
REZUMATUL TEZEI DE DOCTORAT

Aparatul dento-maxilar și distonia cervicală. Gutiera dentară în tratamentul complex al distoniei.

Doctorand **Camelia Navroțchi**

Conducător de doctorat Prof.dr. **Mîndra Eugenia Badea**



UMF
UNIVERSITATEA DE
MEDICINĂ ȘI FARMACIE
IULIU HAȚIEGANU
CLUJ-NAPOCA

CUPRINS

INTRODUCERE	13
STADIUL ACTUAL AL CUNOAȘTERII	17
1. Distonia	19
1.1. Generalități	19
1.2. Etiopatogenie	19
1.3. Clasificare	20
1.4. Distonia cervicală	21
1.4.1. Definiție, nomenclatură	21
1.4.2. Epidemiologie	21
1.4.3. Diagnostic	22
1.4.4. Caracteristici clinice	22
1.4.5. Tratament	23
1.4.5.1. Medicația orală	24
1.4.5.2. Toxina botulinică	24
1.4.5.3. Tratamentul chirurgical	27
1.4.5.4. Alte terapii în cadrul abordării multidisciplinare a distoniei cervicale	28
1.4.6. Prognostic, evoluție	29
2. Aparatul dento-maxilar și distonia cervicală	31
2.1. Noțiuni de anatomie și fiziologie ale aparatului dento-maxilar	31
2.2. Aparatul dento-maxilar și distonia cervicală	31
3. Gutiera dentară	33
3.1. Definiție, tipuri	33
3.2. Gutiera de stabilizare ocluzală	33
3.3. Gutiera dentară în tratamentul distoniei	34
CONTRIBUȚIA PERSONALĂ	35
1. Ipoteza de lucru/obiective	37
2. Studiul 1 – Date demografice și clinice la un grup de pacienți cu distonie cervicală din România	39
2.1. Introducere	39
2.2. Material și metodă	39
2.3. Rezultate	40
2.4. Discuții	49
2.5. Concluzii	50
3. Studiul 2 – Modificări patologice prezente la nivelul aparatului dento-maxilar la pacienți cu distonie cervicală din România	51
3.1. Introducere	51
3.2. Material și metodă	51
3.3. Rezultate	52
3.4. Discuții	57
4. Studiul 3 - Influența gutierelor de stabilizare ocluzală asupra simptomelor de distonie cervicală	59
4.1. Introducere	59
4.2. Material și metodă	59
4.3. Rezultate	63
4.4. Discuții	64
4.5. Concluzii	67
5. Studiul 4 - Efectele imediate ale gutierelor de stabilizare ocluzală asupra activității electromiografice a mușchilor afectați de distonie cervicală	69
5.1. Introducere	69
5.2. Material și metodă	69
5.3. Rezultate	71
5.4. Discuții	76
5.5. Concluzii	77

6. Studiul 5- Efectele gutierelor de stabilizare ocluzală asupra simptomelor specifice în alte afecțiuni neurologice: sindrom Tourette -prezentare de caz	79
6.1. Introducere	79
6.2. Material și metodă	80
6.3. Rezultate	82
6.4. Discuții	82
7. Concluzii generale	85
8. Originalitatea și contribuțiile inovative ale tezei	87
REFERINȚE	89

Cuvinte cheie: aparat dento-maxilar, distonie cervicală, gutieră de stabilizare ocluzală, relaxare musculară, sindrom Tourette, ticuri.

INTRODUCERE

Prin intermediul articulațiilor dintre ele, atașamentelor musculare, vaselor de sânge și nervilor, aparatul dento-maxilar se află în strânsă legătură cu coloana vertebrală cervicală și cu craniul, formând sistemul cranio-cervico-mandibular. Musculatura aparatului dento-maxilar are raporturi funcționale strânse cu musculatura regiunii cervicale și contribuie la menținerea echilibrului postural al capului.

Modificări la nivelul unui element al sistemului cranio-cervico-mandibular pot cauza modificări în întregul sistem. Principalele tulburări ale sistemului cranio-cervico-mandibular sunt disfuncțiile temporo-mandibulare. Gutierele de stabilizare ocluzală reprezintă cea mai răspândită metodă pentru tratamentul disfuncțiilor temporo-mandibulare. Distonia cervicală este o tulburare neurologică de mișcare, caracterizată de contracții involuntare ale mușchilor gâtului, ce determină mișcări anormale și poziții anormale ale capului, gâtului și umerilor. Etiopatogenia distoniei este incomplet elucidată, tratamentul distoniei cervicale este simptomatic, având ca obiectiv principal îmbunătățirea calității vieții pacientului prin găsirea acelor combinații terapeutice care le oferă pacienților o reducere cât mai eficientă a simptomelor specifice.

CONTRIBUȚIA PERSONALĂ

Studiul 1. Date epidemiologice și clinice la un grup de pacienți cu distonie cervicală din România.

Obiectivele acestui studiu au fost:

- colectarea și analiza de date epidemiologice și clinice de la pacienți diagnosticați cu DC din România;
- evaluarea influenței simptomelor de DC asupra calității vieții participanților la studiu.

Material și metodă

Participanți

Studiul a fost realizat în rândul pacienților cu distonie cervicală din România, recrutarea participanților făcându-se prin intermediul website-ului și rețelei de

socializare a Asociației Pacienților cu Distonie din România. Un chestionar conceput de către noi și validat de o echipă formată dintr-un medic specialist neurolog, un psiholog și un statistician, a fost distribuit on-line prin intermediul website-ului mai sus amintit. Criteriile de includere au fost: diagnostic neurologic de distonie cervicală, rezidență în România. Scopul studiului a fost explicat participanților într-o introducere scrisă la începutul chestionarului, participanții fiind informați de asemenea cu privire la faptul că datele furnizate vor fi confidențiale.

Chestionar

Datele au fost colectate cu ajutorul unui chestionar, care a conținut 5 categorii de întrebări: întrebări cu caracter socio-demografic, întrebări referitoare la diagnosticul și simptomele de distonie cervicală, întrebări referitoare la obiective terapeutice și așteptările pacientului, întrebări despre tratamentele urmate și eficiența lor, întrebări despre factorii care agravează/ameliorează simptomele de boală.

