

[DOI]10.12016/j.issn.2096-1456.2018.07.008

· 临床研究 ·

## 外胚层发育不全缺牙患者种植修复临床效果

刘晶<sup>1</sup>, 赵凯<sup>1,2</sup>, 王旭东<sup>3</sup>, 黄伟<sup>2</sup>, 王凤<sup>2</sup>, 贾兰<sup>1</sup>, 吴轶群<sup>1,2</sup>

1. 上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔第二门诊部 上海市口腔医学重点实验室, 上海(201999); 2. 上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔种植科 上海市口腔医学重点实验室, 上海(200011); 3. 上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔颌面科 上海市口腔医学重点实验室, 上海(200011)

**【摘要】目的** 探讨骨增量技术结合种植修复对外胚层发育不全缺牙患者进行口腔功能重建的临床效果。**方法** 外胚层发育不全严重缺牙患者13例,行骨增量术后,植入常规种植体及颧种植体,固定义齿修复,并进行口腔健康宣教及心理辅导。治疗完成后,评估种植体生存率、患者满意度。**结果** 13例患者中2例患者选择髂骨移植,2例选择腓骨移植,1例选择下颌骨外斜线骨移植,1例下颌牙槽骨牵张成骨,其余7例应用引导骨再生。其中1例上颌移植骨出现明显的骨吸收;下颌骨增量效果良好,无明显骨吸收。13例患者共植入118枚种植体,其中22枚颧种植体,96枚常规种植体。5个常规种植体失败并拔除,随访3年常规种植体生存率94.79%,颧种植体生存率100%,患者满意度100%,50%以上的患者表示自信心得到了提升。**结论** 骨增量技术结合种植体支持义齿修复可以有效对外胚层发育不全缺牙患者进行口腔功能重建,增强其自信心,但是上颌前牙区骨增量后可能存在术后骨吸收的问题。

**【关键词】** 外胚层发育不全; 骨增量; 自体骨移植; 牙槽骨牵张成骨; 颧种植体

**【中图分类号】** R782.1 **【文献标志码】** A **【文章编号】** 2096-1456(2018)07-0451-05

**【引用著录格式】** 刘晶, 赵凯, 王旭东, 等. 外胚层发育不全缺牙患者种植修复临床效果[J]. 口腔疾病防治, 2018, 26(7): 451-455.

**Clinical evaluation of implant-supported prostheses for edentulous patients with ectodermal dysplasia** LIU Jing<sup>1</sup>, ZHAO Kai<sup>1,2</sup>, WANG Xudong<sup>3</sup>, HUANG Wei<sup>2</sup>, WANG Feng<sup>2</sup>, JIA Lan<sup>1</sup>, WU Yiqun<sup>1,2</sup>. 1. Second Dental Center, Ninth People's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai Key Laboratory of Stomatology, Shanghai 201999, China; 2. Department of Dental Implant, Ninth People's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai Key Laboratory of Stomatology, Shanghai 200011, China; 3. Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Ninth People's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai Key Laboratory of Stomatology, Shanghai 200011, China

Corresponding author: WU Yiqun, Email: yiqunwu@hotmail.com, Tel: 0086-21-23271699-5299; JIA Lan, Email: ad540894098@126.com, Tel: 0086-21-56152705

**【Abstract】 Objective** The aim of the present study was to evaluate the clinical outcomes of implant-supported prostheses for oral function rehabilitation in patients with ectodermal dysplasia. **Methods** Thirteen patients were included in the present study. After bone augmentation, zygomatic implants (ZIs) or regular implants (RIs) were placed, fabrication of dental prostheses were applied, and psychological and oral education was carried out. Implant survival rates, patient satisfaction and other related evaluation indicators were assessed. **Results** The ilium was chosen for autogenic bone grafts in two patients. The fibula was used in two other patients and the mandibular ramus in one other patient. One patient was treated through alveolar distraction osteogenesis of the mandible. Guided bone regeneration was applied

