

Latham 장치를 활용한 양측성 완전 구순구개열 환자의 치료: 증례보고

김진규, 김준영, 박진후, 정휘동, 정영수

연세대학교 치과대학 구강악안면외과학교실

Treatment of Bilateral Complete Cleft Lip and Palate with Latham Appliance: A Case Report

Jin-kyu Kim, Jun-Young Kim, Jin Hoo Park, Hwi-Dong Jung, Young-Soo Jung

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yonsei University College of Dentistry, Seoul, Korea

Received May 10, 2019;
Revised May 31, 2019;
Accepted June 1, 2019

Corresponding author:

Young-Soo Jung
Department of Oral and
Maxillofacial Surgery, Yonsei
University College of Dentistry,
50-1, Yonsei-ro, Seodaemun-gu,
Seoul 03722, Korea
Tel: 82-2-2228-3139,
Fax: 82-2-2227-7825,
E-mail: ysjoms@yuhs.ac

The authors have no commercial interests related to the subject of the study, and the study did not receive any commercial financial or material support.

Cleft lip and palate is one of the most common craniofacial deformities that have physical and psychological influences on patients' lives. In 1950, the concept of presurgical infant orthopedics (PSIO) was introduced because surgery alone can be aggressive and less controlled treatment in patients with wide cleft or severely protruded premaxilla. Latham appliance is a kind of PSIO which can make an active forces for alignment and approximation of alveolar segments. The newborn with bilateral complete cleft lip and palate was referred from the department of Neonatology to the department of Oral & Maxillofacial Surgery (OMFS) for evaluation and further treatment. The Latham appliance was applied 10 weeks after birth and activated for 1 month. After the resting period, the operation of primary lip and nose repair was performed with removal of the Latham appliance at 6 months after birth. Through the activation of the Latham appliance, minimizing the scar tissue and reducing tension was possible, and a successful result in esthetics and function can be made.

Key Words: Presurgical infant orthopedics (PSIO); Latham appliance; Bilateral complete cleft lip and palate

서론

구순구개열(cleft lip & palate)은 선천성 두개악안면 기형(congenital craniofacial deformity) 중 가장 흔한 질병 중의 하나로, 환자가 성장함에 있어 신체적, 정신적으로 심대한 영향을 주게 된다. 따라서 구순구개열 환자의 정상적인 신체적, 정신적 성장을 위해 임상가의 책임이 커지게 되는데, 파열부(cleft) 간격이 넓은 경우 수술만으로 치료하고자 한다면 조직박리의 양이 많아지고 과도한 반흔(scar) 조직이 형성되게 되고, 치조 분절(alveolar segment)의 협착이 발생하여 기능적, 심미적인 치료 결과를 성취하지 못

하게 될 수 있다.^{1,2}

이러한 이유로 수술 전 신생아 정형술(presurgical infant orthopedics, PSIO)은 일찍이 16세기부터 시행되어 왔으며, 초기의 수술 전 신생아 정형술은 구강 외 장치를 이용해 악정형력을 전달하는 방식이었다.³ 아크릴릭 레진을 이용한 구내 장치를 활용하는 현대적인 개념의 수술 전 신생아 정형술은 1950년 McNeil에 의해 도입되었으며,⁴ 이 후 다양한 다른 종류의 술 전 악정형 장치들이 소개되고 사용되고 있다.⁵ 술 전 악정형 장치는 작용하는 역학적 원리에 따라 능동적인 방법과 수동적인 방법으로 분류할 수 있다. 그 중 Latham 장치는 능동적인 힘을 가하

는 장치로서, 양측성 구순구개열 환자에서 구강 내에 장치를 상악 분절(maxillary segments)에 핀으로 고정한 후 보호자가 구강 내 장치의 나사를 돌려 양측 구개판(palatal shelves)이 확장되면서 전방 전위된 전상악(protruded premaxilla)이 후퇴하도록 기능한다.^{6,7} 결과적으로 상악 분절과 전상악의 정렬과 근접화를 가능하도록 해주며 수술 부위의 긴장을 줄여 수술이 용이하도록 한다. Latham 장치는 1980년대부터 여러 구순구개열 치료 기관에서 술 전 악정형 장치로서 채택되어 사용되어 오고 있으며, 안정적인 치료 효과가 보고되고 있다.^{5,8}

