

HOVEDBUDSKAP

- Efter studier utförda på unga patienter med Amelogenesis imperfecta kan vi konstatera att keramisk kronterapi kan rekommenderas redan under tonåren.

FÖRFATTARE

Gunilla Pousette Lundgren, DDS, PhD. Institutionen för odontologi, Avdelningen för Ortodonti och Pedodonti, Karolinska Institutet, Stockholm

Göran Dahllöf, Professor, Institutionen för odontologi, Avdelningen för Ortodonti och Pedodonti, Karolinska Institutet, Stockholm

Korresponderande författare: Gunilla Pousette Lundgren.
E-post: gunilla.pousette-lundgren@ki.se

Artikkelen har gjennomgått ekstern faglig vurdering.

Lundgren GP, Dahllöf G. Protetik på barn och tonåringar med amelogenesis imperfecta – är det möjligt? *Nor Tannlegeforen Tid*. 2019; 129: 104–11

Protetik på barn och tonåringar med amelogenesis imperfecta – är det möjligt?

Gunilla Pousette Lundgren, Göran Dahllöf

Keramisk protetisk behandling har varit förbehållet den vuxna populationen. Bristen på hållbar behandling under ungdomsåren för patienter med grava emaljstörningar har orsakat mycket lidande för patienter, frustration för terapeuter och höga kostnader för temporär tandvård. Patienter med amelogenesis imperfecta (AI) har dokumenterat stora problem under sin väntan på att kunna få en permanent terapi. Vi har använt nya keramiska material som ger bra hållfasthet även i tunna konstruktioner för att försöka lösa patienternas problem. Vi beskriver problematik och lösningsmöjligheter för patienter med grav AI. Genom våra studier som omfattar en retrospektiv utvärdering av rekommenderad vård, randomiserad klinisk studie (RCT) av keramisk kronterapi i unga år, studier på oral-hälsa relaterad livskvalitet, tandvårdsrädsla och inställning till tandvård samt djupintervjuer för att bättre förstå patienterna, har vi i en långtidsuppföljning kommit till slutsatsen att en tidig protetisk terapi med keramiska kronor kan rekommenderas i det unga permanenta bettet. Goda resultat uppmättes vad avser California Dental Association (CDA) kriterier för kvalitet, «survival» och «success». Få biverkningar sågs och inga kronor lossade.

Det är möjligt och kan rekommenderas att påbörja en fast protetisk rehabilitering med keramiska kronor på unga patienter redan under tonåren.

Bakgrund

Keramisk protetik har länge varit ett alternativ enbart förbehållet det färdigväxta bettet och den vuxna individen. Med den snabba och positiva utvecklingen av keramer där man idag kan göra hållbara tunna keramiska kronor är det dags att se över våra terapimöjligheter för tonåringar med svåra tandutvecklingsstörningar. I dagens utseendefixerade och utåtriktade samhälle är det ett stort problem för unga individer med grava störningar på sina tänder att behöva vänta till vuxen ålder innan permanenta lösningar kunnat utföras (1–3). Det finns flera allvarliga emaljstörningar såsom amelogenesis imperfecta (AI), molar incisor hypomineralisation (MIH) och fluoros där en tidig permanent terapi i form av keramiska kronor skulle kunna gynna patienten (1). Patienter med AI har besvär med estetiskt störande utseende på tänderna som avvikelser i färg och form, problem med ilningar och smärta i tänderna, emalj som faller sönder och tänder som slits ned fort. Att inte se ut som andra, inte kunna tugga och äta samt att ha ont i tänderna orsakar ett socialt undvikandemönster och en sämre oral-hälsa-relaterad livskvalitet (1–5). Enligt gällande riktlinjer bör en permanent kronterapi avvaktas till vuxen ålder och de-

