

Maloclusiones, factores asociados y alternativas de tratamiento ortodóncico para pacientes portadores de síndrome de Down

C.S. QUINTEROS ORTIZ¹, D.A. ROJAS CÁCERES¹, K.N. TERÁN QUEZADA²

¹Cirujano Dentista. Licenciado en Odontología. UAndes. Práctica Privada. Santiago, Chile. ²Cirujano Dentista. Licenciada en Odontología. CAS-UDD. Práctica Privada. Santiago, Chile

RESUMEN

Objetivo: describir las maloclusiones más prevalentes, sus factores asociados y posibles tratamientos ortodóncicos en pacientes con síndrome de Down.

Materiales y método: se realizó una búsqueda de la evidencia científica de los últimos 15 años, en distintas bases de datos (PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline, Google académico y BEIC), utilizando criterios de inclusión y exclusión.

Resultados: existe una evidencia clara sobre las maloclusiones más prevalentes; además, se puede observar que la intervención temprana con placas palatinas es una de las terapias más recomendadas.

Conclusión: es necesario mejorar el nivel de evidencia y calidad de los estudios del tratamiento de estos pacientes, poniendo énfasis en los periodos de seguimiento.

PALABRAS CLAVE: Tratamiento de ortodoncia. Síndrome de Down. Maloclusiones. Desarmonías oclusales.

ABSTRACT

Objective: To describe the most prevalent malocclusion, their associated factors and possible orthodontic treatment in patients with Down syndrome.

Materials and method: A search was performed of the scientific evidence over the last 15 years using different data bases (PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline, Google Scholar, and BEIC), using inclusion and exclusion criteria.

Results: There is clear evidence regarding the most prevalent malocclusions. In addition, it can be observed that early intervention with palatal plates is one of the most recommended treatments.

Conclusion: The level of evidence and quality of the studies on the treatment of these patients should be improved, and emphasis placed on the follow-up periods.

KEY WORDS: Orthodontic treatment. Down syndrome. Malocclusion. Occlusal disharmonies.

INTRODUCCIÓN

Es sabido que en múltiples casos las personas con síndrome de Down (SD) presentan alguna alteración médica a nivel cráneo-facial y oral (1). Es importante destacar que estas pueden afectar tanto al tejido óseo como blando, por lo que es necesario identificar las distintas maloclusiones que presentan estos pacientes.

Diversos estudios revelan que existe una alta prevalencia de maloclusiones, tanto transversales como verticales, siendo la mordida cruzada y abierta las más comunes en pacientes portadores de SD (1,2). Además de anomalías dentomaxilares, en estos pacientes también se puede observar anomalías dentarias de número (3), donde la prevalencia de hipodoncia en dentición permanente es de un 54,6% (4).

Se ha descrito a través de la literatura que las maloclusiones poseen diversas etiologías. Un factor importante a destacar en estas son los malos hábitos, ya que los pacientes con SD presentan una prevalencia de malos hábitos de succión similar a los pacientes con desarrollo normal. Se destaca que los niños con SD no solo presentan el hábito de succión digi-

tal, sino que además succionan su lengua, juguetes y chupete. Lo anterior puede repercutir en la cavidad oral, ya sea de forma directa o indirecta, provocando o agravando alteraciones en la oclusión, como por ejemplo, la mordida cruzada (1,2).

Para estos pacientes se han descrito algunas alternativas de tratamiento ortodónico y/o ortopédico para las maloclusiones más comunes y la hipotonía característica que ellos poseen (5). El mayor énfasis terapéutico se enfoca en realizar una intervención temprana, con el fin de prevenir las anomalías del desarrollo orofacial relacionadas al síndrome. Entre las alternativas de tratamiento está la expansión maxilar para tratar anomalías en sentido transversal y la intervención temprana de la función orofacial a través de placas palatinas.

El objetivo de este estudio es analizar y recopilar la información existente sobre las maloclusiones más prevalentes, sus factores asociados y cuáles son los posibles tratamientos ortodónicos que se reportan para los pacientes con síndrome de Down.

MATERIAL Y MÉTODO

Se realizó una revisión narrativa a través de la búsqueda en las siguientes bases de datos: PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline y Google académico. Se utilizó la base de datos BEIC, donde se accedió a las siguientes colecciones: Wiley-Blackwell, Elsevier, y se utilizaron artículos de texto completo. Se seleccionaron las publicaciones con base en el nivel de evidencia y calidad de reporte de estas. Asimismo, se incluyeron las revistas científicas suscritas y de libre acceso encontradas en las bases de datos. Se buscaron estudios clínicos, revisiones sistemáticas, estudios de casos y controles, de cohorte y transversales.

Dentro de los criterios de inclusión, los artículos debían contener las palabras de búsqueda; tener acceso a texto com-

pleto; ser publicaciones en español, portugués e inglés; y limitarse a los últimos 15 años, a excepción de dos estudios de 1991 y 1993, los cuales proporcionaron información de suma importancia sobre los tratamientos. Por otra parte, fueron excluidos aquellos artículos que estuviesen en un idioma diferente a los anteriormente descritos o de los que no existía la posibilidad de obtener el texto completo. Las palabras claves utilizadas fueron: *orthodontic treatment*, *Down syndrome*, *malocclusion* and *occlusal disharmonies*. Asimismo se usaron los operadores booleanos AND y NOT. Para ajustar la búsqueda y encontrar mejores resultados, en una segunda fase se agregaron los términos: *maxillary expansion* y *palatal plates*, además de los términos *MESH functional orthodontic appliance*, *palatal expansión technic*, y *Down syndrome*.

Para definir el nivel de evidencia científica y grado de recomendación se utilizó el esquema propuesto por la AATM (6).