저자 등은 양측성 완전 구순구개열(Bilateral complete cleft lip and palate) 환아에서 술 전 악정형 장치로서 Latham 장치를 사용한 후 입술과 코의 일차적 수복술(primary lip and nose repair)을 시행한 증례를 통해 Latham 장치의 사용의 유용성을 보고하고자 한다.

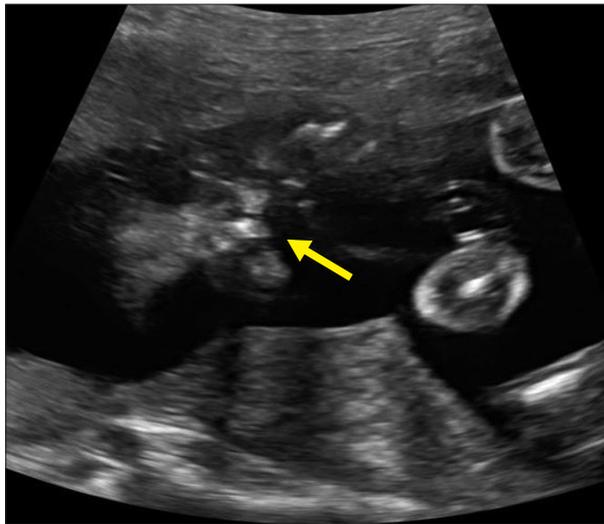


Figure 1. Bilateral cleft lip and palate diagnosed in prenatal ultrasonography.

증례보고

출생 직후의 남아가 양측성 구순구개열(Bilateral cleft lip and palate)을 주소로 본원 신생아과(Department of Neonatology)로부터 구강악안면외과(Department of Oral & Maxillofacial Surgery, OMFS)로 의뢰되었다. 이 남아는 산전 초음파 검사에서 양측의 구순구개열의 소견을 보여(Figure 1) 본 과에 이미 산전상담 의뢰되었던 환자로 40주에 제왕절개를 통해 출산되었으며 양측성 완전 구순구개열(Bilateral complete cleft lip & palate)로 진단되었고(Figure 2), 심초음파 상 동맥관개존증, 심실중격결손증, 심방중격결손증도 확인되었다.

양쪽의 외측 상악 분절을 확장시키고, 비첨까지 심하게 전방 전위되어 있는 전상악을 후퇴시키고 중앙으로 옮겨 상악 분절과 전상악을 정렬하고 근접화시킴으로써, 이후의 수술이 용이하도록 하고 수술 후의 반흔을 작게 남도록 하기 위하여 Latham 장치를 이용한 술 전 악정형 치료를 계획하였다. 생후 9주 경 환아의 인상 채득을 시행하여 Latham 장치를 제작하였고, 생후 10주 경 전신 마취 하에 장치의 구강 내 적용을 시행하였다(Figure 3). Latham 장



Figure 2. Pretreatment view (age: 50 days).

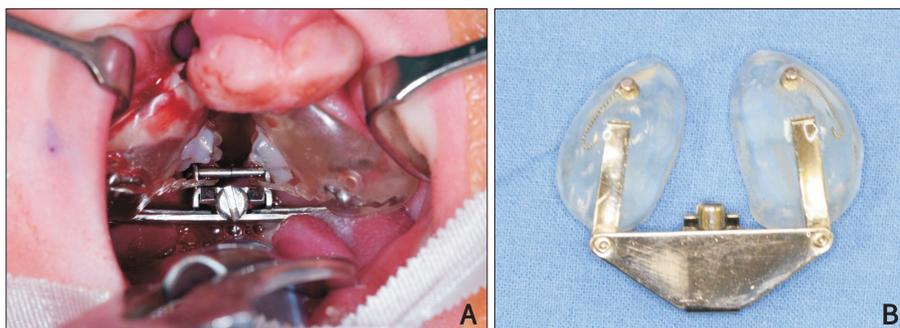


Figure 3. (A) Apply of Latham appliance. (B) The Latham appliance for a patient with bilateral complete cleft lip and palate.

