

ABSTRACT

Oromandibulær dystoni (OMD) er en sjælden fokal neurologisk lidelse, der forårsager ufrivillige bevægelser i den oromandibulære region, herunder bide- og gumlebevægelser. Tilstanden er socialt invaliderende og hæmmer ofte mimik, tygning og tale, og som følge af tilstanden opstår der attrition og skader på tænder og restaureringer. Det er derfor ofte tandlægen og ikke den alment praktiserende læge, som i første omgang bemærker tandproblemerne og de dystone bevægelser. OMD må ikke forveksles med vågenbruksisme, selvom den foregår i vågen tilstand. Til illustration i oversigten beskrives karakteristika fra nogle patienter med OMD udredt på Odontologisk Institut, Københavns Universitet. Tværfagligt samarbejde er vigtigt ved denne patientgruppe. Ved mistanke om OMD bør patienten derfor henvises til lægeligt regi, da diagnostik og generel behandling foretages af neurologer og i hospitalsregi, hvor patienterne typisk vil blive behandlet med botulinumtoksin (BTX) hver 3.-4. måned evt. suppleret med peroral medicin. Patienternes behandling af slid og skader på tænder og restaureringer som følge af OMD foregår derimod i privat tandlægepraksis og for egen regning.

EMNEORD Attrition | bruxism | oromandibular dystonia | orofacial dysfunction



Korrespondanceansvarlige forfatter:
AMALIE BUGGE THESTRUP KJELDE
amalie.kjelde@outlook.com



HANS STRAARUP RASMUSSEN
hs.rasmussen@hotmail.com

Oromandibulær dystoni

AMALIE BUGGE THESTRUP KJELDE, stud.odont., Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet

HANS STRAARUP RASMUSSEN, stud.odont., Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet

MERETE BAKKE, professor, dr. et lic.odont., Klinisk Oral Fysiologi, Sektionen for Oral sundhed, samfund og teknologi, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet

► Accepteret til publikation den 15. juni 2021

Tandlægebladet 2021:125:xxx-xxx

OROMANDIBULÆR DYSTONI er en sjælden fokal neurologisk lidelse, der involverer musklerne i den nederste del af ansigtet og underkæben og kan hæmme funktion og mimik (1). Lidelsen kan være vanskelig at erkende, og ofte bliver patienterne misdiagnosticeret og fejlbehandlet over længere tid (1-3). Patienterne kan således henvende sig med en eller flere uspecifikke symptomer som vedvarende eller gentagne kontraktioner af kæbe-, ansigts- og tungemuskel, bruksisme, discusdislokationer, habituelle luksationer, muskeltræthed, kæbesmerter og skader på tænder og restaureringer.

Til illustration af nogle af manifestationerne ved tilstanden er der medtaget tabel og fotos med typiske fund hos nogle patienter undersøgt og behandlet på Tandlægeskolen i København.

KLASSIFIKATION OG ÆTIOLOGI AF DYSTONI

Dystoni defineres generelt som en neurologisk bevægelsesforstyrrelse karakteriseret ved vedvarende eller intermitterende muskelkontraktioner, der forårsager unormale, ofte gentagne bevægelser, stillinger eller begge dele (4). Dystonibevægelserne har et typisk mønster hos den enkelte patient. De initieres ofte eller forværres ved aktivitet og er forbundet med vedvarende eller periodisk overaktivitet i musklerne. Dystonisymptomer udløses af funktionsændringer i det centrale nervesystem, blandt andet biokemiske forstyrrelser i basalganglierne og deres forbindelser til resten af hjernen. De viser sig ved samme gentagne ufrivillige bevægelser i den påvirkede region (5,6) på grund af unormal aktivitet i de afficerede muskler (WHO ICD-10 G24) (7).

Ætiologisk skelnes der mellem flere typer af dystoni. Lidelsen kan være arveligt betinget, typisk autosomt dominant udløst som følge af medicinindtagelse (kaldet tardiv) ved behandling med forskellige typer antipsykotika eller kvalmemidler samt opstået ved ændringer og skader forårsaget af en anden grundlidelse og skade i nervesystemet, eller være uden påviselig årsag, dvs. idiopatisk.