En cuanto a la evaluación de la calidad del reporte, se utilizaron las guías propuestas *Equator Network*; para ensayos clínicos randomizados el *checklist* CONSORT; para ensayos clínicos no randomizados el *checklist* TREND; para estudios observacionales el *checklist* combinado con STROBE; y para revisiones sistemáticas y metaanálisis se utilizó el *checklist* PRISMA.

RESULTADOS

Después de aplicar los criterios de inclusión y exclusión se seleccionaron 6 artículos en relación con la prevalencia y etiología de las maloclusiones en pacientes con SD, todos correspondientes a estudios observacionales de corte transversal.

Con respecto a las alternativas de tratamiento ortodónico, se encontraron 17 artículos tras la búsqueda electrónica, de los cuales 12 fueron excluidos, por no cumplir los criterios de inclusión (Fig. 1).

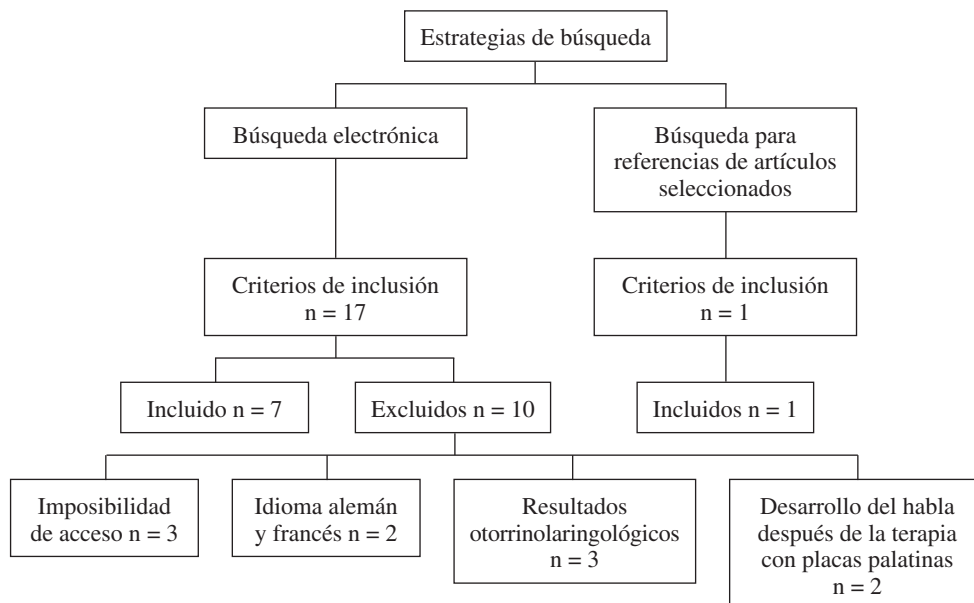


Fig. 1. Resultados de la búsqueda electrónica sobre alternativas de tratamiento ortodónico en SD.

El total de artículos incorporados para esta revisión fue de 11, siendo su nivel de evidencia científica y grado de recomendación evaluados según el esquema propuesto por la AATM (6), y la calidad de los reportes según las pautas STROBE, CONSORT o TREND, según correspondiese.

En la tabla I se pueden observar las características de los estudios sobre prevalencia y etiología de las maloclusiones y sus alternativas de tratamiento ortodóncico, respectivamente. Además, la tabla II señala el tamaño de la muestra, duración y seguimiento del tratamiento realizado en cada uno de los estudios.

TABLA I.
CARACTERÍSTICAS DE LOS ESTUDIOS SELECCIONADOS Y TIPO DE TRATAMIENTO

<i>Autor</i>	<i>Nombre estudio</i>	<i>Año</i>	<i>Tipo de estudio</i>	<i>Terapia aplicada</i>
Limbrock et al.	<i>Castillo-Morales' Orofacial Therapy: Treatment of 67 Children with Down syndrome</i>	1991	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo no controlado	Intervención función orofacial con placas estimulantes
Carlstedt et al.	<i>A four longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: Effects on oral motor function, articulation and communication preferences</i>	2003	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo controlado	Intervención función orofacial con placas estimulantes
Bäckman et al.	<i>Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 18 months of age</i>	2003	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo controlado	Intervención función orofacial con placas estimulantes
Korbmacher et al.	<i>Orofacial Development in Children with Down's syndrome 12 years After Early Intervention with a Stimulating Plate</i>	2004	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo	Intervención función orofacial con placas estimulantes
Bäckman et al.	<i>Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 48 months of age</i>	2007	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo controlado	Intervención función orofacial con placas estimulantes
Outumuro et al.	<i>Maxillary Expansion Therapy in Children With Down syndrome</i>	2010	Ensayo clínico (no randomizado) prospectivo controlado	Expansión maxilar

TABLA II.
CARACTERÍSTICAS DE LAS MUESTRAS Y DURACIÓN DEL TRATAMIENTO

<i>Autor</i>	<i>Año</i>	<i>Terapia aplicada</i>	<i>Control</i>	<i>Muestra</i>	<i>Duración del tratamiento</i>	<i>Seguimiento postratamiento</i>
Limbrock et al.	1991	Intervención función orofacial con placas estimulantes	No controlado	67 pacientes con un promedio de edad de 13,9 meses	12,1 meses en promedio	Sin seguimiento
Carlstedt et al.	2003	Intervención función orofacial con placas estimulantes	Controlado	20 niños con un promedio de edad de 24 meses	4 años	Sin seguimiento
Bäckman et al.	2003	Intervención función orofacial con placas estimulantes	Controlado	42 niños con un promedio de edad de 18,6 meses	12 meses	Sin seguimiento
Korbmacher et al.	2004	Intervención función orofacial con placas estimulantes	No controlado	20 niños con un promedio de edad de 16 meses	11,5 meses en promedio	12 años
Bäckman et al.	2007	Intervención función orofacial con placas estimulantes	Controlado	42 niños con un promedio de edad de 18,6 meses	42 meses	Sin seguimiento
Outumuro et al.	2010	Expansión maxilar	No controlado	32 niños con un promedio de edad de 11,69 años	No indicado	No indicado