치의 제작 및 구강 내 적용 과정은 다음과 같다.

완전 양측성 구순구개열 환자에게 사용되는 Latham 장치는 양측 상악골 융기(maxillary tuberosity)를 가로지르는 금속 바(metal bar)로 이루어진 드라이브 박스와 아크릴릭 레진 판으로 구성된다. 금속 바는 양측에 두 개의 레버 암(lever arm)과 가운데에는 스크류가 위치하고 있어, 스크류를 돌렸을 때 레버 암을 통해서 양측 상악 분절을 확장시키는 움직임을 유도할 수 있도록 설계되어 있다.

이렇게 제작된 Latham 장치의 적용은 전신 마취 하에 시행되며, 그 첫 단계로 전상악 중격에 wire를 관통하여 위치시키며 양측면에 2 hole washer를 위치시켜 고무줄(elastic chain)을 적용할 수 있도록 하였다. 그 후 양측 상악 분절의 레진 판에 적절한 위치에 hole을 형성하여, 그 위치에 K-wire를 드릴링하여 경구개에 골 내 고정(intraosseous fixation)시켰다. 이 때 K-wire가 발육 중인 치배를 손상시키지 않도록 충분히 구개 측으로 식립하였다. 장치의 hole과 k-wire 사이의 공간에 복합 레진을

적용하여 광중합시킴으로써, Latham 장치가 양측 상악 분절에 골 내 고정되어 상악 분절을 확장시키고 전상악을 후퇴시키는 힘을 가하는 구심점(anchor)으로 작용하도록 하였다. K-wire는 식립 반대측을 구부려두어 복합 레진과의 접촉 면적을 넓혀 유지력을 높일 수 있도록 하였다(Figure 4). 상기 일련의 과정을 통해 고무줄이 전상악의 양측의 2 hole washer에 걸린 후 Latham 장치의 드라이브 박스를 감고 미리 만들어둔 양측 상악 분절의 장치 버튼에 걸리도록 하여, 스크류를 돌려 장치가 활성화되어 양측 상악 분절이 확장되었을 때 고무줄의 탄성력이 전상악을 후퇴하는 방향으로 작용할 수 있도록 하였다(Figure 5).

장치의 적용 이후 스크류를 하루에 반 바퀴씩 활성화하였다. 환자가 폐렴 및 심장 질환으로 인하여 신생아 중환자실에 지속적으로 재원하고 있었기 때문에, 장치의 활성화에 따른 전상악과 상악 분절의 이동 양상에 관해 매일 확인하면서 4주간 장치의 활성을 시행하였다. 계획했던 대로 전상악과 양측 상악 분절의 정렬이 완료된 후 3개월 간의 충분한 휴지기를 가졌다(Figure 6).



Figure 4. K-wire used for intraosseous fixation of Latham appliance to hard palate.



Figure 5. The schematic diagram of force transmission in the Latham appliance.



Figure 6. Pre-operative feature after the activation of the Latham appliance for 4 weeks and the resting period for 3 months.



Figure 7. (A) Post-operative 7 days. (B) Post-operative 3 months. (C) Post-operative 7 months.