Rezultate

Douăzeci și șase de pacienți cu DC cu vârste cuprinse între 28 și 80 de ani au răspuns la chestionar, dintre care 20 (76,9%) erau de sex feminin și 6 de sex masculin (23,1%). Vârsta medie a participanților la studiu a fost $46,08 \pm 12,11$ ani. Vârsta medie la debutul bolii a fost $37,23 \pm 12,16$ ani, cu un interval mare de vârstă la debut de la 18 ani la 71 ani. Durata medie a bolii a fost $8,73 \pm 5,69$ ani, unii participanți suferind de această afecțiune de puțin timp (1 an), cea mai lungă durată de boală raportată fiind de 19 ani. Majoritatea respondenților trăiesc în mediu urban 23 (88,5%), în timp ce doar 3 pacienți cu DC (11,5%) din mediul rural au răspuns la chestionar. Douăzeci și unu (80,8%) dintre participanți sunt activi profesional, 3 (1,5%) beneficiază de pensie de boală din cauza DC și 2 (7,7%) de pensie de vârstă.

Șaisprezece participanți (61,5%) au declarat că DC a fost primul diagnostic de afecțiune primit, în timp ce 10 participanți (38,5%) raportează că au primit inițial un diagnostic greșit.

Participanții la studiu au indicat ca și obiective terapeutice: relaxarea mușchilor distonici și o poziție normală a capului și gâtului (100%), dispariția durerii (84,6%), o viață socială normală (80,8%), confort crescut la mersul pe jos (84,6%), somn liniștit (57,7%), dispariția tremorului (65,4%).

Dintre factorii care ameliorează simptomatologia bolii, trucul senzorial de atingerea feței sau bărbiei a fost raportat de 18 (69,2%) pacienți, trucul senzorial de poziționarea mâinii la ceafă a fost raportat de toți pacienții, gulerul cervical a fost folosit de 7 (26,9%) pacienți, trucul senzorial de purtarea ochelarilor a fost raportat de 6 (23,1%) pacienți, trucul senzorial de ducere a telefonului mobil la ureche a fost raportat de 9 (34,6%) pacienți, trucul senzorial de purtarea eșarefei la gât a fost folosit de 7 (26,9%) pacienți.

Oboseală fizică a fost raportată ca factor care agravează simptomatologia bolii de 23 (88,5%) pacienți. Stresul emoțional a fost raportat ca factor care agravează simptomatologia bolii de 25 (96,2%) pacienți. Odihna a fost raportată ca factor care ameliorează simptomatologia bolii de 25 (96,2%) pacienți. Alcoolul a fost raportat ca factor care ameliorează simptomatologia bolii de 5 (19,2%) pacienți.

Concluzii

- DC este o boală neurologică rară, subdiagnosticată în România.
- DC afectează semnificativ viața socială a pacienților.

- Debutul bolii este la vârstă adultă cu o medie de vârstă de 37,23± 12,16 ani.
- Prevalența bolii este mai mare la sexul feminin.
- În ciuda dizabilității determinată de simptomele motorii și non-motorii, 80,8% dintre participanții la studiu sunt activi profesional.
- Pacienții cu DC din România au acces la toate metodele terapeutice recomandate în momentul de față în abordarea multidisciplinară a afecțiunii.

Studiul 2. Modificări patologice prezente la nivelul aparatului dento-maxilar la pacienții cu distonie cervicală din România

Acest studiu a avut următoarele obiective:

- descrierea modificărilor patologice prezente la nivelul aparatului dento-maxilar la un grup de pacienți diagnosticați cu DC idiopatică
- identificarea eventualelor modificări patologice specifice determinate de DC la nivelul aparatului dento-maxilar.

Material și metodă

Pacienții au fost recrutați din trei Clinici de Neurologie din Cluj-Napoca, București și Timișoara, în perioada iulie 2016 și martie 2017. Criteriile de includere au fost: diagnostic neurologic de distonie cervicală idiopatică, stabilit de medici specialiști neurologi. Pacienții care prezentau o altă boală neurologică au fost excluși. 11 pacienți cu vârste cuprinse între 29 și 80 ani, șapte femei și patru bărbați, au fost incluși în studiu.

Pacienții au fost examinați clinic la nivelul aparatului dento-maxilar în Cabinetul de Medicină Dentară Camelia Navroțchi. Radiografiile dentare (ortopantomografie și teleradiografie de profil), examenul imagistic al articulațiilor temporo-mandibulare, examenul fotostatic și înregistrările video au completat examinarea clinică. S-a realizat amprentarea arcadelor dentare, înregistrarea relației centrice, înregistrarea poziției maxilarului superior cu arcul facial și montarea modelelor în articulatorul tip Artex CPR (Amann Girrbach). De asemenea, pacienții au completat un chestionar referitor la starea de sănătate generală (chestionarul standard recomandat de Colegiul Medicilor Dentiști din România).

În urma analizei datelor obținute prin examinările mai sus menționate am stabilit pentru fiecare pacient un diagnostic odontal, de edentație, de ocluzie, chirurgical, parodontal, al afecțiunilor articulației temporo-mandibulare, ortodontic.

Analiza cefalometrică a sistemului cranio-cervico-mandibular a urmărit curbura coloanei vertebrale cervicale: curbura normală = lordoză cervicală, modificări patologice: coloană cervicală dreaptă, cifoză cervicală.

Rezultate

Examenul clinic exo-oral a evidențiat poziția distonică a pacienților.

Analiza aparatului dento-maxilar la pacienții cu distonie cervicală studiată a identificat: toți pacienții prezentau edentații (număr dinți absenți de la 2-21 dinți); edentațiile prezente erau parțial protezate; 7 pacienți prezentau carii dentare; toți pacienții prezentau fațete de abraziere la nivelul dinților sau a coroanelor de înveliș (între 5-18 dinți cu fațete de abraziere); 6 pacienți prezentau dinți care nu se mai pot recupera prin tratament stomatologic; ocluzia în intercuspidare maximă prezenta modificări patologice la toți pacienții; în mișcările de propulsie și lateralitate toți pacienții prezentau interferențe active și pasive.

Din punct de vedere ortodontic am identificat: ocluzie adâncă acoperită, maxilar îngust cu protruzie și înghesuire, dizarmonie dento-maxilară cu înghesuire, ocluzie deschisă, laterodeviere mandibulară funcțională, ocluzie încrucișată, ocluzie adâncă în acoperiș.