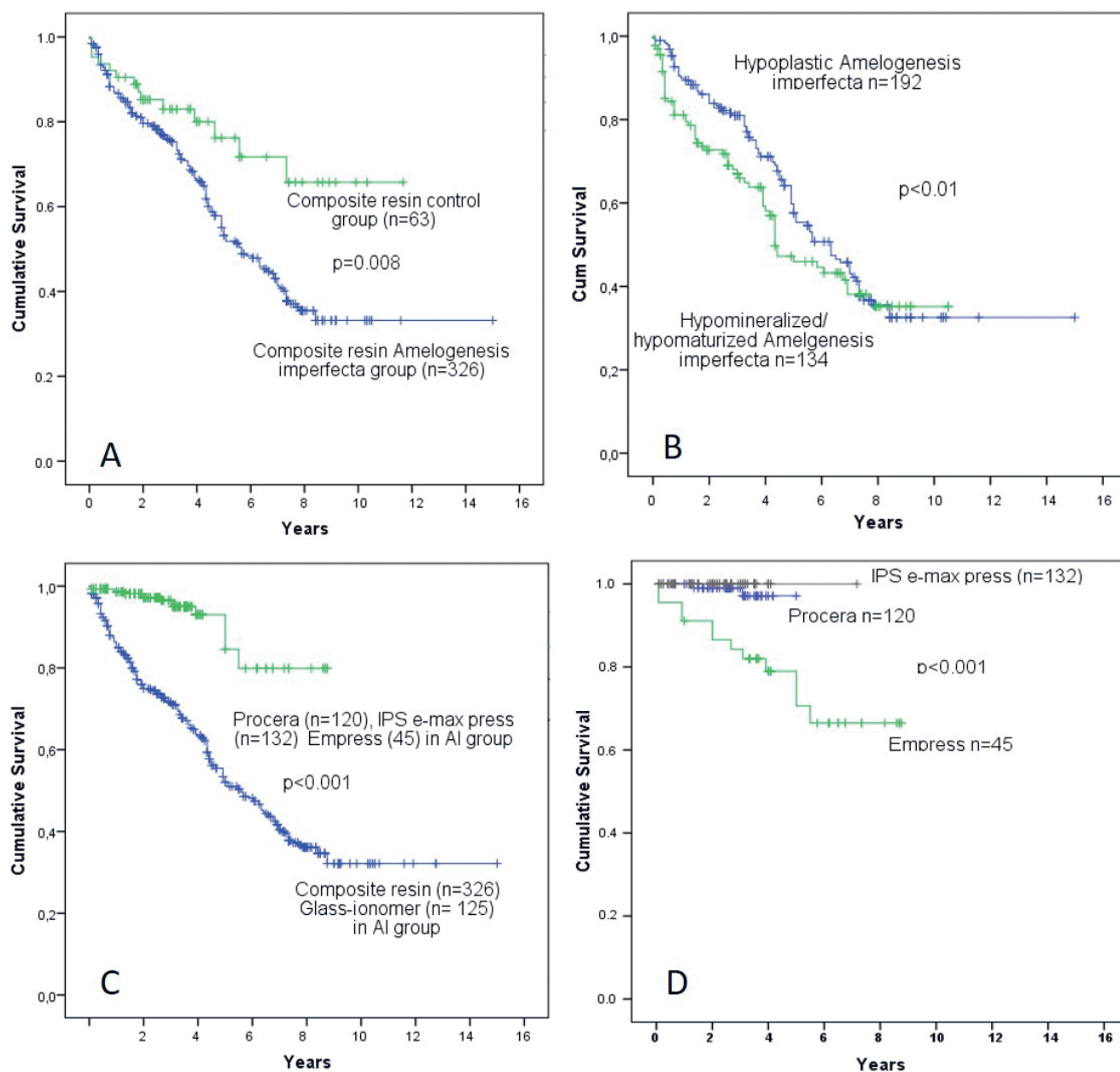
fekta ytor reatureras med komposit och följas upp var 3:e månad tills patienten är vuxen (6, 7). Det leder till många, ofta smärtsamma tandvårdsbesök och omgörningar av restaurationer, och även resor till specialistkliniker för vård då frånvaro från skola och arbete påverkar hela familjen (6, 8, 9). Vuxna patienter som har fått vänta på sin kronterapi till i vuxen ålder har önskat att behandlingen hade kunnat utföras i ett tidigare skede (1, 3).

