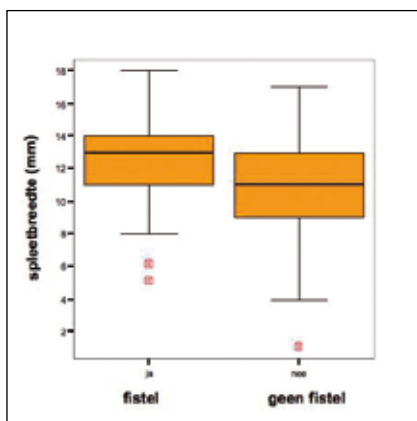


Vomerplastiek gelijktijdig met lipsluiting: effecten op de palatumspleetbreedte

C.C. Breugem, J.P. de Jong

INTRODUCTIE

De behandeling van patiënten met unilaterale complete cheilognathopalatoschisis is complex en er is nog altijd geen consensus bereikt betreffende de juiste therapie. [1,2] De behandeling richt zich in eerste instantie op anatomische sluiting van het defect, met als doel verbetering van de voeding en spraakontwikkeling. Hierbij is het belangrijk dat de gebruikte techniek zo min mogelijk complicaties geeft (bijvoorbeeld fistel) en zo min mogelijk negatieve invloed heeft op uitgroei van de kaak. [1,3] Er is nog veel discussie over wat de juiste leeftijd van de patiënt is waarop de ingreep het beste plaats kan vinden en de juiste techniek om de beoogde doelen te behalen. Het op jonge leeftijd sluiten van het palatum durum zou geassocieerd zijn met betere spraakontwikkeling, terwijl sluiten op latere leeftijd juist een beter effect zou hebben op de uitgroei van het middengezicht. [1,4] Veel studies van de afgelopen decennia spreken elkaar hierin echter ook tegen. Enkele studies bewezen inderdaad dat problemen met de spraakontwikkeling waren geassocieerd met sluiting op latere leeftijd [3,5-7], hoewel andere studies de spraak bij die patiënten als goed beschouwden. [8-10] Sommige auteurs pleitten voor het sluiten op latere leeftijd vanwege die betere uitgroei van de maxilla [9,10], terwijl andere studies geen significant betere maxillaire groei zagen vergeleken met patiënten bij wie het palatum durum



Figuur 1. Resultaten van een vorige studie waarin het verband tussen de spleetbreedte en het latere ontstaan van een oronasale fistel bewezen is. [23]

op jonge leeftijd werd gesloten, en enkele van deze studies vonden zelfs een hoger aantal persisterende palatumfistels na sluiten op late leeftijd. [3,5,11,12]

Vomerlappen zijn al voor 1900 geïntroduceerd en zijn sindsdien op verschillende manieren gebruikt. [13-16] Studies lieten zien dat de craniofaciale morfologie beter was na toepassing van een vomerlap vergeleken met andere methodes van sluiting op jonge leeftijd. [17-21]

Een ander mogelijk voordeel van palatum-durumsluiting op jonge leeftijd middels een vomerlap is spontane verdere vernauwing van de resterende spleet. Het is reeds bewezen dat de resterende spleet in het harde palatum spontaan vernauwt na primaire veloplastiek. [22] Het toepassen van een vomerlap zou de spleet nog smaller kunnen maken. Dit zal weer de voordelen van een smallere spleet met zich meebrengen, zoals een lagere incidentie van fistels (figuur 1). [23, 24] Wij hebben in de literatuur geen studies gevonden die deze aanname ondersteunen. Deze studie is opgezet met als doel te bepalen of de palatumspleet reduceert na sluiting van het palatum durum op jonge leeftijd, gelijktijdig met de cheiloplastiek.

METHODE

KLINISCHE DATA

Voorafgaand aan de studie werd toestemming verkregen van de Medisch Ethische Toetsing Commissie.

Kinderen geboren in Nederland van januari 2007 tot december 2010 met een unilaterale complete cheilognathopalatoschisis werden geïncludeerd en prospectief gevolgd. Deze 28 patiënten ondergingen allen lipsluiting met gelijktijdig sluiting van het palatum durum middels een vomerlap. Tijdens een tweede operatie op latere leeftijd werd het palatum molle gesloten. Dit was het standaardbehandelprotocol van onze afdeling gedurende de afgelopen vijf jaar. Bij deze patiënten werd direct voor de operatie onder anesthesie de spleetbreedte opgemeten door de eerste auteur (CB). Spleetbreedte werd gedefinieerd als de transversale breedte precies op de overgang van het harde naar het zachte palatum. De afstand werd gemeten met een Castroviejo Caliper nog voor injectie van lokale anesthesie.

