าปกติ เพดานปากสูงและแคบกว่าปกติจากการที่ความสัมพันธ์ของกระดูกขากรรไกรเป็นแบบที่ 3 ทำให้พบความสัมพันธ์ของฟันเป็นแบบที่ 3 และพบฟันหน้าสบเปิด (anterior open bite)¹⁻⁵

การรักษาทางทันตกรรม

ในการรักษาผู้ป่วย CCD นั้น การให้การวินิจฉัยและวางแผนการรักษาตั้งแต่ผู้ป่วยเป็นเด็ก จะให้ผลการรักษาที่ดีที่สุด ซึ่งการเลือกแนวทางในการรักษาที่เหมาะสมจะขึ้นกับอายุของผู้ป่วยที่มาพบแพทย์เพื่อรับการรักษาในครั้งแรก แนวทางการรักษาที่เป็นที่ยอมรับโดยทั่วไป¹⁰⁻¹² ได้แก่ แนวทางการรักษาของโตรอนโต-เมลเบิร์น (Toronto-Melbourne procedure) แนวทางการรักษาของเยรูซาเลม (Jerusalem procedure) และแนวทางการรักษาของเบลฟาสต์-แฮมบูร์ก (Belfast-Hamburg procedure) โดยแนวทางการรักษาแต่ละวิธีจะมีความแตกต่างกันในเรื่องของอายุที่จะเริ่มให้การรักษาและจำนวนครั้งของการผ่าตัดในแต่ละวิธี มีดังนี้

1. แนวทางการรักษาของโตรอนโต-เมลเบิร์น (Toronto-Melbourne procedure) แนวทางการรักษาวิธีนี้จะเริ่มโดยการถอนฟันน้ำนมและผ่าตัดฟันเกินบริเวณฟันหน้าเมื่อผู้ป่วยอายุ 5-6 ปี เพื่อกระตุ้นให้ฟันหน้าแท้ขึ้น จากนั้นจึงทำการถอนฟันหลังน้ำนมและผ่าตัดฟันเกินทั้งหมดเพื่อกระตุ้นให้ฟันกรามน้อยขึ้นเมื่อผู้ป่วยอายุ 9-10 ปี
 2. แนวทางการรักษาของเยรูซาเลม (Jerusalem procedure) แนวทางการรักษาวิธีนี้จะเริ่มให้การรักษาด้วยวัตถุประสงค์เช่นเดียวกับวิธีที่ 1 แต่จะเริ่มให้การผ่าตัดครั้งแรกเมื่อผู้ป่วยอายุ 10-12 ปี เพื่อกระตุ้นให้ฟันหน้าแท้ขึ้นและครั้งที่ 2 เมื่อผู้ป่วยอายุ 13 ปีขึ้นไป เพื่อกระตุ้นให้ฟันแท้ที่ยังคงอยู่ขึ้น
 3. แนวทางการรักษาของเบลฟาสต์-แฮมบูร์ก (Belfast-Hamburg procedure) แนวทางการรักษาวิธีนี้จะทำการถอนฟัน ผ่าตัดฟันเกินและฟันคุดที่ไม่สามารถขึ้นได้พร้อมกันเพียงครั้งเดียว โดยไม่ระบุนายุที่ชัดเจน
- ฟันแท้ที่ฝังอยู่ มักพบที่บริเวณฟันหน้าและฟันกรามน้อย ส่วนฟันกรามแท้ซี่แรกมักสามารถขึ้นสู่ช่องปากได้ ระยะเวลา

ที่จะเริ่มต้นการดึงฟันแท้ที่ฝังอยู่ด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟัน (artificial eruption) จะพิจารณาจากปริมาณการสร้างรากของฟันแท้ที่อยู่ในกระดูกขากรรไกรซึ่งจะแนะนำให้มีการเริ่มดึงฟันแท้ที่ฝังอยู่เมื่อมีการสร้างรากฟันแท้ได้ประมาณ 1/2 ถึง 2/3 ของความยาวของรากที่ปกติ^{10,13-15} การรักษาจะเริ่มต้นด้วยการถอนฟันหน้าน้ำนมร่วมกับการผ่าตัดฟันเกินที่อยู่บริเวณใต้รากฟันหน้าน้ำนมและคลุมบริเวณด้านบนของฟันแท้ ระยะเวลาที่เริ่มดึงฟันหน้าแท้จะเริ่มที่อายุประมาณ 5-6 ปี จากนั้นจึงทำการถอนฟันกรามน้ำนมร่วมกับการผ่าตัดฟันเกินที่อยู่บริเวณใต้รากฟันกรามน้ำนมและคลุมบริเวณด้านบนของฟันกรามน้อย ระยะเวลาที่เริ่มดึงฟันกรามน้อยจะเริ่มเมื่ออายุประมาณ 9-10 ปี¹⁴

เมื่อฟันแท้ขึ้นครบผู้ป่วยจะได้รับการประเมินเพื่อวางแผนการรักษาในขั้นตอนต่อไป โดยแผนการรักษาจะขึ้นกับความรุนแรงของความสัมพันธ์ที่ผิดปกติของขากรรไกรบนและขากรรไกรล่าง ซึ่งมีแนวทางในการรักษาเช่นเดียวกับผู้ป่วยที่มีความผิดปกติของความสัมพันธ์ของกระดูกขากรรไกรทั่วไป ได้แก่ การรักษาทางทันตกรรมจัดฟันเพียงอย่างเดียว (conventional orthodontic treatment) การรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดกระดูกขากรรไกร (orthognathic surgery) หรือการรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดยึดกระดูกขากรรไกร (distraction osteogenesis) หรือในกรณีที่ไม่สามารถดึงฟันที่คุดให้ขึ้นมาสู่ช่องปากได้ จะพิจารณาผ่าฟันคุดนั้นออกและทดแทนด้วยฟันปลอมหรือรากฟันเทียมต่อไป¹⁶⁻¹⁹