**【收稿日期】** 2018-04-12; **【修回日期】** 2018-05-09

**【基金项目】** 国家自然科学基金(81371190, 51605289); 上海交通大学医工交叉重点项目(YG2016ZD01); 上海交通大学医学院附属第九人民医院学科融合基金

**【作者简介】** 刘晶, 主治医师, 硕士, E-mail: lj3232475@163.com

**【通信作者】** 吴轶群, 主任医师, 博士, Email: yiqunwu@hotmail.com; 贾兰, 副主任医师, 本科, Email: ad540894098@126.com

in seven other patients. Bone graft resorption in the maxilla was observed in one patient; bone augmentation of the mandible was successful in all patients, and no obvious bone resorption was observed. One hundred and eighteen implants were placed, among which 22 were ZIs, and 96 were RIs. Five RIs failed and were removed. The survival rate for ZIs was 100%, and the survival rate for RIs was 94.79%, in a follow up after 3 years. All patients were satisfied with the restoration of their oral function. More than 50% of the patients exhibited self-confidence. **Conclusion** Oral function can be restored in edentulous ectodermal dysplasia patients using bone augmentation and implant-supported prostheses, and patient self-confidence can be enhanced. However, the resorption of grafted bone in the anterior region of the maxilla cannot be ignored.

**【Key words】** Ectodermal dysplasia; Bone augmentation; Autogenous bone grafts; Alveolar distraction osteogenesis; Zygomatic implants

外胚层发育不全(ectodermal dysplasia)是一种以毛发、汗腺、牙齿等外胚层来源的组织发育不全或形态缺陷为特征的先天性遗传疾病,其发病率为1:10 000~1:100 000,男性多见<sup>[1]</sup>。外胚层发育不全患者常伴有面部和牙齿发育畸形,如无牙或缺牙、融合牙、锥形牙、釉质发育不良、牙间隙、牙槽嵴发育不良等,采用义齿恢复患者的外形及口腔功能非常必要<sup>[2]</sup>。以往的研究证实利用常规种植体和颧种植体支持的义齿可以对健康缺牙患者进行口腔功能重建<sup>[3]</sup>。然而外胚层发育不全患者由于存在牙槽骨严重萎缩的问题,需要采用自体骨移植、同种异体骨移植、牙槽骨牵张成骨等各种方法进行骨增量<sup>[4]</sup>。目前国内外针对外胚层发育不全临床修复治疗的研究大部分为病例报告,缺乏系统研究,并极少关注患者本身的心理及口腔健康教育。本研究旨在探讨外胚层发育不全严重缺牙的系统治疗方法,包括早期干预、一期骨增量、二期种植方案选择、口腔健康教育、心理辅导等各方面。

## 1 资料和方法

### 1.1 研究对象

选择2010年1月—2014年12月于上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔种植科就诊的外胚层发育不全严重缺牙患者13例,其中男性7例,女性6例,年龄19~25岁,有8例牙列缺失,5例牙列缺损。所有患者种植手术均为1名高年资种植外科医生完成。

纳入标准:①临床结合影像学检查诊断为外胚层发育不全患者;存在缺牙、毛发稀少、指甲发育不良、少汗等;②年龄 $\geq 18$ 岁;③缺牙数 $\geq 12$ ;④选择用骨增量结合种植体进行口腔功能重建;

