

## Effect of juvenile idiopathic arthritis on facial skeleton morphology – literature review

### Wpływ młodzieńczego idiopatycznego zapalenia stawów na morfologię struktur twarzowej części czaszki - przegląd piśmiennictwa

Małgorzata Małyszko<sup>1</sup>, Izabela J. Szarmach<sup>1</sup>, Iga A. Szarmach<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Zakład Ortodoncji, Uniwersytet Medyczny w Białymstoku, Polska  
Department of Orthodontics, Medical University of Białystok, Poland  
Head: dr hab. I. J. Szarmach

<sup>2</sup> NZOZ Specjalistyczna Przychodnia Stomatologiczna I.J. Szarmach sc.  
Private Specialized Dental Practice in Białystok, Poland  
Head: dr n. med. J. Szarmach

#### Abstract

**Introduction.** Juvenile idiopathic arthritis (JIA) occurs in the developmental period and comprises a few pathological syndromes of unknown etiology and differentiated clinical picture. Seven types of JIA have been distinguished, with chronic arthritis as a common feature. The pathological process in the temporomandibular joint (TMJ) can be unilateral or bilateral, leading to severe growth disorders of the facial skeleton. **Aim of the study.** To review literature on facial skeleton morphology in patients suffering from JIA. **Material and methods.** Material for analysis consisted of literature data obtained from medical database of "MEDLINE", "SCOPUS" and "WEB OF SCIENCE" published between January 1970 and February 2015. The key words that were used included: "juvenile idiopathic arthritis", "juvenile chronic arthritis", "juvenile rheumatoid arthritis" in association with such terms as "dentoskeletal morphology", "dentofacial growth", "craniofacial development", "cephalometric analysis", "cephalometry", in various combinations. Inclusion and exclusion criteria were defined to assess the article's relevance. Publications in the Polish and English language were taken into consideration. **Results.** Fourteen articles meeting the established inclusion criteria were qualified for review. Homogeneity of the respective research papers was assessed to verify the possibility of defining the common denominator of study results. Chosen

#### Streszczenie

**Wprowadzenie.** Młodzieńcze idiopatyczne zapalenie stawów (ang. Juvenile Idiopathic Arthritis, JIA) obejmuje kilka zespołów chorobowych o nieznannej etiologii i zróżnicowanym obrazie klinicznym, występujących w wieku rozwojowym. Wyróżnia się siedem typów choroby, których wspólną cechą jest przewlekły stan zapalny stawów. Proces chorobowy może toczyć się jednostronnie lub obustronnie w stawach skroniowo-żuchwowych (SSŻ), prowadząc do poważnych zaburzeń wzrostu twarzowej części czaszki. **Cel pracy.** Dokonanie przeglądu piśmiennictwa dotyczącego morfologii struktur twarzowej części czaszki osób chorych na młodzieńcze idiopatyczne zapalenie stawów (JIA). **Material i metody.** Materiał stanowiło piśmiennictwo wyszukane poprzez elektroniczne bazy informacji medycznych „MEDLINE”, „SCOPUS” oraz „WEB OF SCIENCE” opublikowane od stycznia 1970 do lutego 2015 roku. Użyto słów kluczowych: „juvenile idiopathic arthritis”, „juvenile chronic arthritis”, „juvenile rheumatoid arthritis” w połączeniu ze zwrotami „dentoskeletal morphology”, „dentofacial growth”, „craniofacial development”, „cephalometric analysis”, „cephalometry”, w różnych kombinacjach. Zdefiniowano kryteria włączające i wykluczające artykuły. Wzięto pod uwagę publikacje napisane w języku polskim i angielskim. **Wyniki.** Do przeglądu zakwalifikowano 14 artykułów anglojęzycznych

#### KEYWORDS:

juvenile idiopathic arthritis, cephalometric analysis, facial skeleton morphology

#### HASŁA INDEKSOWE:

młodzieńcze idiopatyczne zapalenie stawów, analiza cefalometryczna, morfologia twarzowej części czaszki



cephalometric parameters of 652 JIA patients aged 2.17-44.4 years were compared to the control group.

**Conclusion.** Chronic inflammation of the TMJ is an important issue, especially in growing patients. It is likely to cause characteristic growth anomalies in the facial skeleton, such as microgenia, retrognathia, skeletal open bite or increased facial convexity, especially when the TMJ inflammation is bilateral. Further long-term studies are necessary to compare the growth of the mandible and the whole complex of the facial skeleton in patients with and without TMJ inflammation in the respective types of the disease.

## Introduction

Juvenile Idiopathic Arthritis (JIA) was first described as a separate disease entity by a British pediatrician, George Frederic Still at the end of the 19<sup>th</sup> century.<sup>1</sup>

The diagnostic criteria established by the International League of Associations for Rheumatology include the presence of chronic arthritis of unknown etiology, with the onset before the age of 16 years, lasting incessantly for at least six weeks, excluding other causes from the so-called exclusion list. According to the relevant classification, the disease occurs in seven types characterized by various clinical, laboratory and prognostic patterns. The diagnosis is based on the symptoms that appear within the first six months of the disease.<sup>2</sup>

The idiopathic inflammatory process may affect the temporomandibular joint (TMJ).<sup>3-9</sup> According to the European and American literature data, the proportion of children suffering from JIA with TMJ inflammation ranges between 17%-87%, depending on the research method used, represented disease subtypes and selection criteria for the study population.<sup>10-13</sup> There are no up-to-date epidemiological studies assessing the incidence of the disease in the Polish population of children. In the province of Łódź in the years 2000-2001, the incidence was 6.4/100 000 children,<sup>14</sup>

spełniających ustalone kryteria. Oceniono homogeniczność poszczególnych prac badawczych. Stwierdzono niejednorodność badań oryginalnych uniemożliwiającą zsumowanie ich wyników. Zrealizowano zestawienie wybranych parametrów cefalometrycznych 652 pacjentów w wieku od 2,17 do 44,4 lat z grupą kontrolną. **Wnioski.** Przewlekły stan zapalny SSŻ jest istotnym problemem, szczególnie u pacjentów rosnących. Prawdopodobnie jest przyczyną powstawania charakterystycznych anomalii wzrostowych twarzowej części czaszki, takich jak mikrogenia, retrognacja, zgryz otwarty szkieletowy czy wzrost wypukłości profilu twarzy, szczególnie w przypadku obustronnego zapalenia SSŻ. Istnieje dalsza potrzeba prowadzenia długoterminowych badań skupiających się na porównaniu wzrostu żuchwy i całego kompleksu twarzowej części czaszki pacjentów bez i z objęciem zapaleniem SSŻ w poszczególnych typach choroby.