วัตถุประสงค์ของบทความนี้ เพื่ออธิบายลักษณะทางคลินิกโดยมุ่งเน้นถึงการรักษาการกระตุ้นการขึ้นของฟันด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟันในระยะแรก และในระยะที่ 2 เป็นการแก้ไขปัญหาโครงสร้างใบหน้าและการสบฟันเพื่อแก้ไขความผิดปกติของผู้ป่วยโรค CCD ที่มีการเจริญที่ผิดปกติของความสัมพันธ์ของกระดูกขากรรไกรมากและจำเป็นต้องใช้การรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดยึดกระดูกขากรรไกร

รายงานผู้ป่วย

ผู้ป่วยหญิงไทยอายุ 13 ปี ผู้ปกครองพามาพบทันตแพทย์จัดฟันด้วยปัญหาฟันหน้าไม่ขึ้น ขากรรไกรล่างยื่น จากการตรวจร่างกายพบว่าผู้ป่วยได้รับวินิจฉัยโดยแพทย์ว่าเป็นโรค CCD จากการซักประวัติ ไม่พบลักษณะนี้ในครอบครัวและกลุ่มญาติ จากการตรวจภายนอกช่องปาก พบใบหน้าด้านตรงได้สัดส่วน ลักษณะใบหน้าด้านข้างเว้า และพบคางยื่น (รูปที่ 1) จากภาพถ่ายภายในช่องปากและภาพถ่ายรังสีพานอรามิกพบฟันน้ำนมที่คงค้างอยู่และมีฟันแท้ที่พบในช่องปากเพียง 4 ซี่ ได้แก่ ฟันซี่ 14 16 26 และ 46 (รูปที่ 2 และ 3)



รูปที่ 1 ภาพถ่ายภายนอกช่องปากก่อนการรักษา

Figure 1 Extraoral photographs before treatment



รูปที่ 2 ภาพถ่ายภายในช่องปากและการสบฟันก่อนการรักษา

Figure 2 Intraoral photograph and occlusion before treatment



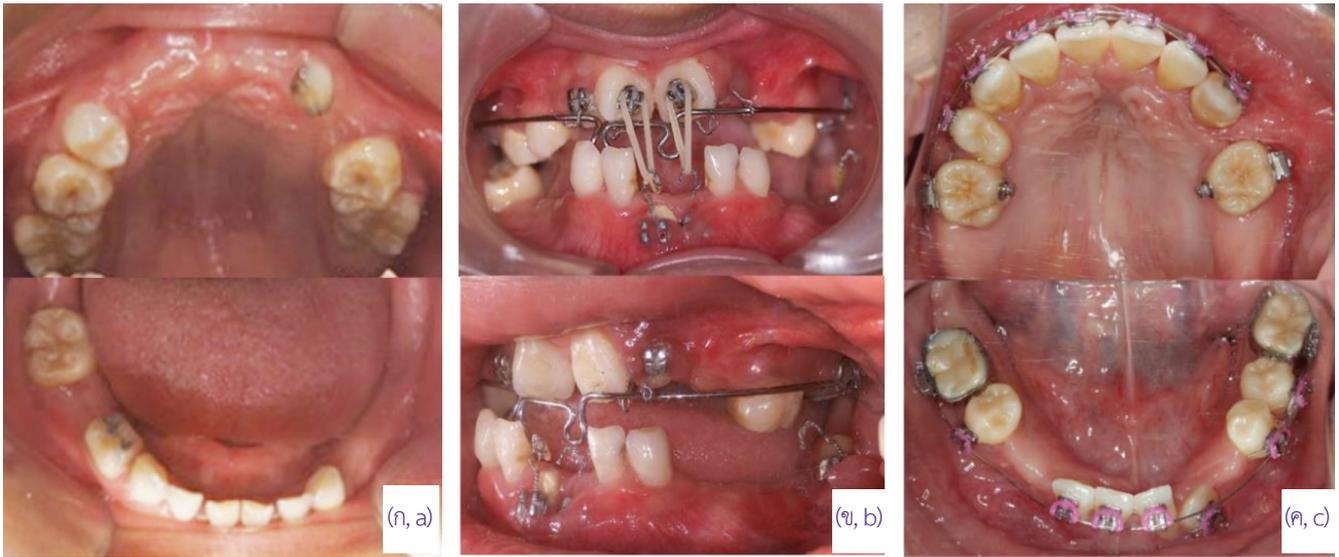
รูปที่ 3 ภาพรังสีพานอรามิกก่อนการรักษา

Figure 3 Panoramic radiograph before treatment

การวางแผนและความก้าวหน้าของการรักษาในระยะแรก

จากการที่ฟันแท้ไม่สามารถขึ้นสู่ช่องปากได้ (รูปที่ 4 ก.) แผนการรักษาในระยะแรกจะมุ่งเน้นที่การผ่าตัดเพื่อดึงฟันแท้ที่ฝังอยู่ด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟัน (orthodontic forced eruption) ตามแนวทางของ Becker และคณะ^{10,14} โดยฟันที่ถูกถอน

