

Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS) and rhino-tuberic disfunction in children: therapeutic effects of RME therapy

Paola Pirelli*, Maurizio Saponara**, Giuseppe Attanasio**

Author's affiliation:

*Department of Odontostomatological Sciences. University of Tor Vergata, Rome (Italy)

**Department of Neurology and Otolaryngology, University "La Sapienza", Rome (Italy)

Correspondence to:

Paola Pirelli

Via Tomacelli 103

00186 Roma

E-mail: paolapirelli@jumpy.it

Introduction

The international scientific community is devoting more and more attention to the multidisciplinary approach to patients suffering of Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS). The authority in Sleep Disorders, Prof. Guilleminault from the Stanford University in his recent papers underlined the importance of multidisciplinary collaboration in the treatment of Sleep Disorders Breathing¹⁻³. The multidisciplinary collaboration clearly showed that the contribution coming from different professions could help in attaining targeted and effective therapies in the treatment of a complex disorders such as OSAS. Particularly interesting are the correlations between OSAS, malocclusion and

The aim of the study was to evaluate if RME (Rapid Maxillary Expansion) therapy could improve both the patency of the nasal airways and the Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS). 42 children with a case history of oral breathing, snoring and night time apnoeas were studied. Selection criteria were: no adenotonsillar hypertrophy, Body Mass Index (BMI) below 24 and a malocclusion characterised by a narrow upper jaw, determined by postero-anterior cephalometric evaluation. Patients underwent an ENT visit with auditory and respiratory tests including daytime a sleepiness questionnaire, a 19-channel polysomnography, and an orthognatodontic examination; finally the patient underwent X-rays investigations. All the investigations were carried out before orthodontic therapy (T0), after one month (T1) with the device still on, and 4 months after the end of the orthodontic treatment which lasted for about 6-12 months (T2). All the changes induced by RME on the upper jaw and nasal septum were analysed by postero-anterior cephalometric evaluation in T0, T1 and T2. In all treated cases, the authors obtained an opening of the midpalatal suture; this was confirmed both by intraoral occlusal X-rays and postero-anterior cephalograms. The results reported by the 42 patients studied show that the R.M.E. therapy widens the nasal fossa and releases the septum thus restoring a normal nasal airflow with disappearance of obstructive sleep disordered breathing. Changing the anatomic structure, RME brought a significant functional improvement. Therefore the orthodontist can play an important role in the interdisciplinary treatment of OSAS patients.

Pirelli P, Saponara M, Attanasio G. Obstructive Sleep Apnoea Syndrome (OSAS) and rhino-tuberic disfunction in children: therapeutic effects of RME therapy. *Prog Orthod* 2005;6(1):48-61.

maxillo facial malformations³⁻⁷. In fact, many OSAS patients show craniofacial abnormalities in both jaws as well as alterations in the skeletal structure of the respiratory dynamic space^{3,8}. It is well known that nasal septum alterations reduce airflow and increase resistance to nasal breathing. These conditions, considering that, in children, the Eustachian tube is shorter, more horizontal and patent with respect the adults, can cause tubo-tympanic disfunctions in children⁹.

When these conditions appear in the first year of life they can cause a deformation of the upper jaw affecting its total cross sectional development with a resulting narrowness of the jaw itself^{5-8,10,11}.

Nasal septum deviations are not only responsible for an asymmetric distribution of intranasal spaces but also for the internal structural alteration of the turbinates, which in turn causes a reduction of total airflow. Considering that a significant number of children suffering from mild

OSAS show an obstructive phenomenon with nasal septum deviation with or without turbinate hypertrophy associated with a narrow upper jaw, the Authors decided to study whether RME (Rapid Maxillary Expansion) therapy in the upper jaw could improve both the patency of the nasal airways and OSAS.

Material and Methods

Out of a sample of 100 patients, the Authors selected 42 children (26 male and 16 female) aged from 6 to 13 y.o., (average 7,3), with a case of oral breathing, snoring and night time apnoeas history. Selection criteria were: no adenotonsillar hypertrophy, Body Mass Index (BMI) below 24 and malocclusion characterised by upper jaw contraction. Patients underwent an ENT visit with the following tests: audiometry, tympanometry with tubaric functionality manoeuvres, active anterior rhino-manometry, nasal fibroscopy, daytime sleepiness questionnaire, 19-channel polysomnography.

Polysomnography was recorded using 19 channels. Sleep-waked states were based on electroencephalogram, electrooculogram, electromyogram, electrocardiogram, body position, nasal and oral flow, thoracic and abdominal movement, snoring noise and pulse oximetry.

Polysomnograms were analyzed following the Rechtschaffen and Kales International Criteria for sleep-wake scoring and the American Academy for Sleep Medi-

Scopo della ricerca è quello di valutare l'effetto terapeutico dell'Espansione Rapida del Mascellare (RME) sulle patologie Rino-Tubariche e sulla Sindrome delle Apnee Ostruttive nel Sonno (OSAS). Sono stati esaminati 42 bambini. I criteri di selezione sono stati: assenza di ipertrofia adenotonsillare, BMI (indice di massa corporea) inferiore a 24 e malocclusione caratterizzata da contrazione del mascellare superiore. I pazienti sono stati sottoposti ai questionari anamnestici sui disturbi del sonno, esame polisomnografico con 19 canali, visita ortognatodantica e accertamenti radiologici. Tutte le indagini sono state eseguite prima della terapia ortodontica (T0), e successivamente dopo un mese (T1) dall'inizio della terapia e 4 mesi dopo la fine della terapia ortodontica che è durata 6-12 mesi (T2). Le modificazioni prodotte dal RME sul mascellare superiore e sul setto nasale sono state valutate tramite studio cefalometrico su tele-RX postero-anteriore in T0, T1 e T2. In tutti i casi trattati, gli Autori hanno ottenuto un'apertura della sutura mesio-palatina, che è stata confermata dall'esame radiografico intraorale occlusale e dalle tele-RX in postero-anteriore. I risultati riportati dai 42 pazienti studiati hanno evidenziato che la terapia RME espande anche le fosse nasali e regolarizza il setto nasale da piccole alterazioni della sua forma, garantendo un flusso aereo normale con scomparsa dei disturbi ostruttivi notturni. Modificando la struttura anatomica, la terapia RME ha causato un miglioramento funzionale significativo nei pazienti affetti da sindrome respiratoria ostruttiva, riservando agli ortodontisti un ruolo importante nella terapia interdisciplinare dei pazienti OSAS.

Key words: Rapid Maxillary Expansion, Obstructive Sleep Apnoea Syndrome, children, narrow upper jaw, polysomnography.

cine recommendation for the scoring and breathing events¹². Abnormal events were considered present if longer than 2 breaths in duration. Events were classified as apnea or hypopnea based on air flow and as obstructive, mixed or central, based on thoraco abdominal movements and air flow.

An orthognathic investigation was performed using X-rays that included: postero-anterior cephalographs and intraoral X-rays of the occlusal palatal plane.

All the investigations were carried out before the orthodontic therapy (T0), after one month (T1) with the device still on, and 4 months after the end of the orthodontic treatment which lasted about 6-12 months (T2).