OROMANDIBULÆR DYSTONI (OMD)

OMD er typisk et fokalt eller segmentalt erhvervet eller idiopatisk fænomen. Den dystone aktivitet er typisk til stede i dagtimerne under hvile og kan forstyrre den orale funktion (1). De ukontrollerbare bevægelser af kæbe, mund eller tunge kan ud over forstyrrelser i patienternes tale- og tyggefunktion føre til tandskader og bid i kinden (3). Tilstanden er ofte socialt invaliderende, ikke mindst som følge af forstyrret ansigtsmimik eller tale, eller problemer med at drikke af et glas eller holde maden inden i munden. Den er undertiden ledsaget af ufrivillige øjenknibninger (blefarospasmer) eller kan forekomme sammen med dystoni i andre områder af kroppen.

Den idiopatiske OMD (WHO ICD-10 G24.4) (7) opstår typisk hos midaldrende eller ældre personer. Den tardive dystoni kan opstå i alle aldersgrupper, og den erhvervede posttraumatiske dystoni har tendens til øget progression over tid (8).

Kliniske manifestationer og specialundersøgelser

OMD er forbundet med gentagne, anormale bevægelser. Mange patienter beretter om forværring af de ufrivillige bevægelser ved nervøsitet, angst, træthed og/eller store følelsesmæssige udsving, mens afslapning, søvn, alkohol og såkaldte geste antagonist kan dæmpe bevægelserne midlertidigt (3,9). OMD bevirker sjældent smerter i tyggemusklene, men kan give træ-

FAKTABOKS

Oromandibulær dystoni (OMD)

- Prævalensen af OMD er ca. 7 pr. 100.000 personer (8)
- Incidensen er ca. 3 pr. 100.000 (8)
- Debutalder er typisk mellem 40 og 70 år (1)
- Overvægt af kvinder med diagnosen (1)
 - Ætiologisk skelnes der mellem flere typer af OMD (4):
- Idiopatisk eller genetisk uden andre neurologiske symptomer, ofte benævnt primær
- Erhvervet, tardiv eller i forbindelse med andre sygdomme og skader, ofte benævnt sekundær
 - Typiske skader af tænder og restaureringer (attrition, infraktioner og frakturer)
 - Geste antagonist eller sensory tricks (individuelle lindrende manøvrer til hæmning af OMD fx bid på tandstikker, tyggegummi, pastiller, berøring af kinden)

hedsfornemmelse samt forårsage betydelig hæmning af tygge-, synke- og talefunktion. Samtidig er der markante kliniske manifestationer i form af tandlid, der er større end svarende til patientens alder, samt ofte tandinfraktioner, frakturer og ▶

Patientkarakteristika

Subjektiv og klinisk vurdering fra 4 patienter med fokal idiopatisk oromandibulær dystoni (OMD)

PATIENTER OG DYSTONI-BEVÆGELSER	NRS (0-10)	NOT-S (0-12)	SUBJ. TYGGE-BESVÆR (+/-)	ÆBLE-TYGGETID (S)	SUBJ. HÆM-MET TALE (+/-)	OBJ. VURDERET TALE	GESTE ANTAGONISTE (+/-)
♀ 60 Tunge- og gumlebevægelser	5	4	+	60*	+	Problemer med at forstå	-
♀ 64 Bidebevægelser	9	4	-	31	+	Ingen sikre problemer	+ Tyggegummi
♂ 71 Bide- og gumlebevægelser	4	5	+	62*	+	Ingen sikre problemer	+ Pastiller
♂ 79 Tunge-, bide- og gumlebevægelser	8	4	+	119*	+	Lidt utydelig tale	-

NRS, Subjektiv numerisk rangskala for, hvordan OMD påvirker dagligdagen; NOT-S, Nordisk Orofacial Test - Screening for dysfunktion; Æbletyggetid, Tyggeeffektivitet af 10 g æblebåd (* forlænget); Geste antagonist, manøvre til midlertidig hæmning af dystonien.