และผ่าตัดออกทั้งหมด ได้แก่ ฟันน้ำนมที่คงอยู่ (prolonged retention of primary teeth) ในขากรรไกรบน 3 ซี่ และขากรรไกรล่าง 6 ซี่ ฟันเกินที่อยู่ในขากรรไกรบน 2 ซี่ และขากรรไกรล่าง 3 ซี่ ฟันกรามแท้ซี่ 17, 18, 27, 28, 33, 37, 47, 48 ซึ่งเป็นฟันคุดและมีทิศทางที่ไม่สามารถขึ้นมาในช่องปากได้ และฟันกรามน้อยซี่ที่ 15 ถูกถอนออก เนื่องจากมีช่องว่างไม่เพียงพอสำหรับฟันซี่ 13 ในขั้นตอนผ่าตัดฟันเกินและฟันที่คุดออกจะทำการติดเครื่องมือทางทันตกรรมจัดฟันบนฟันแท้ที่เหลือที่ฝังอยู่ทุกซี่ ทำการดึงฟันแท้ด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟันด้วยวิธีของ Ritthagol W. และคณะ¹⁷(รูปที่ 4 ข.) ต่อมาพบว่าฟันซี่ 24, 25, 31, 44 ไม่มีการเคลื่อนที่เมื่อให้แรงไปมากกว่า 6 เดือน จึงถูกผ่าตัดออกอีกครั้ง ฟันซี่ 33 หยุดการเคลื่อนที่เมื่อส่วนตัวฟันขึ้นสู่ช่องปากเมื่อสิ้นสุดการรักษาในระยะนี้ พบว่าฟันแท้ที่สามารถขึ้นมาได้ดังแสดงในรูปที่ 4 ค. ฟันแท้ที่ถูกดึงขึ้นสู่ช่องปากทุกซี่พบมีขอบเหงือกกร่น (gingival recession) และไม่พบเหงือกยึด (attached gingiva) แต่ไม่พบฟันโยก ทำการปรับระดับฟันทั้งหมดยกเว้นฟันซี่ 33 ด้วยเครื่องมือทันตกรรมจัดฟันชนิดติดแน่นเพื่อเตรียมเข้าสู่การรักษาในขั้นตอนการผ่าตัดต่อไป



รูปที่ 4 ภาพถ่ายภายในช่องปาก

(ก) ก่อนการรักษา (ข) ลักษณะเครื่องมือที่ใช้ในการดึงฟันแท้ที่ฝัง (ค) ภายหลังการดึงฟันด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟัน

Figure 4 Intraoral photographs

(a) before treatment (b) orthodontic appliance for forced eruption of embedded teeth (c) after orthodontic forced eruption

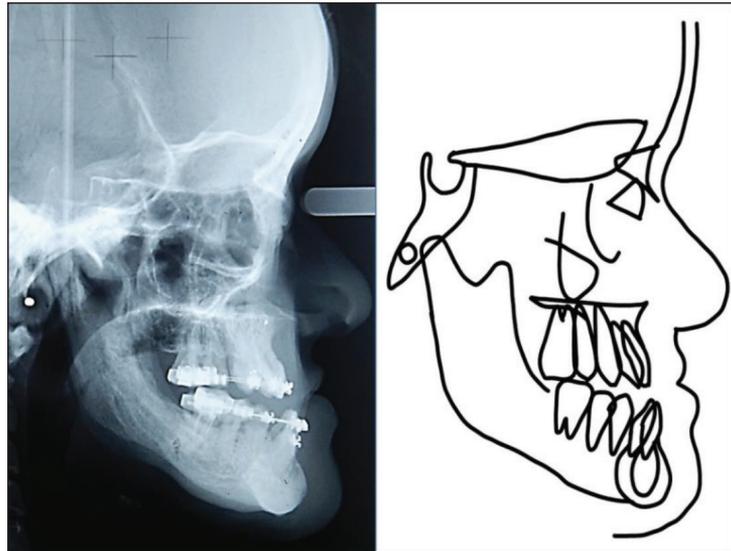


รูปที่ 5 ภาพถ่ายภายนอกช่องปากระหว่างรักษา

Figure 5 Extraoral photographs during treatment

จากภาพถ่ายในและนอกช่องปาก (รูปที่ 4 และ 5) และภาพรังสีกะโหลกศีรษะด้านข้าง (รูปที่ 6) พบว่าผู้ป่วย ใบหน้าด้านข้างเว้า (concave profile) มีการสบฟันเฉพาะที่ ฟันกรามแท้เท่านั้น กระดูกขากรรไกรบนและใบหน้าส่วนกลางยุบ (SNA = 77 degree, Maxillary depth = 88 degrees, SNO = 65 degrees, O-NA = 16 degrees) ส่วนระยะทาง จากหัวคอนดาเยน (condylar head) ถึงจุด A เท่ากับ 74 มม. (Co-A = 74 mm) ขากรรไกรล่างอยู่ในตำแหน่งและมีความยาว