⑤患者知情同意。排除标准:全身系统性疾病及精神疾病不能进行种植治疗,如未得到控制的糖尿病、头颈部接受放疗史等;重度吸烟,每天 $> 10$ 支。

### 1.2 术前检查制定治疗方案

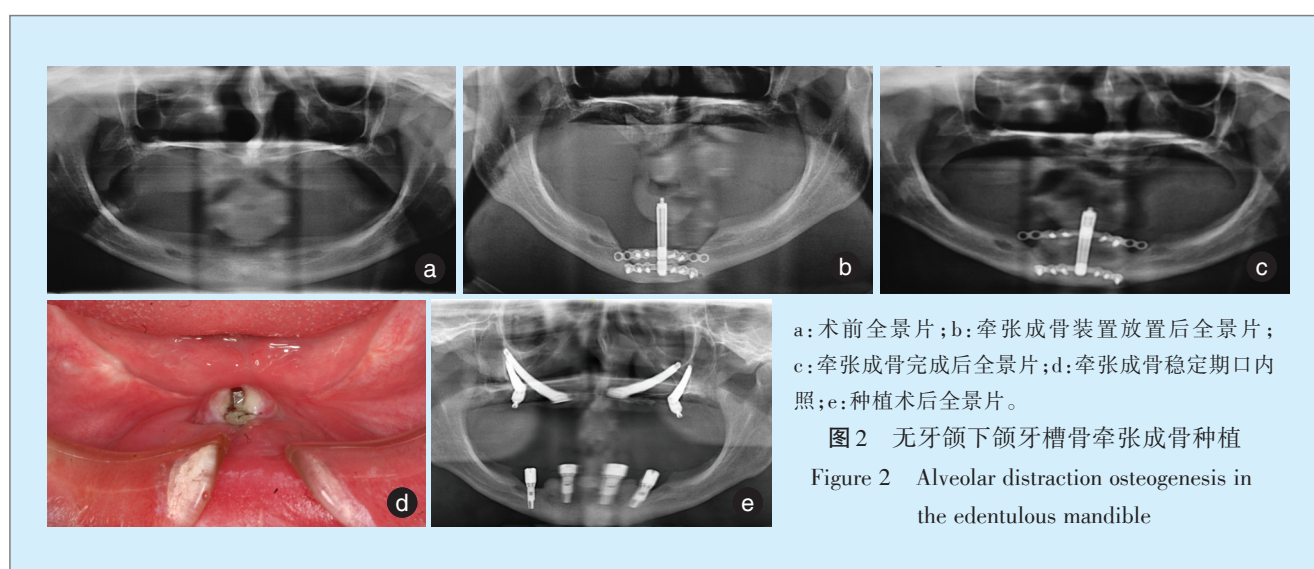
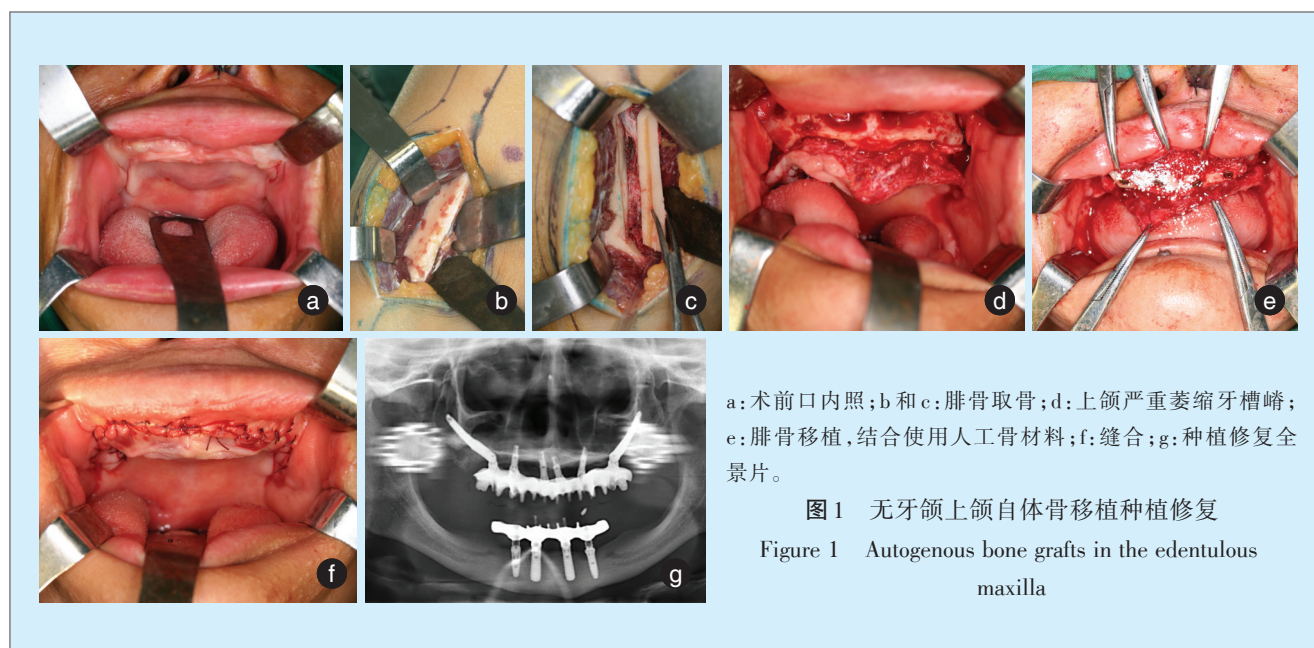
所有患者术前均进行详细的检查,包括口腔检查、拍摄全景片、头颅侧位片、牙科CT、制取研究模型。明确患者缺牙数量及部位、咬合关系、缺牙区骨量、与相邻牙齿及重要解剖结构的关系。根据临床及影像学检查情况制定详细的治疗方案。

### 1.3 骨增量

根据术前检查,针对患者不同的骨缺损情况,选择适合的骨增量方法,包括自体骨移植、牙槽骨牵张成骨、引导骨再生技术。牙槽骨牵张成骨主要用在下颌骨垂直高度不足,存在严重垂直向骨缺损的情况,自体骨移植主要用于上颌前牙区水平向及垂直向都存在严重骨量不足的情况。