3 pacienți prezentau patologii chirurgicale: sinuzită maxilară cronică bilaterală, chist de retenție sinusul maxilar drept, respectiv granulom periapical.

Din punct de vedere parodontal: 8 pacienți prezintă gingivită marginală cronică generalizată, 5 pacienți au grade variabile de atrofi osoasă.

La nivelul articulațiilor temporo-mandibulare (ATM): 6 pacienți prezentau ATM bilateral în limite normale; 2 pacienți au fost diagnosticați cu disfuncție temporo-mandibulară; la 2 pacienți erau prezente modificări artrozice incipiente la nivelul condililor mandibulari, fără semne sau simptome clinice de disfuncție temporo-mandibulară; un pacient prezenta deplasări discale antero-laterale totale, nereductibile în ATM bilateral, cu modificări degenerative osoase temporale și condiliene, fără semne sau simptome clinice de disfuncție temporo-mandibulară.

Analiza cefalometrică a sistemului cranio-cervico-mandibular a identificat prezența lordozei cervicale la 10 pacienți și o coloană cervicală dreaptă la un pacient.

Concluzii

Patologia aparatului dento-maxilar la pacienții cu DC nu este una specifică, determinată de prezența afecțiune neurologice.

Studiul 3. Influența gutierelor de stabilizare ocluzală asupra simptomelor de distonie cervicală

Scopul acestui studiu a fost de a evalua pe termen scurt și lung eficiența terapeutică a GSO asupra simptomelor de DC.

Material și metodă

Studiul a fost intervențional, analitic, longitudinal, prospectiv și de cohortă.

Criteriile de includere au fost: diagnostic neurologic de distonie cervicală idiopatică, stabilit de medici specialiști neurologi. Pacienții care prezentau o altă boală neurologică au fost excluși. 11 pacienți cu vârste cuprinse între 29 și 80 ani, șapte femei și patru bărbați, au fost incluși în studiu.

Am examinat clinic pacienții la nivelul aparatului dento-maxilar. Radiografiile dentare (ortopantomografie și teleradiografie de profil) și examenul imagistic al articulațiilor temporo-mandibulare au completat datele clinice privind patologia aparatului dento-maxilar.

Pentru realizarea gutierei de stabilizare ocluzală am amprentat arcadele dentare și am înregistrat relația centrică și poziția maxilarului superior cu arcul facial la fiecare pacient. Modelele au fost montate în articulatorul Artex CR (Amann Girrbach) într-un laborator dentar privat (Ortoclastic). Pentru fiecare pacient a fost realizată o gutiere de stabilizare ocluzală, de către același tehnician dentar cu experiență, utilizând tehnicile descrise de Okeson.

Gutiera de stabilizare ocluzală a fost realizată din acrilat dur transparent (Ortocryl, Dentaurem), la nivelul arcadei dentare superioare sau inferioare, în funcție de situația clinică a arcadei dentare ale fiecărui pacient, cu retenție dublă: prin fricțiune și două croșete de sârmă tip Stahl.

Gutiera de stabilizare ocluzală a fost realizată cu suprafața ocluzală plană, contacte stabile și uniforme cu dinții arcadei opuse și ghidajele în mișcările de protruzie și lateralitate ale mandibulei funcționalizate.

Designul obișnuit într-o singură piesă a gutierei de stabilizare ocluzală a fost modificat: gutiera a fost secționată distal de canini, astfel încât au rezultat trei fragmente: unul anterior (de la canin la canin) și două fragmente laterale.

Pacienții au primit instrucțiuni pentru purtarea gutierei timp de 24 de ore după cum urmează: fragmentele laterale în timpul zilei, fragmentul anterior în timpul nopții și îndepărtarea gutierei în timpul realizării igienei dentare. Acest tip de purtare a fost conceput pentru a facilita confortul pacientului în timpul activităților zilnice, fonației și masticației. Pentru a preveni extruzia dinților frontali și/sau intruzia dinților posteriori, fragmentul anterior a fost purtat singur pe timpul nopții. În timpul purtării gutierei de stabilizare ocluzală timp de 24 de ore, toți pacienții studiați nu erau sub influența toxinei botulinice, ultima injecție cu toxină botulinică fiind realizată cu cel puțin trei luni înainte, interval de timp în care efectele toxinei botulinice dispar.

Pacienții au completat un chestionar, care a evaluat efectele purtării pe o perioadă de 24 de ore asupra simptomelor de distonie cervicală. Chestionarul a inclus întrebări referitoare la: durata purtării aparatului, efectele asupra simptomelor de distonie cervicală, dificultățile legate de purtarea gutierei de stabilizare ocluzală, efectele secundare și alte observații.

Pacienții au păstrat gutiera, iar după trei luni au completat chestionarul încă o dată. Pe lângă întrebările anterioare, pacienții au fost chestionați despre frecvența utilizării gutierei, motivele pentru continuarea/întreruperea utilizării gutierei, simptomele de distonie cervicală și tratamente folosite pentru gestionarea bolii.

Rezultate

Rezultatele după 24 de ore de utilizare a gutierei de stabilizare ocluzală sunt descrise în tabelul IV. Toți pacienții au raportat dificultăți în timpul masticației și au eliminat gutiera în timpul meselor. Efecte secundare tranzitorii au fost raportate de trei pacienți: disconfort la nivelul suprafețelor laterale ale limbii, senzația de greață, respectiv dinți sensibili.