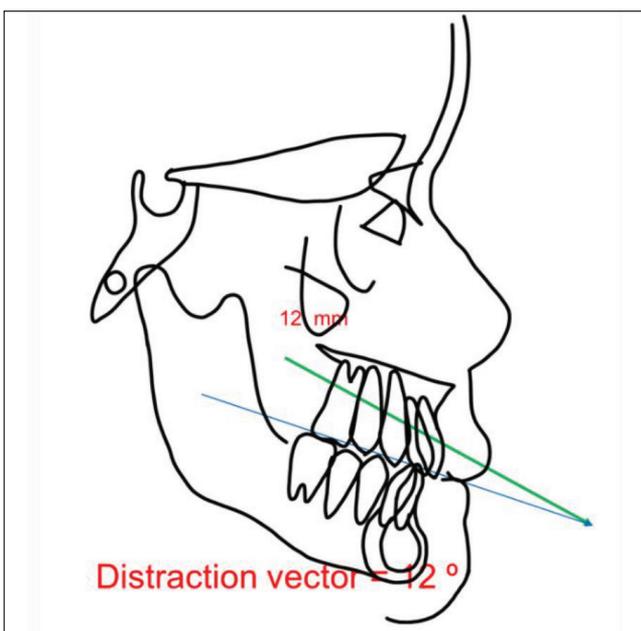
ที่ปกติ (SNB = 85 degrees, Co-Gn = 117 mm) ความสัมพันธ์ ของกระดูกขากรรไกรในแนวหน้าหลังเป็นแบบชนิดที่ 3 (ANB = -8 degrees, Wits = -18 mm) ความสัมพันธ์ของจมูกและริมฝีปากบน มีค่าปกติ (NLA = 90 degrees) ฟันหน้าบนเอียงทำมุมปกติ (UI = 115 degrees) ส่วนฟันหน้าล่างเอียงล้มไปด้านใกล้ลิ้น (LI-MP = 80 degrees) มุมระหว่างฟันหน้าบนและล่างเอียง 144 องศา (UI-LI = 144 degrees)



รูปที่ 6 ภาพรังสีและภาพลายเส้นกะโหลกศีรษะด้านข้างก่อนการผ่าตัด
 Figure 6 Cephalometric radiograph and tracing before surgery

Problem lists	AP	Vertical	Transverse	Dental
Maxilla	Deficiency	Deficiency	Canting Rt down 2 mm	Normal
Mandible	Normal	Deficiency	-	Lower anterior retroclination
Chin	Excess	Deficiency	-	-

รูปที่ 7 สรุปปัญหาในส่วนของกระดูกขากรรไกรและฟัน
 Figure 7 Skeletal and dental problems summaries



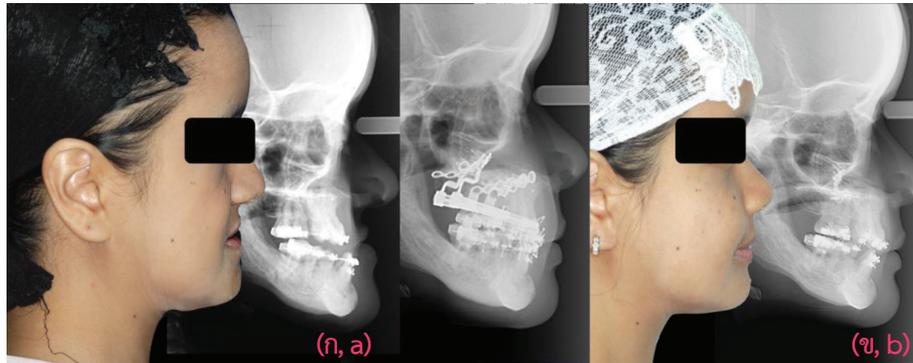
รูปที่ 8 ทิศทางการวางเครื่องมือยึดกระดูก
 Figure 8 Distraction vector

จากการวิเคราะห์ภาพถ่ายรังสีกะโหลกศีรษะด้านข้าง สรุปปัญหาผู้ป่วยได้ดังรูปที่ 7 แผนการรักษาในผู้ป่วยรายนี้ ได้แก่ การผ่าตัดยึดกระดูกขากรรไกรบนไปด้านหน้าและลงด้านล่าง (maxillary Le Fort I advancement and downward with distraction osteogenesis) โดยแผนการผ่าตัดยึดกระดูกมีขั้นตอนภายหลังการผ่าตัด คือ ระยะเวลาคอย 5 วัน ความถี่ของการไขสกรู 2 ครั้งต่อวันครั้งละ 0.5 มม. (เวลาเช้าและเย็น) ความยาวในการขยายสกรูทั้งหมด 12 มม. และคงสภาพสุดท้ายเป็นเวลา 30 วัน โดยแผนการผ่าตัดแนวการยึดกระดูกและการวางเครื่องมือยึดกระดูกดังแสดงในรูปที่ 8

ผลการรักษา

ภายหลังการผ่าตัดยึดกระดูก พบการเปลี่ยนแปลงของลักษณะใบหน้า โดยมีโครงสร้างความสัมพันธ์ของกระดูกและการสบฟันที่ปกติ (รูปที่ 9 และ 10) และมีการเปลี่ยนแปลงของค้ำมุดและระยะทางต่าง ๆ ดังแสดงในรูปที่ 11 ในส่วนของฟันไม่พบการลดลงของขอบเหงือก (gingival recession) ของฟันแต่ละซี่เพิ่มขึ้นจากระยะแรกที่ได้รับการรักษา และพบว่าฟันทุกซี่สามารถเคลื่อนที่ได้จากตำแหน่งสุดท้ายก่อนการผ่าตัดยึดกระดูก