Amelogenesis imperfecta

Amelogenesis imperfecta är en genetiskt heterogen grupp av emaljstörningar. Många olika ärftlighetsmönster ses vilket ytterligare försvårar vår diagnos (10). Störningen påverkar emaljbildningen och ger olika defekter beroende på när under emaljbildningen skadan uppstår (11). Oftast är det primära bettet mindre drabbat. Störningar tidigt under emaljbildningen ger en emalj som har normal kvalitet men en minskad mängd av emalj (Fig 1A). Störningar senare under emaljbildningen ger en emalj som har normal tjocklek men som är sämre mineraliserad (Fig 1C) (11). Flera olika typer av AI kan förekomma hos en individ (Fig 1E).



Figur 1, A–F. A: Hypoplastisk AI, start av behandling vid 14 år. B: Keramiska kronor 15–25. 35–45, uppföljning vid 21 år. C: Hypomineraliserad AI, kronor 16–26, 36–46. 17 år vid behandlingsstart, svårt att äta, undvek att gå ut i vid kyla. D: Kontroll vid 25 år inga besvär. E: 12 år vid start kronterapi 13–23, betttöppning med klammerplåt före behandling. Kronor 33–43 vid 14 år. F: Kontroll vid 20 år, risk för slitage i sidopartier, patienten mogen för och önskar gå vidare med kronterapi.



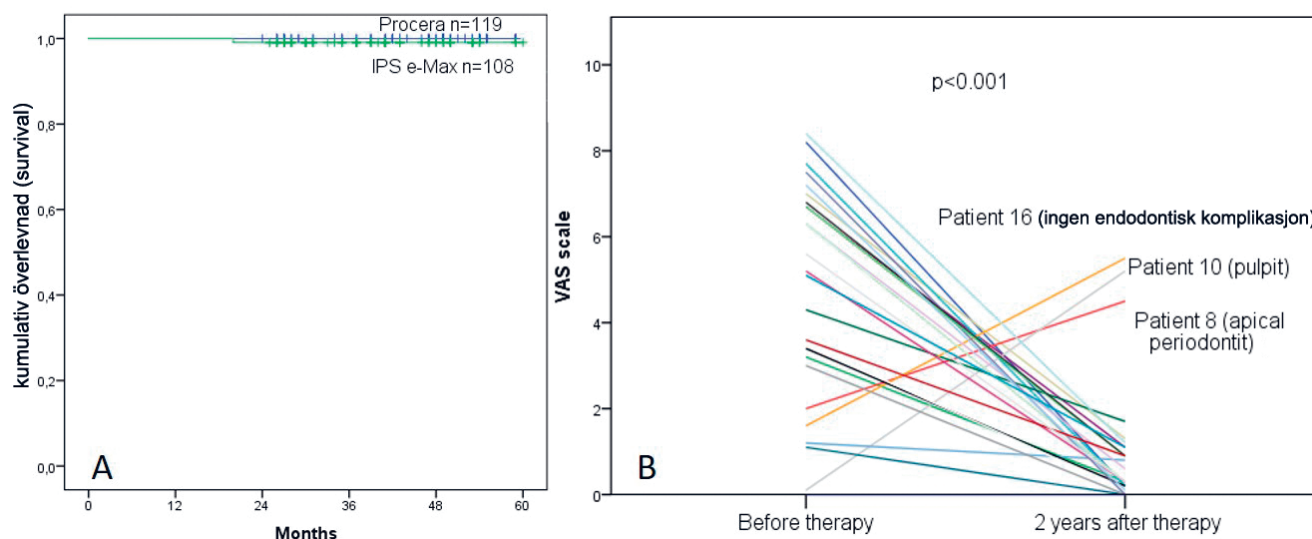
Figur 2, A–D. A: Hållbarheten för kompositrestaurationer hos patienter med AI och kontrollpatienter. (log rank test) [8]. B: Hållbarheten för kompositrestaurationer, hypoplastisk AI jämfört med hypomineraliserad/hypomaturiserad AI (log rank test). C: Hållbarhet för keramiska konstruktioner jämfört med kompositrestaurationer (log rank test) [8]. D: Hållbarheten hos olika kronmaterial. Empress-gruppen innehöll mestadels ¾-kronor (log rank test) [8].