DISCUSIÓN

La literatura científica ha demostrado que los pacientes con síndrome de Down presentan una alta prevalencia de maloclusiones, destacándose primordialmente la mordida invertida, mordida abierta y la mordida cruzada (1,7,8) (Fig. 2). Por otra parte, también se hace énfasis en la hipotonicidad muscular generalizada, característica de estos pacientes, ya que juega un rol fundamental en la expresión de malos hábitos, siendo los más prevalentes la protrusión lingual, respiración bucal, succión, fonación, masticación y posición dentaria alterada (5). Estos malos hábitos son el principal factor etiológico de las maloclusiones más frecuentes en pacientes con síndrome de Down. Por esta razón es recomendable realizar un tratamiento ortodóncico adecuado y oportuno que permita interceptar estos malos hábitos, con el fin de evitar la aparición y progresión de maloclusiones.

Existen dos tipos de tratamientos para los pacientes con síndrome de Down, el primero y más estudiado es la intervención temprana con placas palatinas (Fig. 3), que busca una mejoría en la función labial y lingual (5,9-12); y por otro lado, se encuentran los tratamientos ortodóncicos con aparatología fija (13). En cuanto a este último, la literatura es escasa, siendo Outumuro y cols. (14), uno de los pocos que ha realizado investigaciones sobre este tema. En su estudio se demuestra que el tratamiento ortodóncico basado en la expan-

sión maxilar para corregir anomalías en sentido transversal en pacientes con síndrome de Down tiene una alta tasa de éxito, ya sea con aparatología fija o removible. Además, compara los resultados de este tipo de tratamiento de pacientes con síndrome de Down *versus* pacientes con desarrollo normal, difiriendo entre ellos, ya que en estos últimos se debe realizar una activación lenta para así evitar complicaciones. Este estudio, basado en una serie de casos, tiene un buen nivel de evidencia (IV) y con una buena calidad de reporte, además de un aceptable grado de recomendación, según la AATM. Dadas las buenas características de esta publicación, es aconsejable la realización de nuevos estudios similares, respecto a tratamientos de ortodoncia específicos realizados en pacientes con síndrome de Down, ya que no solo otorga datos sobre el nivel de eficacia de estas terapias, sino que además entrega información sobre las consideraciones y complicaciones que se pueden presentar en este tipo de pacientes.

Por otra parte, se encontraron estudios (15-17) donde se investigaron los efectos de la expansión maxilar rápida, enfocados en demostrar resultados a nivel otorrinolaringológico, donde se observó una reducción en los síntomas de obstrucción respiratoria y en la pérdida de la audición en portadores de síndrome de Down. El inconveniente de estas investigaciones es que enfatizaron en la mejoría de la obstrucción nasal, pero no en las maloclusiones que presentaron los pacientes.

En cuanto al tratamiento interceptivo con placas palatinas estimulantes, estas pretenden regular el desarrollo orofacial de los pacientes y mantener estos cambios en el tiempo. El pionero de esta terapia fue Castillo-Morales (10), quien desarrolló un tratamiento interdisciplinario a mediados de los 70 en base a placas palatinas, con la indicación de posicionar la lengua arriba y atrás, y a su vez, ir estimulando el labio superior para un correcto cierre labial. El autor enfatiza que lo anterior debe ser combinado con fisioterapia, para así poder realizar ejercicios funcionales sumados a un programa neuromuscular. Castillo-Morales recomienda esto para así lograr un mejor resultado terapéutico (18). Varios son los estudios longitudinales que analizan esta terapia, donde se aprecian los efectos beneficiosos en la función motora-oral a corto y/o largo plazo. Específicamente, en este artículo, fueron analizados 5 estudios de este tipo, los que presentaban periodos de tratamiento y seguimiento desde los 18 meses hasta los 12 años (5,9-12). Algo en común que presentan es que, debido a la complejidad y al formato interdisciplinario del programa terapéutico de Castillo-Morales, sumado a que está contraindicado el uso de la placa de forma única como terapia de intervención temprana en niños con síndrome de Down, no se pudo asignar el efecto o influencia de forma individual de la placa palatina sobre el desarrollo orofacial. Por esta razón, las publicaciones que ofrece la literatura no pueden ser estrictamente concluyentes sobre la efectividad de las placas estimulantes. Los 5 estudios que se incluyeron en la revisión son ensayos clínicos con distintos periodos de seguimiento, donde se analiza el efecto de las placas palatinas en conjunto con terapias coadyuvantes. Todos poseen un buen nivel de evidencia, pero con distintos grados de recomendación y calidad, debido a las diferentes características en el método de estudio. Además, es importante mencionar que todos fueron avalados por un comité de ética antes de su realización.

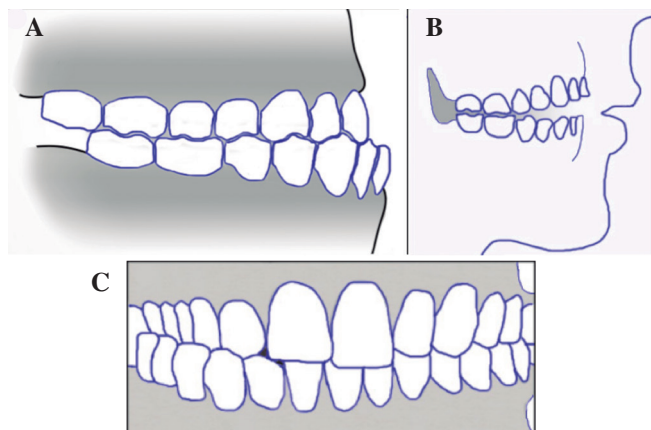


Fig. 2. Maloclusiones características de pacientes con síndrome de Down. A. Mordida cruzada; B. Mordida abierta; C. Mordida invertida.