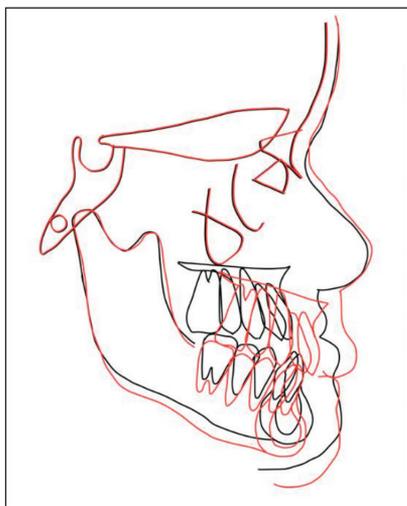
ได้เพียงเล็กน้อย โดยเฉพาะฟันซี่ 33 ไม่สามารถดึงให้ขึ้นสู่ระนาบการสบฟันได้ นอกจากนี้ยังพบฟันสบเปิดและฟันสบคร่อมบริเวณฟันกรามซี่แรกทั้งสองด้าน และพบช่องว่างระหว่างฟันซี่ 23 และ 26 เนื่องจากฟันซี่ 26 ไม่ตอบสนองต่อแรงที่ใช้ในการดึงฟัน ซึ่งทันตแพทย์ดำเนินการใส่ฟันแนะนำให้ทำครอบฟันและใส่ฟันปลอมเพื่อให้ได้การสบฟันที่สมบูรณ์ต่อไป จึงได้ทำการถอดเครื่องมือทางทันตกรรมจัดฟันและใส่เครื่องมือคงสภาพฟันรอกการบูรณะการสบฟันในขั้นตอนนี้ต่อไป



รูปที่ 9 ภาพถ่ายภายนอกช่องปากและภาพรังสีกะโหลกศีรษะด้านข้างก่อน (ก) และภายหลัง (ข) การผ่าตัดยึดกระดูก
Figure 9 Extraoral photographs and lateral cephalograms comparison before (a) and after (b) distraction osteogenesis

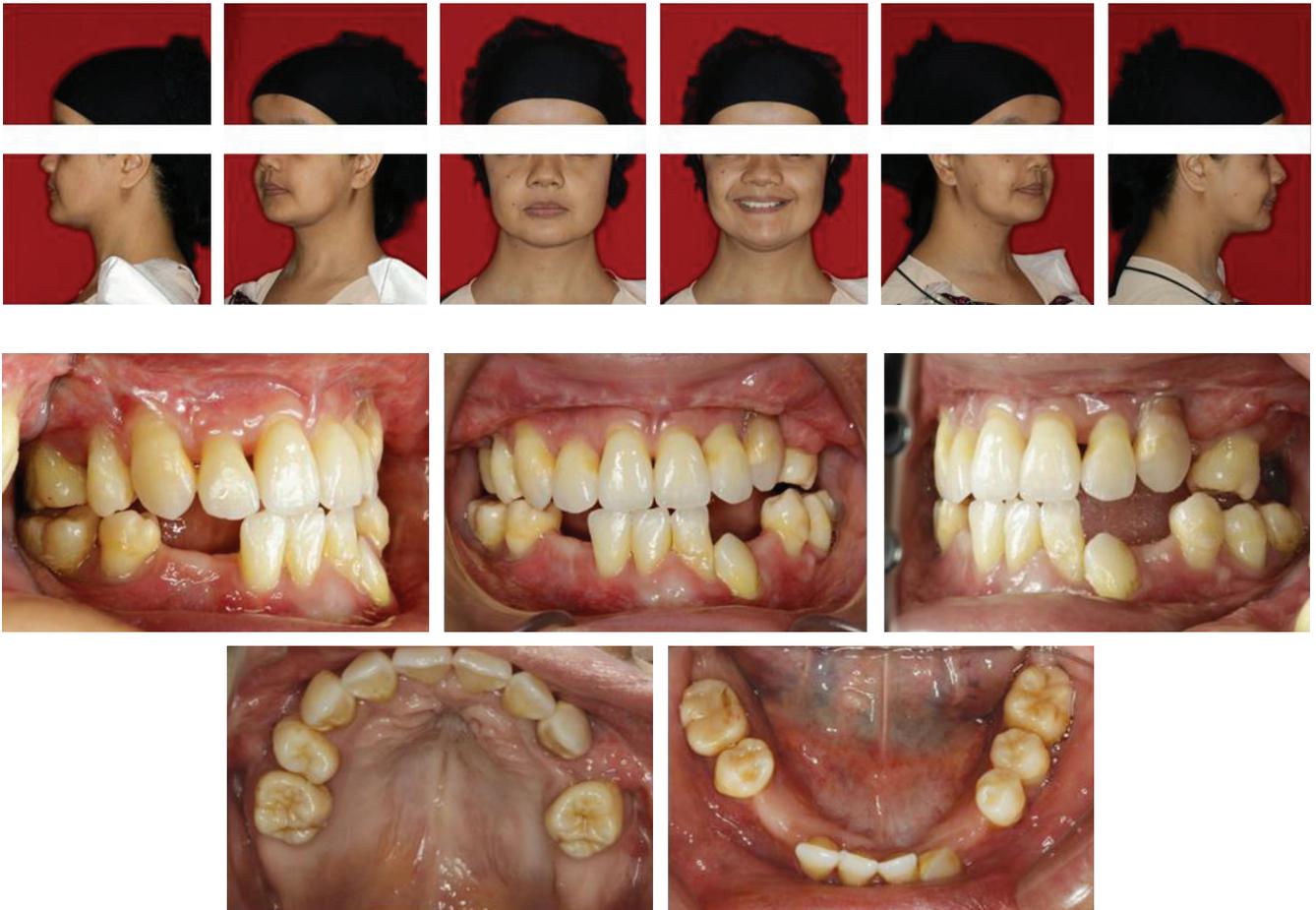


รูปที่ 10 การสบฟันภายหลังการนำเครื่องมือยึดกระดูกออก
Figure 10 Occlusion after distractor removal