## Wstęp

Młodzieńcze idiopatyczne zapalenie stawów (Juvenile Idiopathic Arthritis, JIA) zostało po raz pierwszy opisane jako odrębna jednostka chorobowa przez brytyjskiego pediatrę George'a Frederica Stilla pod koniec XIX wieku.<sup>1</sup>

Kryteria rozpoznania ustalone przez Międzynarodową Ligę Towarzystw Reumatologicznych (International League of Associations for Rheumatology) są następujące: przewlekłe zapalenie stawów o nieznannej etiologii rozpoczynające się przed 16 rokiem życia, trwające nieprzerwanie przez okres co najmniej 6 tygodni wraz z wykluczeniem innych przyczyn zapalenia z tzw. listy wykluczeń. Według obecnie obowiązującej klasyfikacji wyróżnia się siedem typów choroby, charakteryzujących się odmiennym obrazem klinicznym, laboratoryjnym oraz rokowaniem. Diagnozy dokonuje się na podstawie objawów występujących w ciągu pierwszych 6 miesięcy choroby.<sup>2</sup>

Idiopatyczny przewlekły proces zapalny może dotyczyć stawu skroniowo-żuchwowego (SSŻ).<sup>3-9</sup> Podawany w piśmiennictwie europejskim i amerykańskim odsetek dzieci chorujących na JIA ze współwystępowaniem choroby w SSŻ waha się od 17 do 87% w zależności od użytej metody badawczej, reprezentowanych podtypów choroby oraz kryteriów selekcji osób włączonych do bada-



and in Kielce in the years 1999-2003 there were 7 cases per 100 000 of the population annually.<sup>15</sup>

The diagnosis of TMJ inflammation is frequently delayed due to the lack of evident clinical symptoms and complaints.<sup>3,16,17</sup> Many researchers use a panoramic radiograph to detect TMJ inflammation; however, bone destruction visible on a conventional X-ray examination is a relatively late symptom in the disease course.<sup>7,11</sup> MR imaging of the TMJ is currently treated as the “gold standard” for the diagnosis of JIA. The examination assesses hard tissues and displays the intra-articular fluid. When performed with gadolinium-containing contrast, it shows the presence of an inflammatory process.<sup>18</sup> This is especially useful in the diagnosis of an early inflammatory phase, prior to damage to bones of the articular process. Research based on this type of imaging presents a considerably higher rate of TMJ involvement as compared to that using panoramic radiographs.<sup>3,5,12,19</sup>

Injury to the cartilage of the mandibular process, being the most serious consequence of JIA, results in undesirable position of the mandible, disturbances in its morphology and growth, leading to secondary defects in the structure of the jaw and the development of the upper respiratory tract.<sup>20</sup> The centre of mandibular growth lies below the fibrous cartilage covering the articular head of the TMJ, and is thus vulnerable to injury during inflammation processes.<sup>21</sup> It is assumed that chronic inflammation of the TMJ is the main etiological factor of morphological abnormalities of the facial skeleton in patients with JIA.<sup>11,13,22-26</sup> TMJ inflammation and face growth anomalies are observed in all types of the disease.<sup>27</sup> It has been noted that the younger the child's age at the very onset of the disease, the more likely the occurrence of inflammatory changes in the TMJ and seriousness of the risk of malocclusion and anomalies in the structure of the facial skeleton.<sup>19,26,28</sup> It has been found that girls are more often affected by JIA than boys, and are thus at higher risk of growth abnormalities.<sup>1,28</sup> Moreover, girls with TMJ inflammation show more enhanced dysmorphic features of the face than boys<sup>25</sup> and display a tendency for bilateral

nej populacji.<sup>10-13</sup> Brak aktualnych badań epidemiologicznych oceniających skalę występowania choroby w populacji dzieci polskich. W badaniach przeprowadzonych w województwie łódzkim w latach 2000-2001 zapadalność wyniosła 6,4 na 100 000 dzieci.<sup>14</sup> Natomiast w badaniach wykonanych w latach 1999-2003 w Kielcach odnotowano 7 przypadków zachorowania na 100 000 dzieci rocznie.<sup>15</sup>

Zdiagnozowanie choroby SSŻ jest często opóźnione z powodu braku jednoznacznych objawów klinicznych i zgłaszanych dolegliwości.<sup>3,16,17</sup> Wielu badaczy posługuje się zdjęciem pantomograficznym w celu wykrycia cech zapalenia SSŻ, ale destrukcja kości widoczna w konwencjonalnym badaniu rtg jest objawem stosunkowo późnym w przebiegu choroby.<sup>7,11</sup> Badanie SSŻ za pomocą rezonansu magnetycznego (MRI) jest traktowane obecnie jako „złoty standard” dla diagnozy JIA, ponieważ ocenia tkanki twarde oraz obrazuje płyn wewnątrzstawowy, a wstrzyknięcie kontrastu z gadoliny ukazuje obecność stanu zapalnego.<sup>18</sup> Badanie to jest szczególnie przydatne w diagnozowaniu wczesnej fazy zapalenia, zanim dojdzie do zniszczenia kości wyrostka stawowego. Prace badawcze bazujące na tym typie obrazowania podają znacznie wyższą częstość objęcia zapaleniem SSŻ w porównaniu do tych wykorzystujących zdjęcie pantomograficzne.<sup>3,5,12,19</sup>

Najpoważniejszym następstwem JIA jest uszkodzenie chrząstki wyrostka stawowego żuchwy, którego konsekwencją może być niekorzystna zmiana pozycji żuchwy, zaburzenie jej morfologii i wzrostu, prowadzące wtórnie do nieprawidłowości w budowie szczęki oraz rozwoju górnych dróg oddechowych.<sup>20</sup> Centrum wzrostu żuchwy znajduje się poniżej chrząstki włóknistej pokrywającej głowę stawową SSŻ, a zatem jest podatne na uszkodzenie podczas procesu zapalnego.<sup>21</sup> Przypuszcza się, że przewlekłe zapalenie SSŻ jest głównym czynnikiem etiologicznym nieprawidłowości morfologii struktur twarzowej części czaszki pacjentów chorujących na JIA.<sup>11,13,22-26</sup> Zapalenie SSŻ i anomalie wzrostowe twarzy stwierdza się we wszystkich typach choroby.<sup>27</sup> Zaobserwowano, że im młodszy wiek dziecka w chwili zachorowania, tym większe prawdopodobieństwo wystąpienia



lesions in the TMJ.<sup>8</sup> Bilateral involvement of the TMJ predisposes to more severe lesions in the facial skeleton morphology as the result of growth disorders.<sup>29</sup> Furthermore, longer duration of the general disease<sup>8,23</sup> and its more severe course may be reflected in pathological growth.<sup>29,30</sup> The involvement of the TMJ seems to be associated with the JIA type. TMJ inflammation is more frequent in the polyarticular type,<sup>6,8,19,25,31</sup> the oligoarticular type,<sup>28,29</sup> and the systemic type.<sup>6,7,22,31</sup>

Bilateral inflammation of the TMJ carries the risk of growth abnormalities.<sup>32</sup> Literature reports indicate that 70% of patients are affected by bilateral inflammation of the TMJ with co-existing impaired growth of anatomical structures of the face.<sup>29</sup> Studies on a large group of patients show a strong correlation between the growth of the mandible and the TMJ involvement. Unilateral inflammation of the TMJ causes asymmetry of the mandible and its hypoplasia on the side of the affected joint.<sup>16,23,33</sup> TMJ destruction may lead to micrognathia,<sup>29,33,34</sup> retrognathia<sup>22,23,25,29,32,35</sup> and backward growth rotation of the mandible,<sup>22,24,34,36</sup> resulting in serious aesthetic and functional deterioration.<sup>9,37</sup>

### Aim of the study

Review of literature on facial skeleton morphology in patients suffering from JIA was conducted.

