

Evaluación en modelos digitalizados del crecimiento maxilar en fisura labiopalatina bilateral: reporte de caso

Bilateral cleft lip and palate growth evaluation on digitized dental models: case report

Ingrid Ivanna Huayta Aguirre¹ Adriano Porto Peixoto² Gisele da Silva Dalben³

RESUMEN:

La rehabilitación de la fisura labiopalatina bilateral es considerada de alta dificultad debido a la segmentación grave del maxilar, proyección y desvío de la premaxila, por demás variado en cada individuo afectado. El presente relato de caso presenta el seguimiento longitudinal del crecimiento maxilar de un individuo masculino con fisura labiopalatina bilateral, premaxila bastante proyectada y desviada, sometido únicamente a las cirugías plásticas primarias. La evaluación se realiza en modelos digitalizados a los 5 meses de edad y a los 8 años de edad, mediante el uso de un software específico con el fin de comparar los cambios tridimensionales ocurridos en el maxilar como consecuencia de la influencia única de la queiloplastia y palatoplastia en su crecimiento.

ABSTRACT:

Bilateral cleft lip and palate rehabilitation is considered highly difficult due to three parts maxilla segmentation and premaxilla projection and deviation, otherwise varied in each affected individual. The present case report presents the longitudinal follow-up of maxillary growth of a bilateral cleft lip and palate, fairly projected and deviated premaxilla male individual subjected to primary plastic surgeries only. The evaluation is carried out on digitized models at 5 months of age and 8 year of age, by using a specific software in order to compare the three-dimensional growth changes occurred in the maxilla as a consequence of the unique influence of cheiloplasty and palatoplasty surgeries on maxillary.

Palabras clave:

Labio leporino; Fisura del paladar; Crecimiento; Modelos dentales.

Keywords:

Cleft lip; Cleft palate; Growth; Dental models

INTRODUCCIÓN

Las fisuras labiopalatinas representan una de las anomalías craneofaciales más comunes afectando la cabeza y cuello.¹ Entre los tipos de fisura catalogados como no sindrómicos, la presentación del tipo bilateral es considerada la más compleja y difícil de tratar², debido al maxilar superior segmentado en tres partes y usualmente acompañado de una importante proyección y/o desviación de la premaxila³. Las alteraciones estéticas y funcionales son de importancia por lo que son requeridas distintas terapias quirúrgicas y no-quirúrgicas desde el nacimiento para reposicionar la premaxila y unificar el maxilar. Entre estas destacan las cirugías plásticas primarias (queiloplastia y palatoplastia) y la ortopedia prequirúrgica (activa o pasiva), siendo ésta última una preparación previa para la reconstrucción quirúrgica de los tejidos blandos y de resultados a largo plazo aún controversiales⁴, por lo que no es usada por todos los equipos rehabilitadores a nivel mundial.

Según Zhang et al³, la reconstrucción plástica de los individuos con fisura labiopalatina bilateral (FLPB) es “La mitad de común y el doble de difícil que la reparación de la fisura unilateral”, esto debido a la variable presentación de la anomalía en relación a los segmentos maxilares (tamaño,

forma, posición). A pesar de la existencia de muchas técnicas quirúrgicas para la rehabilitación de individuos con FLPB, no existe un consenso entre cuál es la mejor técnica, sin embargo, se considera que la queiloplastia en un tiempo otorga mejores y más simétricos resultados⁵. Posterior a las cirugías plásticas primarias, concierne a otra parte del equipo rehabilitador lidiar con alteraciones del crecimiento y desarrollo maxilofacial consecuencia de las intervenciones quirúrgicas^{6,7} que llegan a influir permanentemente el crecimiento tridimensional del maxilar.

En relación al crecimiento maxilar posterior a las intervenciones quirúrgicas en individuos con FLPB, existe una significativa disminución tridimensional general, pero sobre todo de las relaciones transversal anterior y sagital del maxilar posterior a su evaluación digital tridimensional.⁸ La literatura sugiere que la premaxila prominente en estos individuos puede retroponerse por la presión del labio reconstruido en una etapa inicial⁹. Sin embargo, esta evaluación se ha estudiado posterior al uso de ortopedia prequirúrgica que podrían haber influenciado en estos resultados, por tanto, la influencia única de las cirugías plásticas primarias en el crecimiento maxilar en la FLPB a largo plazo no han sido exploradas. El propósito de este estudio de caso es evaluar las características del crecimiento

1. MSc. DDS. La Paz, Bolivia. Cirujano Dentista/Ortodoncista

2. PhD. MsC. DDS. Bauru, Brasil. Cirujano dentista, Ortodoncista del Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais – Universidade de São Paulo.