Tabelul IV. Rezultatele după 24 de ore de utilizare a gutierei de stabilizare ocluzală

Variabila	Descriere
Timpul de purtare al GSO pentru primele 24 de ore (medie ± deviație standard)	19.2±6
Aplicarea GSO pe arcada superioară/inferioară	Arcada inferioară (număr (%)) 3 (27.3%) Arcada superioară (număr (%)) 8 (72.7%)
Relaxare totală a mușchilor distonici (număr (%))	9 (81.8%)
Relaxare parțială a mușchilor (număr (%))	2 (18.8%)
Scăderea durerii (număr (%))	7 (63.6%)
Creșterea confortului în timpul mersului (număr (%))	8 (72.7%)
Creșterea calității somnului (număr (%))	2 (18.8%)
Dispariția tremorului (număr (%))	2 (18.8%)

Tabelul V. Evoluția simptomelor la trei luni

Variabila	După 24 h	După 3 luni	p
Reducerea durerii (număr (%))	4 (57.1%)	5 (71.4%)	0.5
Relaxarea mușchilor distonici (număr (%))	6 (85.7%)	7 (100%)	0.3

Calitatea somnului mai bună (număr (%))	2 (28.5%)	2 (28.5%)	1
Dispariția tremorului (număr (%))	1 (14.2%)	1 (14.2%)	1
Confort sporit în mers (număr (%))	6 (85.7%)	2 (28.5%)	0.04

Concluzii

Rezultatele noastre arată că modificările produse de gutiera de stabilizare ocluzală la nivelul aparatului dento-maxilar al pacienților au redus simptomele distonice, severitatea durerii și au îmbunătățit calitatea somnului și confortul în timpul mersului pe termen scurt și lung. Utilizarea gutierei de stabilizare ocluzală ar putea fi benefică în cazul pacienților cu distonie cervicală într-o abordare multidisciplinară a tratamentului distonie cervicală.

Studiul 4. Efectele imediate ale gutierelor de stabilizare ocluzală asupra activității electromiografice a mușchilor afectați de distonie cervicală

Scopul acestui studiu a fost de a analiza efectele imediate ale gutierei de stabilizare ocluzală asupra activității electromiografice a mușchilor afectați de distonie cervicală. De asemenea, am evaluat mai mulți factori care ar fi putut modifica răspunsul electromiografic.

Material și metodă

11 pacienți cu vârste cuprinse între 29 și 80 ani, șapte femei și patru bărbați, cu diagnosticul neurologic de distonie cervicală idiopatică, au fost examinați din punct de vedere stomatologic și fiecărui pacient i s-a confecționat o gutieră de stabilizare ocluzală.

Activitatea electrică a mușchilor afectați de distonie cervicală a fost înregistrată într-un cabinet privat de neurologie, prin electromiografie cu ac, utilizând electromiograful NeuroSoft cu două canale. Am folosit ace de unică folosință bipolare, tip SEI de 25 mm. Înainte de EMG, în cabinetul stomatologic a fost realizată o ședință de control a gutierei de stabilizare ocluzală, iar pacienții au fost instruiți să aplice și să scoată aparatul de pe arcadele dentare.

Pacienții au fost așezați confortabil într-un scaun ergonomic într-o poziție relaxată, cu spatele la electromiograf. Selectarea mușchiului care urma să fie investigat electromiografic s-a bazat pe: simptomele pacientului, adică, ce mușchi a simțit că este cel mai contractat în acel moment în zona cervicală; palparea clinică a mușchilor cervicali de către examinator; istoricul medical al pacientului referitor la dozele și mușchii injectați cu toxină botulinică. În momentul realizării electromiografiilor, toți pacienții studiați nu erau sub influența toxinei botulinice, ultima injectare cu toxină botulinică fiind realizată cu cel puțin trei luni înainte, interval de timp în care efectele toxinei botulinice dispar.

S-a efectuat o înregistrare de 20 secunde a activității electrice a mușchiului selectat, cu mandibula în poziție de repaus, după care pacientul, fără a schimba poziția în scaunul examinator, a aplicat gutiera de stabilizare ocluzală pe arcada dentară, a mușcat pe gutieră și a rămas în această poziție timp de zece minute. Acul a fost ținut nemișcat în mușchiul examinat în acest timp de către examinator, pentru a nu modifica locul de înregistrare electromiografică. După 10 minute, a fost efectuată o a doua înregistrare a activității electrice a mușchiului examinat, cu gutiera în cavitatea orală, în poziția de repaus a mandibulei.

Am analizat activitatea spontană a mușchilor examinați, adică prezența, amplitudinea și frecvența undelor pozitive și fibrilațiilor.

Rezultate

Mușchiul examinat a fost mușchiul trapez stâng la 6 pacienți, mușchiul trapez drept la 4 pacienți și mușchiul splenius capitis stâng la un pacient.

Analiza EMG înainte și în timpul utilizării GSO a arătat o reducere semnificativă a amplitudinii și frecvenței undelor pozitive și fibrilațiilor. Anterior purtării gutierei la 5 (45,5%) pacienți s-au înregistrat între 1-6 unde pozitive pe secundă, la 4 (36,4%) pacienți între 6-12 unde pozitive pe secundă, iar la 2 (18,2%) pacienți între 12-18 unde pozitive pe secundă. După aplicarea gutierei la 4 (36,4%) pacienți nu s-au înregistrat unde pozitive, la 6 (54,5%) pacienți s-au înregistrat între 1-6 unde pozitive pe secundă, iar la 1 (9,1%) pacient s-au înregistrat între 6-12 unde pozitive pe secundă. Diferența a fost semnificativă statistic ($p=0,008$).

Anterior purtării gutierei la 4 (36,4%) pacienți nu s-au înregistrat fibrilații, la 5 (45,5%) pacienți s-au înregistrat între 1-6 fibrilații pe secundă, iar la 2 (18,2%) pacienți între 6-12 fibrilații pe secundă. După aplicarea gutierei la 6 (54,4%) pacienți nu s-au înregistrat fibrilații, iar la 5 (45,5%) pacienți s-au înregistrat între 1-6 fibrilații pe secundă. Diferența a fost semnificativă statistic ($p=0,04$).

Concluzii

Modificările temporare în ocluzia pacienților produse de GSO au influențat activitatea electrică a mușchilor cervicali distonici, și anume au redus frecvența și amplitudinea undelor pozitive și fibrilațiilor inițiale.

Studiul 5. Efectele gutierelor de stabilizare ocluzală asupra simptomelor specifice în alte afecțiuni neurologice: prezentare caz sindrom Tourette.

Sindromul Tourette este o tulburare neurologică și comportamentală caracterizată de ticuri motorii și vocale cu debut în copilărie sau adolescență. Ticurile pot fi simple sau complexe.

Marea majoritate a persoanelor cu sindrom Tourette prezintă un anumit disconfort sau senzație de presiune înainte de apariția unui tic - fie focală și specifică unei anumite regiuni anatomice sau mai generalizate - numită "urgență premonitoare", care tinde să se intensifice înainte de apariția ticului și este, de obicei, atenuată temporar odată ce persoana efectuează ticul.

