

Hipoglossi: Bir Vaka Raporu

Dr. Yahya TOSUN*
Prof. Dr. Cihangir ÖZKINAY**

Dr. Ali Vehbi TUNCER*
Dt. Şule TOSUN***

ÖZET: Hipoglossi-hipodaktilli, oro-mandibuler anomalilerle birlikte görülen, asimetrik ekstremité defektleriyle karakterize konjenital bir malformasyondur. Bu vaka raporunda, bu malformasyona sahip bir birey, sistemik bazı özelliklerin yanısıra hipoglossi ve beraberindeki ortodontik düzensizlikler yönünden incelenmektedir.

Anahtar Kelimeler: Hipoglossi, Ortodontik anomaliler.

SUMMARY: HYPOGLOSSIA: A CASE REPORT. Hypoglossia-hypodactylia is a congenital malformation in which oro-mandibular anomalies are associated with assymetric reduction of defects of the limbs. In this case report, systemic features of this malformation, hypoglossia and associated orthodontic anomalies were presented.

Key Words: Hypoglossia, Orthodontic anomalies.

GİRİŞ

Dil boyutları ile ortodontik anomaliler arasındaki ilişki uzun yıllardır bilinmektedir. Dil boyutlarının normalden küçük olması mikroglossi veya hipoglossi olarak adlandırılmaktadır. Bu konudaki ilk vaka raporu 1718 yılında de Jussieu (1) tarafından yayınlanmıştır.

Yüzün, çenelerin ve dilin bazı konjenital defektleri çoğunlukla asimetrik distal ekstremité defektleri ile birlikte görülmektedir (2). Bu defektler bileşimi hipoglossi-hipodaktilli sendromu (3), oro-akral malformasyon veya oro-akral-ekstremité hipogenesis sendromu (4) adını almaktadırlar. Bu sendromun tipik özellikleri, dilin özellikle ön kısımlarının total veya parsiyel aplazisi, yüzün alt bölgesinde gelişim bozukluğu ve kuş yüzü, alt kesici diş eksikliği, ekstremitelerde her dereceden adaktilli ve sindaktilli ve bazen dudak-damak yarığı olarak belirtilmektedir (2, 5, 6, 7).

Literatürde, hipoglossiyi ortodontik yönlerden inceleyen az sayıda yayına raslanmaktadır (8, 9, 10, 11, 12, 13). Bu yayınlar çoğunlukla genel tıp literatürüne aittir ve vakaları sistemik özellikleri yönünden incelemektedir-

ler. Takdim edeceğimiz vaka bir konjenital malformasyon sendromu olup daha çok ortodontik yönden değerlendirilecektir. Vakamız yalnız ortodontik tedaviyi değil her türlü dişsel girişimi reddettiği için kendisinden sadece kayıtlar almakla yetinilmiştir. Yine de, hipoglossinin ortodontik anomalilerle ilişkisini göstermesi bakımından bu vaka raporunun yayınlanması düşünülmüştür.

VAKA RAPORU

18 yaşında erkek olan vakamız çiğneme sorunları ve estetik şikayetlerle Ege Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi Ortodonti Anabilim Dalı Kliniğine başvurmuştur (Resim 1 ve 2). Annesinden alınan anamnezde, eşler arasında bir kan uyumsuzluğu olmadığı, ailede benzer anomaliye sahip hiçbir birey bulunmadığı ve vakamızın, 7 düşüğü takiben doğan tek çocukları olduğu öğrenilmiştir. Anne, hamileliğinin ilk 4 ayında kan durdurucu ilaçlar kullandığını beyan etmektedir. Vakamız, anne memesi ememediğinden biberon ile beslenmiştir. Halen sert besinleri çiğneyememekte ancak sulu ve yumuşak gıdalarla beslenebilmektedir. Zekâ düzeyi oldukça iyi olup bir özel şirkette bilgisayar operatörü olarak çalışmaktadır.

* E.Ü. Diş Hek. Fak. Ortodonti Anabilim Dalı Araştırma Görevlisi.

** E.Ü. Tıp Fak. Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı Öğretim Üyesi.

*** Serbest Diş Hekimi.



Resim. 1- Vakanın Önden Görünüşü.

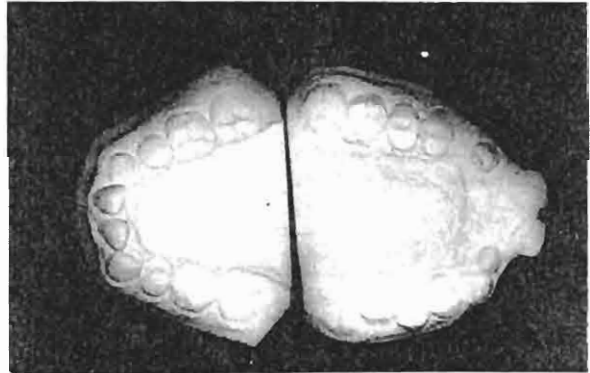


Resim. 2- Vakanın Yandan Görünüşü.