Table 1. Karakteristika fra en gruppe patienter undersøgt på Odontologisk Institut, Københavns Universitet (Klinisk Oral Fysiologi).

Table 1. Characteristics from a group of patients examined at Department of Odontology, University of Copenhagen (Clinical Oral Physiology).

andre skader på restaureringer samt evt. bidmærker i kind, tunge og læber.

Tandlægeskolen har samarbejde med Bispebjerg Hospital om udredning af disse patienter, og Tabel 1 illustrerer væsentlige forhold hos fire patienter med fokal idiopatisk OMD og ufrivillige bide- og gumlebevægelser, som forfatterne har undersøgt sammen. Tabellen illustrerer, at tilstanden er meget generende, hæmmende og fylder meget i patienternes hverdag angivet ved 4-9 af 10 på en numerisk rangskala (NRS). Også screeningen for orofacial dysfunktion med NOT-S (10) viser mange afvigelser (4-5 af 12) og ligesom tidligere undersøgelser store funktionsproblemer, især med hensyn til tygge- og talebesvær (1,2,8). Der er også god overensstemmelse mellem patienternes oplevede symptomer og de objektive fund. Således svarer den oplevede forringede tyggeevne til den målte, nedsatte tyggeeffektivitet af æble. Med hensyn til tandforholdene mangler to patienter flere tænder. Heraf har kun den ene pa-

tient fået protetisk behandling, men føler at sammenbidet er usikkert, og den anden patient har ringe okklusal afstøtning. Alle patienter har tandslid af 3. grad i fronten, infraktioner og mindre skader på tænder og restaureringer. Fig. 1 illustrerer endvidere elektromyografiske registreringer med overfladeelektroder over tyggemusklene fra en patient, hvor der tydeligt kunne konstateres dyston aktivitet under hvile i form af synkron aktivitetsudbrud (bursts) i underkæbens lukkemuskler, dvs. svarende til små sammenbidninger.

Differentialdiagnostiske overvejelser

Der kan være problemer med at skelne OMD fra bruksisme. Bruksisme opdeles i enten søvn- eller vågenbruksisme (11). Søvnbruksisme defineres internationalt som "a masticatory muscle activity during sleep that is characterised as rhythmic (phasic) or non-rhythmic (tonic) and is not a movement disorder or a sleep disorder in otherwise healthy individuals". Vå-