Ipoteza de lucru

În literatura de specialitate sunt raportate mai multe cazuri diagnosticate cu sindrom Tourette, la care aplicarea unui dispozitiv, numit Neurocranio Vertical Distractor a determinat imediat după aplicarea lui în cavitatea bucală o încetare a senzației de urgență premonitoare și a ticurilor caracteristice. Neurocranio Vertical Distractor este un aparat dentar mobilizabil, într-o singură bucată, care permite contactul dinților celor două arcade doar la nivelul dinților posteriori și are ca mecanism de acțiune re poziționarea mandibulei față de baza craniului spre o poziție corectă anatomică.

Această premisă a stat la baza studiului de față, care are drept scop evaluarea efectelor imediate ale GSO asupra simptomelor caracteristice din ST.

Material și metodă

Un pacient în vârstă de 23 de ani, diagnosticat neurologic cu sindrom Tourette m-a contactat prin intermediul Asociației Pacienților cu Distonie din România, în vederea realizării unei GSO pentru prezenta afecțiune. Pacientul, informat asupra protocolului de cercetare al studiului și-a dat acordul scris în consimțământul informat al pacientului (inclusiv referitor la fotografierea și înregistrarea video a examinărilor).

Istoricul afecțiunii

Afecțiunea neurologică prezentă a debutat în jurul vârstei de 18 ani cu apariția unor ticuri motorii faciale: clipit des, mișcări involuntare al aripioarelor nazale, grimase faciale. Primele diagnostice primite au fost de: anxietate și nevroză anxioasă, fiind tratat cu medicație orală antidepresivă. După doi ani de la debutul bolii a fost diagnosticat cu sindrom Tourette, urmând tratament medicamentos cu Haloperidol, Risperidonă. Datorită efectelor adverse apărute (somnolență, oboseală), pacientul întrerupe tratamentul medicamentos. Pentru a-și ameliora simptomele de boală, pacientul a încercat și un tratament homeopatic, care nu a avut efecte.

Din *Chestionarul privind istoricul afecțiunii*, pe care pacientul l-a completat înainte de începerea examinărilor clinice am notat modul în care boala a afectat viața pacientului: ticuri la nivel facial, dispoziție proastă, anxietate, afectarea capacității de a conduce mașina, a capacității de muncă, afectarea vieții sociale. Pacientul notează că oboseala, stresul emoțional, frica și foamea îi agravează simptomele de boală.

Rezultate

Aplicarea gutierei de stabilizare ocluzală la pacientul cu sindrom Tourette a produs o încetare imediată (15 secunde) a tuturor ticurilor prezente și a senzației de urgență premonitorie. Aceste efecte au fost obținute atât cu toate cele trei fragmente ale gutierei aplicate, cât și doar cu cele două fragmente laterale. Îndepărtarea gutierei din cavitatea bucală a determinat reapariția simptomelor după 30 secunde.

Concluzii

Cazul prezentat este al unui pacient tânăr, în vârstă de 23 ani, la care Sindromul Tourette a debutat la vârsta de 18 ani.

Tulburările neurologice în care apar ticuri debutează la vârsta copilăriei. Totuși, în literatura de specialitate există relatări despre ticuri cu debut la adult. Ticurile pot fi clasificate ca primare sau secundare, acestea din urmă fiind grupul mai mare identificat la adulți. Ticurile primare sau idiopatice care apar la maturitate constituie un subset de tulburări neurologice, ale căror caracteristici epidemiologice și clinice sunt mai puțin cunoscute: apar în mod predominant la bărbați, frecvent sunt atât motorii, cât și fonice la același individ și sunt caracterizate de un răspuns slab la tratament.

PhD Thesis abstract

The masticatory system and the cervical dystonia. The occlusal appliance in the complex treatment of the dystonia.

PhD Candidate **Camelia Navroțchi**

PhD Advisor **Prof.dr. Mîndra Eugenia Badea**



UMF
UNIVERSITATEA DE
MEDICINĂ ȘI FARMACIE
IULIU HAȚIEGANU
CLUJ-NAPOCA

TABLE OF CONTENTS

INTRODUCTION	13
Current state of knowledge	17
1. Dystonia	19
1.1. General knowledge	19
1.2. Etiopathogenesis	19
1.3. Classification	20
1.4. Cervical dystonia	21
1.4.1. Definition, terminology	21
1.4.2. Epidemiology	21
1.4.3. Diagnosis	22
1.4.4. Clinical features	22
1.4.5. Treatment	23
1.4.5.1. Oral medication	24
1.4.5.2. Botulinum toxin	24
1.4.5.3. Surgical treatment	27
1.4.5.4. Other therapies within the multidisciplinary approach of cervical dystonia	28
1.4.6. Prognosis, evolution	29
2. The masticatory system and the cervical dystonia	31
2.1. Anatomy and physiology of the masticatory system	31
2.2. The masticatory system and the cervical dystonia	31
3. The occlusal appliance	33
3.1. Definition, types	33
3.2. The occlusal stabilization appliance	33
3.3. The occlusal appliance in the treatment of the dystonias	34
PERSONAL CONTRIBUTION	35
1. The working hypothesis/objectives	37
2. Study 1 – Epidemiological and clinical data in a group of patients with cervical dystonia in Romania	39
2.1. Introduction	39
2.2. Material and method	39
2.3. Results	40
2.4. Discussions	49
2.5. Conclusions	50
3. Study 2 – The pathological changes present in the masticatory system in patients with cervical dystonia from Romania	51
3.1. Introduction	51
3.2. Material and method	51
3.3. Results	52
3.4. Discussions	57
4. Study 3 - The influence of occlusal stabilization appliances on cervical dystonia symptoms	59
4.1. Introduction	59
4.2. Material and method	59
4.3. Results	63
4.4. Discussions	64
4.5. Conclusions	67
5. Study 4 - Electromyographic study on the effects of an occlusal stabilization appliance on cervical dystonia-affected muscles	69
5.1. Introduction	69
5.2. Material and method	69
5.3. Results	71

5.4. Discussions	76
5.5. Conclusions	77
6. Study 5- Effects of occlusal stabilization appliances on specific symptoms in other neurological disorders: Tourette's syndrome case presentation	79
6.1. Introduction	79
6.2. Material and method	80
6.3. Results	82
6.4. Discussions	82
7. General conclusions	85
8. Originality and innovative contributions of the thesis	87
References	89

Key words: masticatory system, cervical dystonia, occlusal stabilization appliance, muscle relaxation, Tourette's syndrome, tics.