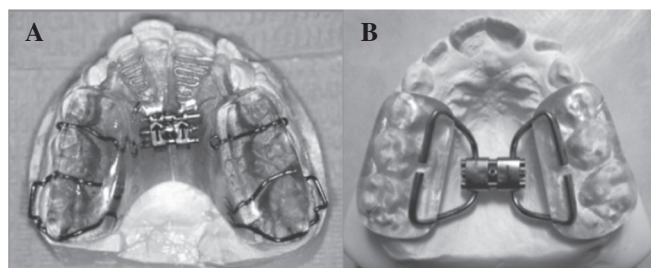


Fig. 3. Placa con tornillo de expansión maxilar. A. Removible; B. Fija.

Asimismo, según el estudio realizado por Limbrocket y cols. (10), quienes trataron durante 12 meses a 67 niños con placas palatinas y fisioterapia, descontinuando la terapia cuando los desórdenes eran corregidos, obtuvo resultados satisfactorios en cuanto a la posición de la lengua, postura de la boca y severidad del babeo. Esta investigación presentó varios sesgos, entre ellos, que no se utilizó un grupo de control para poder comparar los resultados, además de la ausencia de un periodo de seguimiento que determinara los efectos de la intervención temprana de una terapia a corto o largo plazo. Esto es un punto importante, ya que el tratamiento interviene en el crecimiento y desarrollo orofacial del niño con síndrome de Down, los cuales continúan después de finalizar la terapia, por lo que en este estudio es imposible determinar si dicho tratamiento influye sobre los hallazgos orofaciales o tiene una regresión tras terminar el tratamiento. Dadas estas características, un grado de recomendación regular fue determinante para este artículo.

Una situación similar ocurre en los estudios realizados por Backman y cols. (5,9), quienes analizaron el efecto de las placas palatinas en conjunto con una terapia de lenguaje y habla en pacientes entre 6 a 48 meses de edad. Se observaron resultados favorables tanto en la oclusión, función motora-oral, expresión facial, como en el habla. Una característica positiva de este artículo, a diferencia del de Limbrock y cols. (10), es el uso de grupos control. En esta investigación se encontraron dos grupos control, el primero constituido por un conjunto de infantes con síndrome de Down, con necesidad de tratamiento y sin la aplicación de este; y el segundo, por niños con desarrollo normal. De esta forma se obtuvieron resultados comparables, con significancia estadística, buena calidad de evidencia y grado de recomendación B, aunque sigue ausente la realización de un periodo de seguimiento posterior al tratamiento.

A diferencia de los estudios mencionados anteriormente, Carlstedt y cols. (11) realizaron un estudio en base a un periodo de seguimiento en el primer año tras finalizar el tratamiento y a los 3 siguientes. Los pacientes fueron comparados con un grupo control constituido por niños con síndrome de Down con necesidad de tratamiento. Los resultados demostraron una mejora en la posición lingual, actividad muscular del labio superior, cierre bucal y expresión facial, tras finalizar la terapia. Además, se encontró que en una parte del grupo de estudio, hubo una mejora que fue mantenida por cuatro años una vez terminado el tratamiento lo cual alteró e influyó la representatividad de los datos obtenidos.

Korbmacher y cols. (12) coinciden con el estudio anterior, quienes concluyen que, después de realizar 12 años de seguimiento con una temprana intervención con placas estimulantes, aquellos pacientes que al comienzo de la terapia exhibían hallazgos orofaciales de mayor severidad y padres comprometidos con el tratamiento presentaron un mejor pronóstico y/o cambios clínicos más favorables que aquellos niños con síndrome de Down con disfunciones moderadas y padres menos responsables. Aunque los datos obtenidos en este estudio son claros, el hecho de que no presentara un grupo control es un sesgo en la aplicabilidad de los resultados, impidiendo un análisis profundo al comparar los mismos.

La evidencia demostrada en estos dos últimos estudios (11,12), aporta nuevos conocimientos sobre el verdadero

efecto de este tratamiento temprano en niños con síndrome de Down, poniendo énfasis en la importancia de los grupos control y los periodos de seguimiento para determinar la efectividad a corto y largo plazo de la terapia interceptiva. Por lo tanto, se recomienda que los próximos estudios presenten estas características, donde no solo tengan amplios periodos de seguimiento, sino que también sean controlados, proporcionando una mayor significancia a los resultados obtenidos.

CONCLUSIÓN

Aunque hasta la fecha no existe una vasta información sobre los tratamientos ortodóncicos en pacientes con síndrome de Down, podemos concluir que estos responden de diferente manera frente a un mismo tratamiento, a diferencia de pacientes con desarrollo normal, los cuales tienen una respuesta más regular frente a una terapia ortodóncica. Es por esto que son necesarios estudios que comparen las diferentes situaciones clínicas, y que identifiquen las distintas variables y respuestas esperables de los pacientes con síndrome de Down frente a un tratamiento de ortodoncia, para que tanto el ortodoncista tratante como los padres puedan estar mejor preparados.

Además, estudios de seguimiento demostraron que el pronóstico en los pacientes con síndrome de Down, en tratamiento con placas palatinas, es diferente dependiendo de las características orofaciales propias de cada individuo. Es por esta razón que es necesario determinar el efecto real que puede tener el tratamiento sobre cada niño en particular, para poder entregar expectativas reales a los padres. Asimismo, se debe poner énfasis en que el uso de las placas palatinas no es una terapia aislada, ya que por sí sola no mejora la situación del paciente con síndrome de Down; esta debe ir acompañada por programas que traten la hipotonía característica de los pacientes con síndrome de Down, donde el resultado final depende en gran medida del grado de alteración orofacial presente.