Om de invloed van deze techniek op jonge leeftijd te kunnen analyseren, werden de resultaten vergeleken met resultaten van patiënten die tussen 1988 en 2005 zijn geopereerd. In die tijd werd bij patiënten aanvankelijk alleen de lip gesloten, waarna palatumsluiting op latere leeftijd plaatsvond. Patiënten die pas op latere leeftijd bij ons schisisteam kwamen, door bijvoorbeeld adoptie of verhuizing, konden niet worden geïncludeerd. In totaal werden retrospectief tachtig patiën-

Tabel 1. Patiëntkarakteristieken.

	Totaal (n=50) n (%)	Groep A (n=28) n (%)	Groep B (n=22) n (%)	p *
Geslacht				0,197
Man	36 (72)	22 (79)	14 (64)	
Vrouw	14 (28)	6 (21)	8 (36)	
Schisiszijde				0,407
Links	26 (52)	13 (46)	13 (59)	
Rechts	24 (48)	15 (54)	9 (41)	
Syndroom				0,167
Ja	3 (6)	3 (11)	0 (0)	
Nee	47 (94)	25 (89)	22 (100)	

*, Fisher-exacttest

ten geïdentificeerd die aan deze inclusiecriteria voldeden. Van 22 van deze patiënten kon een compleet medisch dossier worden verkregen met daarin twee verschillende metingen van de spleetbreedte.

Patiënten werden onderverdeeld in groep A of B afhankelijk van hun behandeling. Groep A (n=28) bestond uit de meest recent geopereerde patiënten. De operatie bestond uit het gelijktijdig aanbrengen van een vomerplastiek en een cheiloplastiek. Patiënten in groep B (n=22) zijn degenen die aanvankelijk alleen de cheiloplastiek ondergingen. Van deze patiënten werden geboortedatum, geslacht, zijde van de schisis (links of rechts), eventuele syndromen, toegepaste chirurgische procedures en de metingen van de spleetbreedtes vastgelegd vanuit hun medisch dossiers.

STATISTISCHE ANALYSE

Om data samenvattend te kunnen beschrijven werd analyse met het programma SPSS verricht. Vergelijkbaarheid van de twee groepen werd onderzocht met de Mann-Whitney-U-test voor de volgende variabelen: leeftijd tijdens eerste operatie, leeftijd tijdens tweede operatie en verstreken tijd tussen de twee operaties. Verdeling van geslacht, zijde van de schisis (links of rechts) en syndromen van de twee groepen werden berekend met de Fisher-exacttest. De uiteindelijke vergelij-

king van de spleetbreedtes tussen de groepen werd gedaan met behulp van de Mann-Whitney-U-test.

De definitie van statistische significantie was bij alle analyses een tweezijdige p-waarde lager dan of gelijk aan 0,05.

RESULTATEN

De patiëntkarakteristieken van de twee groepen staan vermeld in tabel 1. De meerderheid van de patiënten was mannelijk (72%), maar tussen de groepen werd geen significant verschil gezien in verdeling van geslacht (p=0,197). Daarnaast was ook de verdeling van schisiszijde en syndromen niet significant verschillend (p=0,407, p=0,167). De gediagnosticeerde syndromen waren goldenharsyndroom (n=1), CHARGE-syndroom (n=1) en downsyndroom (n=1), allen in groep A.

Meting van de spleetbreedte werd direct voor de operaties verricht. De leeftijd ten tijde van de operaties was niet significant verschillend tussen de groepen (tabel 2). De gemiddelde leeftijd tijdens de eerste operatie was 4,0 maanden in groep A en 4,4 maanden in groep B. Ten tijde van de tweede operatie en dus de tweede spleetbreedtemeting was de gemiddelde leeftijd in groep A 11,0 maanden en in groep B 11,4 maanden. Gemiddelde tijd tussen de operaties was respectievelijk 6,9 en 7,0 maanden.

Tabel 2. Leeftijd op moment van operatie en meting.