3. PhD. MsC. DDS. Bauru, Brasil. Cirujano dentista, Odontopediatra y Jefe del Departamento de Odontopediatría y Salud Colectiva del Hospital de Reabilitação de Anomalias Craniofaciais – Universidade de São Paulo

Correspondencia a:

Ingrid Ivanna Huayta Aguirre

E-Mail:

ivannahuayta@gmail.com

Telefono/Celular:

+591 78885395

Recibido:

7 de Diciembre de 2022

Aceptado:

13 de Septiembre de 2023

scientifica.umsa.bo

Fuentes de Financiamiento

Autofinanciado

Conflicto de Intereses

Los autores declaran no tener conflictos de interés.

maxilar en un individuo con FLPB considerando únicamente la influencia de las cirugías plásticas primarias sin el uso de ningún dispositivo ortopédico prequirúrgico. Para este propósito se evaluaron modelos dentarios digitales antes de cualquier intervención quirúrgica (5 meses de edad) y a los 8 años de edad, antes de la realización del tratamiento ortodóntico-ortopédico.

PRESENTACIÓN DE CASO

Individuo masculino de 3 meses de edad, se presenta al Hospital de Rehabilitación de Anomalías Craneofaciales de la Universidad de Sao Paulo (HRAC-USP) para la realización de examen e inicio de rehabilitación. A la evaluación clínica por parte del servicio de Cirugía Plástica se evidencia la presencia de fisura labiopalatina bilateral, sin presencia de bandeleta de Simonart, la premaxila posee una gran proyección anterior y desvío de importancia para el lado derecho. A los 5 meses de edad, el individuo es sometido a queiloplastia bilateral en un tiempo quirúrgico con la técnica de Spina. Posteriormente, y con la edad de 1 año se realiza la segunda intervención quirúrgica por parte del mismo cirujano, quien ejecuta la palatoplastia anterior y 3 meses después realiza la palatoplastia posterior, como se observa en la **Figura 1**.

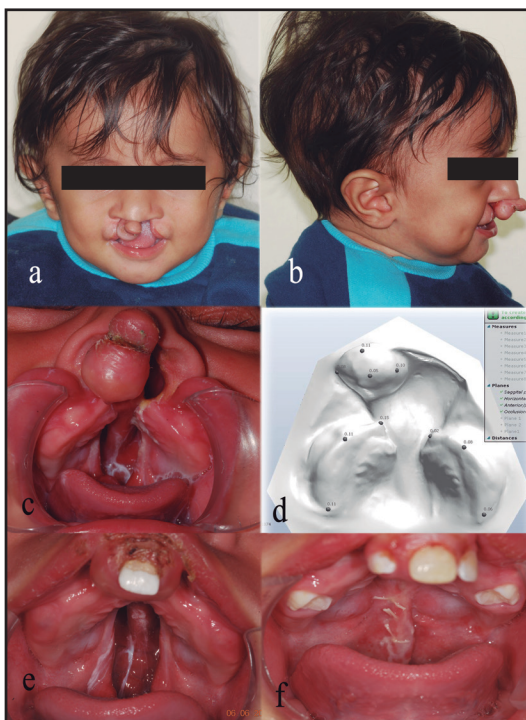


Figura 1. Individuo masculino de 5 meses de edad con fisura labiopalatina bilateral. A y B) premaxila con desvío hacia el lado derecho y marcada proyección anterior de la misma. C) características maxilares iniciales previas a las cirugías primarias. D) modelo dentario maxilar escaneado. E) características intraorales posteriores a la queiloplastia (premaxila centralizada) F) características bucales posteriores a la palatoplastia.