CORRESPONDENCIA:

Katerín Nicol Terán Quezada
Clínica Alemana – Universidad de Desarrollo (CAS-UDD)
Avda. Plaza, 680
San Carlos de Apoquindo, Las Condes
Santiago, Chile
e-mail: katerin.tq@gmail.com; Katerinteran1@gmail.com

BIBLIOGRAFÍA

1. Morales M, Naukart Z. Prevalencia de maloclusiones en pacientes con Síndrome de Down. *Rev Oral* 2009;10(32):537-9.
2. Oliveira A, Paiva S, Campos M, Czeresnia D. Factors associated with malocclusions in children and adolescents with Down syndrome. *Am J Orthod Dentofac Orthop* 2008;133(4):489.e1-8.
3. van der Linden M, Vucic S, van Marrewijk D, Ongkosuwito E. Dental development in Down syndrome and healthy children : a comparative study using the Demirjian method. *Orthod Craniofac Res* 2017;20(2):65-7.
4. Palaska P, Antonarakis G. Prevalence and patterns of permanent tooth agenesis in individuals with Down syndrome: a meta-analysis. *Eur J Oral Sci* 2016;124(4):317-28.

5. Bäckman B, Grevér-Sjölander A, Holm A, Johansson I. Children with Down Syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 18 months of age. *Int J Paediatr Dent* 2003;13(5):327-35.
6. Primo J. Niveles de Evidencia y Grados de Recomendación (I/II). *Enferm Inflamatoria Intest al Día* 2003;2:2001-4.
7. Soares K, Mendes R, Prado R, Rosa L, Costa K. Prevalência de maloclusão em portadores de Síndrome de Down na cidade de Teresina, Piauí / Prevalence of malocclusion in patients with Down's Syndrome in the city of Teresina, Piauí, Brazil. *RGO - Revista Gaúcha de Odontologia* 2009;57(2):187-91.
8. Andersson E, Axelsson S, Katsaris K. Malocclusion and the need for orthodontic treatment in 8-year-old children with Down syndrome. *Spec Care Dent* 2016;36(4):194-200.
9. Bäckman B, Grevér-Sjölander A, Bengtsson K, Persson J, Johansson I. Children with down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 48 months of age. *Int J Paediatr Dent* 2007;17(1):19-28.
10. Limbrock GJ, Fischer-Brandies H, Avalle C. Castillo-Morales' orofacial therapy: treatment of 67 children with Down syndrome. *Dev Med Child Neurol* 1991;33(4):296-303.
11. Carlstedt K, Henningson G, Dahllo E. A four-year longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: effects on oral motor function, articulation and communication preferences. *Acta Odontol Scand* 2003;61(1):39-46.
12. Korbmayer H, Limbrock J, Kahl-nieke B. Orofacial Development in Children with Down 's Syndrome 12 Years after Early Intervention with a Stimulating Plate Die Entwicklung der orofazialen Symptomatik bei Kindern mit Down-Syndrom zwölf Jahre nach der Frühbehandlung mit Stimulationsplatten. *J Orofac Orthop* 2004;65(1):60-73.
13. Desai S, Flanagan T. Orthodontic considerations in individuals with Down syndrome: a case report. *Angle Orthod* 1999;69(1):85-8.
14. Outumuro M, Abeleira M, Caamaño F, Limeres J, Suarez D, Diz P, et al. Maxillary expansion therapy in children with Down syndrome. *Pediatr Dent* 2010;32(7):499-504.
15. de Moura C, Vales F, Andrade D, Cunha L, Barros H, Poeschel S, et al. Rapid maxillary expansion and nasal patency in children with Down syndrome. *Rhinol Int J* 2005;43(2):138-42.
16. de Moura C, Andrade D, Cunha L, Tavares M, Cunha M, Vaz P, et al. Down syndrome: otolaryngological effects of rapid maxillary expansion. *J Laryngol Otol* 2008;122(12):1318-24.
17. Doruk C, Sökücü O, Sezer H, Canbay EI. Evaluation of nasal airway resistance during rapid maxillary expansion using acoustic rhinometry. *Eur J Orthod* 2004;26(4):397-401.
18. Limbrock G, Castillo-Morales R, Hoyer H, Stöver B, Onufer C. The Castillo-Morales approach to orofacial pathology in Down syndrome. *Int J Orofac Myol* 1993;19:30-7.

Review

Malocclusions, associated factors and orthodontic treatment alternatives for Down syndrome patients

C.S. QUINTEROS ORTIZ¹, D.A. ROJAS CÁCERES¹, K.N. TERÁN QUEZADA²

¹Dental Surgeon. Degree in Dentistry. UAndes. Private Practice. Santiago, Chile. ²Dental Surgeon. Degree in Dentistry. CAS-UDD. Private Practice. Santiago, Chile

ABSTRACT

Objective: To describe the most prevalent malocclusion, their associated factors and possible orthodontic treatment in patients with Down syndrome.

Materials and method: A search was performed of the scientific evidence over the last 15 years using different data bases (PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline, Google Scholar, and BEIC), using inclusion and exclusion criteria.

Results: There is clear evidence regarding the most prevalent malocclusions. In addition, it can be observed that early intervention with palatal plates is one of the most recommended treatments.

Conclusion: The level of evidence and quality of the studies on the treatment of these patients should be improved, and emphasis placed on the follow-up periods.

KEY WORDS: Orthodontic treatment. Down syndrome. Malocclusion. Occlusal disharmonies.

RESUMEN

Objetivo: describir las maloclusiones más prevalentes, sus factores asociados y posibles tratamientos ortodóncicos en pacientes con síndrome de Down.

Materiales y método: se realizó una búsqueda de la evidencia científica de los últimos 15 años, en distintas bases de datos (PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline, Google académico y BEIC), utilizando criterios de inclusión y exclusión.

Resultados: existe una evidencia clara sobre las maloclusiones más prevalentes; además, se puede observar que la intervención temprana con placas palatinas es una de las terapias más recomendadas.