The experimental study was approved by Animal Care Committee and all the patients signed an informed consent.

Orthodontic examination

The clinical orthodontic examination carried out on the basis of our diagnostic criteria^{13,14} gave the following results:

- extra oral examination: the typical facies of oral breathers characterised by: flattening of the mild-third, labial incompetence with hypotonia of the upper lip and a resulting increase in the nasal-labial angle;
- intraoral examination.

All patients showed a narrowness of the upper jaw with an ogival

palate pattern resulting from a high and narrow palatal arch.

This narrowness was clinically present in most of the treated cases with a malocclusion characterised by unilateral or bilateral cross-bite and often by an anterior cross-bite.

The narrowness of the upper jaw was diagnosed clinically and confirmed by cephalometric assessment according to Ricketts parameters in postero-anterior cephalograms¹⁵. The following measurements were evaluated on pre and post RME P-A

radiographs (Fig.1): for nasal cavity diameters: NC-CN and for maxillary diameters: JL. For the assessment of the increase in the maxillary cross section two planes were used: for nasal cavity width NC-CN and for maxillary width JL-JR (bilateral points located at the depth of the concavity of the lateral maxillary contour at the junction of the maxilla and zygomatic buttress). In addition the interincisive space A1-1A and the intermolar width were measured A6-6A.

Le but de ce travail est celui d'évaluer si le RME (Rapid Maxillary Expansion) peut améliorer la perviété des vie aériennes supérieures et des apnées nocturnes obstructives (OSAS). On a étudié 42 enfants avec une histoire de respiration orale, ronflement et apnées nocturnes. Les jugements des selection ont été: pas d' hypertrophie adenotonsillaire, BMI au-dessous de 24 et une malocclusion caractérisée par un maxillaire étroit par évaluation céphalométrique antéropostérieure. La visite des patients a inclus les tests auditifs et respiratoires inclus le questionnaire du somn diurn, la polysomnographie à 19 canals, l'évaluation orthognatodontique et l'examen radiologique. On a fait tous les examens avant la thérapie orthodontique (T0), après un mois pendant la porte de l'appareil (T1) et 4 mois après la fin de traitement orthodontique qui a duré 6-12 mois (T2). On a étudié toutes les modifications provoquées par le RME sur le maxillaire supérieur avec céphalométrie antéropostérieure en T0, T1 et T2. Dans tous les cas traités les Auteurs ont obtenu une ouverture de la suture palatine médiane confirmée par une radiographie occlusale et une céphalométrie antéropostérieure. Les résultats obtenus sur les 42 patients ont a montré l'ouverture des fosses nasales et relâchement du sept avec disparition des désordres des apnées obstructives. Les changements des structures anatomiques provoqués par le RME à donné une grande amélioration fonctionnelle. Pour ces raisons l'orthodontiste peut jouer un rôle important dans le traitements des patients avec OSAS.

(tradotto da Maria Giacinta Paolone)

Rapid Maxillary Expansion (RME)

The RME procedure successfully carried out for many years uses an orthodontic fixed appliance with an expansion screw, anchored on selected teeth¹⁶.

According to the phase of development of the teeth, the Authors construct the device using the first molars and permanent premolars as anchor teeth, while in the deciduous dentition, the second pri-

mary molars were selected provided that they offer the stability required. The device is made up of a central expansion screw with four arms: 2 front and 2 back arms 1.5 mm. Two types of screw were adapted: Leone A0620/13, and Forestadent 1671326L, palatal split screw type 'S', for especially narrow palates. The device must satisfy some fundamental construction criteria. The force shall be applied through the anchor teeth so as to act directly on the suture, without

any undesired tipping of the teeth. This produces a transpalatal force that exceeds physiological levels that could produce orthodontic movement. At the same time the midpalatal suture opens and orthopaedic movement of the maxillae occurs. Osteoid appears at the borders of the palatal processes and a normal mineralised suture reforms after 3-4 months¹⁶⁻²¹.

Our therapy can be possible only if we proceed as above. Maxillary expansion must not be due to dental arch tipping but to an actual increase in the palatal transversal diameters. This can be achieved only through changes induced in the midpalatal suture. The device should not be bulky but strong and well fit to the anchor-teeth; the expansion screw must be as high as possible in the palate.

The effectiveness of this manoeuvre depends also on the amount of force applied and on the time of application.

Activation system

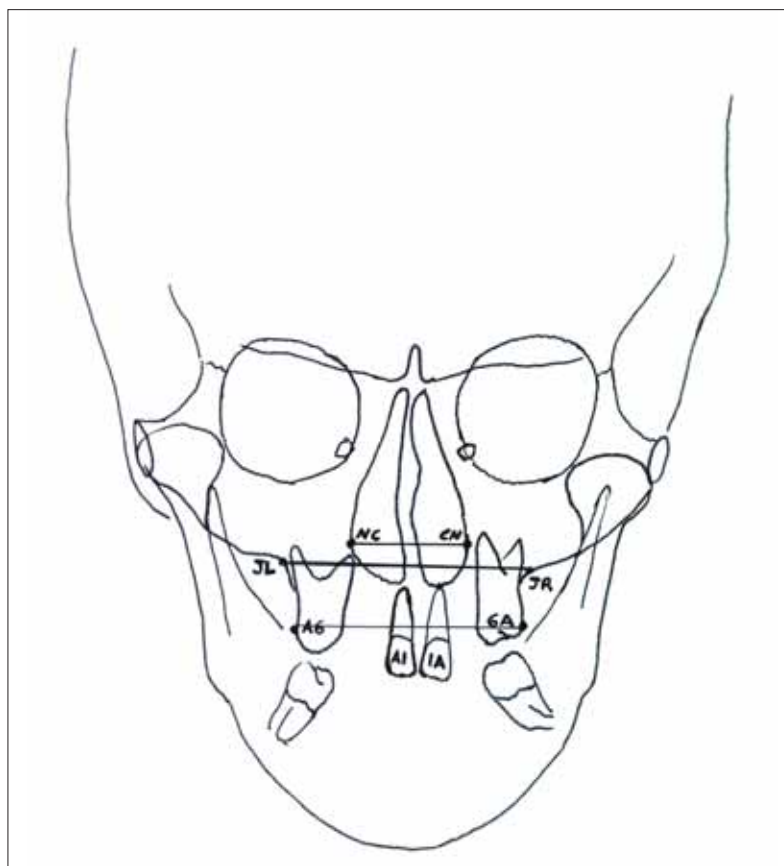
The screw activation system we use works as follows^{17,18}:

- first day morning and evening. Three consecutive activations at 10 min intervals;
- from the second day onwards: 1 activation every morning and evening.