Cephalometrics			
Parameters	Norms	Before	After
SNA (degrees)	85 ± 4	77	87
SNB (degrees)	82 ± 3	85	83
ANB (degrees)	3 ± 2	-8	4
Wits (mm)	-3 ± 2	-11	-3
CO-A (mm)	90 ± 4	74	87
Mx-depth (degrees)	90 ± 3	88	97
U1-L1 (degrees)	129 ± 10	144	155
Overbite (mm)	2 ± 1	-3	3
Overjet (mm)	2 ± 1	-4	3
NLA (degrees)	89 ± 11	90	113

รูปที่ 11 การเปรียบเทียบตัวแปรกะโหลกศีรษะก่อนและภายหลังการผ่าตัดยึดกระดูก
Figure 11 Cephalometric parameters comparison before and after distraction osteogenesis



รูปที่ 12 ภาพถ่ายภายนอกและในช่องปากภายหลังเสร็จสิ้นการรักษา 3 ปี
Figure 12 Extraoral and intraoral photographs at 3 years retention period

การติดตามการรักษา

ผู้ป่วยเริ่มต้นให้การรักษาเมื่ออายุ 13 ปี และเสร็จสิ้นการรักษาเมื่ออายุ 31 ปี รวมระยะเวลาในการรักษาผู้ป่วยรายนี้ทั้งสิ้น 18 ปี จากการติดตามผลการรักษาภายหลังการถอดเครื่องมือทางทันตกรรมจัดฟัน 3 ปี พบว่าตำแหน่งของฟันและการสบฟันไม่มีการคืนกลับจากตำแหน่งสุดท้ายเมื่อเสร็จสิ้นการรักษา (รูปที่ 12) ผู้ป่วยถูกส่งไปเพื่อใส่ฟันทดแทนที่มีช่องว่างได้แก่ บริเวณซี่ 25 บริเวณระหว่างฟันซี่ 33 และ 34 บริเวณซี่ 43 และ 44 ต่อไป

บทวิจารณ์

เป้าหมายของการรักษาทางทันตกรรมสำหรับผู้ป่วยโรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิส จะขึ้นกับอายุ ระยะการสร้างฟันแท้ สภาพของเนื้อเยื่อปริทันต์ รวมทั้งค่าใช้จ่ายในการรักษา ซึ่งใช้ระยะเวลาในการรักษาที่ยาวนานและจำเป็นต้องได้รับการรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดเพื่อแก้ไข

ปัญหาความสัมพันธ์ที่ผิดปกติของกระดูกขากรรไกรเมื่อผู้ป่วยหมดการเจริญเติบโตแล้ว ปัญหาที่ยุ่งยากมากและใช้เวลารักษาที่ค่อนข้างนานที่สุด ได้แก่ การที่ฟันแท้ไม่สามารถขึ้นได้ ซึ่งความรุนแรงของความผิดปกติของโรคจะแตกต่างกันไป จากการรายงานผู้ป่วยแต่ละรายจะพบว่าฟันแท้ที่ฝังอยู่อาจจะสามารถงอกขึ้นมาเองได้ หรืออาจจำเป็นต้องใช้แรงทางทันตกรรมจัดฟันดึงเพื่อให้ฟันขึ้น หรือฟันแท้อาจจะไม่สามารถขึ้นได้เลย ภายหลังถอนฟันน้ำนมและฟันเกินออก ในกรณีที่ฟันแท้ไม่สามารถขึ้นได้จำเป็นต้องถอนฟันแท้นั้นออกและใส่ฟันปลอมทดแทน⁹⁻¹⁸ ดังนั้นระยะเวลาในการเริ่มต้นให้การรักษาที่ดีที่สุดคือเมื่อผู้ป่วยยังมีอายุน้อย สามารถกระตุ้นให้ฟันแท้ซึ่งอยู่ในระยะที่มีแรงในการขึ้นของฟันโดยธรรมชาติ (eruptive force) ได้เอง จะลดความซับซ้อนและยุ่งยากรวมทั้งระยะเวลาในการรักษาได้

การกระตุ้นให้ฟันแท้ขึ้นในผู้ป่วยโรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิส อาจจะไม่ประสบผลสำเร็จทุกสิ่งดังในรายงานผู้ป่วยรายนี้ ซึ่งเมื่อพิจารณาถึงสาเหตุของความผิดปกติของโรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิสจากรายงานผู้ป่วยต่าง ๆ ที่ผ่านมา⁹⁻¹⁹