	Groep A (n=28)	Groep B (n=22)	p †
Leeftijd 1ste operatie (maanden)			0,653
Gemiddelde ± SD	4,0 ± 1,5	4,4 ± 1,9	
Verspreiding	2,9 – 10,9	2,0 – 10,7	
Leeftijd 2de operatie (maanden)			0,907
Gemiddelde ± SD	11,0 ± 1,2	11,4 ± 3,8	
Verspreiding	9,1 – 15,0	6,0 – 20,8	
Maanden tussen operaties			0,591
Gemiddelde ± SD	6,9 ± 1,3	7,0 ± 3,8	
Verspreiding	4,1 – 10,3	2,8 – 16,5	

SD, standaard deviatie

†, Mann-Whitney U Test

Tabel 3. Palatumspleetbreedte.

Meting	Groep A (n=28) Breedte in mm	Groep B (n=22) Breedte in mm	p †
Voor 1ste operatie			0,626
Gemiddelde ± SD	13,3 ± 1,7	13,6 ± 2,2	
Verspreiding	11 - 16	11 - 18	
Voor 2de operatie			<0,001
Gemiddelde ± SD	8,1 ± 1,9	12,1 ± 2,6	
Verspreiding	4 - 13	6 - 17	
Totale reductie			<0,001
Gemiddelde ± SD	5,1 ± 2,2	1,5 ± 2,4	
Verspreiding	2 - 11	-4 - 6	

SD, standaard deviatie

†, Mann-Whitney U Test

In tabel 3 is te zien dat de gemiddelde spleetbreedte in groep B bij het eerste meetmoment 13,6 mm was en 12,1 bij het tweede meetmoment. In groep A werd bij het eerste meetmoment een gemiddelde van 13,3 mm gevonden, wat niet significant verschilde van de 13,6 mm van groep B ($p=0,626$). Bij het tweede meetmoment was het gemiddelde in groep A echter 8,1 mm ($p<0,001$) en in groep A werd dan ook een significant grotere totale reductie van de spleetbreedte gezien van 5,1 mm ten opzichte van 1,5 mm in groep B ($p<0,001$).

DISCUSSIE

De behandeling van unilaterale complete cheilognathopalatoschisis is de afgelopen decennia behoorlijk veranderd en er worden nog continu nieuwe technieken ontwikkeld. [1,2] De ideale techniek leidt uiteindelijk tot een perfecte spraak en een lage incidentie van fistels zonder dat de maxillofaciale groei wordt beïnvloed. [1,3] Na een late sluiting van het palatum durum werd vaak een verminderde spraakontwikkeling gezien, wat suggereert dat men het palatum durum al op jonge leeftijd zou moeten sluiten. [3,5-7] Daarnaast werd bewezen dat het gebruik van een vomerlap om het palatum durum vroeg te sluiten leidde tot een goede midfaciale morfologie [17,19-21] en een lage incidentie van fistels. [25] De Euroleft-studies hebben gerapporteerd dat de beste maxillaire uitgroei op lange termijn werd bereikt bij de patiënten bij wie een vomerplastiek was toegepast. [18] De reeds gerapporteerde positieve resultaten hebben ertoe geleid dat sluiting van het palatum durum op jonge leeftijd momenteel veel wordt uitgevoerd. Eerdere studies hebben al laten zien dat de procedure middels een vomerplastiek veilig is wat betreft de hoeveelheid peroperatief bloedverlies en de operatieduur. [25,26]