The comparison of an occlusal intraoral X-ray in T0 and of another one at three days from the begin-

El objetivo de este estudio fue evaluar si el tratamiento con RME (expansión rápida del maxilar superior) puede mejorar el funcionamiento de las vías aéreas superiores (nasales) y el síndrome de obstrucción nocturna o apnea del sueño (OSAS). Fueron analizados 42 niños con una historia clínica de respiración oral, apneas nocturnas y con el hábito de ronquido. Los criterios de selección fueron: ausencia de hipertrofia adenotonsilar, BMI debajo de 24 y maloclusión caracterizada por un maxilar superior estrecho, confirmado mediante una evaluación cefalométrica antero – posterior. Los pacientes experimentaron una consulta ENT con pruebas auditivas y respiratorias incluyendo un cuestionario de comportamiento diurno y nocturno, 19- canal polysomnography, un examen ortodóntico; por último se realizó un análisis radiográfico. Todas las investigaciones fueron realizadas antes del tratamiento ortodóntico (T0), después de un mes (T1) con el dispositivo activo, y 4 meses después de finalizar el tratamiento ortodóntico que duró cerca de 6-12 meses (T2). Todos los cambios inducidos por RME en el maxilar superior y el tabique nasal fueron analizados mediante una valoración cefalométrica antero – posterior en T0, T1 y el T2. En todos los casos tratados los autores obtuvieron una abertura de la sutura palatina; esto fue confirmada mediante radiografías Oclusal y cefalométrico antero -posterior. Los resultados reportados del estudio en los 42 pacientes, demostraron que el tratamiento con RME ensancha las fosas nasales y realza el septo nasal, aumentando la respiración nasal y de esta forma desaparece el síndrome de obstrucción nasal nocturna. Definitivamente el RME produjo una mejora significativa, por lo tanto el ortodoncista puede desempeñar un papel importante en el tratamiento interdisciplinario de los pacientes de OSAS.

(tradotto da Santiago Isaza Penco)



A6-6A
8.16

NC-CN
3.85



JL-JR
5.91



A1-1A
4.72

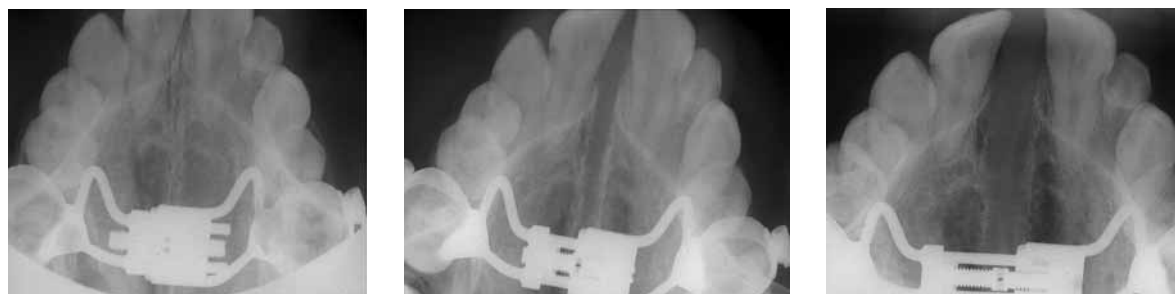
Figs. 1 Cephalometric assessment before and after R.M.E. (mean data values). Anatomic changes in whole sample: all cross-section diameters increased at intermaxillar and intermolar level. Nasal cavities and interincisive spaces increased in width.

ning allows us to verify the opening of the midpalatal suture and thus to continue expansion safely. Active expansion ranges from 10 to 20 days according to individual needs. The active phase is followed by a fixed retention time of 6-12 months.

The device was well tolerated by all the patients on the study. These patients had been previously briefed on the behaviour, diet and oral hygiene for this particular device in order to avoid any complication which could interfere with expansion manoeuvre.

Statistical analysis

Data were analysed with the SPSS/PC programme. The "Wilcoxon signed-rank test" was used both before and after the study to assess changes due to the test. The "Wilcoxon signed-rank test" exam-



Figs. 2 Intra-oral occlusal X-ray pre and post RME.

ines information on the differences and on the magnitude of difference between the two parameters studied (before and after the therapy); it is the most powerful "sign test".

Results

Orthopedic/Orthodontic Results

All the changes induced by RME on the upper jaw and nasal septum were analysed by postero-anterior cephalometric evaluation in T0, T1 and T2.

This is the most reliable way to assess the increase in the maxillary cross-section. In fact, studies assessing the increase in upper dental arch width on cast models can be influenced by dental tipping which can show increases not actually corresponding to skeletal changes.

For the P.A. cephalometric evaluation we have adopted Ricketts parameters¹⁵ (Fig 1).

In all treated cases, the authors obtained an opening of the midpalatal suture; this was confirmed

both by intraoral occlusal X-rays (Fig. 2) and postero-anterior cephalograms (Fig 3).

The evaluation of the variations of the maxillary width show an increase confirming that RME manoeuvre directly influences the skeleton with the expansion of the midpalatal suture (Fig 4). This manoeuvre is responsible for the expansion of both maxillas with an average cross-section increase (JL-JR) of 5.91 ± 0.7 mm.

The study of the upper intermolar distance (A6-6A) shows an average increase of 8.18 ± 0.3 mm.

The interincisive space (A1-1A), hallmark of the midpalatal suture opening, was always present in all cases treated with an average opening of 4.72 ± 0.2 mm.

This space gradually disappears, possibly due to trans-septal fiber pull bringing the fibers together.

The increase in maxillary cross-section is also shown by the study of the nasal cavities (NC-CN) that are widened by the manoeuvre with an average increase of the pyriform opening of 3.85 ± 0.3 mm.

ENT results

During the first phase examination (T0) the selected sample reported the following results:

- pharyngoscopy: 31 patients previously operated of adenotonsillectomy, normotrophic palatal tonsils in 11 cases;
- posterior Rhinoscopy with nasal fibroscopy: in all 42 cases no significant adenoid lymphatic tissue or other obstructive causes were reported;
- anterior rhinoscopy: nasal septum deviation with hypertrophy of the inferior turbinates in 31 cases and without significant hypertrophy of the inferior turbinates in 11 cases;
- active anterior rhinometry: a nasal resistance value > 1.8 at a pressure of 75 Pascal with bilateral nose breathing deficit in 34 cases, and unilateral in 8 cases was considered pathological;
- allergological tests with prick test: negative outcome for major permanent and seasonal allergens;



Figs 3 Case of tele-X ray in postero-anterior view taken pre (on the left) and post RME (on the right).

- audiometric tests: 8 patients showed moderate conductive hearing loss (between 15 and 25 dB HL), monolateral in 3 cases, bilateral in 5 cases;
- tympanometric tests with tubaric functionality manoeuvres: Type C curve with tubaric deficit (compliance at pressure values < 100 mm/H₂O) was found in 11 children;
- polysomnography (Fig. 5): Index of Apnoea/Hypopnoea (AHI) values of 42 patients ranged from 5.9 to 21.3 (average 12.18) (normal value < 5. Patients were subdivided into three groups: group A: RDI value from 5 to 10, average 8,1 (10 cases), group B: AHI values between 11 and 15, average 12.56 (27 cases), group C: AHI values between 16 and 22, average 18.52 (5 cases).