INTRODUCTION

Through muscles attachments, the joints between them, blood vessels and nerves the stomatognathic system, also called masticatory system is in tight connection with the cervical spine and the skull, thus forming the cranio-cervico-mandibular system. The masticatory muscles have tight functional relationships with the muscles of the adjacent regions in maintaining the postural balance of the head.

Changes in one element of the cranio-cervico-mandibular system may cause changes throughout the whole system. The main disorders of the cranio-cervico-mandibular system are temporomandibular dysfunctions. The occlusal stabilization appliances are the most widespread method for the treatment of temporomandibular dysfunctions.

Cervical dystonia is a neurological movement disorder, characterized by sustained involuntary contractions of the neck muscles, which determine abnormal movements and positions of the head, neck and shoulders. The etiopathogenesis of dystonia is incompletely elucidated, therefore treatment of cervical dystonia is symptomatic, with the primary objective of improving the quality of life of the patient, by finding those therapeutic combinations that give patients a more effective reduction of their specific symptoms.

PERSONAL CONTRIBUTION

Study 1. Epidemiological and clinical data in a group of patients with cervical dystonia in Romania.

The objectives of this study were:

- a. collecting and analyzing epidemiological and clinical data from patients from Romania, diagnosed with cervical dystonia;
- b. assessing the influence of cervical dystonia symptoms on the quality of life of the study participants.

Material and method

Participants

The study was conducted amongst patients with cervical dystonia from Romania by recruiting the participants through the website and social networking of the Association of Patients with Dystonia from Romania. A questionnaire designed by us and validated by a team consisting of a neurologist, a psychologist and a statistician, has been distributed online through the website mentioned above.

The inclusion criteria were: neurological diagnosis of cervical dystonia, residency in Romania.

The purpose of the study was explained to the participants in a written introduction at the beginning of the questionnaire, and the participants were also informed that the data provided by them are confidential.

Questionnaire

The data were collected using a questionnaire containing 5 categories of questions: socio-demographic questions, questions about the diagnosis and symptoms of cervical dystonia, questions about the therapeutic goals and expectations of the patient, questions about the treatments followed and their effectiveness, questions about the factors that aggravate / ameliorate the symptoms of the disease.

Results

Twenty-six cervical dystonia patients aged between 28-80 responded to the questionnaire, out of which 20 (76.9%) were females and 6 males (23.1%). The mean age of the study participants was 46.08 ± 12.11 years. The mean age at disease onset was 37.23 ± 12.16 years, with a large starting age at baseline from 18 years to 71 years. The mean duration of the disease was 8.73 ± 5.69 years, with some participants suffering from this condition for a short time (1 year), with the longest disease duration reported being 19 years.

The majority of respondents (23 (88.5%)) live in the urban environment, while only 3 patients with cervical dystonia (11.5%) living in the rural area, responded to the questionnaire. Twenty-one (80.8%) of the participants are professionally active. Sixteen participants (61.5%) reported that cervical dystonia was the first diagnosis received, while 10 participants (38.5%) report having initially received a wrong diagnosis. Study participants indicated following treatment objectives: relaxation of dystonic muscles and normal head and neck position (100%), pain relief (84.6%), normal social life (80.8%), increased comfort while walking (84.6%), quiet sleep (57.7%), tremor disappearance (65.4%).

Of the factors that ameliorate the symptomatology of the disease, 18 (69.2%) patients use the sensory trick of touching the face or chin, the sensory trick of positioning the hand to the backhead was used by all patients, the cervical collar was used by 7 (9%) patients, 6 (23.1%) patients used the sensory trick of wearing glasses, 9 (34.6%) patients used the sensory trick to put the mobile phone to the ear, the sensory trick of wearing a scarf around the neck was used by 7 (26.9%) patients.

Physical fatigue has been reported as a factor that aggravates the disease symptomatology by 23 (88.5%) patients. Emotional stress has been reported as a factor that aggravates the disease symptomatology by 25 (96.2%) patients. Rest has been reported as a factor that ameliorates the symptoms by 25 (96.2%) patients.

Alcohol has been reported as a factor that ameliorates the disease symptomatology by 5 (19.2%) patients.

Conclusions

- Cervical dystonia is a rare neurological disease, underdiagnosed in Romania.
- Cervical dystonia significantly affects the social life of the patients.
- The onset of the disease is at an adult age with a mean age of 37.23 ± 12.16 years.
- The prevalence of the disease is higher in females.
- Despite the disability caused by the motor and non-motor symptoms, 80.8% of this study participants are professionally active.
- Cervical dystonia patients from Romania have access to all the therapeutic methods currently recommended in the multidisciplinary approach of the disease.

Study 2. The pathological changes present in the masticatory system in patients with cervical dystonia from Romania

This study had the following objectives:

- description of pathological changes present in the masticatory system in a group of patients diagnosed with idiopathic cervical dystonia
- identifying possible pathological changes determined by the cervical dystonia at the level of the masticatory system.

Material and method

Patients were recruited from three Neurology Clinics in Cluj-Napoca, Bucharest and Timișoara between July 2016 and March 2017. The inclusion criteria were: neurological diagnosis of idiopathic cervical dystonia, established by neurologists. Patients with another neurological disease were excluded. 11 patients aged between 29 and 80, seven women and four men were enrolled in the study.

The patients were clinically examined at the level of the masticatory system in Camelia Navroțchi's Dental Office. Dental x-rays (panoramic and lateral cephalometric x-ray), temporomandibular joints imaging examination, photostatic examination, and video recordings completed the clinical examination. Dental impressions, centric relation recordings, upper jaw position recordings with facial bow, and mounting the models in the Artex CPR articulator (Amann Girschbach) were performed.

The patients also completed a general health questionnaire (the standard questionnaire recommended by the College of Dentists in Romania).

Following analysis of the data obtained from the above mentioned examinations, we have established for each patient a odontal, edentulous, occlusion, surgical, periodontal, temporomandibular and orthodontic diagnosis.