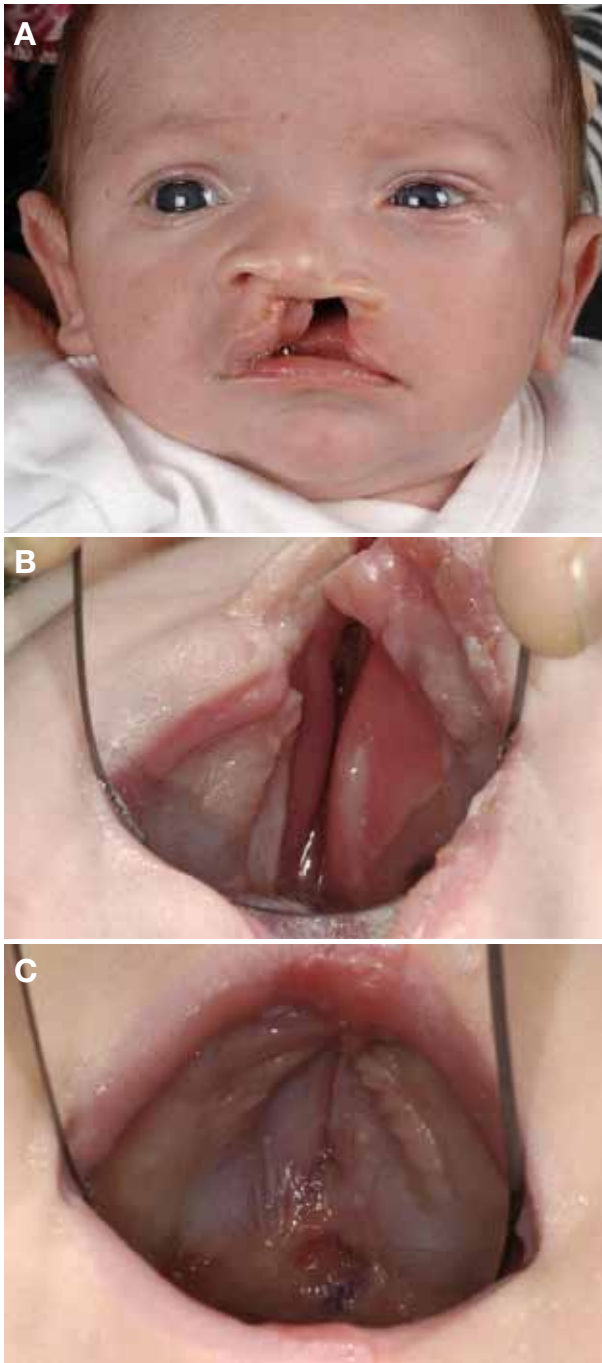
In de literatuur is beschreven dat versmalling van de spleet in het harde palatum optreedt na primaire veloplastiek. [22] Daarom wordt vaak gesuggereerd dat er ook een versmalling van resterende schisis zal optreden wanneer in eerste instantie alleen het harde palatum wordt gesloten. Er zijn echter weinig harde bewijzen voor deze aanname. Spontane reductie van de overgebleven spleetbreedte is wel beschreven in één studie [25], maar de leeftijd van die studiepopulatie was

relatief hoog met een wijde verspreiding van 4 maanden tot 9 jaar oud. Voor het effect op spontane verdere vernauwing van de spleet na primaire sluiting van het palatum durum op de zeer jonge leeftijd van 3 tot 4 maanden waarop ook de lip wordt gesloten door ons schisisteam hebben wij geen harde bewijzen in de literatuur kunnen vinden.

Onze studie laat zien dat er een significant grotere reductie van spleetbreedte is (gemiddeld 5,1 mm versus 1,5 mm) in een relatief korte tijd (gemiddeld 6,9 maanden versus 7,0 maanden) na een vomerplastiek op jonge leeftijd vergele-



Figuur 2. Tijdens een vomerlap wordt een 'enkellaagsluiting' verricht van de palatum durum door de vomer om te klappen. De incisie wordt gemaakt bij (B) pijl en vervolgens wordt de vomer mucosa gehecht aan het kleinere segment van de maxilla mucosa.



Figuur 3. Patiënt preopeertief (A en B). Bij (B) is er een spiegel in de mond geplaatst. Figuur C laat het resultaat zes weken na de ingreep zien. Vicryl hechtingen zijn nog zichtbaar en het palatum durum is gesloten.

ken met alleen lipsluiting. Een uiteindelijk smallere schisis heeft een aantal voordelen zoals een lagere incidentie van fistels. [23,24] Aangezien fistels een belangrijke negatieve invloed hebben op de spraakontwikkeling en met name de articulatie, is dit een belangrijk gevolg van deze techniek. [6] Een smallere resterende spleet zal tevens het latere herstel van het palatum molle vergemakkelijken. [25] Daar komt bij kijken dat er minder uitgebreide dissectie nodig is om een reeds smalle schisis te sluiten, wat weer goed is voor de maxillaire groei. [27]

Vanwege deze resultaten denken wij dat deze procedure, bestaande uit sluiting van het palatum durum met een vomerlap op zeer jonge leeftijd, een goed behandelprotocol is voor patiënten met een unilaterale cheilognathopalatoschisis. Hoewel deze procedure leidt tot een iets langere operatietijd [25] zijn er grote voordelen zoals boven beschreven. We willen echter benadrukken dat het naar onze mening belangrijk is toekomstige resultaten te blijven analyseren. Vroege palatumsluiting zou met name effect hebben op de anteroposterieure groei van de maxilla.[9,28-30].