Fueron realizados tres procedimientos quirúrgicos en total y siguiendo el protocolo de la institución, dos días antes de cada intervención quirúrgica se tomaron modelos de documentación del maxilar con el uso de silicona de condensación y fotografías para análisis de resultados y registro. Para la evaluación del crecimiento maxilar se tomó en cuenta únicamente el primer modelo de documentación antes de cualquier intervención quirúrgica a los 5 meses de edad (T0) y el último modelo de documentación realizado al

paciente a los 8 años de edad (T1), siendo estos los únicos disponibles en la institución por razones administrativas. Ambos modelos de documentación fueron escaneados y digitalizados usando un escáner 3D (3Shape's R700TM Scanner, 3Shape, Copenhagen, Denmark) para la generación de modelos digitales disponibles en los archivos de la institución, los que se observan en la **Figura 2**. En la ciudad de La Paz, es posible encontrar el mismo equipo para la digitalización de modelos de estudio, siendo recomendado usar este sistema (escaneamiento del modelo de estudio) por las dificultades que implica hacer el escaneamiento intraoral directamente en un infante de aproximadamente 5 meses, ya que el procedimiento implica la necesidad de que el individuo se mantenga totalmente quieto durante el procedimiento.

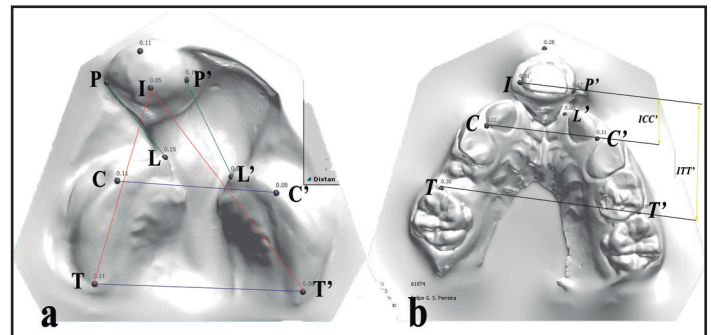


Figura 2. Puntos y medidas de referencia usados en el análisis de modelos digitales. Punto I - punto de la cresta alveolar, o la punta de la papila interincisiva. Punto C - donde el surco lateral cruza la cresta del reborde alveolar, o la punta de la papila interdental entre el canino decíduo y el primer molar decíduo. Punto T - límite posterior de la tuberosidad maxilar, o el punto distal del segundo molar decíduo. Punto L - punto más anterior de la cresta alveolar en el segmento maxilar lateral. Punto P - punto más lateral de la premaxila. Distancias calculadas: CC' - distancia intercanina. TT' - distancia intertuberosidad PL- tamaño de la fisura anterior derecha. P'L' - tamaño de la fisura anterior izquierda. IT - desviación de la premaxila derecha. IT' - desviación de la premaxila izquierda. ICC' - profundidad del arco anterior. ITT' - profundidad total del arco.

Las imágenes reconstruidas fueron analizadas usando el Software OrthoAnalyzer 3D Software (Copenhagen, Denmark) y las medidas realizadas en el maxilar fueron realizadas en los 3 planos del espacio (sagital, vertical y horizontal) directamente en las imágenes escaneadas usando puntos y planos de acuerdo a Seckel et al citado en Fernández⁸ y Mello¹⁰. Fueron realizadas un total de 22 medidas y comparadas entre T0 y T1, como en **Figura 2**, para la evaluación del crecimiento maxilar considerando únicamente la influencia de las cirugías plásticas primarias sin el uso de ningún tipo de dispositivo ortopédico prequirúrgico.

Los resultados comparativos entre T0 y T1 (**Tabla 1**) muestran incremento en la relación transversal posterior a los 8 años, contrariamente a la relación transversal anterior en región de caninos, el mismo que se encuentra levemente disminuido. En relación al plano sagital, los tres planos que lo representan se encuentran disminuidos mostrando el retroposicionamiento de la premaxila. Esto puede complementarse con la única medida vertical que muestra una pequeña diferencia, evidenciando que la premaxila a pesar de haber sido retroposicionada se mantiene levemente intruida en relación a los segmentos maxilares. Los planos referentes a las fisuras en T0 muestran el cierre total de las mismas en T1, con la excepción de la amplitud anterior de la fisura del lado izquierdo que muestra una ligera separación entre el borde anterior del segmento maxilar de ese lado con la premaxila. Comparando el desvío inicial de la premaxila hacia la derecha, el mismo se mantuvo en T1. Finalmente, el área de la premaxila se vio disminuida a la evaluación a los 8 años de edad.