1.3.1 无牙颌上颌自体骨移植 全麻下,从右侧上颌第一磨牙至左侧上颌第一磨牙沿牙槽嵴顶切开,并在上中线处做一垂直切口,颊侧翻瓣,牙槽骨完全暴露后,将取自自体髂骨、腓骨、下颌骨外斜线处的骨块移植在上颌骨一侧及牙槽嵴顶,同时运用引导骨再生技术在骨块周围放置骨粉(Bio-oss, Geistlich, 瑞士),覆盖可吸收胶原膜(Bio-Gide, Geistlich, 瑞士),最后关闭切口(图1)。

1.3.2 无牙颌下颌牙槽骨牵张成骨 下颌骨正中联合区行牙槽骨牵张成骨术。前庭区切开,根据下颌骨舌侧形态选择适合的牵张成骨装置,切开下颌骨放置牵张成骨装置,用螺丝固定,关闭切口。3周后,装置开始加力,4次/d,0.25 mm/次,持续加力15 d,并保持12周。影像学检查确认骨生成后拆除牵张成骨装置(图2)。



#### 1.4 种植体植入

骨增量术后4~6个月,拍摄全景片及牙科CT评估骨增量效果。牙列缺失的患者,上颌植入2枚颧种植体及2~4枚常规种植体或4枚颧种植体,下颌植入4枚常规种植体。牙列缺损的患者,在缺牙部位根据术前设计植入相应数目的常规种植体。颧种植体(Nobel Biocare AB,瑞典)植入牙槽骨及颧骨区,直径4.0 mm,长度40~52.5 mm。常规种植体植入前牙区,根据骨量选择不同的型号,直径3.3~4.8 mm,长度8~12 mm (Institut Straumann AG,瑞士)或直径3.5~5.0 mm,长度10~13 mm (Nobel Biocare AB,瑞典)。种植体植入后应用引导骨再

生技术以确保获得足够的骨结合。术后拍摄全景片及CBCT评估种植体的定位方向等情况。

#### 1.5 义齿修复

种植体植入3~6个月后,开始修复。牙列缺失患者制作塑料义齿作为过渡义齿,3~6个月过渡期后,利用CAD/CAM设计固定义齿修复。

#### 1.6 评估及随访

定期随访并评估患者情况,包括:①种植体周围软组织健康状况,探诊深度(probing depth, PD)、龈沟出血指数(sulcus bleeding index, SBI)情况等;②修复体情况,是否有螺丝松动、修复体破损等;③患者满意度;④心理变化<sup>[5]</sup>。

### 1.7 数据分析

应用SPSS 10.0软件进行数据分析。

## 2 结果

13例患者中,2例患者选择髂骨移植,2例选择腓骨移植,1例选择下颌骨外斜线骨移植。1例下颌牙槽骨牵张成骨,7例行引导骨再生。1例上颌前牙区髂骨移植患者出现了明显的移植骨吸收。

13例患者中,5例为单颧种植修复;3例为双颧种植修复;5例为单纯常规种植修复,共植入118枚种植体,其中22枚颧种植体,96枚常规种植体。3年随访期内,5枚常规种植体失败并拔除,颧种植体生存率100%,常规种植体生存率94.79%。

PD在0~3 mm范围内的种植体第1年为112枚,第3年下降到109枚;SBI指数为0的患者第1年占72.70%,第3年下降到69.65%(表1)。2例患者出现了种植体周围炎,采取牙周治疗。1例患者出现了种植体周围牙龈增生,采取龈切手术治疗。

表1 13例患者种植修复后1~3年内的PD、SBI情况  
Table 1 PD and SBI measurements of 13 edentulous patients with ectodermal dysplasia over 1-3 years after receiving implant-supported prostheses

时间	PD(n)			SBI(%)			
	0~3 mm	3~5 mm	>5 mm	0	1	2	3
第1年	112	0	1	72.70	24.05	2.65	0.60
第2年	110	2	1	69.10	29.25	1.65	0
第3年	109	2	2	69.65	27.60	2.75	0