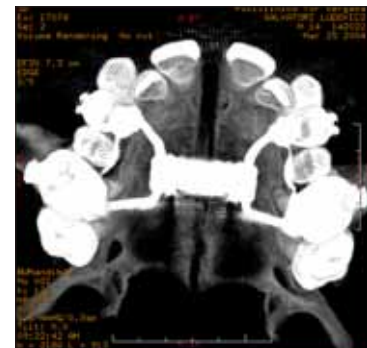
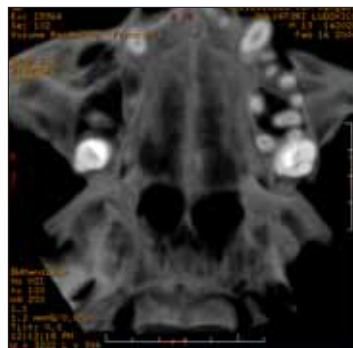
After four months of orthodontic treatment with the device still on (T1) nasal functional and

polysomnographic tests showed:

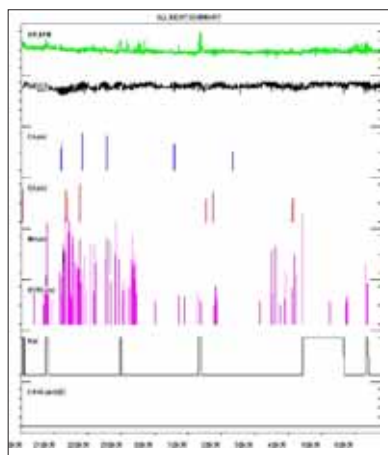
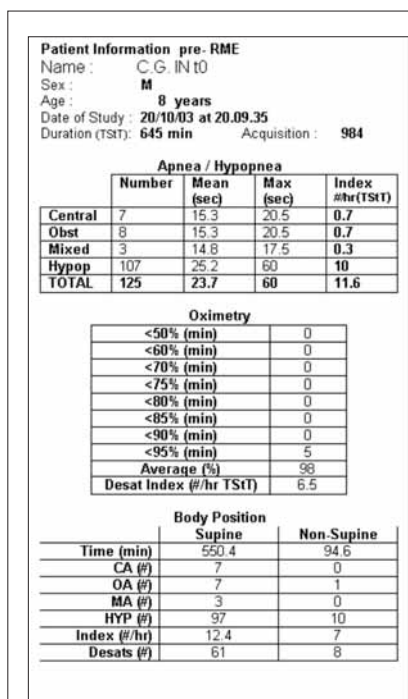
- out of the 34 cases with bilateral nose breathing deficit 26 went back to normal and in 6 cases the deficit was unilateral and in two cases the deficit had improved but was still present; all of the 8 cases of unilateral deficit were within physiological limits;
- audiometric tests, tympanometry and tubaric functionality tests: 6

of the 11 patients with tubaric disease healed without associated medical therapy and 5 patients underwent mucolytic and/or cortisonic therapy;

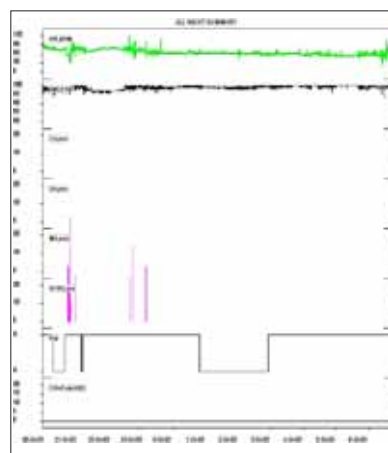
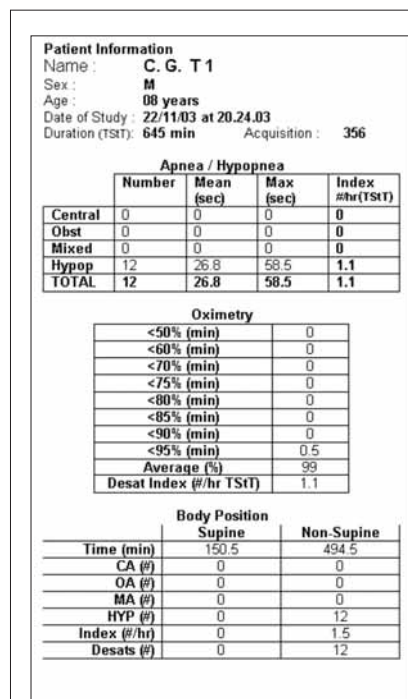
- polysomnography (Fig. 6): group A and B present a normalization of recording with AHI<5; group C presented in 3 cases a AHI< 5 and in the other 2 cases a significant improvement of AHI=6.3 and 8.1. Four months after the or-



Figs. 4 CT Volume Rendering of maxilla pre (on the left) e post RME (on the right).



Figs. 5 Example of polysomnographic sheet raised by a patient before RME therapy (T0). The Apnoea/Hypopnoea Index (AHI) value was 11.6 (normal value <5).



Figs. 6 Example of polysomnographic sheet raised by the same patient of fig 4, after 4 weeks of RME therapy (T1). Note the AHI value at 1.1.

thodontic treatment (T2) all data showing a normalization of functional examinations were confirmed;

- active anterior rhinometry: the 6 cases with residual unilateral deficit resulted normal; the two case of group C with bilateral

deficit continued to improve, although physiologic levels were not reached;

- polysomnography: normalization also of the two residual cases of group C (AHI < 5) (Tab.I).

Statistical findings

The baseline rhinomanometric data showed a statistically significant difference with respect to those at 2 and 4 months (Wilcoxon Z = - 4.86, p = 0.000 Wilcoxon Z = - 5.39, p = 0.000, respectively). The difference between rhinomanometric data at 2 and 4 months was also statistically significant (Wilcoxon Z = - 4.86, p = 0.000).

The difference between baseline AHI and that at 2 and 4 months was also statistically significant (Wilcoxon Z = - 4.0, p = 0.000 Wilcoxon Z = - 5.15, p = 0.000, respectively). The difference between AHI at 2 and 4 months was statistically significant, too (Wilcoxon Z = - 2.0, p = 0.046).

Discussion

The results reported by the 42 patients studied show that the R.M.E. therapy widens nasal fossa and releases the septum thus restoring a normal nasal airflow with disappearance of obstructive sleep disordered breathing. R.M.E. is a therapeutic device which we successfully adopted for many years to obtain a skeletal expansion of the upper jaw.

Table I Polysomnographic data: Note the significant improvement in all the functional parameters achieved at T2. All data displayed as mean \pm SD. T0: before any orthodontic therapy; T1: after 4 weeks with the device; T2: 4 months after the end of the orthodontic treatment.

Polysomnographic data in 42 children			
	T0	T1	T2
Obstructive AHI	Range 5.4 - 21.2 ave. 12.17 \pm 2.5	0 - 8.2 ave. 9.5 \pm 2.3	0 - 2,3 ave. 0.5 \pm 1.2
Nadir SpO ₂ (%)	78.8 \pm 8.6	89.1 \pm 5.6	95.9 \pm 1.8
Duration of Longest Obstructive Apnea (sec)	35.9 \pm 18.2	27.2 \pm 13.3	12.2 \pm 7.3
Duration of Desaturation (S3O ₂ <92%) ass% TST	19.6 \pm 3.3	6.3 \pm 1.8	1.2 \pm 1.2
Sleep Efficiency (%)	87.4 \pm 8.9	88.5 \pm 6.7	89.7 \pm 7.5

The anatomical criteria of this technique consist in the application of orthopaedic forces through particular procedures on the midpalatal suture. This is mainly made up of compact bone laterally, and fibrous tissue with fibroblasts, collagen fibres and vessels centrally^{20,22}.