### Material and methods

The study material consisted of literature data obtained from medical database of MEDLINE, SCOPUS and WEB OF SCIENCE published between January 1970 and February 2015. Additionally, specialist orthodontic and rheumatologic literature was searched manually. Due to lack of uniform international terminology, the key words that were used included *juvenile idiopathic arthritis, juvenile chronic arthritis, juvenile rheumatoid arthritis* in association with such terms as *dentoskeletal morphology, dentofacial growth, craniofacial development, cephalometric analysis and cephalometry*, in various combinations (Table 1). Full texts in the Polish and English language were taken into consideration. Selection criteria were defined.

zmian zapalnych w SSŻ oraz poważniejsze zagrożenie wystąpienia zaburzeń okluzji i anomalii w budowie kośćca twarzowej części czaszki.<sup>19,26,28</sup> Stwierdzono, że dziewczynki częściej niż chłopcy chorują na JIA, a więc są bardziej narażone na wystąpienie nieprawidłowości wzrostowych.<sup>1,28</sup> Ponadto dziewczynki z zapaleniem SSŻ wykazują bardziej nasilone cechy dysmorficzne twarzy w porównaniu do chłopców<sup>25</sup> oraz tendencję do obustronnych zmian w SSŻ.<sup>8</sup> Obustronne zaangażowanie SSŻ predysponuje do cięższych zmian w morfologii twarzowej części czaszki jako następstwo zaburzeń wzrostowych.<sup>29</sup> Poza tym dłuższy czas trwania choroby ogólnej<sup>8,23</sup> i poważniejszy jej przebieg może mieć odzwierciedlenie w wystąpieniu patologicznego wzrostu.<sup>29,30</sup> Objęcie zapaleniem SSŻ wydaje się mieć związek z typem JIA. Zauważono częstsze występowanie zapalenia SSŻ w typie wielostawowym,<sup>6,8,19,25,31</sup> nielicznostawowym<sup>28,29</sup> oraz systemowym.<sup>6,7,22,31</sup>

Obustronne zapalenie SSŻ niesie ze sobą ryzyko wystąpienia nieprawidłowości wzrostowych.<sup>32</sup> W piśmiennictwie podawany jest odsetek 70% pacjentów z obustronnym zapaleniem SSŻ, dotkniętych jednocześnie upośledzeniem wzrostu struktur anatomicznych twarzy.<sup>29</sup> Z badań przeprowadzonych przy udziale licznej grupy pacjentów wynika silna zależność między wzrostem żuchwy a objęciem zapaleniem SSŻ. Jednostronne zapalenie SSŻ spowodowało asymetrię żuchwy i jej niedorozwój po stronie chorego stawu.<sup>16,23,33</sup> Konsekwencją destrukcji SSŻ może być zmniejszenie wielkości żuchwy (mikrognacja),<sup>29,33,34</sup> zaburzenie wzrostu w kierunku strzałkowym (retrognacja)<sup>22,23,25,29,32,35</sup> oraz dotylna rotacja wzrostowa,<sup>22,24,34,36</sup> prowadzące do poważnego pogorszenia estetyki i czynności.<sup>9,37</sup>

### Cel pracy

Przeprowadzono przegląd piśmiennictwa dotyczącego morfologii struktur twarzowej części czaszki osób chorujących na młodzieńcze idiopatyczne zapalenie stawów (JIA).

### Materiał i metody

Materiał stanowiło piśmiennictwo wyszukane poprzez elektroniczne bazy informacji me-



**Table 1.** Keyword combination used for literature search

keyword 1		keyword 2
JIA OR JCA OR JRA	AND	dentoskeletal morphology OR dentofacial growth OR craniofacial development OR cephalometric analysis OR cephalometry OR

JIA – juvenile idiopathic arthritis; JCA – juvenile chronic arthritis; JRA – juvenile rheumatoid arthritis; OR, AND – Boolean operators.

Only original papers describing face morphology based on the lateral telerradiograph of the head of at least ten patients with confirmed diagnosis of JIA were included in the survey. Articles that presented fewer patients, literature surveys and papers describing cephalometric measurements in patients with another type of arthritis were excluded. Fourteen articles describing the morphology of the facial skeleton in JIA patients published in English were qualified for the review.

Homogeneity of the respective research papers was assessed to verify the possibility of defining the common denominator of study results. The literature data were compared taking into consideration the following features of the population: JIA type, age at the time of examination, disease duration, type of occlusion, TMJ dysfunction, drugs taken, history of orthodontic treatment, the presence of control group matched according to age, gender, cephalometric analysis, occlusion analysis and orthodontic treatment (Table 2).

## Results and discussion

Detailed assessment of the publications qualified for the survey revealed considerable differences between the populations studied, which made it impossible to sum up the respective results. Although all the authors defined the type of the disease in their study groups, most of them performed cephalometric measurements in combined groups.<sup>11,16,22,23,27,29,31,33,34,36</sup> Thus, the analysis of growth in different disease types was impossible. Ronchezel, Sidiropoulou-Chatzigianni, Larheim, Mandall et al.<sup>9,25,32,35</sup>

dycznych „MEDLINE”, „SCOPUS”, „WEB OF SCIENCE” opublikowane od stycznia 1970 do lutego 2015 roku. Dodatkowo przeprowadzono manualne przeszukiwanie literatury specjalistycznej z dziedziny ortodoncji i reumatologii. Ze względu na niejednorodność międzynarodowej nomenklatury użyto słów kluczowych: „juvenile idiopathic arthritis”, „juvenile chronic arthritis”, „juvenile rheumatoid arthritis” w połączeniu ze zwrotami „dentoskeletal morphology”, „dentofacial growth”, „craniofacial development”, „cephalometric analysis”, „cephalometry”, w różnych kombinacjach (Tab. 1). Uwzględniono publikacje napisane w języku polskim i angielskim. Ograniczono się do prac pełnotekstowych. Zdefiniowano kryteria doboru piśmiennictwa. Do przeglądu włączono tylko oryginalne prace badawcze opisujące morfologię twarzy na podstawie bocznego telerradiogramu głowy co najmniej dziesięciu pacjentów z potwierdzoną diagnozą JIA. Wyeliminowano opisy mniej niż dziesięciu przypadków, przeglądy piśmiennictwa oraz prace opisujące pomiary cefalometryczne pacjentów z innym typem zapalenia stawów. Do przeglądu zakwalifikowano 14 prac opisujących morfologię struktur twarzowej części czaszki pacjentów chorujących na JIA napisane w języku angielskim. Oceniono homogeniczność poszczególnych prac badawczych w celu zweryfikowania możliwości określenia wspólnego mianownika wyników badań. Dokonano porównania piśmiennictwa uwzględniając następujące cechy badanych populacji: typ JIA, wiek w trakcie wykonywania badań, czas trwania choroby, określenie typu okluzji, dysfunkcji SSŻ, przyjmowanych leków, przeprowadzonego wcześniej leczenia ortodontycznego, obecności grupy kontrolnej dobranej zgodnie z płcią i wiekiem, z przeprowadzoną analizą cefalometryczną, analizą okluzji oraz zdefiniowaniem, czy grupa była poddana leczeniu ortodontycznemu (Tab. 2).