생후 6개월 경 전신 마취 하 Latham 장치의 제거와 입술과 코의 일차적 수복술을 시행하였다. 입술과 코의 일차적 수복술은 Mulliken의 방법에 따라 다음과 같이 시행되었다.^{9,10}

인중 피판(philtral flap)의 작도 후 양쪽에 세로로 좁고 피부조각을 도안하여 탈상피화하여 전진시키는 외측 입술 피판의 아래에 놓여 인중 융기(philtral ridge)를 형성할 수 있도록 하였다. 외측 백선-홍순-점막(white line-vermilion-mucosal) 피판을 절개하여 비익기저부 피판(alar base flap)은 거상하고 구륵근 다발을 외측 입술 분절에서 박리하였다. 양측 콧구멍 가장자리 절개선을 통해 비익연골을 노출시키고, 비익연골의 무릎들(genua) 사이의 지방조직도 거상하였다. 그 후, 비강 바닥을 건설하고 치은-입술구(gingivolabial sulcus)의 전방벽, 윗입술의 후방면을 만들었으며, 구륵근은 입술의 높이에 맞게 아래에서 위로 모아 가며 봉합하였으며 가장 위쪽의 봉합은 전비

극의 골막에 단단히 매어 두었다. 외측 입술 피판의 남은 끝을 다듬어 중앙 결절을 만들었으며 코 교정 후 피부 봉합을 시행하였다.

수술 전후 사진을 통하여 Latham 장치를 이용한 술 전 악정형 치료와 수술을 통해 심미적으로 만족스러운 결과를 얻을 수 있었음을 알 수 있다(Figure 7).

고찰

현대적인 수술 전 신생아 정형술(presurgical infant orthopedics, PSIO)의 개념이 소개된 이후로 다양한 종류의 수술 전 악정형 장치가 소개되었고 많은 임상가들이 사용하고 있다. 수술 전 악정형 장치들은 장치마다 역학적 원리가 서로 달라, 그 작용 원리에 따라 능동적 악정형 장치와 수동적 악정형 장치로 나뉜다. Latham 장치는 대표적인 능동적 수술 전 악정형 장치로 구강 내 상악 분절을 정

렬, 근접화시키나, 코의 형태에 대해서는 추후 입술과 코의 일차적 수복술에서의 긴장을 줄이는 정도로 역할이 제한적이다. 반면에, 대표적인 수동적 수술 전 악정형 장치인 PNAM 장치는 장치 내부를 삭제하는 과정에서의 상악 분절의 수동적인 움직임만을 유도하여 Latham 장치에 비해서는 악궁의 형태 개선이 미미하지만, 비연골의 정형 및 비주의 신장을 통해 비첨, 비익 기저부, 인중, 비주의 위치를 바로잡을 수 있도록 한다는 점에서 코의 형태 회복에 우수한 결과를 보인다. 이렇듯 각각의 악정형 장치가 서로 다른 장단점을 가지고 있기 때문에, 편측성 완전 구순열 환자에서 Latham 장치와 PNAM 장치를 순차적으로 모두 사용하여 치료한 증례도 보고된 바 있다.¹¹

하지만 술 전 신생아 정형술을 시행한 경우와 시행하지 않은 경우, 그리고 그것을 시행하였다면 어떤 악정형 장치가 가장 효과적인 치료인지에 대해서는 아직 임상가들의 완전한 의견 일치가 되고 있지 않는 실정이다. 2018년 Kornbluth의 편측성 구순구개열 환자에 대해 수술 전 신생아 정형술을 시행하지 않은 기관과 Modified McNeil 장치, PNAM 장치, Latham 장치를 각각 사용하여 치료한 총 4개 기관의 치료 결과를 비교한 연구에 따르면, Latham 장치와 함께 초기에 입술과 코의 일차적 수복술을 시행한 기관에서 가장 심미적인 결과를 얻었다고 하며, 수술 전 신생아 정형술을 시행한 환아에서 시행하지 않은 환아보다 상악이 열성장한 결과를 확인했다고 한다.¹² 따라서 임상가는 심미적 결과와 추후 상악의 열성장의 가능성을 저울질하여 치료법을 선택할 필요하다고 할 수 있겠다.