Elektromyografi af tyggemusklerne

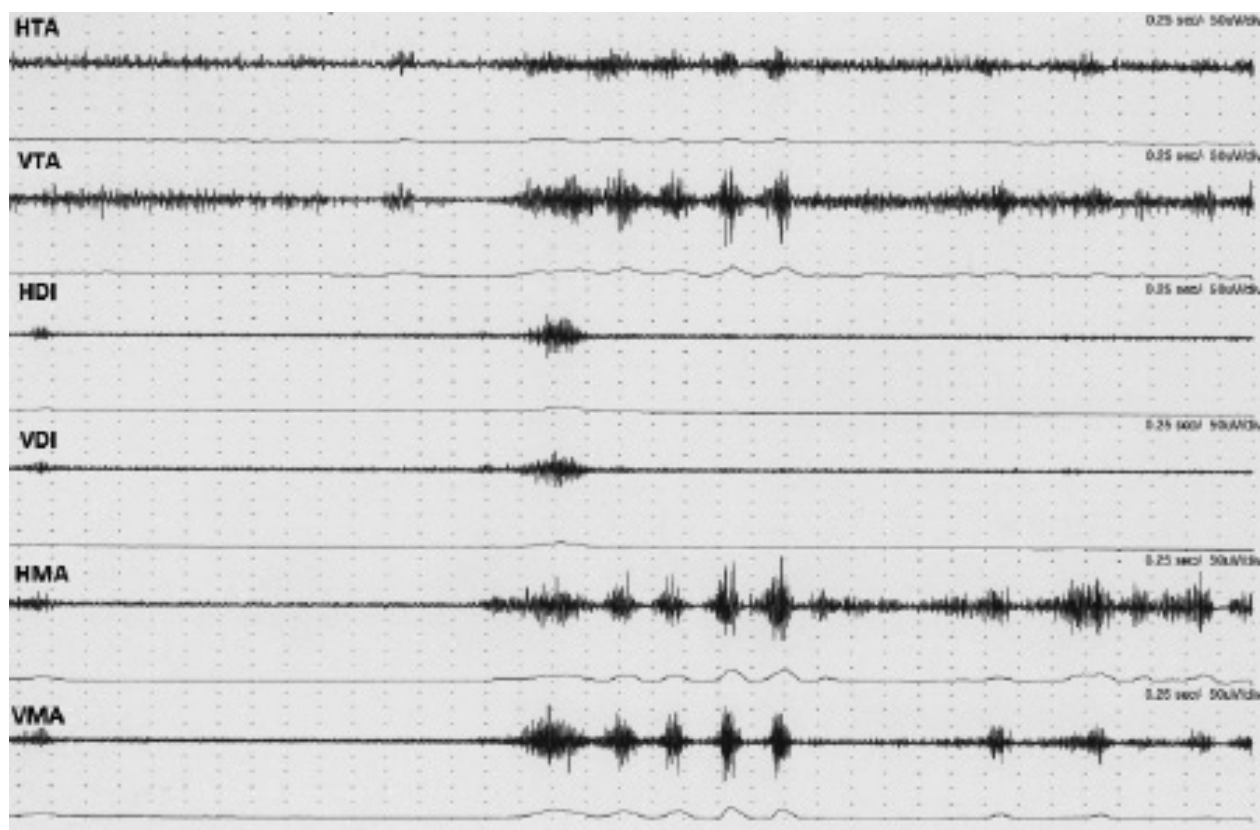


Fig. 1. Elektromyografisk registrering under hvile med overfladeelektroder bilateralt over m. temporalis anterior (HTA/VTA), m. digastricus venter anterior (HDI/VDI) og m. masseter (HMA/VMA) over en 10 sek. periode med samme forstærkning på alle kanaler hos en patient med bidedystoni. Bemærk tilstedeværelsen af øget aktivitetsniveau og gentagne spontane aktivitetsudbrud i lukkemusklerne temporalis og masseter i stedet for et normalt hvilemønster med lav og ensartet aktivitet (Klinisk Oral Fysiologi, Odontologisk Institut, KU).

Fig. 1. Electromyographic recording at rest with surface electrodes bilaterally over the anterior temporal (HTA/VTA), the anterior belly of digastric (HDI/VDI) and the masseter (HMA/VMA) muscles over a 10 sec period with the same gain on all channels in a patient with biting dystonia. Note the presence of increased activity levels and spontaneous activity bursts in the jaw closer muscles temporalis and masseter instead of the normal pattern at rest with low and uniform activity (Clinical Oral Physiology, Department of Odontology, University of Copenhagen).

Karakteristiske forhold ved oromandibulær dystoni (OMD) og søvnbruksisme

	OMD	SVÆR SØVN-BRUKSISME
Manifestation	Ukontrollerbare bevægelser i underansigtet primært i vågen tilstand	Tænderskæren og tandpres under søvn
Smertebillede	Typisk ingen eller beskednen ømhed, men træthed op ad dagen eller om aftenen	Smerter eller ømhed i tyggemuskler og spændingshovedpine, ofte værst om morgenen ved opvågning
Tandslid og -skader	Markant/patologisk tandslid Emaljeinfraktioner Slid og skader på restaureringer Tandfrakturer	
Udløsende faktorer	Idiopatisk, medicinudløst eller traumeudløst	Delvist fysiologiske/psykosociale faktorer
Forværende faktorer	Psykologisk stress	

Tabel 2. Sammenligning mellem oromandibulær dystoni og søvnbruksisme.
Table 2. Comparison between oromandibular dystonia and nocturnal bruxism.

genbruksisme er “a masticatory muscle activity during wakefulness that is characterised by repetitive or sustained tooth contact and/or by bracing or thrusting of the mandible and is not a movement disorder in otherwise healthy individuals”. Den formodede årsag til bruksisme har varieret over tid. Man har troet, at malokklusion og suprakontakter var væsentlige årsager, men i dag anses bruksisme for at være et normalt fysiologisk fænomen, som afhængigt af varighed og intensitet kan give svære symptomer i form af smerter og tandskader og dermed blive patologisk. Samtidig ses der en sammenhæng med stress (11).