Diagnos

För att kunna ställa en korrekt diagnos behövs en anamnes inkluderande ärftlighet och sjukdomshistoria, samt kliniska observationer. För att uppskatta ilningar och känslighet i tänderna är visuell analog skala (VAS) ett bra hjälpmedel (12). En mjölkttand eller helst permanent tand för patologisk allmänndiagnos (PAD) kan vara en

bekräftelse, men är inte nödvändigt för diagnos. Differentialdiagnoser såsom MIH, fluoros och rakit måste uteslutas.

Det vi ser i form av färgförändringar eller hypoplaser är lätt att förstå och diagnostisera. Att diagnosticera känslighet i tänderna och hypomineralisation utan färgförändring (Figur 1C), där emaljen är rå vid sondering och ytan känslig är svårare att se och missas



Figur 3, A–B. A. «Survival» räknat i månader vid tvåårsuppföljningen. (log rank test). B. Känsligheten i tänderna mätt med VAS skala före och 2 år efter kronterapi hos 27 patienter med grav amelogenesis imperfekta (15).

ofta (3). I våra studier skiljde vi mellan hypoplastisk AI och hypomineraliserad/hypomaturiserad AI då den senare har något lägre bondingstyrka (13). Emaljen är mjukare vid AI vilket påverkar bondingstyrkan och man ser ett sklerotiskt dentin under emaljen, vilket har tytts som kontinuerlig irritation av odontoblasterna under den defekta emaljen (13, 14).

Restaurationer vid grava skador vid AI

Patienterna har stora problem både fysiskt och psykiskt, vår uppgift är att finna lösningar. Rekommendationerna har varit temporära lösningar med komposit och avvakta med protetik under uppväxten för att göra definitiv protetik i vuxen ålder. Stora pulparum hos unga patienter i kombination med att materialtjockleken tidigare krävde en avsevärd avverkning av tandsubstans var några av skälen till att inte använda keramiska material på unga individer. När vi undersökte hållbarheten hos kompositfyllningar hos kontrollpatienter inom allmäntandvården och patienter med AI såg vi att kompositrestaurationerna höll signifikant kortare tid hos patienterna med AI (Figur 2A) och att sensitiviteten i tänderna var signifikant korrelerad till antal omgjorda fyllningar (8). Hypomineralisations/hypomaturationstypen av AI visade något lägre hållbarhet än AI av hypoplasit (Figur 2B). Skalkronor av Procera AllCeram (innerhätta av zirkoniumdioxid täckt med porslin) och IPS e.max Press, (högtemperatur pressat litium disilikat), visade en mycket bättre hållbarhet än komposit (Figur 2C) medan skalfasader och 3/4-kronor hade bättre hållbarhet än komposit och glasjonomer, men sämre än fullkronor (Figur 2D). I våra studier utnyttjade vi

fördelarna med de nya materialen där fabrikanterna rekommenderade minst 1 mm materialtjocklek för IPS e.max Press och 1,5 mm för Procera AllCeram. I tvåårsuppföljningen av kronor av Procera och IPS e.max Press såg vi goda resultat vad gäller kvalitet och hållbarhet (Figur 3A). Känsligheten i tänderna mätt med VAS hade minskat signifikant efter kronterapi (Figur 3B) (15).