	T0	T1	DIFERENCIA
Distancia intertuberosidad (TT')	33,67	41,8	8,13
Distancia intercaninos (CC')	25,99	23,42	-2,57
Longitud anterior del arco (I-CC')	15,68	9,91	-5,77
Longitud total del arco (I-TT')	32,36	24,16	-8,2
Amplitud anterior de la fisura DERECHA (PL)	15,56	0	-15,56
Amplitud anterior de la fisura IZQUIERDA (P'L')	18,18	3,25	-4,93
Amplitud média de la fisura (Mew)	6,55	0	-6,55
Amplitud posterior de la fisura (Pew)	15,81	0	-15,81
Desvío de la premaxila DERECHA (TI)	33,4	27,53	-5,87
Desvío de la premaxila IZQUIERDA (TT')	41,52	36,6	-4,92
Desvío de la premaxila° (I-mIT-T)	72,1	72,4	0,3
Extrusión de la premaxila (I-POm)	-1,28	-1,74	-0,46
Área de la premaxila	133	120,2	-12,8

Tabla 1. Relación de las medidas realizadas tanto en T0, T1 y la diferencia entre ambas demostrando el crecimiento y desarrollo maxilar posterior a la intervención quirúrgica.

Clínicamente a los 8 años en la **Figura 3** se observa un maxilar superior pequeño en relación con el maxilar inferior, especialmente en la región intercanina, la misma que se encuentra cruzada y con ausencia de espacio para el posicionamiento de 3 dientes faltantes (incisivos laterales superiores y un incisivo superior). La presencia de un único incisivo permanente en la premaxila aún no está esclarecida, siendo que no existen registros de exodoncias en la historia clínica o histórico de trauma dental en el área por parte de la familia. La presencia de tres incisivos deciduos (ausencia del incisivo central izquierdo deciduo) es evidente en los registros fotográficos posteriores a la última palatoplastia.

DISCUSIÓN

Se evaluaron los cambios dimensionales en el maxilar superior en un individuo con FLPB desde la temprana infancia hasta los 8 años de edad sometido únicamente a las cirugías plásticas primarias. Los mismos mostraron un maxilar reducido en casi todos los planos del espacio (excepto la relación transversal posterior) y principalmente un retroposicionamiento de la premaxila. La FLPB se presenta aproximadamente el 25% de todos los casos de fisura labiopalatina no sindrómica¹¹, por tanto, se explica la poca información que se tiene de la misma en el crecimiento comparado con otro tipo de fisuras labiopalatinas, especialmente en acompañamientos longitudinales del mismo individuo.

Plano transversal y sagital

La evaluación del individuo en estudio muestra una relación transversal anterior disminuida (-2.57 mm), contrariamente de la relación transversal posterior que se vio incrementada en 8.13 mm. A pesar que el estudio de Hak7 fue conducido en individuos hasta los 5 años de edad y bajo el uso de la ortopedia prequirúrgica (usando placas de Hotz), los resultados fueron bastante similares. A su vez compara el crecimiento maxilar con el de individuos sin fisura labiopalatina y llega a mostrar que el maxilar en la FLPB se presenta en una etapa inicial, antes de las intervenciones quirúrgicas, aventajado en los tres planos del espacio, pero conforme va pasando el tiempo y a los 5 años de edad el mismo llega a ser más contraído reflejado en un maxilar estrecho y colapsado. Otros estudios confirman el hecho de que el maxilar en la FLPB es mayor en los planos sagital y transversal comparado con individuos sin fisura labiopalatina y que la influencia del reparo del labio (queiloplastia) en el desarrollo del segmento anterior del maxilar es innegable y que puede ser de una influencia mayor que el encontrado en la reparación del paladar.¹²

Características de la premaxila

La proyección de la premaxila puede ser considerada la característica más importante en los individuos con FLPB y su severidad irá a influenciar las medidas sagitales maxilares, así como sus implicaciones clínicas⁹. Comparada con las fisuras labiopalatinas unilaterales (FLPU) todas las medidas sagitales antes y después de las cirugías primarias son mayores en la FLPB y similares resultados pueden encontrarse si comparamos la FLPB con individuos sin fisura labiopalatina⁷. En el presente estudio, ambas medidas sagitales se vieron disminuidas ampliamente, lo que podría estar influenciado también por el volumen de la premaxila y el número de dientes presentes en la misma.