본 증례처럼 심하게 전방 전위된 전상악(severely protruded premaxilla)의 소견을 보이는 양측성 구순구개열 환자의 경우, 수술 전 신생아 정형술의 시행 없이 수술에 임한다면 구순의 봉합만으로는 전상악의 후퇴가 불가능하며 과도한 장력으로 인한 수술 후 반흔 가능성이 높아지고, 구개 수술 이후에 전방부의 누공이 잔존하기 쉽고, 인중의 길이를 늘리고 비첨을 교정하는 것이 불가능하며, 환아가 성장하였을 때 시행할 가능성이 있는 전방부의 치조골 이식술의 난이도가 높아져 심미적이고 기능적인 결과를 얻기가 어려울 것이다. 구순구개열 환아가 심미적이고 기능적이지 않은 치료 결과로 인하여 신체적, 정신적으로 어려움을 겪을 수 있음을 감안하면,^{13,14} 본 증례는 수술 전 신생아 정형술이 필요한 증례였다고 판단된다.

Latham 장치는 능동적인 힘을 가하여 전상악을 후퇴시켜 파열부의 간격을 줄여 치조 분절들이 정렬될 수 있도록 한다. 스크류와 고무줄을 이용하여 파열부 치조 분절의 보다 정확한 움직임을 통해 치조 분절들의 정렬과 근접화를 도모할 수 있도록 한다. Latham 장치를 사용한 증례들에 대한 후향적 연구들에 따르면 Latham 장치를 사용하여 얻은 우수한 결과가 보고된다. 2018년 Jodeh에 의해 발표된 편측성 완전 구순구개열을 가진 75명의 환자에 대해 Latham 장치를 이용하여 치료한 보고에 따르면, Latham 장치를 이용한 수술 전 악정형 치료 후에 치은골막성형술(gingivoperiosteoplasty)을 시행하였을 때 95%의 성공적인 치료 결과를 보였고, 56%의 환자에서 추후 이차적 치조골 이식이 필요하지 않았다고 한다.¹⁵ 또한, 구개의 수술적 폐쇄(Surgical closure of palate)에 있어서도 장력을 줄여, 술 후 누공 발생 비율을 20-50%에서 6-8%까지 현저히 줄일 수 있다고 보고된다.^{13,15-17}

그러나 앞서 Kornbluth의 기관 간 연구에서도 언급이 되었듯, 능동적 술 전 악정형 치료 장치인 Latham 장치의 사용 시 중안면부가 열성장할 수 있다는 것에 대해서 논란이 있어왔다.¹² 1996년 Berkowitz와, 1997년 Henkel과 Gundlach에 따르면, Latham 장치와 치은골막성형술을 시행하였을 때 중안면부의 성장이 방해받고 후구치부의 반대교합이 발생하는 경우가 많음이 보고되었다.^{18,19} 반면에, 2001년 Bitter, 2018년 Lukash에 의하면, Latham 장치를 사용하였을 지라도 정상 범주에서 크게 다르지 않은 안면부 성장을 보였음을 보고한 바 있다.^{20,21} Latham 장치의 사용과 중안면부의 성장에 대한 정확한 관련성에 대해서는 추후 지속적 연구가 필요할 것으로 보인다.

결론

본 증례에서는 완전 양측성 구순구개열(complete bilateral cleft lip and palate) 환아에서 Latham 장치를 이용한 수술 전 악정형 치료 후 입술과 코의 일차적 수복술(primary lip and nose repair)을 시행하였으며 만족스러운 임상 결과를 얻었다. 이 증례를 통해 Latham 장치가 능동적인 힘을 가하는 수술 전 악정형 장치로서, 상악 분절을 확장시키면서 전상악을 후퇴시켜 파열부의 간격을 좁히고 분절들의 정렬과 근접화를 효과적으로 이뤄냄으로써, 입

술과 코의 일차적 수복술을 긴장이 적은 상태에서 시행할 수 있는 데 도움이 될 수 있음을 확인하였다. 또한 추후 시행 예정인 구개 수술적 폐쇄술에 있어서도 보다 용이한 수술을 가능하도록 할 것으로 보인다.