Det er karakteristisk for OMD, at de dystone bevægelser som regel kun er til stede i vågen tilstand. Ved vågenbruksisme ses sjældent store bevægelser, men i højere grad tandpres, hvormod bevægelserne og tandsliddet ved søvnbruksisme i høj grad ligner OMD. De væsentlige forskelle og lighedspunkter er illustreret i Tabel 2.

DIAGNOSTIK OG BEHANDLING

Udredning og generel behandling

Ved begrundet mistanke om OMD bør man som tandlæge henvise til neurologer og hospitalsafdelinger evt. via patientens egen læge. I henvisningen beskrives relevante forhold som karakteren af de dystone bevægelser, patientens funktionspro-

Klinisk relevans

Oromandibulær dystoni (OMD) viser sig ved gentagne ufrivillige bevægelser af mund og kæber, der typisk resulterer i svær attrition og skader på tandsættet. Lidelsen kan umiddelbart forveksles med fundene ved bruksisme og er derfor en vigtig differentialdiagnose. Imidlertid oplever patienterne også ofte stærkt generende tygge- og talebesvær som følge af OMD. Diagnosen stilles i speciallæge- eller hospitalsregi og behandles hyppigt med injektioner med botulinumtoksin (BTX) og perorale lægemidler, men det er ofte tandlæger, som konstaterer problemerne og må udbedre skaderne på tænderne.

blemer og evt. skader på tandsættet eller bidsår. I lægeligt regi indebærer udredningen ud over en grundig anamnese og klinisk undersøgelse en række specialundersøgelser for at sikre diagnosen, herunder genetiske og biokemiske undersøgelser, scanninger samt identifikation af involverede muskler med elektromyografi.

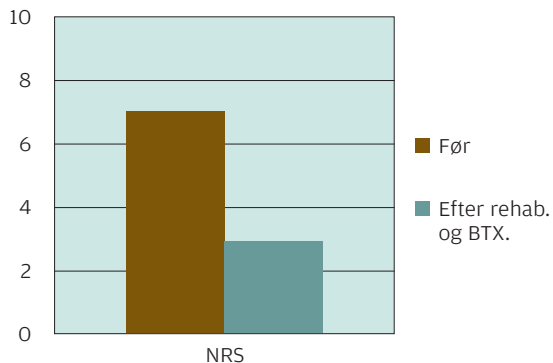
Den lægelige behandling af OMD vil typisk omfatte injektion med botulinumtoksin (BTX) i de afficerede muskler (12) evt. kombineret med generelt virkende medicin som fx clonazepam eller antikolinergika. Effekten af BTX er perifer og medfører reduceret eller blokeret frigivelse af acetylcholin, der giver en midlertidig funktionel denervering af den injicerede muskulatur. Dermed bedres funktionen, da muskelaktiviteten og de dystone bevægelser nedsættes, mens musklernes basale aktivitetsmønster ikke ændres væsentligt. Da virkningen er temporær, skal den typisk gentages hver 3.-4. måned.

Håndtering i tandlægepraksis

Som tidligere nævnt, er der sjældent muskelømhed i forbindelse med OMD, men der kan være betydelige skader i tandsættet. Der er typisk markant og ofte patologisk attrition, dvs. gradvist tab af tandsubstans ved en mekanisk proces, der involverer tand-til-tand-kontakt langt ud over det forventelige og alderssvarende (1). De stadige bevægelser i forbindelse med bide- og gumledystoni udgør en stor belastning for patienternes tandsæt. Tandmangel vil øge belastningen på de tilbageværende tænder både under tygning og ved de dystone bevægelser. Ved behandling med BTX mindskes muskelstyrken, og hvis der samtidig etableres god okklusal afstøtning og veldefineret intercuspitation med velbehandlede tænder, kan man yderligere mindske belastningen på de enkelte tænder og dermed også slidprocessen og skadeforekomsten.