Las piezas dentarias son importantes para el crecimiento, desarrollo del hueso alveolar y la formación de este está estrictamente coordinado con la formación dentaria desde la etapa prenatal¹³, su pérdida prematura o ausencia producirá la reabsorción de las tablas óseas adyacentes o limitar su correcto desarrollo. El sujeto del presente estudio, presenta a los 8 años únicamente el incisivo superior central izquierdo permanente y evaluando registros fotográficos previos, se puede ver la presencia de 3 dientes deciduos en la premaxila cuya anatomía recuerdan a dos incisivos laterales y un único incisivo central deciduos. Al respecto de esto, no existe referencia en la literatura que asocia la presencia de un único incisivo maxilar con el individuo con FLPB. Poco se tiene registrado sobre este tipo de hipodoncia, asociado generalmente a otras anomalías congénitas y defectos cromosomales^{13, 14} como la holoprosencefalia.

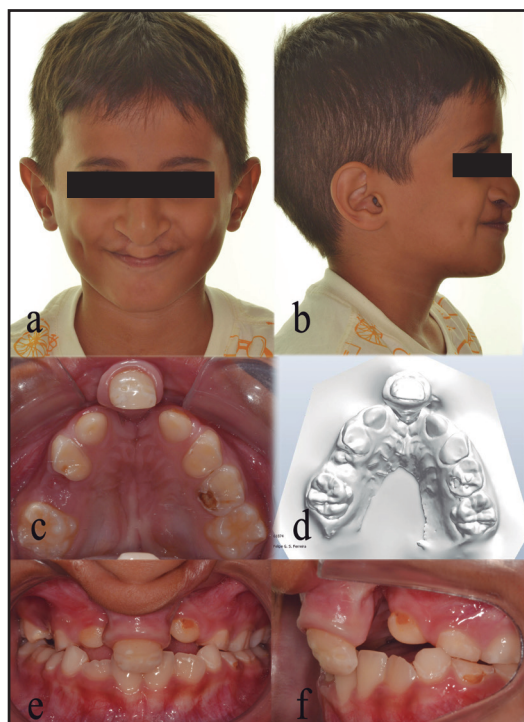


Figura 3. Individuo masculino de 8 años con fisura labiopalatina bilateral posterior a las cirugías plásticas primarias. A y B, muestran apariencia extraoral aceptable. C y F se observa una premaxila centralizada y disminuida en tamaño con la presencia de un único incisivo central superior retroinclinado y levemente mesioangulado. D, imagen escaneada del maxilar superior. E, puede observarse una mordida cruzada anterior por contracción del maxilar.

Las directrices para la medición de crecimiento en individuos con fisura labiopalatina como medio de evaluación de resultados quirúrgicos, fue difundido con éxito por Seckel⁸ y después adaptado para que las mismas puedan ser comparados en el maxilar del infante^{7, 10} donde también podría evaluarse los cambios de la premaxila posterior a las cirugías plásticas primarias. A pesar de observarse la premaxila centralizada, en el modelo en T1, las medidas referentes al desvío maxilar nos muestran un leve desvío hacia la derecha de la premaxila y esto se debe justamente en relación a la presencia de un incisivo único y alteración de la posición del punto I. Comparando visualmente los modelos en T0 y T1 se puede observar una marcada corrección de la posición de la premaxila influenciado únicamente por la queiloplastia, dando como resultado una premaxila más centralizada y un formato de arco más aceptable en T1.

Plano vertical

Para la evaluación del crecimiento maxilar en el sentido vertical, se hizo uso de un plano basal en el modelo desdentado infantil y se usaron los mismos parámetros para la localización de este plano en el modelo dentado del caso de estudio. Los resultados en negativo de esta medida indican que la premaxila se encuentra intruida en T0 y la misma relación se encuentra presente en T1. Este resultado debe tomarse con precaución debido a que la intrusión verdadera de la premaxila puede no verse reflejada en su totalidad, ya que este plano está grandemente influenciado por el plano sagital, siendo que una premaxila proyectada puede presentar intrusión al ser evaluada en relación al plano basal.