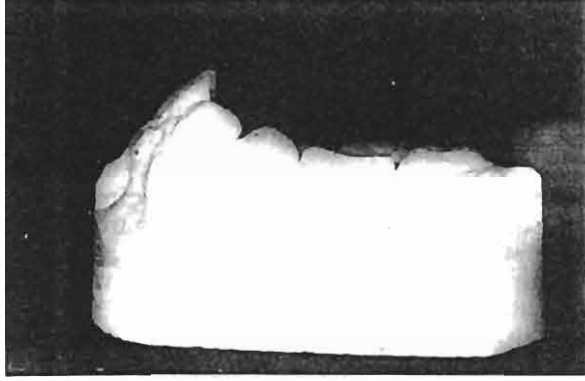
Yapılan klinik incelemede, ağız içinde hipoglossinin yanısıra alt diş kavsinde aşırı darlık göze çarpmaktadır (Resim 3 ve 4). Alt 4 kesici konjenital olarak eksik olup bunların yerinde kaninler yer almaktadır. Dil ucu eksiktir. ve korpüsü bütünüyle ağız tabanına yapışmıştır. 1.5 ve 17 yaşlarında geçirdiği iki dil serbestleştirme operasyonuna rağmen dilin ön bölgesi son derece sınırlı hareketler yapabilmektedir. Dilin tüm fonksiyonları ağız tabanı ile birlikte gerçekleşmektedir. Alt çenenin bütün dişlerinde aşırı bir lingual eğim görülmekte (Resim 5) çeneler arasında da bariz bir nonoklüzyon göze çarpmaktadır (Resim 6). Alt diş kavsi üst kavis tarafından bütünüyle hapsedilmiştir. Alt kaninler, aşırı lingual eğimleri ve ekstrüzi konumlarıyla damak mukozasının ön bölgesine temas ettiklerinden mukozada buna bağlı bir kalınlaşma gözlenmektedir (Resim 7). Diş kavislerinin çevre yumuşak dokularla ilişkisi bozulmuştur. Bununla birlikte konuşma -R harfinin telaffuzu dışında -oldukça net anlaşılabilir.



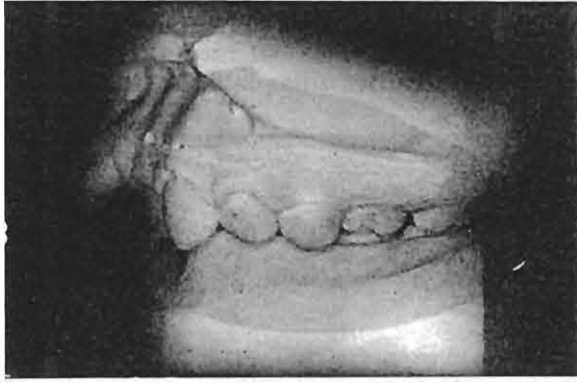
Resim. 3- Alt Diş Kavsinin Oklüzal Görünüşü.



Resim. 4- Üst ve Alt Diş Kavislerinin Oklüzal Görünüşü.



Resim. 5- Alt Diş Kavsinin Yandan Görünüşü.



Resim. 6- Vakaya Ait Modellerin Yandan Görünüşü.



Resim. 7- Damağın ve Üst Diş Kavsinin Oklüzal Görünüşü.

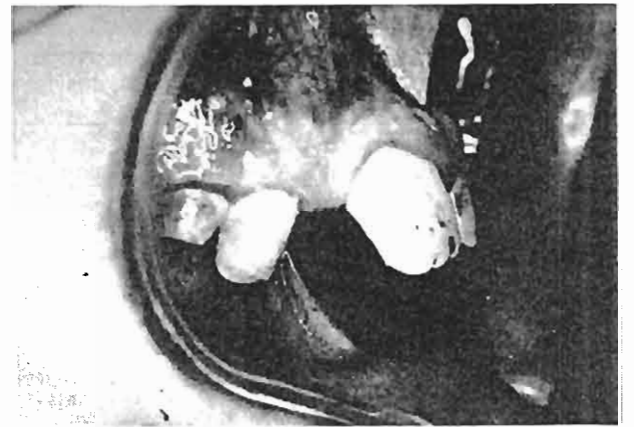
Ortopantomogram incelemesinde, alt 4 kesici diş eksikliğinin yanısıra sol üst kanin-

de gömüklük saptanmaktadır (Resim 8). Yalnızca sağ alt 20 yaş diş germi ağızda olup diğer 20 yaş diş germelerinde konjenital eksiklik mevcuttur.