Samarbejdet mellem speciallægerne og tandlægerne kan således bidrage til at bedre funktion og mindske skader og slid på tænderne. Effekten af en sådan tværfaglig indsats er illustreret i Fig. 2. Det er vigtigt at foretage aftryk, sammenbidsregistreringer, fyldninger og korrektioner af okklusion tilpasset de ▶

Subjektiv vurdering af OMD kæbeuro, spændinger og tyggebesvær



Maksimal EMG amplitude af bursts under hvile (µV)

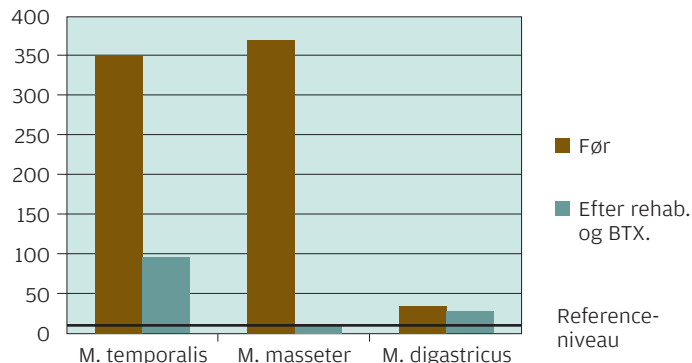


Fig. 2. Eksempel på tværfaglig indsats hos en 45-årig patient med OMD gennem mange år, vist før og efter behandling med botulinumtoksin (BTX, Dystoniklinikken, Bispebjerg Hospital) og rehabilitering af tandsættet (Specialklinikken for Oral Rehabilitering, Odontologisk Institut, Københavns Universitet). Øverst ses den subjektive vurdering af tilstanden på en numerisk rangskala (NRS 0-10) og et diagram over de elektromyografiske registreringer (EMG) af aktivitetsudbrud i hvile. Nederst ses de patologiske og stærkt slidte underkæbetænder med eksponeret dentin og markant tab af kronehøjde samt rehabiliteringen med bidhævning, plast- og kronebehandling foretaget i de perioder, hvor BTX-behandlingen har virket bedst.

Fig. 2. Example of interdisciplinary efforts in a 45-year-old patient with OMD for many years, shown before and after treatment with botulinum toxin (BTX) and rehabilitation of the dentition (Department of Neurology, Bispebjerg Hospital, and Oral Rehabilitation, Department of Odontology, University of Copenhagen). At the top is the subjective assessment of the condition on a numerical ranking scale (NRS 0-10) and a diagram showing the electromyographic registrations (EMG) of the activity bursts at rest. At the bottom are the pathological and severely worn lower jaw teeth with dentin exposure and marked loss of crown height and the rehabilitation with composite restorations and crown treatment made during the periods when BTX treatment worked best.

perioder, hvor BTX-behandlingen virker bedst, dvs. fra nogle uger til op mod to måneder efter injektionerne.

Tilskud til tandpleje hos patienter med OMD?

Behandlingen med BTX for OMD foregår i sygehusregi og er derfor gratis. Da OMD giver tandskader, og patienterne derfor har brug for en anden form for behandling, fx omfattende restaureringer med kroner eller plastiske opbygninger. Dette skal patienten imidlertid selv betale, da der ikke er fuld dækning eller tilskud til den omfattende behandling som hos patienter i kemoterapi, efter strålebehandling, med Sjögrens syndrom eller medfødt sjælden sygdom (13).