Cephalometric analysis of the cranio-cervico-mandibular system followed the curvature of the cervical spine: normal curvature = cervical lordosis, pathological changes: straight cervical spine, kyphosis.

Results

The extraoral clinical examination revealed the patient's dystonic posture.

Analysis of the masticatory system in the patients with cervical dystonia identified: all patients presented missing teeth (number of missing teeth from 2 to 21 teeth); present edentations were partially restored; 7 patients presented dental cavities; all of the patients had abrasion facets on their natural teeth or the crowns (between 5-18 teeth

with abrasion facets); six patients had teeth that could not be recovered with dental treatment; maximum intercuspation occlusion presented pathological changes in all patients; protrusion and lateral movements of the mandible presented interferences in all patients.

From the orthodontic point of view, we identified: deep bite, narrow maxilla with protrusion and crowding, dento-maxillary disharmony with crowding, open bite, cross bite.

3 patients had surgical pathology: chronic bilateral maxillary sinusitis, right maxillary sinus retention cyst, periapical granuloma.

From a periodontal point of view: 8 patients have generalized chronic marginal gingivitis, 5 patients have varying degrees of bone atrophy.

At the level of the temporomandibular joints: 6 patients have healthy joints; 2 patients were diagnosed with temporomandibular disorder; 2 patients presented MRI detected incipient condyle surface remodelling arthrosis changes, without clinical signs or symptoms of temporomandibular dysfunction; one patient had MRI detected total anterior-lateral disc displacement, in both TMJs, with temporal and condylar degenerative bone changes, without clinical signs or symptoms of temporomandibular dysfunction.

Cephalometric analysis of the cranio-cervico-mandibular system identified the presence of cervical lordosis in 10 patients and a straight cervical spine in one patient.

Conclusions

The pathology of the masticatory system in patients with cervical dystonia is not a specific one, determined by the present neurological disorder.

Study 3. The influence of occlusal stabilization appliances on cervical dystonia symptoms

The purpose of this study was to evaluate in the short and long term the therapeutic effectiveness of occlusal stabilization appliances (OSA) on cervical dystonia symptoms.

Material and method

The study was interventional, analytic, longitudinal, prospective, and cohort.

The study included 11 patients aged between 29 and 80 years, 7 women and 4 men, diagnosed with primary CD. The patients were recruited from those examined in three Clinics of Neurology from: Cluj-Napoca, București, Timișoara from Romania, between July 2016 to March 2017. Patients presenting with another neurological condition were excluded. All patients signed the informed consent before participating in the study.

We have clinically examined the patients at the level of the masticatory system. Dental x-rays (panoramic and lateral cephalometric x-ray) and temporomandibular joints MRI were performed for each patient in order to complete the clinical data on the dento-maxillary pathology, regarding the odontal, edentulous, occlusion, surgical, orthodontic, periodontal and temporomandibular joints condition.

In order to manufacture the OSA, we took dental impressions and recorded the centric relationship and the position of the upper jaw with the facial bow in each patient. The casts were mounted on the Artex CR articulator (Amann Girrbach) in a private

dental laboratory (Ortoclasic Lab). A standardized OSA was manufactured for each patient by the same experienced dental technician, using the established techniques described by Okeson. The OSA was made from hard transparent acrylic (Orthocryl, Dentaureum), in the upper or lower jaw, depending on the clinical situation of each patient's dental arches, with double retention: through friction and two Stahl wire hooks. The OSA had a flat occlusal surface, stable and even contacts with the teeth of the opposing arch and functionalized guidance in the protrusive and lateral movements of the mandible. We modified the usual one piece design of the OSA into a three piece appliance, by cutting it distal to the canines, so that three pieces resulted: one anterior (from canine to canine), and two laterals.

Patients received instructions for wearing the OSA for 24 hours as follows: the lateral pieces during the day, the anterior piece during the night, removal of the appliance during dental hygiene. This type of wearing was designed to facilitate patient comfort during daily activities, speaking and mastication. To prevent extrusion of anterior teeth and/or intrusion of posterior teeth, the anterior piece was worn alone at night. At the time of wearing the OSA for 24 hours, all patients were at least 3 months apart from the last botulinum toxin injection.

Patients filled a questionnaire designed by us, that evaluated the effects of wearing the OSA over a 24 hours' period of time on the symptoms of CD. The questionnaire included questions about: the duration of wearing the appliance, effects on the dystonia symptoms, difficulties in wearing the appliance, side effects, and other observations.

The patients kept the dental appliances, and after three months they completed the questionnaire one more time. Besides the prior questions, we inquired about frequency of the usage of OSA, reasons for continuing/discontinuing the use of OSA, symptoms of CD and management of the disease.

Results

The results of the questionnaire after 24 hours of OSA use are described in table IV. All patients reported difficulties while eating and removed the OSA during meals. Transient side effects were reported by three patients: discomfort at the lateral surfaces of the tongue, nausea, sensitive teeth.

Table IV. Results after 24 hours of occlusal stabilization appliance

Variable	Description
The OSA wearing time for the first 24 hours (mean±standard deviation)	19.2±6
OSA application	Lower arch (number (%))
	Upper arch (number (%))
Total relaxation of dystonic muscle (number (%))	9 (81.8%)
Partial muscle relaxation (number (%))	2 (18.8%)
Pain decrease (number (%))	7 (63.6%)
Increased comfort while walking (number (%))	8 (72.7%)
Increase in sleep quality (number (%))	2 (18.8%)
Disappearance of tremor (number(%))	2 (18.8%)

Table V. Evolution of symptoms at three months

Variable	After 24 h	After 3 months	p
Pain decrease (number (%))	4 (57.1%)	5 (71.4%)	0.5

Relaxation of dystonic muscle (number (%))	6 (85.7%)	7 (100%)	0.3
Increase in sleep quality (number (%))	2 (28.5%)	2 (28.5%)	1
Disappearance of tremor (number (%))	1 (14.2%)	1 (14.2%)	1
Increase comfort while walking (number (%))	6 (85.7%)	2 (28.5%)	0.04

Conclusions

Our results show that changes at the level of the masticatory system of the patients produced by the occlusal stabilization appliance reduced the dystonic symptoms, pain severity and improved the quality of sleep and the comfort while walking on short and long term. The use of the occlusal stabilization appliance might be beneficial in patients with cervical dystonia in a multidisciplinary treatment approach of the disease.