De retrospectieve aard van deze studie zou een wezenlijk minpunt kunnen zijn. De vergelijkbaarheid van de groepen op verschillende belangrijke variabelen is echter goed geanalyseerd voordat eindpunten werden vergeleken en er werden geen significante verschillen tussen de groepen gevonden. Belangrijk is bijvoorbeeld dat er geen significant verschil in leeftijd tussen de groepen zat, omdat leeftijd zeker ook een effect op de spleetbreedte kan hebben. Het wordt namelijk aangenomen dat er altijd enige spontane versmalling optreedt na verloop van tijd. Een ander mogelijk minpunt van de studie is de kleine populatie. Dit kwam doordat wij twee echt goed vergelijkbare homogene groepen wilden hebben om een duidelijke conclusie te kunnen trekken en daarom alleen patiënten met een unilaterale complete cheilognathopalatoschisis hebben geïncludeerd. De studiepopulatie was wel groot genoeg om significante verschillen van de eindpunten tussen de groepen te kunnen bewijzen.

Concluderend kan worden gezegd dat een vomerplastiek op jonge leeftijd gelijktijdig met een cheiloplastiek is geassocieerd met een significante verdere reductie van spleetbreedte postoperatief vergeleken met alleen cheiloplastiek.

LITERATUUR

1. Agrawal K. Cleft palate repair and variations. *Indian J Plast Surg* 2009;42 Suppl:S102-9.
2. Shaw WC, Semb G, Nelson P, et al. The Eurocleft project 1996-2000: overview. *J Craniomaxillofac Surg* 2001;29:131-40.
3. Rohrich RJ, Rowsell AR, Johns DF, et al. Timing of hard palatal closure: a critical long-term analysis. *Plast Reconstr Surg* 1996;98:236-46.
4. Rohrich RJ, Love EJ, Byrd HS, Johns DF. Optimal timing of cleft palate closure. *Plast Reconstr Surg* 2000;106:413-21.
5. Holland S, Gabbay JS, Heller JB, et al. Delayed closure of the hard palate leads to speech problems and deleterious maxillary growth. *Plast Reconstr Surg* 2007;119:1302-10.
6. Noordhoff MS, Kuo J, Wang F, Huang H, Witzel MA. Development of articulation before delayed hard-palate closure in children with cleft palate: a cross-sectional study. *Plast Reconstr Surg* 1987;80:518-24.
7. Willadsen E. Influence of timing of hard palate repair in a two-stage procedure on early language development in Danish children with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2011[Epub ahead of print].
8. Lohmander A, Friede H, Lilja J. Long-term, longitudinal follow-up of individuals with UCLP after the Gothenburg primary early veloplasty and delayed hard palate closure: Speech outcome. *Cleft Palate Craniofac J* 2012[Epub ahead of print].