Conclusión: es necesario mejorar el nivel de evidencia y calidad de los estudios del tratamiento de estos pacientes, poniendo énfasis en los periodos de seguimiento.

PALABRAS CLAVE: Tratamiento de ortodoncia. Síndrome de Down. Maloclusiones. Desarmonías oclusales.

INTRODUCTION

It is well known that in many cases people with Down syndrome (DS) will have a medical craniofacial disorder (1). It is important to highlight that this may affect both bone and soft tissue, and that for this reason it is necessary to identify the different malocclusions that these patients may have.

Various studies have revealed that there is a high prevalence of malocclusions, both transverse as well as vertical, and open bite and crossbite are the most common in patients with DS (1,2). In addition to dentomaxillary anomalies, these patients may have anomalies in number (3), and the prevalence of hypodontia in the permanent dentition is 54.6% (4).

It has been described in the literature that malocclusions have different etiologies. An important factor that should be highlighted are bad habits, as patients with DS have more prevalent bad sucking habits similar to patients developing normally. It has been stressed that children with DS not only have a finger sucking habit but, in addition, they may suck their tongues, toys and pacifiers. This may have repercussions in the oral cavity, either directly or indirectly, leading to or worsening occlusion disturbances, such as crossbite (1,2).

For these patients some alternatives to orthodontic treatment and/or orthopedic treatment have been described for the more common malocclusions and for the characteristic hypotonia (5). The therapeutic emphasis is on carrying out early intervention in order to prevent orofacial developmental disorders related to the syndrome. Treatment alternatives include maxillary expansion for treating anomalies in the transverse sense, and early intervention of orofacial function through palatal plates.

The aim of this study was to analyze and assemble information on the most prevalent transverse malocclusions, the associated factors and the possible orthodontic treatment that has been reported for Down syndrome patients.

MATERIAL AND METHOD

A narrative review was performed by searching the following databases: PubMed, SciELO, Tripdatabase, Cochrane, Medline, and Google Scholar. The BEIC database was used, and the following collections were accessed: Wiley-Blackwell, Elsevier and full text articles were used. The publications were chosen according to the level of evidence and quality of reporting. These included subscriptions to scientific journals and free access journals found in the databases. Clinical studies were searched for, systematic reviews, studies of cases and controls, cohorts and cross-sectional studies.

The inclusion criteria were that the articles had to include the search words, contain the full text of the article, be in Spanish, Portuguese or English, and limited to the last 15 years, with the exception of two studies in 1991 and 1993 with extremely valuable information on treatment. Those articles that were in a different language were excluded together with those with a full text that could not be accessed.

The keywords used were: *orthodontic treatment*, *Down syndrome*, *malocclusion*, and *occlusal disharmonies*. The Boolean operators AND and NOT were used. In order to

concentrate the search and find better results the following terms were included in a second phase: maxillary expansion and palatal plates, in addition to the MESH terms: *functional orthodontic appliance*, *palatal expansion technique*, and *Down syndrome*.

In order to define the level of scientific evidence and the degree of recommendation, the outline proposed by the AATM (6) was used.

With regard to the assessing the quality of the report, the guidelines proposed by *Equator Network* were used: for the randomized clinical trials *Checklist CONSORT* was used; for non-randomized clinical trials the *Checklist TREND* was used; for observational studies the *Checklist* combined with *STROBE* was used; and for systematic reviews and meta-analysis *Checklist PRISMA* will be used.

RESULTS

After applying the inclusion and exclusion criteria, 6 articles were selected in relation to the prevalence and etiology of malocclusions in DS patients that were all related to observational cross-sectional studies.

With regard to alternative orthodontic treatment 17 articles were found after an electronic search, but 12 articles were excluded as they did not meet the inclusion criteria (Fig. 1).

The total number of articles included in this revision was 11, and the level of scientific evidence and degree of recommendation was evaluated according to the outline suggested by the AATM (6), and the quality of the reports according to the guidelines by *STROBE*, *CONSORT* or *TREND* as applicable.

Table I shows the characteristics of the studies regarding the prevalence and etiology of the malocclusions and the alternative orthodontic treatment. In addition table II shows the size of the sample, duration and follow-up carried out in each of the studies.

DISCUSSION

The scientific literature has demonstrated that patients with Down syndrome have a high prevalence of malocclusion, with inverted, open and cross-bite standing out (1,7,8) (Fig. 2). In addition, emphasis is placed on generalized muscle hypotonia that is a characteristic of these patients, with lingual protrusion, oral breathing, sucking, phonation, mastication and abnormal tooth positions (5). These bad habits are the main etiological factors of the more common malocclusions in patients with Down syndrome. For this reason performing proper and timely orthodontic treatment is recommended that will permit intercepting these bad habits, in order to avoid the appearance and progress of malocclusions.

There are two types of treatment for patients with Down syndrome, the first and most studied is early intervention with palatal plates (Fig. 3) that seeks to improve lip and tongue function (5,9-12), and the other is orthodontic treatment with fixed appliances (13). With regard to the latter, there is not much information in the literature and Outumuro et al. (14)