## Wyniki i ich omówienie

Po dokonaniu szczegółowej oceny publikacji zakwalifikowanych do przeglądu stwierdzono znaczne różnice między badanymi populacjami, co uniemożliwiło zsumowanie ilościowe wyników poszczególnych prac. Pomimo tego, że

**Table 2.** Assessment of the homogeneity of the included studies

Author	Year	Sample size	JIA subtype	Age (SD)	JIA duration (SD)	Prev. orthod. treat.				Matched ctr.gr.	Ctr. occl.	Ctr. orthod.
						Occl.	TMD	Med.				
<i>Arvidsson</i> <sup>29</sup>	2010	60	all	27.9-44.4y m. 35.2y (3.6)	24.4-38y m. 29.7y (3.3)	-	-	+	+	+	-	-
<i>Fjeld</i> <sup>36</sup>	2010	26	all	1stexam.:lgr. 9.0y(1.1) final exam.:lgr.33.7y(2.6) 1stexam.:llgr.9.6y(1.2) final exam. llgr.33.9y(3.0)	lgr.27.4y (2.3) llgr.30.1y (2.9)	-	+	+	-	+	-	+
<i>Mandal</i> <sup>35</sup>	2010	68	oligo poly	9-16y oligo-m.12.8y(3.8) poly-m. 12.7y(2.5)	oligo-5.3y (4.6) poly-5.4y (3.1)	-	-	+	+	-	-	-
<i>Fjeld</i> <sup>33</sup>	2009	54	all	lgr.m.6.1y(0.6) llgr.m.9y(0.6) lllgr.m.11.9y(0.6) lvgr.m.35.3y(3.6)	lgr.2.5y llgr.4.3y lllgr.6.3y lvgr.29.7y	-	+	-	-	+	-	-
<i>Hu</i> <sup>27</sup>	2009	32	all	3.3-19.4y m.11.1y	2mo-15y m.3.1y	+	-	+	+	+	+	-
<i>Twilt</i> <sup>34</sup>	2009	70	all	8y 9mo-24y 8mo m.16y3m	6y3mo-18y10mo m.10y1mo	-	-	+	-	-	-	-
<i>Billiau</i> <sup>11</sup>	2007	46	all	2.17-19.4y m.9.33y	2mo-15y m.3.04y	-	-	+	+	+	-	+
<i>Twilt</i> <sup>22</sup>	2006	85	all	-	4.9y	-	-	+	-	-	-	-
<i>Sidiropoulou-Chatzigianni</i> <sup>25</sup>	2001	66	oligo poly	6-19y m.11.9y	-	-	-	+	-	-	+	-
<i>Hu</i> <sup>16</sup>	1996	37	oligo poly syst.	6-17y m.11y	3.6y	-	+	+	-	-	-	-
<i>Kjellberg</i> <sup>23</sup>	1995	35	oligo poly	lgr. 7.6-16.1y m.11.7y llgr.7.0-11.4y m.9.6y	-	+	-	+	-	+	+	-
<i>Ronchezel</i> <sup>9</sup>	1995	26	oligo poly syst.	5y10mo-15y2mo m.10y1mo	7mo-10y8mo m.4y2mo	+	-	+	+	-	+	-
<i>Larheim</i> <sup>32</sup>	1981	20	poly	15-35y m.24y	6-33y	-	-	+	+	+	-	-
<i>Barriga</i> <sup>31</sup>	1974	27	all	3y8mo-18y7mo	-	+	-	+	-	+	-	-

## Legend:

JIA – juvenile idiopathic arthritis, Occl. – malocclusion, TMD – temporomandibular disorders, Med. – medication, Prev. orthod. treat. – previous orthodontic treatment, ctr. – control group, ctr.occl. – control malocclusion, ctr.orthod. – control orthodontic treatment, SD – standard deviation, oligo-oligoarticular arthritis, poly-polyarticular arthritis, syst. – systemic arthritis, y – years, mo – months, m. – mean, gr. – group, 1 st exam. – first examination, “+” – indicated, “-” – not indicated.



described the cephalometric measurements in patients distinguishing between the oligo- and polyarticular type. Four examinations involved patients at the same developmental age,<sup>29,32,33,36</sup> whereas in ten examinations the patients' age ranged from 2.17 to 24 years and 8 months. Eleven researchers provided information on the disease duration; however, three of them<sup>9,11,27</sup> included patients with JIA lasting from 2 to 7 months (two papers based on the same sample of patients,<sup>11,27</sup> which could have a doubtful effect on the facial skeleton growth anomaly. Occlusion was assessed in four research papers,<sup>9,23,27,31</sup> whereas in three articles the data referred to the past or present orthodontic therapy<sup>16,33,36</sup> that could have a significant effect on maxillofacial morphology. The authors found TMJ defects in their study patients. However, half of them combined patients with TMJ involvement with those without,<sup>16,23,27,31,33-35</sup> which might, to a large extent, distort the overall result of cephalometric analysis. Six scientists provided data concerning drugs that might affect the course of JIA, although the data were highly differentiated.<sup>9,11,27,29,32,35</sup> In eight publications, the study sample was compared with the age- and gender-matched control subjects.<sup>11,23,27,29,31-33,36</sup> In four papers, malocclusion was assessed,<sup>9,23,25,27</sup> whereas in three orthodontic treatment was taken into consideration.<sup>11,33,36</sup>

Although the research material was highly diverse, and it was impossible to sum up the results of the studies included in the survey, we managed to compare the findings. Chosen cephalometric measurements obtained from 652 patients aged 2.17-44.4 years were compared with the control. Statistically significant results are indicated in bold (Tables 3 and 4).

### **Sagittal jaw-base relationships**

No statistically significant differences were found in the SNA angle between patients and healthy children (control) irrespective of TMJ inflammation. In the surveyed literature, the SNA angle ranged from 79.9 to 83°.<sup>11,23,25,29,31-33,35</sup> In turn, *Hu* et al. found an increased angle indicating the degree of jaw prognathion in relation to the base of the cranium (SNA=83°) in the affected