注 PD:探诊深度;SBI:龈沟出血指数。SBI=0:探诊不出血;SBI=1:探诊点状出血;SBI=2:探诊线状出血;SBI=3:探诊出血严重。

13例患者均采用种植体支持的固定义齿修复。有4例患者表示对义齿不完全满意,主要针对面部轮廓(表2)。在随访期内,固定义齿稳定,未出现螺丝松动、修复体破损等情况。

表2 患者满意度  
Table 2 Patient satisfaction evaluation

患者满意度	面部轮廓	义齿美学	发音	义齿功能
0=不满意	0	0	0	0
1=部分满意	4	0	0	0
2=完全满意	9	13	13	13

口腔功能重建后,患者的心理变化如表3所示。7例患者沮丧减轻,8例患者自信增强,2例患

者找到了工作(表3)。

表3 患者口腔功能重建前后心理变化

Table 3 Psychological evaluation of patients

心理	治疗前	治疗后
沮丧	12	5
自我形象欠佳	13	3
自尊欠佳	12	3
自信欠佳	12	4
交际参与	2	9
职业参与	0	2

## 3 讨论

由于缺乏正常的咀嚼生理刺激,外胚层发育不全患者的种植修复面临的重大问题在于骨量严重不足<sup>[4]</sup>。针对不同的骨缺损程度,本研究设计个性化的骨增量方法,采用自体骨移植、牙槽骨牵张成骨、引导骨组织再生等技术增加骨量,使患者牙槽骨实现宽度、高度上的增量及上下颌牙槽骨空间位置的改善,然后植入种植体进行修复。

外胚层发育不全缺牙患者的上下颌前牙区牙槽嵴常呈刃状<sup>[6]</sup>,骨量严重不足,在此区域采用自体髂骨、腓骨或下颌骨外斜线处的骨块移植结合引导骨再生技术<sup>[7]</sup>。下颌骨正中联合区应用牙槽骨牵张成骨技术。在本研究中下颌骨增量均取得了成功,然而1例上颌骨增量术后发生了显著的骨吸收,发生骨吸收的原因可能是髂骨较其他部位的骨块更易发生骨吸收<sup>[8]</sup>,移植区没有足够的血供。1996年牙槽骨牵张成骨被证明可以有效的增加颌骨骨量<sup>[9]</sup>,其优势如下:①较移植造成的骨吸收明显降低;②软硬组织增量明显;③骨整合期缩短,治疗时间缩短;④骨段中包括牙齿或种植体,可以改善患者的咬合及美观;⑤可以配合使用骨再生技术;⑥不存在二次手术供区的问题<sup>[10]</sup>。然而牙槽骨牵张成骨也有其缺点,如牵张成骨区局部感染、移植骨或基骨骨折、伤口裂开、延迟愈合等<sup>[10]</sup>。

颧种植体<sup>[11]</sup>避免了由植骨手术带来的一系列风险,大大缩短了治疗周期。本研究中,将颧种植体从后牙区牙槽嵴顶或偏腭侧植入,穿上颌窦进入颧骨,获得颧骨与上颌骨双重固位;同时在前牙区植入2~4枚常规种植体,完成上颌无牙颌的固定修复。颧种植体生存率为100%,并且未发生种植体周围炎、感染、上颌窦炎等并发症。而常规种植体失败的原因主要是上颌骨前牙区移植骨吸收

及种植体周围炎。

但是,在3年的随访期本研究发现存在以下问题:①咬颊;②牙结石;③牙龈增生。因为患者治疗前没有咬合经验,需要适应的过程,通过医生的宣教及义齿的调磨,6个月后咬颊的情况得到了明显改善。经过不断的口腔卫生宣教,1年后患者的牙结石显著减少。种植修复后1例患者出现了牙龈增生,通过龈切手术治疗取得了较好的效果。分析牙龈增生发生的原因可能是慢性炎症及种植体的摩擦。可见,口腔卫生对于种植修复的成功起到了关键作用,可以阻止牙龈增生发生,预防种植体周围炎。口腔卫生宣教的内容包括:正确使用牙刷、牙线、冲牙器、医生定期随访、患者家属配合等。

治疗前,几乎所有的外胚层发育不全患者都存在缺乏自信、语言障碍、影响求学就业等情况,在本研究中注重患者的心理辅导,帮助患者增强自信,获得社会认同感。经过治疗,患者对义齿的美学及功能均表示满意,并且50%以上的患者表示他们的自信心及社会适应性都得到了提升。

本研究表明通过联合应用颧种植体、常规种植体及各种骨增量技术可以对存在严重骨量不足的成年外胚层发育不全缺牙患者进行口腔功能重建,并且在治疗中应重视口腔健康教育及患者的心理辅导。然而本组病例发现上颌的移植骨易发生吸收,影响种植成功率,需要进一步研究寻找更有效的办法解决这一问题。