Utmaningar med det växande bettet, samarbete med specialister

När protetik utförs i det vuxna bettet står tänderna där dom förväntas stå kvar och vi korregerar ibland för tändernas felställningar genom utformningen av kronorna. I det växande bettet erupterar och mesialvandrar tänder innan de slutligen ställer in sig på sin plats, vilket vid protetik ger både för och nackdelar. Vi måste beräkna var tänderna kommer att ställa sig så att vi får en bra ocklusionskurva och bra storlek och form på tandkronorna när vi planerar eventuella ingrepp. Om kronor på fronttänderna måste göras tidigt bör kronan göras som en naturlig förlängning av roten utan kompensation för felställningar. Glesställningar kan utnyttjas till patientens fördel då minimal preparation krävs och kronan på tanden kan utformas till normal tandstorlek och form och möjliggöra bra kontaktpunkter (Figur 1A, B). Har tänderna mesialvandrat riskerar man att behöva avverka mer och få trångt för kronan. Har smala tänder mesialvandrat riskerar man att få en lång approximal kontakt som försvårar rengöring.

Samarbete med ortodontist är värdefullt och kan hjälpa oss att undvika djupbett, förutse öppna bett och andra svårigheter i be-



Figur 4. Djupbett och stora problem med hög sensitivitet och munhygien. Röntgen visar sönderfall så snart tanden erupterar. Finns inte färste för betthöjningsplåt. Kronor 11, 21 samt täckning glasjonomer 22, 23 vid 9 års ålder. Under 6 månader öppnade sig bettet och vi hade inget annat val än att fortsätta kronterapi med målet bra ocklusionskurva. Vid 17 år, kronor 15–25, 35–45, har frontala öppna bettet minskat! Mörka kanter buckalt är tandens grundfärg ej karies. Pga sönderfall lingualt gjordes kronor om 13–23 vid 19 års ålder. Vid 22 års ålder är 46 enda endodontiskt behandlade tanden (vid 14 år) – 46 är inte kronförsedd. «Long face» profil.

handlingsplanen. Ska tänder behandlas ortodontist är det bra om luckslutning undviks och mellanrum sparas inför preparationen. För ortodontisten föreligger bl. a svårigheter med bonding, retenti- on av klamrar, tänder där emaljen frakturerar och problem med känsligheten i tänderna (16). Patienter med AI har en accelererad tandutveckling men ibland försenad tandruption och retinerade

tänder (17, 18). Vid AI är öppet bett, lateralt eller frontalt vanligare, upp till 43 %, vid hypomineraliserad AI (19). En riskfaktor att uppmärksamma är tendensen till «long face», med sluttande käkvinkel. Figur 4 visar en nästintill osannolik utveckling från dju- ppet bett till öppet bett och landning vid fungerande ocklusion!

Utmaningar hos den växande individen

Social utveckling och livskvalitet

Patienterna med AI rapporterar att de under hela uppväxten har undvikit att skratta, stängt munnen vid fotografering, undvikit nya kontakter samt haft strategier för att hantera smärta vid kyla och matintag (3). Patienternas tankar har ständigt kretsat kring hur man kan hantera och dölja sina tänder! Många rapporter finns om att man inte tycker att man har kunnat komma till sin rätt förrän man har fått tandersättningar i form av kronterapi. I dagens samhälle där sociala kontakter är allt viktigare är unga patienter med AI ofta utsatta för mobbning, ifrågasatta av lärare, tandvårdspersonal och andra i omgivningen (2–5, 9, 20).

Vi är vana att utvärdera kvalitet och hållbarhet hos material och känner oss nöjda med vad vi ser som resultat, men vad vet vi om vad patienterna tycker och känner? Vi har få undersökningar som tar upp oral-hälsa-relaterad livskvalitet (OHRQoL).

Hur ska vi nå och förstå patienten?