wszyscy autorzy określili typ choroby w badanych grupach, większość wykonała pomiary cefalometryczne po połączeniu ich ze sobą.<sup>11,16,22,23,27,29,31,33,34,36</sup> Uniemożliwiło to przeprowadzenie analizy wzrostu w odrębnych typach choroby. *Ronchezel*, *Sidiropoulou-Chatzigianni*, *Larheim*, *Mandall* i wsp.<sup>9,25,32,35</sup> opisali pomiary cefalometryczne pacjentów przeprowadzając rozróżnienia na typ nieliczno- i wielostawowy. Cztery badania zostały zrealizowane z udziałem pacjentów w tym samym okresie rozwojowym,<sup>29,32,33,36</sup> natomiast w dziesięciu pozostałych rozpiętość wieku wahała się od 2,17 do 24 lat i 8 miesięcy. Jedenastu badaczy dostarczyło informacji na temat czasu trwania choroby, jednak trzech z nich<sup>9,11,27</sup> włączyło do badań pacjentów z okresem trwania JIA od 2 do 7 miesięcy (dwie prace bazowały na tej samej próbie pacjentów<sup>11,27</sup>), co mogło mieć wątpliwy wpływ na rozwój anomalii kośćca twarzowej części czaszki. Okluzja została oceniona w czterech pracach naukowych,<sup>9,23,27,31</sup> natomiast w trzech podano dane odnośnie przebytej lub trwającej terapii ortodontycznej,<sup>16,33,36</sup> która mogła mieć istotny wpływ na morfologię szczękowo-twarzową. Autorzy stwierdzili obecność zaburzeń SSŻ u badanych pacjentów, jednak w połowie prac dokonano zsumowania pacjentów z i bez objęcia chorobą SSŻ,<sup>16,23,27,31,33-35</sup> co może w znacznej mierze fałszować ogólny wynik analizy pomiarów cefalometrycznych. Sześciu naukowców podało dane na temat przyjmowanych leków wpływających na przebieg JIA, aczkolwiek informacje te były wysoce zróżnicowane.<sup>9,11,27,29,32,35</sup> W ośmiu publikacjach przeprowadzono porównanie z grupą kontrolną składającą się z osób dobranych zgodnie z płcią i wiekiem do badanej próby,<sup>11,23,27,29,31-33,36</sup> w czterech oceniono występowanie wad zgryzu w tej populacji,<sup>9,23,25,27</sup> natomiast w trzech określono, czy osoby w grupie kontrolnej były poddane leczeniu ortodontycznemu.<sup>11,33,36</sup>

Pomimo odnotowania dużej różnorodności materiału badawczego i braku możliwości statystycznego połączenia rezultatów przeprowadzonych badań, dokonano porównania wyników włączonych artykułów. Zrealizowano zestawienie wybranych pomiarów cefalometrycznych 652 pacjentów w wieku od 2,17 do 44,4 lat z grupą kontrolną.



**Table 3.** JIA patients' cephalometric values compared to healthy control group – part 1: sagittal and dental relationship

Author	Remarks	Sagittal relationship					Dental relationship						
		SNA (°)	SNA ctr.	SNB (°)	SNB ctr.	ANB (°)	ANB ctr.	U1/NL (°)	U1/NLctr.	L1/ML (°)	L1/ML ctr.	U1/L1 (°)	U1/L1 ctr.
Arvidsson <sup>29</sup>	JIA group with TMD	81.8	82.5	76.1	79.9	5.7	2.6	-	-	-	-	-	-
	JIA group without TMD	81.4		78.6		2.8		-	-	-	-	-	-
Fjeld <sup>86</sup>	JIA group with bilateral TMD (respectively children and adults)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA group without TMD (respectively children and adults)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Mandal <sup>85</sup>	oligoarticular JIA group (with and without TMD pooled)	80.9	-	76.7	-	4.2	-	107.3	-	95.6	-	130.4	-
	polyarticular JIA group (with and without TMD pooled)	79.9	-	74.9	-	5.1	-	110.3	-	93.9	-	125.8	-
Fjeld <sup>83</sup>	JIA group at the age of 6 (with and without TMD pooled)	81.7	81.7	75.9	77.8	5.9	4.1	91.8	92.9	93.5	88.1	141.9	146.6
	JIA group at the age of 9 (with and without TMD pooled)	80.7	81	76.3	77.5	4.4	3.5	103	102	95.6	94.7	127.5	131
	JIA group at the age of 12 (with and without TMD pooled)	80.8	82.2	76.5	79.4	4.3	2.9	100.5	102.5	95.8	96.4	128.4	132.4
	JIA group at the age of 35 (with and without TMD pooled)	81.2	82.6	76.6	79.9	4.7	2.6	98.2	100.7	98.3	94.9	129.7	136.7
Hu <sup>27</sup>	JIA group (with and without TMD pooled) vs orthodontic controls	83	78.5	78.2	75	4.2	3	-	-	-	-	121.5	128.5
	JIA group (with and without TMD pooled) vs Class II/1 control group	83	78	78.5	74	4.5	4	-	-	-	-	123	131
Twilt <sup>34</sup>	degree of the retrognathia and posterior rotation of the mandible at first examination and after 5y. follow-up (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	5.9	5.9						
Billiau <sup>11</sup>	JIA group with TMD	83	83	78	79	4.5	3.4	-	-	-	-	125	136
	JIA group without TMD	82	83	77	80	5	3.2	-	-	-	-	126	135
Twilt <sup>22</sup>	ANB was 1,8° greater in patients with TMD than in patient without TMD; with TMD more posterior rotation	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Sidiropoulou-Chatzigianni <sup>25</sup>	oligoarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	80.5		77		3.4		109.1		95.6		131.7	
	polyarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	80.8	81.6	76.2	77.9	4.6	3.7	110	108.3	92.4	92.2	126	142
	JIA patients without TMD	81.5		77		3.4		110.5		92.5		131.5	
	JIA patients with TMD	80.9		76.1		4.7		108.5		95.7		125.7	
Hu <sup>16</sup>	45,9% of JIA patient had vertically and sagittaly smaller mandibles than control gr. (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Kjellberg <sup>23</sup>	JIA children with Angle class I occlusion (with and without TMD pooled)	82.8		79.4		3.4		109.2		93.6		129.8	
	JIA children with Angle class II occlusion (with and without TMD pooled)	80.5	82.5	73.8	79.8	6.7	2.9	109.9	109.8	94.1	94	119.4	132.9
	healthy children with Angle class II occlusion	81.1		74.9		6.2		111.9		96.4		125.1	
Roncheze <sup>9</sup>	oligoarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	polyarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA patients with severe TMJ lesions	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA patients without TMJ lesions	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Larheim <sup>32</sup>	all JIA patients with "bird face" and TMJ damage	80	82	69	79	11	3	-	-	-	-	-	-
Barriga <sup>31</sup>	JIA patients with and without TMD pooled	82	81			6.6	4.4	-	-	-	-	-	-