本研究针对成年外胚层发育不全患者,然而种植年龄仍存在争议<sup>[2,12]</sup>。对处于生长期的外胚层发育不全患者,虽然早期治疗意义重大,可以促进面部及颞下颌关节发育,促进说话咀嚼吞咽功能的发育,但是随着生长发育也存在着种植体移位的风险。Imirzalioglu等<sup>[13]</sup>建议无牙颌3岁就可以开始种植,缺牙患者可以推迟到12岁。上颌建议等待生长发育停止后,一般17岁以后种植<sup>[14]</sup>。而Percinoto等<sup>[15]</sup>不建议对生长期儿童进行治疗,除非是特别严重的病例。在本研究中成年外胚层发育不全患者的种植修复取得了良好的效果,笔者认为对处于生长期的患者也应该早期干预,利用活动可摘义齿修复缺陷,维护余留牙健康,促进患者身心健康。

#### 参考文献

[1] Wojtyńska E, Baczkowski B, Przybyłowska D, et al. A multidisci-

- plinary treatment of patients with craniofacial disorders. Own experience[J]. *Dev Period Med*, 2015, 19(4): 464-470.
- [2] Wang Y, He J, Decker AM, et al. Clinical outcomes of implant therapy in ectodermal dysplasia patients: a systematic review[J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2016, 45(8): 1035-1043.
- [3] Candel-Marti ME, Ata-Ali J, Peñarrocha-Oltra D, et al. Dental implants in patients with oral mucosal alterations: an update[J]. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*, 2011, 16(6): e787-e793.
- [4] Wu Y, Zhang C, Squarize CH, et al. Oral rehabilitation of adult edentulous siblings severely lacking alveolar bone due to ectodermal dysplasia: a report of 2 clinical cases and a literature review [J]. *J Oral Maxillofac Surg*, 2015, 73(9): 1733.e1-1733.12.
- [5] Hickey AJ, Salter M. Prosthodontic and psychological factors in treating patients with congenital and craniofacial defects[J]. *J Prosthet Dent*, 2006, 95(5): 392-396.
- [6] Revanappa PD, Gaur S, Srivastava R, et al. Ectodermal dysplasia: management of knife-edged irregular ridge and its rehabilitation with hybrid implant prosthesis[J]. *J Clin Diagn Res*, 2016, 10(5): ZD05-07.
- [7] Mitchell DA, Macleod SP. Strategies for avoiding complications with vascularized bone flaps in head and neck microvascular reconstruction[J]. *Semin Plast Surg*, 2008, 22(3): 175-185.
- [8] Tiwana P, De Kok IJ, Stoker DS, et al. Facial distortion secondary to idiopathic gingival hyperplasia: surgical management and oral reconstruction with endosseous implants[J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2005, 100(2): 153-157.
- [9] Chin M, Toth BA. Distraction osteogenesis in maxillofacial surgery using internal devices: review of five cases[J]. *J Oral Maxillofac Surg*, 1996, 54(1): 45-53, 54.
- [10] Cano J, Campo J, Moreno LA, et al. Osteogenic alveolar distraction: a review of the literature[J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2006, 101(1): 11-28.
- [11] Peñarrocha-Diago M, Uribe-Origone R, Rambla-Ferrer J, et al. Fixed rehabilitation of a patient with hypohidrotic ectodermal dysplasia using zygomatic implants[J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2004, 99(2): 161-165.
- [12] Kilic S, Altintas SH, Yilmaz Altintas N, et al. Six-year survival of a mini dental implant-retained overdenture in a child with ectodermal dysplasia[J]. *J Prosthodont*, 2017, 26(1): 70-74.
- [13] Imirzalioglu P, Uckan S, Haydar SG. Surgical and prosthodontic treatment alternatives for children and adolescents with ectodermal dysplasia: a clinical report[J]. *J Prosthet Dent*, 2002, 88(6): 569-572.
- [14] Guckes AD, Scurria MS, King TS, et al. Prospective clinical trial of dental implants in persons with ectodermal dysplasia[J]. *J Prosthet Dent*, 2002, 88(1): 21-25.
- [15] Percinoto C, Vieira AE, Barbieri CM, et al. Use of dental implants in children: a literature review[J]. *Quintessence Int*, 2001, 32(5): 381-383.

(编辑 张琳,曾曙光)