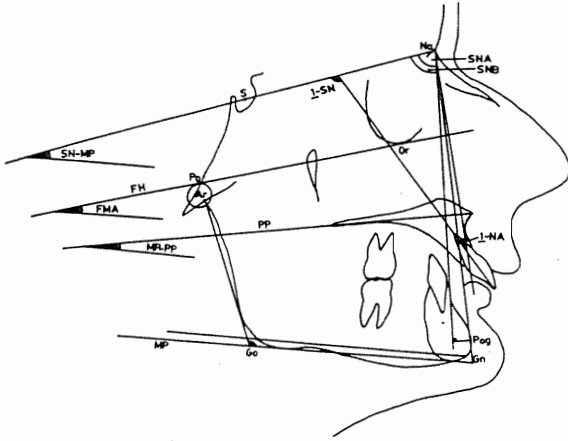


Resim. 8- Vakaya Ait Panoramik Radyografinin Görünüşü.

Yapılan sefalometrik incelemede, iskeletsel Sınıf II çene ilişkisinin yanısıra dik yön açısında aşırı bir azalma gözlenmektedir (Tablo I). Alt çenenin ön kafa kaidesine göre sagittal yöndeki konumu normaldir, ramus ve korpus mandibula boyutları da normal sınırlarda görülmektedir (Şekil 1). Alt kaninlerdeki retrüzyon ve üst kesici protrüzyonuna bağlı olarak overjet ve overbite miktarları artış göstermektedir (Resim 9)



Resim. 9- Vakanın Ağız İçi Yandan Görünüşü.



Şekil. 1- Kullandığımız Açısal ve Boyutsal Ölçümler.

Tablo. 1- Kullanılan Sefalometrik Ölçümler.

SNA	84.5
SNB	79
ANB	5.5
FMA	15.5
SN-MP	19.5
MP-PP	9.5
ArGoGn	112
Ar-Go (mm)	55.5
Go-Gn (mm)	79
I-NA	26.5
I-SN	110.5
NB-Pog (mm)	6.5

Ortodontik modeller üzerinde yapılan Korkhaus analizine göre üst çenede 1. premolarlar hizasında 3.5 mm., 1. molarlar hizasında da 9 mm. lik bir darlık söz konusudur. Alt diş kavsinde ise, 1. premolarlar arası boyutta 16.5 mm., 1. molarlar arası boyutta da 13.5 mm. lik bir azalma saptanmaktadır. Sagittal yöndeki ölçümlerde ise, üst diş kavsinde 5.5 mm. protrüzyon, alt diş kavsinde de 11.5 mm. retrüzyon söz konusudur.

Vakamızda, kraniofasiyal semptomların yanısıra şu ekstremitelerde defektlerine raslanmaktadır:

Sol kol dirsek hizasından itibaren eksiktir. Sağ elde, 1,4 ve 5. parmaklarda hipodaktili mevcuttur, Toraksın sol alt tarafı sağ tarafa kıyasla daha az gelişmiştir, Sağ bacak dizden itibaren eksik olup protez kullanmaktadır. Sol ayakta 5. parmak dışındaki parmakların hiçbiri mevcut değildir.

Vakamız, kliniğimizdeki inceleme sonrasında, sistemik bulguların değerlendirilmesi amacıyla Ege Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Anabilim Dalı Kliniğine gönderilmiştir. Yapılan klinik ve laboratuvar incelemeler sonunda hiçbir "Mendelian Kalıtım Örneğine" uymadığı, vakanın, teratojenik etki ile oluşan "Multipl Konjenital Malformasyon" olarak değerlendirilmesi gerektiği sonucuna varılmıştır.

TARTIŞMA

Dilin boyutları, postürü ve fonksiyonları ile ortodontik anomaliler arasındaki ilişkiler bilinmektedir. Graber ve Swain (14), dile bağlı özelliklerin ortodontik problemi tanımlamada büyük öneme sahip olduğunu belirtmektedir.

Chateau (15), dişlerin, dıştan yanak ve dudaklar, içten de dil kaslarının arasında yer alan ve "diş koridoru" adını verdiği nötral bir çizgi üzerinde dizildiğini vurgulamaktadır. Ballard (16), ortodontik anomalilerin, dil ve perioral kaslar arası dengenin bozulmasından kaynaklandığını belirtmektedir. Mershon (17), yayınladığı aglossi vakasında, küçük dil parçasığının yetersiz kuvvet uygulaması sonucu üst kaviste daralma oluştuğundan ve rugalar bölgesinde kalınlaşma meydana geldiğinden bahsetmektedir.