Låt patienten berätta! Patienterna tror ofta att dom är ensamma om bekymren, bekräfta att det finns många med dessa problem och att vi kan lösa det men att det krävs samarbete från oss alla. Var öppen för hur patienten har upplevt tidigare tandvård, bekräfta och gå sedan vidare. Även unga patienter behöver en korrekt och klar information; vad kan vi göra, när vi kan göra det och hur går det till. En del av patienterna med AI har genomgått smärtsamma behandlingar och också upplevt att de har blivit missförstådda och att smärtan har negligerats inom tandvården, då behövs en ny inskolning (3). Efter en bra och omfattande beskrivning och behandlingsplan kan patienten få en chans att avgöra om besvären är så stora att man vill gå vidare med behandling. Hela bittet behöver inte restaureras på en gång, pauser kan med fördel planeras in.

När är man mogen för behandling

I vår studie fick patienterna och föräldrarna en «betänketid» på 3 månader då vi skolade in och optimerade munhygien, det upplevdes positivt (15). Vi började med de tänder som besvärade mest. Stor vikt lades vid att det var patientens önskan och inte föräldrarnas eller vår önskan som fick råda. Vi avrådde behandling om bedövningsträning eller Kooperation brast, Vi avrådde också om vi ansåg att en behandling skulle kunna undvikas eller om skadorna på tänderna inte var grava.

Tidig protetisk behandling

Noggrann planering tillsammans med ortodontist, patient och förälder krävs. Kontakt med protetiker för kronmaterial, cement mm är positivt. Inskolning av patienten krävs även om man är ton-

åring! Tydlighet om vad behandlingen innebär och risker för komplikationer måste vara grund för patientens beslut. Att skatta sensitiviteten med VAS skala ger en grund inför terapin. Pre- och postoperativa analgetika, rikligt med lokalanestesi samt sedering med lustgas till de som önskar är viktigt att erbjuda. Känsliga tandtytor i närområdet kan täckas med fluoridlack, putty eller essixske-
na. Använd tidtagarur vid applicerande av bedövningssalva samt vid avtryckstagning, återbesök på grund av släp i avtrycket är dyrt! Var lika noga men smärtlindring vid cementering.

Vågar vi, när vågar vi och hur gör vi?

Stora pulparum har varit ett skäl att undvika protetik i unga år. Med nya material kan vi avverka mindre och ändå få bra hållfasthet på materialet. Varje borrning är att betrakta som ett trauma mot tanden. Den unga tanden har god blodförsörjning och är väl rustad för att ta hand om trauman. Upprepade trauman däremot försämrar prognosen för tanden (21). Vid flera omgörningar och vid trauma ökar risken för endodontiska komplikationer (15). Minsta möjliga trauma var målet för vår preparation, Vi «penslade» fram preparationen med borsten i ständig rörelse för att undvika upphettning av tandytan. Vi undvek referensfårer på grund av risken för värmeutveckling och preparerade istället en halva av tanden först. Diamant med rungad topp och adstringent på tunnaste ligaturtråden användes för att få en distinkt preparationsgräns, vilket kan vara svårt vid emaljdefekter. Vid ocklusion keram mot emaljdefekt måste slitaget följas noga och vi undvek skalfasader i underkäksfronten som riskerade att ockludera mot skadade emaljtitor lingualt i överkäksfronten och orsaka slitage. Skalfasaderna lindrar dessutom inte de blottade tandytornas sensitivitet, så finns en grundproblematik med sensitivitet bör tunna keramiska kronor väljas.

Risken för mesialvandring om provisoriet inte håller platsen är förödande stor hos unga individer, vid preparation av flera kronor sattes provisoriska kronorna alltid ihop.

Vi lade stor vikt att kommunicera med tandteknikern för att få unga tänder till unga individer. Det innebär en strukturerad buckalyta, färgvariationer, transluscent skär mm. Digitalfoton är bra hjälpmedel!