พบว่าผู้ป่วยแต่ละรายมีความรุนแรงที่แตกต่างกัน Manjunath K และคณะ²⁰ และ Becker A และคณะ¹⁰ ได้อธิบายถึงปัจจัยที่ทำให้การขึ้นของฟันแท้ซึ่ง ได้แก่ ฟันน้ำนมและฟันเกินที่ขัดขวางการขึ้นของฟัน การพัฒนาการขึ้นที่ผิดตำแหน่งของฟันแท้ (ectopic localization) การเกิดการบาดเจ็บของหน่อฟันแท้ขณะที่มีการผ่าตัดฟันเกินทำให้เกิดการละลายของรากฟันหรือฟันมีการยึดติดอยู่กับกระดูก (ankylosis) หรืออาจเกิดจากการละลายตัวที่ผิดปกติของกระดูกร่วมกับกระดูกหายไปของเซลซีเมนต์ (absence of cellular cementum) ในรายงานผู้ป่วยรายนี้พบว่าฟันแท้ทุกซี่ที่ขึ้นในช่องปาก ยกเว้นฟันซี่ 16, 26 และ 46 ถูกกระตุ้นให้ขึ้นโดยการให้แรงทางทันตกรรมจัดฟันทั้งสิ้น ฟันซี่ 33 หยุดการเคลื่อนที่โดยไม่ทราบสาเหตุภายหลังส่วนของตัวฟันขึ้นมาได้ไม่เต็มซี่แม้จะให้แรงและทิศทางที่เหมาะสมแล้ว อย่างไรก็ตามในกรณีที่ฟันไม่สามารถขึ้นได้ด้วยแรงทางทันตกรรมจัดฟัน จะพิจารณาถอนหรือไม่ขึ้นอยู่กับผู้ป่วยแต่ละรายต่อไป ในผู้ป่วยรายนี้ฟันที่ไม่เคลื่อนที่ภายใน 6 เดือนหลังการให้แรง (24, 25, 31, 44) พิจารณาถอน ส่วนฟันซี่ 33 ที่สามารถขึ้นได้บางส่วนพิจารณาเก็บเพื่อรักษาส่วนกระดูกที่อยู่รอบรากฟัน

จากรายงานผู้ป่วยที่ผ่านมา พบว่าความสัมพันธ์ของกระดูกขากรรไกรในผู้ป่วยโรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิสจะเป็นแบบที่ 3 และมีการสบเปิดด้านหน้า (Class III malocclusion and anterior open bite) โดยพบว่ากระดูกขากรรไกรบนจะมีการเจริญที่น้อยกว่าปกติ (maxillary hypoplasia) ร่วมกับการมีกระดูกขากรรไกรล่างปกติหรือเจริญมากกว่าปกติ (mandibular normal or hyperplasia) การรักษาความผิดปกตินี้สามารถทำได้สองแนวทาง ได้แก่ การรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดปกติ (orthognathic surgery) หรือการรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัดยึดกระดูก (distraction osteogenesis) ซึ่งในผู้ป่วยรายนี้ มีความผิดปกติทั้งในแนวหน้าหลังและในแนวตั้งค่อนข้างมากส่วนของขากรรไกรล่างมีการเจริญที่ปกติ (รูปที่ 11) ดังนั้นจึงพิจารณาทำการผ่าตัดยึดกระดูกขากรรไกรบนมาด้านหน้าและลงด้านล่าง (รูปที่ 8) ผลภายหลังการรักษาดี และสามารถป้องกันการคืนกลับได้ดีกว่าการผ่าตัดปกติ (รูปที่ 9 รูปที่ 10 และรูปที่ 12)

ภายหลังการผ่าตัดยึดกระดูกยังพบฟันหลังสบเปิดบางตำแหน่ง ไม่พบมีขอบเหงือกกร่น (gingival recession) เพิ่มขึ้น และไม่มีอาการเสียวฟัน ซึ่งทันตแพทย์ด้านโรคปริทันต์แนะนำให้ดูแลความสะอาดและไม่จำเป็นต้องทำการผ่าตัดปลูกเหงือกส่วนทันตแพทย์ด้านการใส่ฟันได้แนะนำให้หยุดการกระตุ้นและวางแผนใส่ฟันปลอมทับด้านบนของฟัน 33 และบริเวณที่เป็นช่องว่างต่อไป

จากการรักษาผู้ป่วยโรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิส ต้องใช้เวลายาวนาน^{16,19} ทำให้ทันตแพทย์ผู้ให้การรักษาจำเป็นต้องอธิบายผู้ป่วยและผู้ปกครองถึงแนวทางและระยะเวลาในการรักษา ผลข้างเคียงที่อาจจะคาดการณ์ไม่ได้ระหว่างการรักษา และความคาดหวังผลภายหลังการรักษา รวมทั้งความร่วมมือและค่าใช้จ่ายในการรักษาอย่างละเอียด

บทสรุป

โรคโคลโดเครเนียลติสออสโตซิสเป็นความผิดปกติตั้งแต่กำเนิดที่มีความซับซ้อนของปัญหาทั้งที่กระดูกและฟัน และความคาดหวังผลการรักษาของผู้ป่วย เป้าหมายของการรักษา คือ การกระตุ้นให้ฟันแท้ขึ้น มีการสบฟันและการบดเคี้ยวที่ดี ตลอดจนผู้ป่วยมีใบหน้าที่สวยงาม การรักษาควรเริ่มทำตั้งแต่ผู้ป่วยยังเด็ก และฟันแท้กำลังอยู่ในระยะที่เหมาะสมที่จะขึ้นสู่ช่องปาก โดยมีการสร้างรากได้ประมาณ 1/2 ถึง 2/3 ของความยาวรากปกติ ภายหลังเมื่อฟันแท้ขึ้นสู่ช่องปากและผู้ป่วยหมดการเจริญเติบโตแล้ว ส่วนใหญ่จะเป็นการรักษาทางทันตกรรมจัดฟันร่วมกับการผ่าตัด เพื่อให้ผู้ป่วยมีลักษณะใบหน้าปกติ มีการสบฟันและการทำงานของระบบการบดเคี้ยวที่ดี รวมทั้งมีใบหน้าที่สวยงามต่อไป อย่างไรก็ตามการรักษาที่ต้องใช้ระยะเวลายาวนาน ผู้ป่วยจำเป็นต้องได้รับการอธิบายถึงแผนและขั้นตอนในการรักษา ผลข้างเคียงที่อาจคาดการณ์ไม่ได้ และจำเป็นต้องให้ความร่วมมืออย่างดี เพื่อให้ได้ผลการรักษาตามแผนการรักษาที่ได้วางเอาไว้