**Table 4.** JIA patients' cephalometric values compared to healthy control group – part 2: vertical relationship

Author	Remarks	Vertical relationship											
		ML/ NSL (°)	ML/ NSL ctr.	NL/ NSL (°)	NL/ NSL ctr.	ML/ NL (°)	NL ctr.	TAFH (mm)	TAFH ctr.	PFH (mm)	PFH ctr.	A/PFH (%)	A/PFH ctr.
Arvidsson <sup>29</sup>	JIA group with TMD	<b>35.7</b>	27.7	-	-	-	-	111.7	113.5	<b>67.2</b>	77.5	<b>167.3</b>	147.2
	JIA group without TMD	27.6	-	-	-	-	-	116.1	79.2	147.7	-	-	-
Fjeld <sup>36</sup>	JIA group with bilateral TMD (respectively children and adults)	<b>38.2</b> <b>36.5</b>	30.6 26.7	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA group without TMD (respectively children and adults)	31.3 27.7	31.1 27.1	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Mandall <sup>35</sup>	oligoarticular JIA group (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	28.9	-	-	-	-	-	-	-
	polyarticular JIA group (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	31.3	-	-	-	-	-	-	-
Fjeld <sup>33</sup>	JIA group at the age of 6 (with and without TMD pooled)	32.9	32.4	7.9	7.3	25	25.2	91.3	91	56.5	57.4	162	159
	JIA group at the age of 9 (with and without TMD pooled)	33.9	31.8	8.4	7.8	25.5	24	97.3	97	<b>59.4</b>	61.5	<b>165</b>	158
	JIA group at the age of 12 (with and without TMD pooled)	<b>35.4</b>	28.7	<b>8.8</b>	7.3	<b>26.6</b>	21.4	104.2	102.8	<b>63.2</b>	68	<b>166</b>	152
	JIA group at the age of 35 (with and without TMD pooled)	<b>33.8</b>	27.7	<b>9.2</b>	7.7	<b>24.7</b>	19.9	114.6	113.5	<b>71.4</b>	77.5	<b>162</b>	147
Hu <sup>27</sup>	JIA group (with and without TMD pooled) vs orthodontic controls	<b>36.7</b>	34	-	-	-	-	<b>113.7</b>	117	73	70.5	-	-
	JIA group (with and without TMD pooled) vs Class II/1 control group	36	33	-	-	-	-	114.5	118	-	-	-	-
Twilt <sup>34</sup>	degree of the retrognathia and posterior rotation of the mandible at first examination and after 5y. follow-up (with and without TMD pooled)	<b>39.5</b> <b>41.1</b>	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Billiau <sup>11</sup>	JIA group with radiological condylar damage	<b>40</b>	31	-	-	-	-	<b>109</b>	101	-	-	-	-
	JIA group without radiological condylar damage	35	31	-	-	-	-	115	107	-	-	-	-
Twilt <sup>22</sup>	ANB was 1,8° greater in patients with TMD than in patient without TMD; with TMD more posterior rotation	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Sidiropoulou-Chatzigianni <sup>25</sup>	oligoarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	33.8	-	8.24	-	25.6	-	-	-	-	-	-	-
	polyarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	35.9	34.2	7.76	7.72	28.3	26.5	-	-	-	-	-	-
	JIA patients without TMD	33.5	-	8.2	-	25.2	-	-	-	-	-	-	-
	JIA patients with TMD	36.4	-	7.6	-	29	-	-	-	-	-	-	-
Hu <sup>16</sup>	45,9% of JIA patient had vertically and sagittally smaller mandibles than control gr. (with and without TMD pooled)	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Kjellberg <sup>23</sup>	JIA children with Angle class I occlusion (with and without TMD pooled)	33.2	-	5.8	-	26.9	-	104.7	-	66.5	-	158.4	-
	JIA children with Angle class II occlusion (with and without TMD pooled)	<b>43.5</b>	30.3	7	6.8	<b>36.5</b>	23.5	102.2	105.6	<b>56</b>	70.3	<b>184.1</b>	150,9
	healthy children with Angle class II occlusion	33.5	-	7	-	26.5	-	102.7	-	63.8	-	161.6	-
Ronchezel <sup>9</sup>	oligoarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	28.1	30.7	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	polyarticular JIA patients (with and without TMD pooled)	<b>32.6</b>	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA patients with severe TMJ lesions	<b>37.3</b>	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
	JIA patients without TMJ lesions	27.9	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
Larheim <sup>32</sup>	all JIA patients with "bird face" and TMJ damage	<b>51</b>	32	8	7	-	-	-	-	-	-	-	-
Barriga <sup>31</sup>	JIA patients with and without TMD pooled	<b>36.5</b>	33	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-



children as compared to the control, explaining the increase by forward compensatory growth of the jaw and the need for a greater functional space for the growing tongue.<sup>27</sup> However, it has to be emphasized that the SNA angle in the historical control group in the above mentioned study was only 78.5°, ranging from 81 to 83° in the remaining studies.

Craniofacial morphology in the course of JIA is characterized by a retrognathic position of the mandible irrespective of TMJ involvement. The mandibular retrognathia was observed in 82 and 55% of patients with and without TMJ inflammation, respectively. The occurrence of retrognathia when the TMJ is asymptomatic can be explained by lack of visible changes in the panoramic radiograph confirming the diagnosis. The length of the body and the branch of the mandible is markedly reduced, and its position is more retruded in the polyarticular type of the disease as compared to the oligoarticular one.<sup>22,23,25,32,33,35</sup> In the articles studied, the SNB angle in JIA was within the range of 69-79.4°. <sup>11,23,25,27,29,32,33,35</sup> Lower values of the SNB angle were noted when TMJ inflammation was present (69-78°). <sup>11,25,29</sup> The smallest angle indicating the anteroposterior position of the mandible was noted in cases of severe bilateral TMJ inflammation, causing micrognathia and the so-called "bird face" profile.<sup>32</sup> Micrognathia of the mandible was observed in 42% of cases with bilateral TMJ inflammation in 27% of JIA patients.<sup>29</sup> The convex profile was noted in 100% of patients with severe bilateral changes in the TMJ.<sup>9</sup> No reduction was observed in the SNB angle in patients without TMJ lesions.<sup>11</sup> In one publication, an increased SNB angle (78.5°) was noted in the course of JIA as compared to healthy children with Angle Class II/1 (74°).<sup>27</sup> In turn, in the study by *Kjellberg* et al. the SNB angle did not differ markedly between the groups mentioned above. Healthy children with distal occlusion also showed retrognathia and smaller size of the mandible, but vertical relations of the jaws were normal.<sup>23</sup>

Clinical studies have demonstrated that the craniofacial structures in the course of JIA show growth towards skeletal Class II, which

Wytluszczonej drukami oznaczono wyniki istotnie statystycznie (Tab. 3 i 4).

### **Sagittalne relacje podstaw szczęk**

Stwierdzono brak istotnych statystycznie różnic w wartości kąta SNA pomiędzy pacjentami a zdrowymi dziećmi z grupy kontrolnej, bez względu na obecność zapalenia w SSŻ. Wartość kąta SNA w przeanalizowanym piśmiennictwie wyniosła od 79,9 do 83°. <sup>11,23,25,29,31-33,35</sup> Z kolei *Hu* i wsp. donoszą o zwiększonej wartości kąta określającego stopień prognacji szczęki w stosunku do podstawy czaszki (SNA=83°) u dzieci chorych w porównaniu z grupą kontrolną, uzasadniając to kompensacyjnym doprzednim jej wzrostem oraz potrzebą większej przestrzeni funkcjonalnej dla rosnącego języka.<sup>27</sup> Trzeba jednak podkreślić, że wartość kąta SNA w historycznej grupie kontrolnej w omawianym badaniu wyniosła zaledwie 78,5°, natomiast w pozostałych pracach badawczych od 81 do 83°.