Interventionens påverkan

Vi mätte tandvårdsrädsla och OHRQoL före och 2 år efter behandlingen för att undersöka om vår tidiga protetiska behandling var till fördel eller nackdel för patienterna. Resultaten visade att vår behandling inte hade orsakat någon tandvårdsrädsla. Vad gäller livskvaliteten var effektstorleken hög, speciellt med avseende på psykosocial påverkan och utseende mätt med OHIP-14 före och 2 år efter behandlingen (5). I djupintervjuerna medgav patienterna att be-

handlingen ibland varit jobbig men att det hade varit värt det, (3) och föräldrar meddelade att ungdomarna log, skrattade och var mer öppna efter behandlingen.

De 227 keramiska kronorna i den tidigare RCT studien (15) följdes i 4.3–7.4 år, 79 % av kronorna hade en uppföljningstid på 5 år eller mer. Kvaliteten enligt CDA kriterier mättes vid långtidsuppföljningen med avseende på färg, form ytstruktur och kantanslutning. 97 % av kronorna visade excellent eller acceptabel kvalitet. Justeringar behövdes hos 4 % av kronorna och då med avseende på kantanlutningen. Sänkningen av sensitivitetsproblemen stod sig vid långtidsuppföljningen. «Survival» uppmättes till 99.5 % och «success rate» var 94.7 %. Endodontiska komplikationer sågs under hela uppföljningstiden hos 3 % hos våra patienter i åldern 18–19 år och i alla fall utom två hade patienten en anamnes av trauma mot den

aktuella tanden (22). Ingen endodontisk komplikation sågs hos de yngre patienterna! Resultaten i studien är mycket goda och visar att det är hög tid att tänka om när det gäller möjligheten att använda nya keramiska material som tidig permanent terapi på unga individer, i vårt fall patienter med grav AI.

Framtida möjligheter för keramiska kronor i unga brett

Det finns behov av forskning kring protetiska ersättningar på unga individer, bland annat vad gäller MIH, fluoros och erosionsskador. Forskningen bör innehålla randomiserade kontrollerade studier men även djupintervjuer om patientupplevelser eftersom detta kan tillföra mycket kunskap som kan förbättra vårt omhändertagande. Vad gäller patienter med AI har vi nu evidens för att en tidig protetisk terapi med keramiska kronor är att rekommendera.