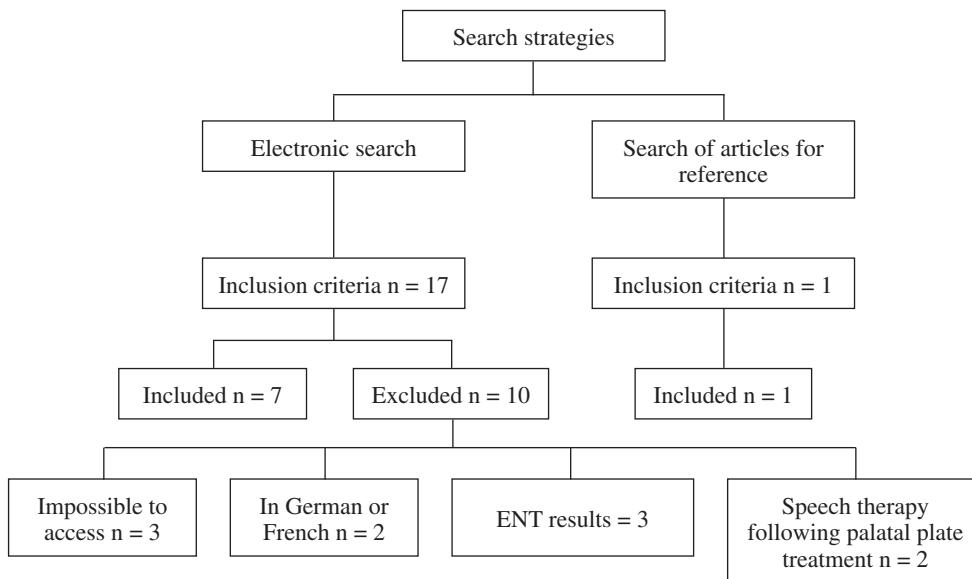


Fig. 1. Results of the electronic search on orthodontic treatment alternatives in DS.

TABLE I.
CHARACTERISTICS OF THE STUDIES SELECTED AND TYPE OF TREATMENT

Author	Name of study	Year	Type of study	Therapy given
Limbrock et al.	Castillo-Morales' Orofacial Therapy: Treatment of 67 Children with Down syndrome	1991	Clinical trial (non-randomized) prospective non-controlled	Functional orofacial intervention with stimulating plates
Carlstedt et al.	A four longitudinal study of palatal plate therapy in children with Down syndrome: Effects on oral motor function, articulation and communication preferences	2003	Clinical trial (non-randomized) prospective controlled	Functional orofacial intervention with stimulating plates
Bäckman et al.	Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 18 months of age	2003	Clinical trial (non-randomized) prospective controlled	Functional intervention with stimulating plates
Korbmacher et al.	Orofacial Development in Children with Down's syndrome 12 years After Early Intervention with a Stimulating Plate	2004	Clinical trial (non-randomized) prospective	Functional intervention with stimulating orofacial plates
Bäckman et al.	Children with Down syndrome: oral development and morphology after use of palatal plates between 6 and 48 months of age	2007	Clinical trial (non-randomized) prospective Controlled	Functional orofacial intervention with stimulating plates
Outumuro et al.	Maxillary Expansion Therapy in Children With Down syndrome	2010	Clinical trial (non-randomized) prospective controlled	Maxillary expansion

are of the few who have investigated this area. In their study they proved that orthodontic treatment based on maxillary expansion for correcting anomalies in the transverse sense in patients with Down syndrome has a high success rate, either with fixed or removable appliances. In addition, the results of this treatment in patients with Down syndrome are compared

with patients with normal development, but they differ in that the latter require slow activation in order to avoid complications. This study based on a series of cases has a good level of evidence (IV) and the reporting is of good quality, in addition to an acceptable grade of recommendation according to the AATM. Given the good quality of this publication, carrying

TABLE II.
CHARACTERISTICS OF THE SAMPLES AND DURATION OF TREATMENT

<i>Author</i>	<i>Year</i>	<i>Therapy given</i>	<i>Control</i>	<i>Sample</i>	<i>Duration of treatment</i>	<i>Post-treatment follow-up</i>
Limbrock et al.	1991	Functional orofacial intervention with stimulating plates	No control	67 patients with a mean age of 13.9 months	12.1 months mean	No follow-up
Carlstedt et al.	2003	Functional orofacial intervention with stimulating plates	Controlled	20 children with a mean age of 24 months	4 years	No follow up
Bäckman et al.	2003	Functional orofacial intervention with stimulating plates	Controlled	42 children with a mean age of 18.6 months	12 months	No follow-up
Korbmacher et al.	2004	Functional orofacial intervention with stimulating plates	No control	20 children with a mean age of 16 months	11.5 months (mean)	12 years
Bäckman et al.	2007	Functional orofacial intervention with stimulating plates	Control	42 children with a mean age of 18.6 months	42 months	No follow-up
Outumuro et al.	2010	Maxillary expansion	No control	32 children with a mean age of 11.69 years	Not indicated	Not indicated

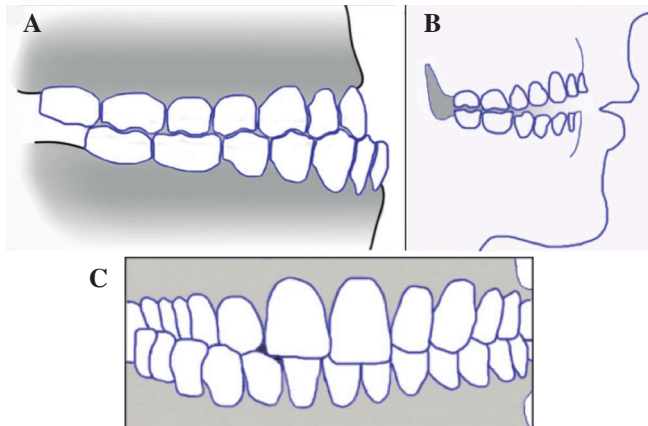


Fig. 2. Malocclusions typical of patients with Down syndrome. A. Crossbite; B. Open bite; C. Inverted bite.