Morfologia twarzowej części czaszki w przebiegu JIA charakteryzuje się retrognatyczną pozycją żuchwy niezależnie od zajęcia SSŻ. Retrognacja żuchwy wystąpiła kolejno u 82 i 55% chorych z i bez zapalenia SSŻ. Występowanie retrognacji w przypadku nieobecności objawów ze strony SSŻ można wytłumaczyć brakiem widocznych zmian na zdjęciu pantomograficznym potwierdzającym chorobę. Długość trzonu i gałęzi żuchwy jest znacznie zmniejszona, a jej pozycja bardziej dotylna w typie wielostawowego choroby w porównaniu do nielicznostawowego.<sup>22,23,25,32,33,35</sup> W rozpatrywanych pracach wartość kąta SNB w przebiegu JIA wyniosła od 69 do 79,4°. <sup>11,23,25,27,29,32,33,35</sup> Niższe wartości kąta SNB występują w przypadku obecności zapalenia SSŻ i wynoszą od 69 do 78°. <sup>11,25,29</sup> Najniższa wartość kąta wskazującego przednio-tylne położenie żuchwy została zauważona w przypadkach ciężkiego, obustronnego zapalenia SSŻ, będącego przyczyną mikrognacji i profilu „bird face” (tzw. ptasi profil).<sup>32</sup> Mikrognacja żuchwy obserwowana jest w 42% przypadków z obustronnym zapaleniem SSŻ u 27% pacjentów JIA.<sup>29</sup> Profil wypukły został odnotowany u 100% pacjentów z ciężkimi obustronnymi zmianami w SSŻ.<sup>9</sup> Nie obserwuje

is manifested by an increased ANB angle (4.1-11°).<sup>11,16,22,23,25,29,31,32,35</sup> It should be emphasized that the value of the angle defining the sagittal relationship between the bone bases was the highest in the study where bilateral TMJ inflammation in the polyarticular JIA was the inclusion criterion.<sup>32</sup> Class II skeletal defect was diagnosed in 56% and 67% of adults with a past history of JIA, whereas distal jaw-base relationship was found in 26% in the control group.<sup>22,33</sup> In turn, in a study by *Hu* et al.,<sup>16</sup> 45.9% of JIA patients had mandibular growth deficiency in the sagittal and vertical direction. According to *Billiau* et al.,<sup>11</sup> there is a relationship between TMJ inflammation and craniofacial growth. Similar growth patterns were found in patients with normal TMJ and in healthy controls. The value of the ANB angle in this group was also normal (2.8 and 3.4°).<sup>25,29</sup> Surprisingly, one of the papers presented the ANB angle of 5° in the group without radiologically detected TMJ lesions (control group ANB=3.2°), but this was not a statistically significant result.<sup>11</sup> The ANB angle in patients with TMJ inflammation ranged between 4.5 and 11° (control ANB=2.6-3.7°).<sup>11,25,29,32</sup> *Arvidsson* et al.<sup>29</sup> observed features of TMJ inflammation in 50% of patients with the optimal face growth. As the researchers suggested this is age-dependent. Patients with TMJ involvement before the age of 8 had pathological facial growth, whereas TMJ inflammation after the age of 12 did not cause any lesions in the structure of the facial skeleton.<sup>38</sup> This hypothesis, however, has been challenged by a researcher who described TMJ inflammation occurring before the age of 8 but did not cause any facial growth defects.<sup>29</sup>

On the contrary, *Hu* et al.<sup>27</sup> did not observe any statistically significant differences in the angle defining the maxilla-mandible relationship between JIA (ANB=4.2°) and healthy children (ANB=3°).

### Vertical jaw-base relationships

The increased inclination angle of the mandible in relation to the anterior fossa of the cranium is the most common feature of the facial skeleton in the course of JIA.<sup>9,11,22,23,27,29,31-34,36</sup> Backward growth rotation of the mandible is particularly

się zmniejszenia wartości kąta SNB u pacjentów bez zapalnych zmian w SSŻ.<sup>11</sup> W jednej publikacji zauważono zwiększony kąt SNB w przebiegu JIA, wynoszący 78,5° w porównaniu do grupy składającej się z dzieci zdrowych z wadą zgryzu klasy II/1 wg Angle'a, gdzie kąt ten wyniósł 74°.<sup>27</sup> Z kolei w badaniach *Kjellberg* i wsp. kąt SNB nie różnił się znacznie między wyżej wymienionymi grupami. Dzieci zdrowe z okluzją dystalną również wykazywały retrognację oraz mniejsze wymiary żuchwy, ale pionowe relacje szczęk pozostawały w normie.<sup>23</sup>

Przeprowadzone badania kliniczne dowodzą, że struktury twarzowej części czaszki w przebiegu JIA charakteryzuje wzrost w kierunku II klasy szkieletowej, czego potwierdzeniem jest zwiększony kąt ANB, którego zakres wyniósł od 4,1 do 11°.<sup>11,16,22,23,25,29,31,32,35</sup> Należy zaznaczyć, że najwyższa wartość kąta określającego strzałkową relację podstaw kostnych została odnotowana w pracy, której kryterium włączenia pacjentów było obustronne zapalenie SSŻ w typie wielostawowym JIA.<sup>32</sup> Wada szkieletowa klasy II została zdiagnozowana u 56% oraz 67% osób dorosłych, które przebyły JIA, natomiast w grupie kontrolnej zaobserwowany odsetek osób z dystalną relacją podstaw szczęk wyniósł 26%.<sup>22,33</sup> Z kolei w badaniu *Hu* i wsp.<sup>16</sup> 45,9% pacjentów w przebiegu choroby miało niedobór wzrostu żuchwy w kierunku strzałkowym i pionowym. Zdaniem *Billiau* i wsp.<sup>11</sup> istnieje związek pomiędzy zapaleniem SSŻ a zaburzeniami we wzroście twarzowej części czaszki. Chorzy z prawidłowymi SSŻ charakteryzowali się podobnym wzorcem wzrostu do zdrowych dzieci z grupy kontrolnej. Również wartość kąta ANB w tej grupie nie odbiegała od normy i wyniosła 2,8 oraz 3,4°.<sup>25,29</sup> Nieoczekiwanie w jednej z prac zauważono kąt ANB równy 5° w grupie bez radiologicznie wykrytych zmian w SSŻ (w grupie kontrolnej ANB=3,2°), ale nie był to wynik istotny statystycznie.<sup>11</sup> Wartość kąta ANB u osób z zapaleniem SSŻ wyniosła od 4,5 do 11° (w grupie kontrolnej ANB=2,6-3,7°).<sup>11,25,29,32</sup> *Arvidsson* i wsp.<sup>29</sup> zaobserwowali cechy zapalenia SSŻ u 50% chorych z optymalnym wzrostem twarzy. Według badaczy związane jest to z wiekiem, w którym doszło do zapalenia SSŻ. U pacjentów

pronounced among patients with pro-inflammatory TMJ destruction, and the ML/NSL angle ranging between 35.7 to 51°. <sup>9,11,29,32,36</sup> Manifestations of the unfavourable vertical pattern of growth appear as patients age, <sup>33,36</sup> and can lead to the formation of skeletal open bite. <sup>24,27</sup> Patients with healthy TMJ in childhood and adulthood do not show backward rotation of the mandible, but forward rotation. <sup>9,11,22,25,29,36</sup> In turn, *Kjellberg* et al. report on the presence of the steep mandibular base plane (increased ML/NSL and ML/NL angles) even among patients without visible TMJ lesions in the panoramic radiograph. These abnormalities can be caused by TMJ inflammation and fibrosis, which limit the mandibular function and downward/backward rotation, and are undetected in the X-ray picture. <sup>24</sup>

Some literature reports describe cases in which due to early diagnosis and treatment TMJ improvement leads to a favourable change in growth rotation of the mandible. <sup>34,36</sup>

Four authors assessed the degree of maxillary inclination to the cranial base, which in JIA children ranged between 5.8 to 9.2° and in the control group from 6.8 to 7.8°. <sup>23,25,32,33</sup> *Fjeld* et al. <sup>33</sup> noted a statistically significant increase in the NL/NSL angle in the 12-year-old group (8.8°) and in adults (9.2°). In other reports the angle was within normal limits.