REFERENSER

- Crawford PJ, Aldred M, Bloch-Zupan A. Amelogenesis imperfecta. *Orphanet J Rare Dis*. 2007 Apr 4; 2: 17.
- Parekh S, Almehateb M, Cunningham SJ. How do children with amelogenesis imperfecta feel about their teeth? *Int J Paediatr Dent*. 2014; 24(5): 326–35.
- Pousette Lundgren G, Wickström A, Hasselblad T, Dahllof G. Amelogenesis Imperfecta and Early Restorative Crown Therapy: An Interview Study with Adolescents and Young Adults on Their Experiences. *PLoS One*. 2016; 11(6): e0156879.
- Coffield KD, Phillips C, Brady M, Roberts MW, Strauss RP, Wright JT. The psychosocial impact of developmental dental defects in people with hereditary amelogenesis imperfecta. *J Am Dent Assoc*. 2005; 136(5): 620–30.
- Pousette Lundgren G, Karsten A, Dahllof G. Oral health-related quality of life before and after crown therapy in young patients with amelogenesis imperfecta. *Health Qual Life Outcomes*. 2015; 13: 197.
- McDonald S, Arkutu N, Malik K, Gadhia K, McKaig S. Managing the paediatric patient with amelogenesis imperfecta. *Br Dent J*. 2012; 212(9): 425–8.
- Malik K, Gadhia K, Arkutu N, McDonald S, Blair F. The interdisciplinary management of patients with amelogenesis imperfecta – restorative dentistry. *Br Dent J*. 2012; 212(11): 537–42.
- Pousette Lundgren G, Dahllof G. Outcome of restorative treatment in young patients with amelogenesis imperfecta. a cross-sectional, retrospective study. *J Dent*. 2014; 42(11): 1382–9.
- Aldred M, Crawford PJ, Savarirayan R, Savulescu J. It's only teeth – are there limits to genetic testing? *Clin Genet*. 2003; 63(5): 333–9.
- Wright JT, Torain M, Long K, Seow K, Crawford P, Aldred MJ, et al. Amelogenesis imperfecta: genotype-phenotype studies in 71 families. *Cells Tissues Organs*. 2011; 194(2–4): 279–83.
- Hu JC, Chun YH, Al Hazzazi T, Simmer JP. Enamel formation and amelogenesis imperfecta. *Cells Tissues Organs*. 2007; 186(1): 78–85.
- Breivik H, Borchgrevink PC, Allen SM, Rosseland LA, Romundstad L, Hals EK, et al. Assessment of pain. *Br J Anaesth*. 2008; 101(1): 17–24.
- Saroglu I, Aras S, Oztas D. Effect of deproteinization on composite bond strength in hypocalcified amelogenesis imperfecta. *Oral Dis*. 2006; 12(3): 305–8.
- Faria-e-Silva AL, De Moraes RR, Menezes Mde S, Capanema RR, De Moura AS, Martelli H, Jr. Hardness and microshear bond strength to enamel and dentin of permanent teeth with hypocalcified amelogenesis imperfecta. *Int J Paediatr Dent*. 2011; 21(4): 314–20.
- Pousette Lundgren G, Morling Vestlund GI, Trulsson M, Dahllof G. A Randomized Controlled Trial of Crown Therapy in Young Individuals with Amelogenesis Imperfecta. *J Dent Res*. 2015; 94(8): 1041–7.
- Arkutu N, Gadhia K, McDonald S, Malik K, Currie L. Amelogenesis imperfecta: the orthodontic perspective. *Br Dent J*. 2012; 212(10): 485–9.
- Seow WK. Dental development in amelogenesis imperfecta: a controlled study. *Pediatr Dent*. 1995; 17(1): 26–30.
- Cho SH, Seymen F, Lee KE, Lee SK, Kweon YS, Kim KJ, et al. Novel FAM20A mutations in hypoplastic amelogenesis imperfecta. *Hum Mutat*. 2012; 33(1): 91–4.
- Ravassipour DB, Powell CM, Phillips CL, Hart PS, Hart TC, Boyd C, et al. Variation in dental and skeletal open bite malocclusion in humans with amelogenesis imperfecta. *Arch Oral Biol*. 2005; 50(7): 611–23.
- Al-Bitar ZB, Al-Omari IK, Sonbol HN, Al-Ahmad HT, Cunningham SJ. Bullying among Jordanian schoolchildren, its effects on school performance, and the contribution of general physical and dentofacial features. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*. 2013; 144(6): 872–8.
- Andreasen JO, Lauridsen E, Gerds TA, Ahrensburg SS. Dental Trauma Guide: a source of evidence-based treatment guidelines for dental trauma. *Dent Traumatol*. 2012; 28(2): 142–7.
- Lundgren, G.P., G.M. Vestlund, and G. Dahllof. Crown therapy in young individuals with amelogenesis imperfecta: Long term follow-up of a randomized controlled trial. *J Dent*. 2018. 76: p. 102–108.

ENGLISH SUMMARY

Lundgren GP, Dahllöf G.

Prosthetic restorations in children and teenagers with amelogenesis imperfecta – is it possible?

Nor Tannlegeforen Tid. 2019; 129: 104–11

Ceramic prosthetic treatment has been reserved for the adult population. The lack of a permanent therapy with longevity during adolescence for patients with severe enamel disturbances has caused suffering for patients, frustration for treating dentists and high costs for temporary dental care. Patients with amelogenesis imperfecta (AI) have documented severe problems while waiting for permanent therapy. We have used new ceramic materials that provide good strength even in thin structures to try to solve the

patient's problems. Our studies involving a retrospective evaluation of recommended care, a randomized clinical study (RCT) of ceramic crown therapy in adolescence, studies on oral health related quality of life, dental fear, dental beliefs and qualitative studies have shown that early prosthetic therapy with ceramic crowns can be recommended in the young permanent dentition. Few side effects were seen and no crowns were loose.