Bone distraction is possible thanks to the very biology of the bone and can be obtained by applying heavy forces through the orthodontic device anchored onto the teeth

Bone distraction at the suture level causes an actual widening of the maxilla increasing its cross-section as well as the anatomical space of the nasal cavity.

X-ray findings clearly show how the RME manoeuvre separates the nasal and palatal bones. A sub-

stantial increase is reported at cross-sectional level with a relevant improvement in nasal airflow. Increasing of upper jaw cross-section also clearly affects the nasal cavities and it is a true anatomic change that brings about an increased patency of the upper airways. This is also the basis for the positive effects induced by the RME manoeuvre on the respiratory function. Associated orthodontic movements can also indirectly improve the oropharyngeal space by modifying the resting posture of the tongue. Since 1984, Timms^{19,23,24} has published several articles documenting the subjective and objective improvement of nasal resistance in 10 to 20 y.o. patients using rhinometry. However, the Author nev-

er made the connection between his findings and OSAS. Kuroi et al²⁵ also reported improvement of nasal resistance in 10 prospectively studied children, aged 8 to 13 y.o., treated with RME. Warren et al²⁶, who performed a prospective study on 16 children aged 10 to 14 years, demonstrated improvement in 45% of cases. Probably RME would not be useful by itself in cases of adenotonsillar hypertrophy, and for this reason in our study children with enlarged adenoids and tonsils were not included. Moreover, abnormal nasal resistance will have an impact not only on the maxilla, but also on the mandible. Despite the change in tongue position with RME, the gain may not be sufficient. The width of

the mandible should be considered when RME is performed, as upper and lower teeth must be in apposition. Combined treatment on the maxilla and mandible, as recently presented by Guilleminault and Li²⁷, may be necessary.

Correction of upper jaw narrowness in children can not only resolve OSAS cases but also avoid resorting to septoplasty in the adult by widening nasal cavities and straightening the septum.

The decision not to have a control group was due to the short duration of the therapy. In fact, in a non treated group, the changes in the studied parameters would have been not significant.

In few cases, the compensatory response in the lower arch did not show any evidence of cross bite. In those patients who did not have a cross bite at the beginning of the treatment, we adopted RME not only to gain arch width to avoid extraction treatment, but also to increase the transverse diameter of the maxilla in children affected by OSAS and rhino-tubaric disfunction. The goal was to realize an actual widening of the maxilla to achieve a functional improvement in children, although some space-gaining procedures are necessary to "coordinate" the treatment effect. Recent data²⁸ indicate that the transverse expansion in the mandibular arch in selected areas is unstable.

The results of the present study showed that RME intervention is effective in children affected by OSAS without any other obvious obstruction

of the upper respiratory airways.

The Authors suggest careful evaluation of the maxillary skeleton base status as possible common cause of OSAS and resort to RME therapy.

Orthodontists may play a very important role in the interdisciplinary treatment of OSAS as a high percentage of these patients suffer from maxillary narrowness. In young patients RME treatment can effectively have a favourable orthopaedic role in modifying facial bony structures and in conditioning positively further developmental processes.

References

1. Guilleminault C, Khramtsov A. Upper airway resistance syndrome in children: a clinical review. *Semin Pediatr Neurol* 2001 Dec;8(4):207-15. Review.
2. Guilleminault C, Li KK, Khramtsov A, Pelayo R, Martinez S. Sleep disordered breathing: surgical outcomes in prepubertal children. *Laryngoscope* 2004 Jan;114(1):132-7.
3. Guilleminault C, Partinen M, Praud JP, Quera-Salva MA, Powell N, Riley R. Morphometric facial changes and obstructive sleep apnea in adolescents. *J Pediatr* 1989 Jun;114(6):997-9.
4. Fransson AM, Tegelberg A, Svenson BA, Lennartsson B, Isacson G. Influence of mandibular protruding device on airway passages and dentofacial characteristics in obstructive sleep apnea and snoring. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2002 Oct;122(4):371-9.
5. Vargervik K, Miller AJ, Chierici G, Harvold E, Tomer BS. Morphological changes in neuro-muscular patterns experimentally induced by altered mode of respiration. *Am J Orthod* 1984 Feb;85(2):115-24.
6. Linder-Aronson S. Dimensions of face and palate in nose breathers and habitual mouth breathers. *Odont Rev*

- 1969;14:187-200.
7. Rubin RM. Effects of nasal airway obstruction on facial growth. *Ear Nose Throat J* 1987 May;66(5):212-9.
8. Harvold EP, Tomer BS, Vargervik K, Chierici G. Primate experiments on oral respiration. *Am J Orthod* 1981 Apr;79(4):359-72.
9. Saponara M. et al. La tuba uditiva in pazienti con OSAS. *Il Valsalva* 1998;74:161-6.
10. Miller AJ, Vargervik K, Chierici G. Sequential neuromuscular changes on rhesus monkeys during the initial adaptation to oral respiration. *Am J Orthod* 1982 Feb;81(2):99-107.
11. Pirelli P. Respirazione orale e sviluppo cranio facciale: importanza dell'approccio interdisciplinare. *Mondo Ortodontico* 1996;21:265-75.
12. Sleep-related breathing disorders in adults: recommendations for syndrome definition and measurement techniques in clinical research. The Report of an American Academy of Sleep Medicine Task Force. *Sleep* 1999;22:667-89.
13. Di Malta E. *Basi Anatomiche e Fisiologiche delle III Classi. Terapia Ortopedica*. Bologna: Edizioni Martina; 1992.
14. Gianni E. *La nuova Ortognatodonzia*. Padova: Piccin; 1980.
15. Langlade M. *Cefalometria Ortodontica*. Milano: Scienza e Tecnica Dentistica; 1979.
16. Pirelli P. *Suture craniofacciali e Ortognatodonzia: applicazioni cliniche*. *Mondo Ortodontico* 1996;21:339-50.
17. Pirelli P, Giancotti A, Pirelli M. ERM: effetti strutturali e ripercussioni sul setto nasale. *Mondo Ortodontico* 1996;21:351-60.
18. Pirelli P, Marullo M, Casagrande M, Tornaghi M. Espansione rapida del mascellare: effetti sulla funzionalità respiratoria ed uditiva. *Mondo Ortodontico* 1995;20:129-35.
19. Timms DJ. The effect of rapid maxillary expansion on nasal airway resistance. *Br J Orthod* 1986 Oct;13(4):221-8.
20. Pirelli P, Arcuri C, Cocchia D, Tonoli A. Considerazioni sulla sinostosi della sutura mesiopalatina dell'uomo: studio istologico. *Ortognatodonzia Italiana* 1993 Jan;2(1):111-5.