References

- Bardach J, Bakowska J, McDermott-Murray J, Mooney MP, Dusdieker LB. Lip pressure changes following lip repair in infants with unilateral clefts of the lip and palate. *Plast Reconstr Surg* 1984;74:476-81.
- Sierra FJ, Turner C. Maxillary orthopedics in the presurgical management of infants with cleft lip and palate. *Pediatr Dent* 1995;17:419-23.
- Rani ST, Rajendra RE, Manjula M, Sreelakshmi N, Rajesh A. Diversities in presurgical orthopedics: a review. *J Advan Clin Res Insights* 2015;2:94-9.
- McNeil CK. Orthodontic procedures in the treatment of congenital cleft palate. *Dent Rec (London)* 1950;70:126-32.
- Tan SP, Greene AK, Mulliken JB. Current surgical management of bilateral cleft lip in North America. *Plast Reconstr Surg* 2012;129:1347-55.
- Latham RA. Orthopedic advancement of the cleft maxillary segment: a preliminary report. *Cleft Palate J* 1980;17:227-33.
- Latham RA, Kusy RP, Georgiade NG. An extraorally activated expansion appliance for cleft palate infants. *Cleft Palate J* 1976;13:253-61.
- Bitter K. Latham's appliance for presurgical repositioning of the protruded premaxilla in bilateral cleft lip and palate. *J Craniomaxillofac Surg* 1992;20:99-110.
- Jung YS. Treatment of cleft lip. In: Ryu DW, Kwon DK, Kim SK, et al., eds. *Textbook of maxillofacial plastic & reconstructive surgery*. 3rd ed. Seoul: J Maxillofac Plast Reconstr Surg, 2016:2.
- Jung YS, Mulliken JB, Sullivan SR, Padwa BL. Repair of bilateral cleft lip and nose: principles and methods of mulliken. *J Korean Assoc Maxillofac Plast Reconstr Surg* 2009;31:353-60.
- Lim JS, Park JH, Jung HD, Jung YS. Sequential use of latham device and Presurgical Nasoalveolar Molding (PNAM) device in unilateral complete cleft lip and palate: a case report. *Korean J Cleft Lip Plate* 2017;20:21-7.
- Kornbluth M, Campbell RE, Daskalogiannakis J, et al. Active presurgical infant orthopedics for unilateral cleft lip and palate: intercenter outcome comparison of latham, modified McNeil, and nasoalveolar molding. *Cleft Palate Craniofac J* 2018;55:639-48.
- Millard DR Jr, Berkowitz S, Latham RA, Wolfe SA. A discussion of presurgical orthodontics in patients with clefts. *Cleft Palate J* 1988;25:403-12.
- Cruz C. Presurgical orthopedics appliance: the latham technique. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2016;28:161-8.
- Jodeh DS, Ruso S, Feldman R, Ruas E, Rottgers SA. Clinical outcomes utilizing a "Modified Latham" appliance for presurgical infant orthopedics in patients with unilateral complete cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2018;1055665618816892. [Epub ahead of print]
- Campbell A, Costello BJ, Ruiz RL. Cleft lip and palate surgery: an update of clinical outcomes for primary repair. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2010;22:43-58.
- Kobayashi S, Hirakawa T, Fukawa T, Maegawa J. Maxillary growth after maxillary protraction: Appliance in conjunction with presurgical orthopedics, gingivoperiosteoplasty, and Furlow palatoplasty for complete bilateral cleft lip and palate patients with protruded premaxilla. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2015;68:758-63.
- Berkowitz S. A comparison of treatment results in complete bilateral cleft lip and palate using a conservative approach versus Millard-Latham PSOT procedure. *Semin Orthod* 1996;2:169-84.
- Henkel KO, Gundlach KK. Analysis of primary gingivoperiosteoplasty in alveolar cleft repair. Part I: Facial growth. *J Craniomaxillofac Surg* 1997;25:266-9.
- Bitter K. Repair of bilateral cleft lip, alveolus and palate. Part 3: Follow-up criteria and late results. *J Craniomaxillofac Surg* 2001;29:49-55.
- Lukash FN, Shikowitz-Behr LB, Schwartz M, Tuminelli F. Dynamic cleft maxillary orthopedics and periosteoplasty. *Ann Plast Surg* 2018;80:40-4.