CONCLUSIONES

Las cirugías plásticas primarias (queiloplastia y palatoplastia) realizadas en un infante con fisura labiopalatina bilateral provocan la restricción del crecimiento y desarrollo maxilar en los tres planos del espacio, especialmente en el plano transversal y en la región anterior. El retroposicionamiento y centralización de la premaxila, inicialmente proyectada y con una marcada desviación, se realizó sin el uso de ningún tipo de terapia ortopédica prequirúrgica.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Worley ML, Patel KG, Kilpatrick LA. Cleft lip and palate. *Clin Perinatol.* 2018; 45(4): 661-78. Disponible en: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0095510818313927?via%3Dihub>
2. González AP, Arámburo-García R. Anatomical reconstruction in bilateral cleft lip with Mendoza technique. *J Craniofac Surg.* 2018; 29(6): 1452-56. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30015746/>
3. Zhang JX, Arneja JS. Evidence-based medicine: the bilateral cleft lip repair. *Plast Reconstr Surg.* 2017; 140(1): 152-65. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28654616/>
4. Alzain I, Batwa W, Cash A, Murshid AZ. Presurgical cleft lip and palate orthopedics: an overview. *Clin Cosmet Investig Dent.* 2017; 31(9):53-9. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28615974/>
5. Chung KH, Lo LJ. One-Stage versus Two-Stage Repair of Asymmetric Bilateral Cleft Lip: A 20-Year Retrospective Study of Clinical Outcome. *Plast Reconstr Surg.* 2018; 141(5):1215-24. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29351180/>
6. Liu Y, Huang H, Shi B, Wang Y. The influence of lip repair on the growth of craniofacial structures in bilateral cleft lip and palate patients with unoperated palate from childhood to adulthood. *J Craniofac Surg.* 2020; 31(5):1218-22. Disponible en:

https://journals.lww.com/jcraniofacialsurgery/Fulltext/2020/08000/The_Influence_of_Lip_Repair_on_the_Growth_of.13.aspx

7. Hak MS, Sasaguri M, Sulalman FK, et al. Longitudinal study of Hotz's plate and lip adhesion on maxillary growth in bilateral cleft lip and palate patients. *Cleft Palate Craniofac J.* 2012; 49(2): 230-36. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/21801088/>
8. Fernandes V M, Jorge PK, Carrara CFC, et al. Three-dimensional Digital Evaluation of Dental Arches in Infants with Cleft Lip and/or Palate. *Braz. Dent. J.* 2015; 26(3): 297-302. Disponible en: http://www.scielo.br/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0103-64402015000300297&lng=en <http://dx.doi.org/10.1590/0103-6440201300161>.
9. Bitterman GK, Ruiter AP, Janssen NG, et al. Management of premaxilla in the treatment of bilateral cleft of lip and palate: what can the literature tell us?. *Clin Oral Investig.* 2016;20(2):207-17 . Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4762918/>
10. Sakoda KL, Jorge PK, Carrara CFC, Machado MAAM, Valarelli FP, Pinzan A, Oliveira TM. 3D analysis of effects of primary surgeries in cleft lip/palate children during the first two years of life. *Braz Oral Res.* 2017; 31:e46. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28591242/>
11. Yilmaz HN, Ozbilen EO, Ustun T. The prevalence of cleft lip and palate patients: a single-center experience for 17 years. *Turk J Orthod.* 2019; 32(3):139-44. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6756567/>
12. Jaklova L, Borsky J, Jurovcik M, Hoffmannova MC, Dupej J et al. Three-dimensional development of the palate in bilateral orofacial cleft newborns 1 year after early neonatal cheiloplasty: classic and geometric morphometric evaluation. *J Craniomaxillofac Surg.* 2020; 48(4):383-90. Disponible en: <https://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S1010518220300573?via%3Dihub>
13. Rodriguez RG, Cruz LG, Medina YN, Delgado RG, Gonzales JP, Palma CM et al. The solitary median maxillary central incisor (SMMCI) síndrome: Associations, prenatal diagnosis, and outcomes. 2020; 36(9):415-19. Disponible en: <https://obgyn.onlinelibrary.wiley.com/doi/full/10.1002/pd.5451>
14. Mustafa MM, Zakirulla M, AlShahrani I, Togoo RA, Alkahtani Z, Ain TS. Clinical evaluation of solitary median maxillary central incisor syndrome. *Case Re Dent.* 2019; 2019:1-5. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6757353/>