21. Pirelli P, Botti F, Ragazzoni E, Arcuri C, Cocchia DA. A Light microscopic investigation of the human midpalatal suture. *Ital J Anat Embryol* 1999 Jan-Mar;104(1):11-8.
22. Pirelli P, Botti F, Arcuri C, Ragazzoni E, Cocchia D. New morphologic data on the human palatal suture. *Acts 72°Congress-Eur. Orthod Soc. Brighton*; 1996.
23. Timms DJ. The reduction of nasal airway resistance by rapid maxillary expansion and its effect on respiratory disease. *J Laryngol Otol* 1984 Apr;98(4):357-62.
24. Timms DJ. Rapid maxillary expansion in the treatment of nocturnal enuresis. *Angle Orthod* 1990 Fall;60(3):229-33; discussion 234.
25. Kuroi J, Modin H, Bjerkhoel A. Orthodontic maxillary expansion and its effect on nocturnal enuresis. *Angle Orthod* 1998 Jun;68(3):225-32.
26. Warren DW, Hershey HG, Turvey TA, Hinton VA, Hairfield WM. The nasal airway following maxillary expansion. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1987 Feb;91(2):111-6.
27. Guilleminault C, Li KK. Maxillo-mandibular expansion for the treatment of sleep-disordered breathing: preliminary result. *Laryngoscope* 2004 May;11(5):893-6.
28. Gianelly AA. Rapid palatal expansion in the absence of crossbites: added value? *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2003 Oct;124(4):362-5.
29. Cozza P, Polimeni A, Ballanti F. A modified monobloc for the treatment of obstructive sleep apnoea in pediatric patients. *Eur J Orthod*. 2004 Oct; 26(5):523-530.
30. Pirelli P, Saponara M, Guilleminault C. Rapid Maxillary Expansion in children with Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Sleep* 2004 June; 27(4): 761-766 .

OSAS e disfunzioni rino-tubariche in età pediatrica: efficacia della terapia con Espansione Rapida del Mascellare (RME)

Paola Pirelli*, Maurizio Saponara **, Giuseppe Attanasio**

Introduzione

Nella comunità scientifica internazionale crescente è l'interesse per un approccio interdisciplinare ai pazienti affetti da OSAS.

Nell'ambito di queste collaborazioni è risultato evidente come l'apporto di più competenze possa nel trattamento di una patologia complessa quale l'OSAS consentire il conseguimento di terapie mirate ed efficaci¹⁻³.

In particolare è alto l'interesse delle correlazioni esistenti tra OSAS, malocclusioni e malformazioni maxillo-facciali. Sono molto frequenti infatti nei pazienti OSAS le anomalie cranio facciali riguardanti sia il mascellare che la mandibola e le relative conseguenze delle alterazioni delle strutture scheletriche sullo spazio dinamico respiratorio³⁻⁷.

È noto che le alterazioni a carico dell'architettura del setto nasale riducono il passaggio dell'aria ed aumentano la resistenza alla respirazione nasale^{3,8}.

Queste condizioni, considerando che in età pediatrica la tuba di Eustachio è più corta, rettilinea e frequentemente beante rispetto agli adulti, possono anche generare nei bambini patologie tubo-timpaniche⁹. Quando tali condizioni si instaurano nei primi anni di vita, possono determinare una deformazione del mascellare superiore riducendo il completo sviluppo trasversale dello stesso che risulterà contratto^{5-8,10,11}.

Inoltre le deviazioni del setto nasale non solo sono responsabili di un'asimmetrica distribuzione degli spazi intranasali ma determinano anche un'alterazione strutturale interna a livello dei turbinati, da cui deriva una diminuzione del flusso aereo totale.

Dal momento che un numero significativo di pazienti in età pediatrica affetti da roncopia e OSAS di grado lieve presentano come fenomeno ostruttivo una deviazione del setto nasale, a volte associata ad alterazioni della funzionalità tubarica, e contrazione del mascellare superiore, abbiamo voluto valutare se la rimozione della patologia mascellare attraverso RME, producesse un miglioramento sia della pervietà delle vie aeree nasali sia dell'OSAS.

Materiali e Metodi

Abbiamo selezionato 42 pazienti in età evolutiva, range 6-13 anni (età media^{7,3}), 26 maschi e 16 femmine, giunti alla nostra osservazione in quanto riferivano in anamnesi respirazione orale, russamento, apnee notturne. I criteri di selezione del campione sono stati l'assenza di ipertrofia adeno-tonzillare, BMI inferiore a 24 e la presenza di malocclusione caratterizzata da contrazione del mascellare superiore. I pazienti sono stati sottoposti a visita otorinolaringoiatrica comprensiva di esame audiometrico, timpanometria con prove di funzionalità tubarica, rinomanometria anteriore attiva, fibroscopia nasale; questionario per la valutazione del grado di sonnolenza diurna; esame polisinnografico a 19 canali di registrazione. I polisinnogrammi ottenuti sono stati analizzati secondo i criteri dell'American Academy for Sleep Medicine¹². Ogni evento è stato considerato anormale se più lungo della durata di due respiri.

La visita ortognatodontica è stata corredata di accertamenti radiologici costituiti da: RX ortopantomica, telera-diografia del cranio in proiezione latero-laterale (eseguita solo in TO per valutazione diagnostica della malocclusione) e postero-anteriore, Rx endorale occlusale del palato.

Tutti gli accertamenti sono stati eseguiti prima della terapia ortodontica (T0), a distanza di 1 mese (T1) con apparecchiatura ancora in sede, e a 4 mesi dal termine del trattamento ortodontico durato circa 6-12 mesi (T2).

È stata ottenuta l'approvazione del comitato etico e del consenso informato dei genitori dei pazienti.

Visita ortodontica

L'esame clinico dal punto di vista ortodontico, condotto secondo il nostro iter diagnostico^{13,14}, ha evidenziato nel campione considerato le seguenti caratteristiche:

- esame extraorale: reperto costante è la tipica facies del respiratore orale, caratterizzata da: appiattimento del 3° medio del volto, incompetenza labiale con ipotonia del labbro superiore da cui risulta un aumento dell'angolo nasolabiale;
- esame intraorale: i pazienti presentavano come costante caratteristica una contrazione del mascellare superiore che a livello palatale aveva un aspetto ogivale dato da una volta palatina alta e stretta.

Tale contrazione clinicamente si presentava, nella maggioranza dei casi trattati, con una malocclusione caratterizzata da cross-bite mono o bilaterale, spesso anche anteriore.

In rari casi la reazione compensatoria dell'arcata inferiore non comportava l'evidenza del cross-bite.

La contrazione del mascellare superiore non veniva diagnosticata solo clinicamente, ma era anche confermata dalle valutazioni cefalometriche¹⁵ condotte sulle teleradiografie del cranio. Sono state prese in considerazione le seguenti misurazioni: NC-CN per le cavità nasali; JL-ZL/AG e JR-ZR/GA, per i diametri mascellari rispettivamente del lato destro e sinistro. Per la determinazione dell'aumento del diametro trasverso mascellare sono stati usati due piani: NC-CN per l'ampiezza delle cavità nasali e JL-JR per quella del mascellare (Fig. 1).

Espansione rapida del mascellare (R.M.E.)

La procedura di R.M.E., che noi adottiamo con successo da molti anni, si realizza tramite un'apparecchiatura ortodontica fissa detta disgiuntore, che trova ancoraggio sugli elementi dentali scelti come pilastri¹⁶.