บทบาทหน้าที่ความรับผิดชอบ

วฤ: การสร้างแนวคิด วิธีการวิจัย การสำรวจข้อมูล ทรัพยากร เขียนร่างคำอธิบายเรื่อง การตรวจสอบและแก้ไขเนื้อหา และการนำเสนอข้อมูล

ธน: การสร้างแนวคิด วิธีการวิจัย และการสำรวจข้อมูล

คำชี้แจงการเปิดเผยข้อมูล

ไม่มีความขัดแย้งทางผลประโยชน์ในการศึกษา

กิตติกรรมประกาศ

ขอขอบคุณ ทพญ.ปัทมาธิริย์ ฤทธิกุล ทพ.ธนพัฒน์ แสงวัฒนะรัตน์ ทพญ.สุพรรณษา พงศ์ติวัฒนากุล ทพ.ปรัชญ์ชวิน เหลาหทัยอรุณ คุณสุรรัตน์ สุวรรณชาติ และคุณอาชีวะระห์ บิลเต๊ะ ในความช่วยเหลือที่ทำให้บทความนี้สมบูรณ์ยิ่งขึ้น

เอกสารอ้างอิง

1. Roberts T, Stephen L, Beighton P. Cleidocranial dysplasia: A review of the dental, historical, and practical implications with an overview of the South African experience. *Oral Sur Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;115(1):46-55.
2. Bufalino A, Paranaíba LMR, Gouvêa AF, Gueiros LA, Martelli-Júnior H, Junior JJ, et al. Cleidocranial dysplasia: oral features and genetic analysis of 11 patients. *Oral Dis* 2012;18(2):184-90.
3. Cooper SC, Flaitz CM, Johnston DA, Lee B, Hecht JT. A natural history of cleidocranial dysplasia. *Am J Med Genet* 2001;104(1):1-6.
4. Kreiborg S, Jensen BL, Larsen P, Schleidt DT, Darvann T. Anomalies of craniofacial skeleton and teeth in cleidocranial dysplasia. *J Craniofac Genet Dev Biol* 1999;19(2):75-9.
5. Martins RB, de Souza RS, Giovani EM. Cleidocranial dysplasia: Report of six clinical cases. *Spec Care Dent* 2014;34(3):144-50.
6. Jensen BL, Kreiborg S. Craniofacial growth in cleidocranial dysplasia--a roentgencephalometric study. *J Craniofac Genet Dev Biol* 1995;15(1):35-43.
7. Jensen BL, Kreiborg S. Development of the dentition in cleidocranial dysplasia. *J Oral Pathol Med* 1990;19(2):89-93.
8. Atasu M, Dumlu A, Ozbayrak S. Multiple supernumerary teeth in association with cleidocranial dysplasia. *J Clin Pediatr Dent* 1996;21(1):85-91.
9. Golan I, Baumert U, Hrala BP, Müssig D. Dentomaxillofacial variability of cleidocranial dysplasia: Clinicoradiological presentation and systemic review. *Dentomaxillofac Radiol* 2003;32(6):347-54.
10. Becker A, Lustmann J, Shteyer A. Cleidocranial dysplasia: part 1--general principles of the orthodontic and surgical treatment modality. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1997; 111(1):28-33.
11. Frota CM, Pinherio FHSL, Caetano IM, Carvalho RM, Aiello CA. Interdisciplinary treatment of patients with cleidocranial dysplasia and multiple unerupted permanent teeth. *J Clin Orthod* 2021;55(11):1-13.
12. Ho CY, Ko EWC, Lin CH. Long-term observation of orthodontic management and facial growth on a patient with familial cleidocranial dysplasia. *Taiwanese J Orthod* 2019;31(4): 226-40.
13. Jensen BL, Kreiborg S. Development of the dentition in cleidocranial dysplasia. *J Oral Pathol Med* 1990;19(2):89-93.
14. Becker A, Shteyer A, Bimstein E, Lustmann J. Cleidocranial dysplasia: part 2--treatment protocol for the orthodontic and surgical modality. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1997;111(2):173-83.
15. Bechtold TE, Lee KJ, Park YC, Berneburg M, Göz GR. A simultaneous mobilization of four impacted upper incisors in a case of an adolescent patient with cleidocranial dysplasia (CCD). *Dentistry* 2014;4(3):1000210.
16. Zhu Y, Zou Y, Yu Q, Sun H, Mou S, Xu S, et al. Combined surgical-orthodontic treatment of patients with cleidocranial dysplasia: case report and review of the literature. *Orphanet J Rare Dis* 2018;13(1):217.
17. Ritthagol W, Supakanjanakant D, Nuntanaranon T. Cleidocranial dysostosis. *OJ Thai Assoc Orthod* 2022;12(1): 4-11.
18. Frame K, Evans RI. Progressive development of supernumerary teeth in cleidocranial dysplasia. *Br J Orthod* 1989;16(2): 103-6.
19. Farrow E, Nicot R, Wiss A, Laborde A, Ferri J. Cleidocranial dysplasia: a review of clinical, radiological, genetic implications and a guidelines proposal. *J Craniofac Surg* 2018;29(2):382-9.
20. Manjunath K, Kavitha B, Saraswathi TR, Sivapathasundharam B, Manikandhan R. Cementum analysis in cleidocranial dysostosis. *Indian J Dent Res* 2008;19(3):253-6.