Study 4. Electromyographic study on the effects of an occlusal stabilization appliance on cervical dystonia-affected muscles

The aim of this study was to analyze the immediate effects of an occlusal stabilization appliance (OSA) on the electromyographic activity of the muscles affected in CD. We also evaluated several factors that could have modified the electromyographic response.

Material and method

11 patients aged between 29 and 80 years, seven women and four men with a neurological diagnosis of idiopathic cervical dystonia were examined from a dental point of view and each patient received an occlusal stabilization appliance.

The electrical activity of the muscles affected by CD was recorded in a private neurology practice by needle EMG using the two-channel NeuroSoft electromyograph. We used 25 mm SEI type bipolar disposable needles. Prior to the EMG, a check-up session was conducted in the dental office and the patients were trained to apply and remove the appliance from the dental arches.

The patients were comfortably seated in an ergonomic chair in a relaxed position, with the back to the electromyograph. The selection of the muscle to be electromyographically investigated was based on: the patient's symptoms, i.e. which muscle they felt to be most contracted at that moment in the cervical area; the clinical palpation of the cervical muscles by the examiner; patient's medical history of botulinum toxin injections, regarding doses and muscles injected.

A recording of 20 seconds of the electrical activity of the selected muscle was performed, with the mandible in resting position, after which the patient, without changing the position in the examination seat, applied the OSA on the dental arch, bit on it and remained in this position for ten minutes. The needle was kept motionless in the examined muscle throughout this time by the examiner, in order not to change the electromyographic recording site. After 10 minutes, a second recording of the electrical activity of the examined muscle was performed, with the OSA in the oral cavity, in resting position of the mandible.

We analyzed the spontaneous activity of the examined muscles, i.e. the presence, amplitude and frequency of positive sharp waves, fibrillations.

Results

The examined muscle was the left trapezius muscle in 6 patients, the right trapezius muscle in 4 patients and the left splenius capitis in one patient.

EMG analysis before and during OSA use showed a significant reduction in the amplitude and frequency of positive waves and fibrillation. Before OSA, in 5 (45.5%) patients we recorded between 1-6 positive waves per second, in 4 (36.4%) patients between 6-12 positive waves / second and in 2 (18.2%) patients between 12-18 positive waves per second. After the application of the OSA in 4 (36.4%) patients there were no positive waves, in 6 (54.5%) patients there were 1-6 positive waves per second and in one (9.1%) patient we recorded between 6-12 positive seconds per second. The difference was statistically significant ($p = 0.008$).

Before OSA there were no fibrillations in 4 (36.4%) patients, in 5 (45.5%) patients we recorded 1-6 fibrillations per second and in 2 (18.2%) patients we recorded between 6-12 fibrillations per second. After the application of the OSA in 6 (54.4%) patients no fibrillation were recorded, and in 5 (45.5%) patients we recorded 1-6 fibrillations per second. The difference was statistically significant ($p = 0.04$).

Conclusions

Temporary changes in the occlusion of the patients induced by the OSA modified the electrical activity of the dystonic cervical muscles, namely reduced the frequency and amplitude of the initial positive sharp waves and fibrillations.

Study 5. Effects of occlusal stabilization appliances on specific symptoms in other neurological disorders: Tourette's syndrome case presentation.

Tourette's syndrome is a neurological and behavioral disorder characterized by motor and vocal tics with onset in childhood or adolescence. Tics can be simple or complex.

The vast majority of people with Tourette syndrome have a certain discomfort or pressure sensation before a tic -focal and specific to a particular anatomical region or more generalized - called "premonitory urgency", which tends to intensify before tic and is usually temporarily attenuated once the person performs the tic.

Working hypothesis

Several cases diagnosed with Tourette's syndrome have been reported in the literature, where the application of a device called Neurocranio Vertical Distractor in the oral cavity determined immediate cessation of premonitory sensation and characteristic tics. Neurocranio Vertical Distractor is a single piece removable dental device that allows the teeth of the two arches to touch only at the level of the posterior teeth and its mechanism of action is the repositioning of the mandible to a correct anatomical position in relationship with the base of the skull.

This premise was the basis of this study, which aims to assess the immediate effects of the OSA on the characteristic symptoms in Tourette's syndrome.

Material and method

A 23-year-old patient neurologically diagnosed with Tourette's syndrome contacted me through the Association of Dystonia Patients in Romania to develop an OSA for his condition. The patient, informed on the research protocol of the study, gave his written informed consent (also regarding the video recordings of the examinations).

Medical history

The medical history is of no significance for the current neurological disorder, we retain only the vicious custom of onychophagia, which the patient describes as present during childhood.

The present neurological disorder began at the age of 18 with the occurrence of facial motor tics: blinking often, involuntary movements of the nasal wings, facial grimaces. The first diagnoses he received were: anxiety and neurosis, and he was treated with oral antidepressant medication. Two years after the onset of the disease, he was diagnosed with Tourette's syndrome, then he followed treatment with Haloperidol, Risperidone. Due to adverse effects (sleepiness, fatigue), the patient discontinues drug therapy. To alleviate the symptoms of the disease, the patient also tried a homeopathic treatment that had no effect.

From the Disease History Questionnaire, which the patient completed before starting clinical examinations, we noticed how the illness affected the patient's life: poor mood, anxiety, impairment of the driving ability and working capacity, impairment of social life. The patient notes that fatigue, emotional stress, fear and hunger aggravate his symptoms of illness.

Results

Applying the occlusal stabilization appliance to the patient with Tourette's syndrome produced an immediate (15 seconds) cessation of all present tics and premonitory emergency sensations. These effects were obtained with both the three fragments of the OSA applied and also with only the two lateral fragments. Removal of the OSA from the oral cavity caused a recurrence of symptoms after 30 seconds.

Conclusions

The case presented is that of a 23-year-old young patient whose Tourette syndrome debuted at the age of 18 years.

Neurological disorders in which tics arise usually begin at the age of childhood. However, in the literature there are reports of adult-onset tics. Tics can be classified as primary or secondary, the latter being the larger group identified in adults. Primary or idiopathic tics occurring at maturity constitute a subset of neurological disorders whose epidemiological and clinical characteristics are less well known: they predominantly occur in males, are often both motor and vocal in the same individual and are characterized by a poor response to treatment.