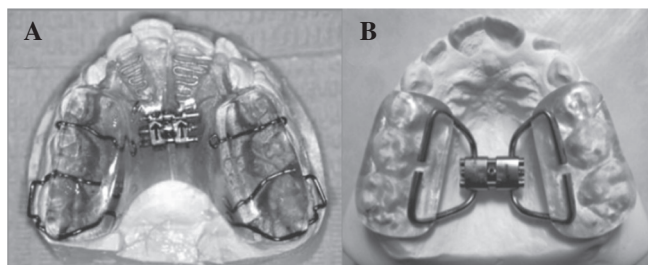


Fig. 3. Plate with maxillary expansion. A. Removable; B. Fixed.

out new similar studies is advisable with regard to specific orthodontic treatment that has been carried out in patients with Down syndrome, as not only data on the level of efficiency is given of these therapies, but in addition information is provided out on aspects and complications that should be taken into account in these types of patients.

Moreover studies were found (15-17) that investigated the effects of rapid maxillary expansion, which were focused on demonstrating the results from the ENT aspect. These showed a reduction in breathing obstruction symptoms and hearing loss in Down syndrome carriers. However, the disadvantage of this research is that the emphasis is put on improving nasal obstruction but not on the malocclusions of these patients.

With regard to interceptive treatment with stimulating palatal plates, the aim of these is to regulate the orofacial development of patients and maintaining these changes over time. The pioneer of this therapy was Castillo-Morales (10), who developed interdisciplinary treatment during the mid-70s based on palatal plates that were aimed at positioning the tongue upwards and backwards while stimulating the upper lip for correct lip closure. The author emphasizes that the above should be combined with physiotherapy, in order to carry out functional exercises in conjunction with a neuromuscular program. Castillo-Morales recommends this for obtaining a better therapeutic result (18). There are various longitudinal studies that analyze this therapy, and the beneficial effects of oral-motor function in the short and/or long term. Specifically in this article five studies were analyzed of this type with treatment periods and follow-ups that ranged from 18 months to 12 years (5,9-12). Something that they all had in common was that, due to the complexity and the interdisciplinary format of the Castillo-Morales therapeutic program, and that the use of a plate on its own for early inter-

vention therapy for Down syndrome children is contraindicated, the effect or influence of the palatal plate on orofacial development could not be ascertained individually. For this reason the publications that appear in the literature cannot be strictly conclusive on the effectiveness of stimulating plates. The five studies that were included in the review were clinical trials with different follow-up periods that analyzed the effect of the palatal plates together with adjuvant therapy. The level of evidence in all the studies is good, but the grades of recommendation and quality are different, due to the different characteristics in the method study. In addition, it should be mentioned that they were all backed by an ethics committee before being performed.

Along these lines, in the study by Limbrocket al. (10) who over a period of twelve months treated 67 children with palatal plates and physiotherapy and who discontinued the therapy when the abnormalities were corrected, satisfactory results were obtained with regard to the position of the tongue, posture of the mouth and drooling severity. This investigation was slanted in several instances, as firstly a control group was not used and the results could not be compared, and secondly there was no follow-up period to determine the effects of early intervention of short or long-term therapy. This is an important point as the treatment influences the orofacial growth and development of Down syndrome children, which continues after the therapy, and it is impossible to ascertain in this study if this treatment influences the orofacial findings, or if there is regression after the end of the therapy. Given these characteristics, a regular grade of recommendation was given to this article.

A similar situation occurred in the studies carried out by Backman et al. (5,9), who analyzed the effect of palatal plates together with a language and speaking therapy in patients aged between 6 and 48 months. Favorable results were observed in occlusion, oral-motor function, facial expression, as well as speech. A positive characteristic of this article, unlike that by Limbrock et al. (10), was the use of control groups. In this investigation there were two control groups, the first was made up of a group of infants with DS who had treatment needs and without the application of the latter, and the second group contained children with normal development. In this way comparable results were obtained, with statistical significance, good quality of evidence and a B grade of recommendation, although the follow-up period after the treatment is still missing.

Unlike the studies mentioned previously, Carlstedt et al. (11) carried out a study based on a follow-up period during the first year post-treatment and over the following three years. The patients were compared with a control group made up of Down syndrome children with treatment needs. The results showed an improvement in lingual position, muscle activity of the upper lip, oral closure and facial expression after finish-

ing the therapy. In addition an improvement was found in one part of the study group that was maintained over four years after finishing the treatment, which altered and influenced the representativeness of the data obtained.

Korbmacher et al. (12) are in agreement with this last study as they conclude after a 12 year follow-up that early intervention with stimulating plates of the patients who at the beginning of the therapy exhibited more severe orofacial features, but who had parents who were committed to the treatment, had a better prognosis and/or more favorable clinical changes than the Down syndrome children with moderate dysfunctions and parents who were less responsible. Although the data obtained in this study is clear, the fact that there was no control group leads to a slant in the findings, preventing a deeper analysis from comparing the results.

The evidence demonstrated in these last studies (11,12), and the contribution of new information on the real effect of this early treatment in Down syndrome children, puts emphasis on the importance of having control groups and follow-up periods in order to determine the short and long term effectiveness of interceptive therapy. Therefore, it is advisable that future studies have these characteristics, and both extended and controlled follow-up periods, in order to obtain results with greater relevance.

CONCLUSION

Although to date there is not a great deal of information on orthodontic treatment in Down syndrome patients, we can conclude that the response is different following the same treatment, unlike patients with normal development who have a more regular response to orthodontic treatment. For this reason studies are necessary that compare the different clinical situations and that identify the different variables and responses that can be expected in Down syndrome patients during orthodontic treatment, so that both orthodontist and parents can be better prepared.

In addition, the follow-up studies have demonstrated that the prognosis in Down syndrome patients, undergoing treatment with palatal plates, is different depending on the orofacial characteristics of each individual. It is for this reason that determining the real effect that this treatment can have on each child in particular is necessary, in order to be able to give the parents realistic expectations. Thus, emphasis should be placed on palatal plates not being used as an isolated therapy, as on their own they do not improve the condition of Down syndrome patients. Rather they should be accompanied by programs that treat the hypotonia that is a characteristic of Down syndrome patients, and in which the final result depends largely on the degree of orofacial disturbance present.