Weinberg ve arkadaşlarına göre (18), normal bireylerde dil, konuşma artikülasyonunun temel organıdır ve oral anomalilere sahip bireylerde motor konuşma fonksiyonlarını etkileyebilir.

Dil, konuşma fonksiyonunda önemli rol oynamakla birlikte, anlaşılabilir konuşmanın gerçekleşmesi için gerekli tek faktör değildir. Glossektomi geçiren bireyler hatta konjenital aglossi vakaları bile, dilin yardımı olmaksızın akıcı şekilde konuşabilmektedir (17).

Yüz, çene ve dile ait bazı konjenital anomaliler çoğunlukla distal ekstremitelerde defektleriyle birlikte görülmektedir (2). Çoğu araştırma

ciya göre bu anomalilerin nedeni kesin olarak bilinmemektedir (2, 3, 7, 19). Fulford (20), bunun herediter kökenli olabileceğini bildirmektedir. Roth, Sommer, Strafford (5), Nevin ve arkadaşlarına göre (21), karyotipler her zaman normal olduğu için kromozomal uyumsuzluk ta söz konusu olamaz.

Hipoglossi, intrauterin hayatın 4 ila 6. haftalarında mandibuler arkın gelişimindeki duraklama sonucu oluşmaktadır (2, 5). Johnson ve Robinow'a göre (2), bu duraklamanın nedeni, 5. haftada mandibuler arkı geçici olarak besleyen stapediale arterdeki bir yaralanma sonucu kan akımının durmasıdır. Hipoglossinin bazı ekstremitelerde defektleriyle birlikte görülmesinin nedeni de, ekstremitelerdeki gelişimin intrauterin hayattaki gelişim duraklamasının meydana geldiği dönemle çakışmasıdır. Defektlerin asimetric olması ve her zaman distalde görülmesi de vasküler mekanizmayla açıklanmaktadır (2).

YARARLANILAN KAYNAKLAR

1. De Jussieu M Observation sur la manière dont une fille sans langue s'acquitte des fonctions qui endent de cet organe. Hist Acad Roy d Sc Paris Mem 1718 6
2. Johnson GF, Robinow M Aglossia-Adactylia, Radiology. 128: 127-132 1978
3. Smith DW Recognizable patterns of human malformation. ed 2 Philadelphia WB Saunders Co pp 142-143 1976
4. Görün RJ, Pindborg JJ, Cohen MM Syndromes of the Head and Neck. 2 ed Mc Graw-Hill 1976
5. Roth JB, Sommer A, Strafford C Microglossia - Micrognathia. Clin Pediatr 11: 357-359 1972
6. Kelln EE, Bennett CG, Kilingberg WG Aglossia - Adactylia syndrome. Amer J Dis Child 116: 549 1968
7. Çoğlu AS Diş hekimliğinde sendromlar. Eko Matbaası İstanbul 1981
8. Dockrell MB Case of micrognathia and microglossia. Br Soc Study Orthod Tr p 90 1949
9. Dockrell RD Case of micrognathia, microglossia and partial anodontia. Dent Rec 70: 162 1950
10. Eskew HA, Charlotte NC, Shepard EE Congenital aglossia. Am J Orthod 35: 116-119 1949
11. Salzman JA, Seide LJ Malocclusion with extreme microglossia. Am J Orthod 48: 848-857 1962
12. Salzman JA Orthodontics in daily practice. JB Lippincott Comp Philadelphia p 332-334 1974
13. Shear J Congenital under development of the maxilla associated with partial adactylia, partial anodontia and microglossia. J Dent Assoc S Africa 11: 78 1956
14. Graber TM, Swain BF Orthodontics, current principles and techniques. The CV Mosby Comp St Louis pp 47-49 1985
15. Chateau M Orthopedie Dento Faciale. Paris Julien Prêlat 17 rue du Petit Pont pp 113-116 123 1975
16. Ballard CF The aetiology of malocclusion an assesment. Dent Practit 8: 42 1957
17. Mershon RM Speech rehabilitation in congenital aglossia. J Rehab 32-34 1967
18. Weinberg B, Christensen R, Logan W, Bosma J, Wornall A Severe hypoplasia of the tongue. J Speech Hear Disord 34: 157-168 1969
19. Rudy E Sabbagha Diagnostic ultrasound applied to obstetrics and gynecology. 2 ed JB Lippincott Comp Philadelphia 1987
20. Fulford GE, Ardran GM, Kemp FH Aglossia congenital cineradiographic findings. Arch Dis Child 31: 400-407 1957
21. Nevin NC, Burrows D, Allen G et al Aglossia-adactylia syndrome. J Med Genet 12: 89-93 1975

Yazışma Adresi: Dr. Yahya TOSUN
240 Sokak TEVSAN
B Blok 2/28
Bornova-İZMİR