In base al grado evolutivo della dentizione costruiamo il disgiuntore sfruttando come elementi di ancoraggio i primi molari e premolari permanenti oppure in dentizione decidua i secondi molari, purchè presentino i requisiti di stabilità necessari.

Struttura dell'apparecchiatura

L'apparecchiatura da noi utilizzata è costituita da una vite centrale d'espansione da cui partono 4 bracci: 2 anteriori e 2 posteriori di diametro 1,5 mm. Sono state adottati due tipi diversi di viti: il tipo Leone A0620/13 e il tipo Forestadent 1671326L 'S' per palati particolarmente contratti.

Fondamentale è che l'apparecchiatura risponda a criteri di realizzazione che consentano di applicare una forza pesante tramite gli elementi dentali che fungono da pilastro, il cui effetto espansivo si possa scaricare sulla sutura, senza indurre indesiderate inclinazioni dentali.

Solo procedendo in tal senso si realizza lo scopo della nostra terapia: l'aumento di ampiezza dell'arcata mascellare deve derivare non dall'inclinazione dell'arcata dentaria, bensì da un incremento reale dei diametri trasversi del palato che si realizza grazie alle modifiche indotte a livello della sutura palatina mediana.

L'apparecchio quindi deve essere meno ingombrante possibile, molto solido e perfettamente aderente ai pilastri di ancoraggio; inoltre la vite di espansione deve essere posizionata più in alto possibile verso il palato.

La correttezza della manovra dipende anche dall'entità della forza impiegata e dal tempo di applicazione della forza stessa.

Sistema di attivazione

Il sistema di attivazione della vite da noi adottato^{17,18} prevede la seguente procedura:

- 1° giorno-mattina e sera: 3 attivazioni successive esercitate a 10 minuti di distanza;
- dal 2° giorno in poi – mattina e sera: 1 attivazione.

L'analisi a confronto di una Rx endorale occlusale scattata in TO, con una scattata dopo 3 giorni dall'inizio delle attivazioni, consente di verificare l'apertura della sutura palatina mediana e quindi di proseguire la manovra espansiva certi della sua correttezza.

La fase attiva di espansione è durata da un minimo di 10 giorni ad un massimo di 20 in relazione alla necessità di espansione di ogni soggetto. La fase attiva è quindi seguita da una fase di ritenzione fissa che può durare dai 6 ai 12 mesi.

L'apparecchiatura è stata ben tollerata da tutti i pazienti del campione in oggetto. Tali pazienti erano stati doverosamente istruiti sulle norme comportamentali, anche in relazione all'alimentazione, sulle regole di igiene orale da osservare nel caso particolare dell'apparecchiatura adottata. Ciò allo scopo di evitare complicanze che avrebbero interferito con il corretto andamento della manovra espansiva.

Analisi statistica

I dati sono stati analizzati usando il programma SPSS/PC. Abbiamo utilizzato il "Wilcoxon signed-rank test" per valutare i

cambiamenti dovuti all'intervento sperimentale prima e dopo lo studio. Il "Wilcoxon signed-rank test" considera le informazioni ricavate sia dalle differenze che dalla grandezza delle differenze tra i due parametri (prima e dopo la terapia) studiati; è più "potente" del "sign test".

Risultati

Le modifiche indotte dall'RME sul mascellare superiore e sul setto nasale sono state da noi evidenziate con lo studio delle tele Rx del cranio in proiezione postero-anteriore, scattate in T0, T1, T2 e valutate a confronto.

Tale valutazione è a nostro avviso la più attendibile per determinare l'aumento dei diametri trasversi del mascellare; infatti studi basati sulla misurazione dell'aumento di ampiezza dell'arcata dentaria superiore condotta su modelli in gesso possono essere influenzati da indesiderati fenomeni di inclinazione dentale da cui possono derivare incrementi che non corrispondono a reali modifiche scheletriche.

Per lo studio cefalometrico abbiamo adottato parametri tratti dalle analisi di Ricketts¹⁵ (Fig. 1).

In tutti i casi trattati si è ottenuta l'apertura della sutura palatina mediana, evento confermato dalle prove radiografiche sia delle endorali occlusali che delle telex del cranio (Figg. 2, 3). Le valutazioni condotte sulle variazioni di ampiezza del mascellare, rilevano un aumento che conferma l'azione diretta della manovra di RME a livello scheletrico; tale manovra infatti, grazie al distacco della sutura palatina mediana (Fig. 4), è responsabile dell'espansione dei due emimascellari con un incremento medio dei diametri trasversi (distanza JLJR) di 5,91 +/- 0,7 mm.

Lo studio della distanza intermolare superiore evidenzia un incremento medio di 8,18 +/- 0,3 mm, valore che rivela una scarsa componente di vestibolo-inclinazione per effetto dell'espansione rapida.

Lo spazio interincisivo, segno patognomonico dell'apertura della sutura palatina mediana, è stato sempre presente in tutti i casi da noi trattati, mostrando un'apertura media di 4,72 +/- 0,2 mm. Tale spazio scompare in seguito gradualmente grazie al movimento delle fibre transettali che consentono il riavvicinamento degli incisivi tra loro.

L'aumento dei diametri trasversi del mascellare è evidenziato ulteriormente dallo studio delle cavità nasali che, per effetto della manovra, risultano ampliate, mostrando infatti un incremento medio dell'apertura piriforme di 3,85 +/- 0,3mm.

Risultati ORL

Alla prima osservazione (T0) il campione selezionato presentava:

- faringoscopia: assenza di tonsille palatine per precedente adenotonsillectomia 31 casi, tonsille palatine normotrofiche 11 casi;
- rinoscopia posteriore con fibroscopia nasale: assenza in tut-

ti i 42 casi di significativo tessuto linfatico adenoideo o di altre cause ostruttive;

- rinoscopia anteriore: deviazione del setto nasale con ipertrofia dei turbinati inferiori in 31 casi e senza significativa ipertrofia dei turbinati inferiori in 11 casi;
- rinometria anteriore attiva: abbiamo considerato patologica una resistenza nasale > 1,8 ad una pressione di 75 Pascal deficit respiratorio nasale bilaterale 34 casi, monolaterale 8 casi;
- prove allergologiche con test cutanei: negative per i maggiori allergeni perenni e stagionali;
- esami audiometrici: ipoacusia trasmissiva di grado lieve (perdita uditiva tra 15 e 25 db) monolaterale 3 casi, bilaterale 5 casi;
- esami timpanometrici con prove di funzionalità tubarica: curve di tipo E con deficit tubarico (compliance a valori pressori superiori a - 50 mm/acqua) 11 casi di cui tre senza ipoacusia;
- polisonnografia (Fig.5): Indice di Apnea/Ipopnea (AHI) dei 42 pazienti tra 5,9 e 21,3 (media 12,27). I pazienti sono stati divisi in tre gruppi: gruppo A: AHI > 5 < 10, media 8,1 (10 casi), gruppo B: AHI > 10 < 15, media 12,56 (27 casi), gruppo C: AHI > 15 < 22, media 18,52 (5 casi).