KONKLUSION

Vanskelig diagnostik, lidelsens sjældenhed og beliggenheden i grænsefeltet mellem to fagområder medfører ofte sen udredning af patienter med OMD. Dette betyder, at patienterne tit når at lide omfattende skader på tænder og omliggende væv inden diagnostik og behandling af OMD. Det er hensigten med denne artikel at informere danske tandlæger om lidelsen med hensyn til de ledsagende orale manifestationer og funktionsbesvær, så skaderne kan begrænses, inden de bliver for store og bekostelige, ikke mindst da behandlingen af disse følgetilstande foregår for patienternes egen regning i modsætning til selve dystonibehandlingen. ♦

ABSTRACT (ENGLISH)

Oromandibular dystonia (OMD) is a rare focal neurological disorder that causes involuntary movements in the oromandibular region, including biting and chewing movements. The condition is socially disabling and often inhibits facial expression, chewing and speech. As a result of the condition, attrition and damage to teeth and restorations occur. It is therefore often the dentist and not the general practitioner who first notices the dental problems and the dystonic movements. OMD should not be confused with awake bruxism. As illustration, characteristics are described from some patients with OMD examined at the Department of Odontology, University of Copenhagen.

Interdisciplinary collaboration is important in this patient group. If OMD is suspected, the patient should therefore be referred to the general practitioner doctor or hospital as diagnostics and general treatment are performed by neurologists and in a hospital setting, where the patients will typically be treated with botulinum toxin (BTX) every 3-4 months eventually supplemented with oral medication. The patients' treatment of wear and damage to teeth from OMD, on the other hand, takes place in private dental practice and at their own expense.

LITTERATUR

1. Bakke M, Larsen BM, Dalager T et al. Oromandibular dystonia – functional and clinical characteristics: a report on 21 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;115:e21-6.
2. Britton D, Ally JE, Mannion CJ. Oromandibular dystonia: a diagnosis not to miss. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2020;58:520-4.
3. Bakke M, Baram S, Dalager T et al. Oromandibular dystonia, mental distress and oro facial dysfunction – A follow up 8–10 years after start of treatment with botulinum toxin. *J Oral Rehabil* 2019;46:441-9.
4. Albanese A, Bhatia K, Bressman SB et al. Phenomenology and classification of dystonia: a consensus update. *Mov Disord* 2013;28:863-73.
5. Bakke M, Henriksen T, Biernat HB et al. Interdisciplinary recognizing and managing of drug-induced tardive oromandibular dystonia: two case reports. *Clin Case Rep* 2018;6:2150-5.
6. Ernberg M, Alstergren P. Clinical cases in orofacial pain. Ernberg M, Alstergren P, eds. Hoboken, NJ: Wiley Blackwell; 2017:236-41.
7. INTERNATIONAL CLASSIFICATION OF DISEASES (ICD). Dystonia (Set 2021 maj) Tilgængelig fra: URL: <https://icd.codes/icd10cm/G24>
8. Raoofi S, Khorshidi H, Najafi M. Etiology, diagnosis and management of oromandibular dystonia: an update for stomatologists. *J Dent (Shiraz)* 2017;18:73-81.
9. Michelotti A, Silva R, Paduano S et al. Oromandibular dystonia and hormonal factors: twelve years follow up of a case report. *J Oral Rehabil* 2009;36:916-21.
10. Bakke M, Bergendal B, McAllister A et al. Development and evaluation of a comprehensive screening for orofacial dysfunction. *Swed Dent J* 2007;31:75-84.
11. Chemelo VDS, Né YGDS, Frazão DR et al. Is there association between stress and bruxism? A systematic review and meta-analysis. *Front Neurol* 2020;11:590779.
12. Bakke M, Møller E, Dalager T. Botulinum toxin – Et lægemiddel af potentiel interesse for tandlæger. *Tandlægebladet* 2013;117:894-9.
13. TANDLÆGEFORENINGEN. Til tandlæger: Paragraf 166 – det bør du vide. (Set 2021 marts). Tilgængelig fra: URL: <http://tandlaegeforeningen.dk/patienter/priser-og-tilskudsmuligheder/tilskud-til-tandpleje/voksne/til-tandlaeger-om-paragraf-166>