9. Friede H, Enemark H. Long-term evidence for favorable midfacial growth after delayed hard palate repair in UCLP patients. *Cleft Palate Craniofac J* 2001;38:323-9.
10. Schweckendiek W, Doz P. Primary veloplasty: long-term results without maxillary deformity. a twenty-five year report. *Cleft Palate J* 1978;15:268-74.
11. Lehner B, Wiltfang J, Strobel-Schwarthoff K, et al. Influence of early hard palate closure in unilateral and bilateral cleft lip and palate on maxillary transverse growth during the first four years of age. *Cleft Palate Craniofac J* 2003;40:126-30.
12. Noverraz AE, Kuijpers-Jagtman AM, Mars M, Hof MA van't. Timing of hard palate closure and dental arch relationships in unilateral cleft lip and palate patients: a mixed-longitudinal study. *Cleft Palate Craniofac J* 1993;30:391-6.
13. Agrawal K, Panda KN. Use of vomer flap in palatoplasty: revisited. *Cleft Palate Craniofac J* 2006;43:30-7.
14. Butow KW. Caudally-based single-layer septum-vomer flap for cleft palate closure. *J Craniomaxillofac Surg* 1987;15:10-3.
15. Dunn FS. Management of cleft palate cases involving the hard palate so as not to interfere with the growth of the maxilla. *Plast Reconstr Surg* (1946) 1952;9:108-14.
16. Dunn FS. Results of the vomer flap technic used in surgery of the cleft palate during the past eleven years. *Am J Surg* 1956;92:825-7.
17. Kulewicz M, Dudkiewicz Z. Craniofacial morphological outcome following treatment with three different surgical protocols for complete unilateral cleft lip and palate: a preliminary study. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2010;39:122-8.
18. Brattström V, Mølsted K, Prahl-Andersen B, Semb G, Shaw WC. The Eurocleft study: intercenter study of treatment outcome in patients with complete cleft lip and palate. Part 2: craniofacial form and nasolabial appearance. *Cleft Palate Craniofac J* 2005;42:69-77.
19. Johnston CD, Leonard AG, Burden DJ, McSherry PF. A comparison of craniofacial form in Northern Irish children with unilateral cleft lip and palate treated with different primary surgical techniques. *Cleft Palate Craniofac J* 2004;41:42-6.
20. Schliephake H, Donnerstag F, Berten JL, Lonquist N. Palate morphology after unilateral and bilateral cleft lip and palate closure. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006;35:25-30.
21. Tanino R, Akamatsu T, Nishimura M, Miyasaka M, Osada M. The influence of different types of hard-palate closure in two-stage palatoplasty on maxillary growth: cephalometric analyses and long-term follow-up. *Ann Plast Surg* 1997;39:245-53.
22. Owman-Moll P, Katsaros C, Friede H. Development of the residual cleft in the hard palate after velar repair in a 2-stage palatal repair regimen. *J Orofac Orthop* 1998;59:286-300.
23. Landheer JA, Breugem CC, Molen AB van der. Fistula incidence and predictors of fistula occurrence after cleft palate repair: two-stage closure versus one-stage closure. *Cleft Palate Craniofac J* 2010;47:623-30.
24. Parwaz MA, Sharma RK, Parashar A, et al. Width of cleft palate and postoperative palatal fistula--do they correlate? *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2009;62:1559-63.
25. Ferdous KM, Salek AJ, Islam MK, et al. Repair of cleft lip and simultaneous repair of cleft hard palate with vomer flap in unilateral complete cleft lip and palate: a comparative study. *Pediatr Surg Int* 2010;26:995-1000.
26. Li W, Zheng Q, Wei S. Simultaneous repair of cleft lip and closure of cleft hard palate with vomer flaps in patients with unilateral complete cleft lip and palate. *Hua Xi Kou Qiang Yi Xue Za Zhi* 2003;21:34-5,47.
27. Karsten A, Larson M, Larson O. Dental occlusion after Veau-Wardill-Kilner versus minimal incision technique repair of isolated clefts of the hard and soft palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2003;40:504-10.
28. Delaire J, Precious D. Avoidance of the use of vomerine mucosa in primary surgical management of velopalatine clefts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1985;60:589-97.
29. Liao YF, Cole TJ, Mars M. Hard palate repair timing and facial growth in unilateral cleft lip and palate: a longitudinal study. *Cleft Palate Craniofac J* 2006;43:547-56.
30. Liao YF, Yang IY, Wang R, Yun C, Huang CS. Two-stage palate repair with delayed hard palate closure is related to favorable maxillary growth in unilateral cleft lip and palate. *Plast Reconstr Surg* 2010;125:1503-10.

SAMENVATTING

Het is bekend dat een brede palatoschisis meer kans heeft op fistelvorming na de palatumsluiting. Het doel van deze studie was het bepalen van de invloed die een vroege sluiting van het palatum durum middels een vomerlap heeft op de resterende spleetbreedte bij kinderen met unilaterale complete cheilognathopalatoschisis. Vijftig kinderen met unilaterale complete cheilognathopalatoschisis zijn geïnccludeerd en in twee groepen verdeeld. Group A omvatte 28 patiënten bij wie het palatum durum op jonge leeftijd was gesloten middels een vomerlap gelijktijdig met de lipsluiting. De 22 patiënten in groep B ondergingen tijdens de eerste operatie alleen lipsluiting. Deze studie laat zien dat een vomerlap gelijktijdig toegepast met een lipsluiting een significant verschil in reductie van spleetbreedte gaf in vergeleken met een groep kinderen waar bij alleen een lipsluiting is verricht.

TREFWOORDEN

schisis, unilaterale cheilognathopalatoschisis, vomerlap

CORRESPONDENTIEADRES

Dr. C.C. Breugem
Afdeling Kinderplastische Chirurgie
Wilhelmina Kinderziekenhuis
Postbus 85090
3508 AB Utrecht
E-mail: c.c.breugem@umcutrecht.nl