Dopo un mese di trattamento ortodontico con disgiuntore palatale ancora in sede (T1) gli esami funzionali nasali e polisunnografici hanno evidenziato

- rinometria anteriore attiva: dei 34 casi con deficit bilaterale, 26 sono risultati normalizzati e in 6 casi il deficit era monolaterale e in due casi il deficit era migliorato ma ancora presente; gli 8 casi di deficit monolaterale risultavano nei limiti fisiologici;
- esami audiometrici, timpanometrici e prove di funzionalità tubarica: degli 11 pazienti con patologia tubo-timpanica 6 sono guariti senza associazione di terapia medica e 5 hanno usufruito anche di terapia mucolitica e/o cortisonica;
- polisonnografia (Fig.6): i gruppi A e B presentavano una normalizzazione dei tracciati con AHI <5; il gruppo C presentava in 3 casi un AHI <5 e negli altri 2 un miglioramento significativo con AHI di 6,3 e 8,1.

Dopo 4 mesi dal termine del trattamento ortodontico (T2) tutti i dati di normalizzazione degli esami funzionali erano confermati:

- rinometria anteriore attiva: i 6 casi con deficit monolaterale residuo risultavano normali: due casi con deficit bilaterale continuavano ad avere valori migliorati ma non fisiologici;
- polisonnografia: risultava la normalizzazione anche dei due casi residui del gruppo C (AHI <5) (Tab.I).

Risultati statistici

La differenza ottenuta con i dati rinomanometrici basali rispetto a quelli dopo 2 mesi e 4 mesi è statisticamente significativa (rispettivamente Wilcoxon $Z = -4,86$, $p = 0,000$ Wilcoxon $Z = -5,39$, $p = 0,000$). Anche la differenza tra i dati rina-

manometrici dopo 2 mesi e dopo 4 mesi è statisticamente significativa (Wilcoxon $Z = -4,86$, $p = 0,000$). La differenza tra AHI basale ed AHI dopo 2 mesi e dopo 4 mesi è statisticamente significativa (rispettivamente Wilcoxon $Z = -4,0$, $p = 0,000$ Wilcoxon $Z = -5,15$, $p = 0,000$). Anche le differenze tra RDI dopo 2 mesi e 4 mesi sono statisticamente significative (Wilcoxon $Z = -2,0$, $p = 0,046$).

Discussione

I risultati ottenuti nei 42 pazienti da noi esaminati dimostrano come l'applicazione dell'RME determini un ampliamento delle fosse nasali e la liberazione del setto che consente il ripristino del normale flusso aereo nasale con scomparsa dei disturbi respiratori nel sonno di origine ostruttiva.

La RME è un presidio terapeutico che adottiamo da diversi anni con successo nei casi in cui vogliamo ottenere un'espansione scheletrica del mascellare superiore.

I fondamenti anatomici su cui si basa la tecnica consistono nell'applicare forze ortopediche, tramite particolari procedure, sulla sutura palatina mediana che è costituita lateralmente da tessuto osseo compatto e centralmente da tessuto fibroso con fibroblasti, fibre collagene e vasi²⁰⁻²².

Questa base biologica consente la distrazione ossea che si ottiene quando si applicano forze pesanti tramite l'apparecchiatura ortodontica ancorata sugli elementi dentali.

La distrazione ottenuta a livello della sutura consente di realizzare un ampliamento reale della base scheletrica mascellare con incremento dei diametri trasversi ed aumento dello spazio anatomico delle sovrastanti cavità nasali.

Infatti i rilievi radiologici dimostrano come la manovra espansiva ottenuta con RME, allontana le ossa nasali e le ossa palatali.

L'effetto complessivo dell'espansione consiste quindi in un movimento in basso e in avanti del complesso mascellare da cui risulta un aumento del canale nasale in tutte le direzioni. L'aumento è soprattutto evidente per i diametri trasversi, cosa che permette un aumento del passaggio dell'aria.

Già dal 1984, Timms ha pubblicato numerosi studi^{19,23,24} che hanno evidenziato una riduzione soggettiva e oggettiva della resistenza al passaggio dell'aria nelle fosse nasali in pazienti di età compresa tra 10 e 20 anni usando la rinomanometria. Tuttavia l'Autore non ha mai messo in correlazione tali risultati con l'OSAS. Anche Kurol et al²⁵ hanno osservato un miglioramento della pervietà nasale in soggetti pediatrici trattati con RME. Warren et al²⁶, hanno effettuato uno studio prospettico in 16 bambini di età tra 10 e 14 anni ed hanno riscontrato un miglioramento significativo nel 45% dei casi trat-

tati con RME. È ipotizzabile che la terapia RME non possa garantire un miglioramento delle resistenze nasali in quei bambini affetti da ipertrofia adeno-tonsillare, e per tale ragione nel nostro studio tali soggetti non sono stati compresi nel campione. Inoltre bisogna considerare che un'aumentata resistenza nasale al passaggio dell'aria si riflette non solo sul mascellare ma anche sulla mandibola; malgrado la correzione della postura linguale con la RME, il guadagno può risultare comunque non sufficiente. Un trattamento combinato sulla mascella e la mandibola potrebbe essere necessario, così come suggerito da Guilleminault e Li²⁷.

La correzione in età pediatrica della contrazione del mascellare superiore non solo può essere risolutiva in pazienti affetti da OSAS ma, determinando un miglioramento di ampiezza delle cavità nasali associata a raddrizzamento del setto nasale, eviterebbe il ricorso ad interventi chirurgici di settoplastica in età adulta.

La significativa influenza sulla risoluzione della patologia tubotimpanica è ricollegabile ad una diminuzione delle resistenze alla respirazione nasale con aumento del flusso aereo totale. La scelta di non valutare un gruppo di controllo è stata determinata dal fatto che la terapia adottata si svolge in tempi brevi. Quindi in un gruppo di pazienti non trattato le variazioni dei parametri considerati sarebbero risultate insignificanti.

In alcuni casi non era presente morso crociato all'inizio del trattamento: la finalità della manovra terapeutica di RME è stata quella di realizzare un incremento reale della base scheletrica del mascellare in bambini affetti da OSAS, piuttosto che quella di evitare il ricorso alle estrazioni. Recenti dati in letteratura²⁸ indicano che l'espansione trasversale dell'arcata mandibolare è soggetta a recidive. In questi casi quindi è opportuno tener presenti tali problematiche nel piano di trattamento ortodontico.

I risultati dimostrano che la RME è un intervento risolutivo nei bambini affetti da OSAS, senza altre ostruzioni a livello delle vie aeree nasali e che questa migliori anche le patologie rinitubariche che possono associarsi a deficit respiratori nasali. Gli Autori suggeriscono di considerare attentamente lo stato del palato duro come causa di deficit respiratorio nasale con conseguente presenza di disturbi respiratori ostruttivi del sonno e patologie rinitubariche, per prendere in considerazione l'efficacia della RME.

L'Ortodontista può giocare un ruolo importante nel trattamento interdisciplinare dell'OSAS, in quanto un'alta percentuale di questi pazienti presenta una contrazione del mascellare superiore. Nei giovani pazienti il trattamento con RME può avere effettivamente un ruolo ortopedico favorevole, in quanto la manovra consente un miglioramento funzionale grazie a modifiche permanenti della struttura ossea.