JIA patients showed an increased angle of the jaw bases, indicating the vertical direction of growth of the facial skeleton, increasing with age. <sup>33</sup> The highest value of the ML/NL angle (36.5°) was noted in patients with distal occlusion. However, *Kjellberg* et al. <sup>23</sup> did not observe any significant differences in the angles of the jaw bases between children with neutral occlusion and healthy children with distal occlusion or Angle Class I (the ML/NL angles were 26.9° vs 26.5° vs 23.5°, respectively). *Sidiropoulou-Chatzigianni* et al. <sup>25</sup> did not find any statistically significant discrepancy in the angles of the jaw bases between patients and healthy controls.

Another parameter confirming the presence of changes in the structures of the facial skeleton in the course of JIA is the reduction in the posterior facial height (PFH). The PFH was reduced even to

z patologicznym wzrostem twarzy do zajęcia SSŻ doszło przed 8 rokiem życia, natomiast zapalenie występujące po 12 urodzinach nie spowodowało zmian w budowie twarzowej części czaszki. <sup>38</sup> Hipoteza ta została jednak podważona przez badacza, który odnotował zapalenie SSŻ nie powodujące zaburzeń wzrostu twarzy, do którego doszło przed 8 rokiem życia. <sup>29</sup>

Odmienne informacje podają *Hu* i wsp. <sup>27</sup> w pracy badawczej z roku 2009, którzy nie zaobserwowali istotnej statystycznie różnicy w wartości kąta określającego wzajemne położenie szczęki i żuchwy pomiędzy dziećmi z JIA (ANB=4,2°) a dziećmi zdrowymi (ANB=3°).

### **Pionowe relacje podstaw szczęk**

Zwiększony kąt inklinacji żuchwy w stosunku do przedniego dołu czaszki jest najbardziej rozpowszechnioną cechą twarzowej części czaszki w przebiegu JIA. <sup>9,11,22,23,27,29,31-34,36</sup> Dotylna rotacja wzrostowa żuchwy szczególnie mocno zaznaczona jest wśród pacjentów z pozapalną destrukcją SSŻ, u których kąt ML/NSL wynosi od 35,7 do 51°. <sup>9,11,29,32,36</sup> Zauważono, że niekorzystny pionowy wzorzec wzrostu silniej manifestuje się wraz z wiekiem pacjentów <sup>33,36</sup> i może doprowadzić do powstania zgryzu otwartego szkieletowego. <sup>24,27</sup> Posteriorotacja żuchwy nie została odnotowana u pacjentów ze zdrowym SSŻ w dzieciństwie jak i dorosłości, natomiast występował u nich doprzedni kierunek wzrostu. <sup>9,11,22,25,29,36</sup> Z kolei badania *Kjellberg* i wsp. donoszą o obecności stromej płaszczyzny podstawy trzonu żuchwy (wzroście kąta ML/NSL i ML/NL) nawet wśród chorych bez widocznych na zdjęciu pantomograficznym zmian w SSŻ. Nieprawidłowości te mogą być spowodowane niewidocznymi na zdjęciu rentgenowskim objawami zapalenia i zwłóknienia w SSŻ, które są przyczyną ograniczenia funkcji i rotacji żuchwy do dołu i tyłu. <sup>24</sup>

W piśmiennictwie opisywane są przypadki, w których wraz z poprawą kondycji SSŻ w wyniku wczesnego zdiagnozowania i leczenia choroby, doszło do korzystnej zmiany w rotacji wzrostowej żuchwy. <sup>34,36</sup>

Czterech autorów oceniło stopień inklinacji szczęki do podstawy czaszki, który wśród dzie-



56 mm in patients with distal occlusion according to Angle, as compared to the control group (70.3 mm).<sup>23,29,33</sup> Again, no changes in the parameter were observed when TMJ inflammation was not present. However, in cases of bilateral TMJ inflammation the PFH was reduced even by 10.3 mm as compared to the control.<sup>29</sup> Fjeld et al.<sup>33</sup> noticed that the difference in the PFH between JIA and healthy children increased with age. At the age of 9 years, the disproportion was 2.1 mm, at the age of 12 – 4.8 mm, whereas after growth termination – 6.1 mm. Different results were reported by researchers who found no difference in the PFH value between the assessed populations.<sup>27</sup> Reports on the total anterior facial height (TAFH) are equivocal. Billiau et al.<sup>11</sup> showed that TAFH was elevated in the group of patients with TMJ inflammation as compared to the control, but not statistically different in the group without TMJ inflammation. However, Kjellberg, Arvidsson et al.<sup>23,29</sup> did not observe any difference in TAFH between patients and healthy children, and Hu et al.<sup>27</sup> described TAFH reduction in JIA children as compared to the control group.

The anterior to posterior face height ratio in the course of JIA is increased, which confirms the vertical direction of growth. The highest percentage value of the marker was noted in children with bilateral TMJ inflammation (167.3%) and with Angle Class II (184.1%). Neutral direction of growth was observed among patients without TMJ inflammation and with Angle Class I occlusion.<sup>23,29,33</sup>

### Dental relationships

In literature, the dento-alveolar relationships in the JIA course have been assessed for the U1/NS or NL/ML and U1/L1 angles. The inclination angle of the upper incisors was found to range from 91.8 to 110.5°, and did not differ from the control.<sup>23,25</sup> A decrease in this angle in relation to the anterior cranial fossa as compared to control measurements was observed in a group of 35-year-old subjects with the disease of 29 years' duration on average (98.2° vs 100.7°).<sup>33</sup> The lower incisors were more proclined in relation to the mandibular base. The inclination of the lower incisor in relation

ci z JIA wahał się w granicach od 5,8 do 9,2°, a w grupie kontrolnej od 6,8 do 7,8°.<sup>23,25,32,33</sup> Fjeld i wsp.<sup>33</sup> zauważyli istotne statystycznie zwiększenie kąta NL/NSL wśród osób chorych, który w grupie 12-latków wyniósł 8,8°, a wśród dorosłych 9,2°, w pozostałych pracach jego wartość utrzymywała się w granicach normy.

U chorych na JIA zaobserwowano zwiększony kąt podstaw szczęk, wskazujący na pionowy kierunek wzrostu twarzowej części czaszki, nasilający się wraz z wiekiem.<sup>33</sup> Najwyższa wartość kąta ML/NL, równa 36,5° została odnotowana u chorych z okluzją dystalną. Kjellberg i wsp.<sup>23</sup> nie stwierdzili natomiast istotnych różnic w wartościach kąta podstaw szczęk pomiędzy dziećmi chorymi z okluzją neutralną a dziećmi zdrowymi z okluzją dystalną oraz I klasą wg Angle'a (kąt ML/NL wynosił w tych grupach odpowiednio: 26,9° vs 26,5° vs 23,5°). Sidiropoulou-Chatzigianni i wsp.<sup>25</sup> nie zarejestrowali istotnej statystycznie rozbieżności w wartości kąta podstaw szczęk między pacjentami a grupą kontrolną.

Kolejnym parametrem potwierdzającym zmiany w strukturach kości twarzowej części czaszki w przebiegu JIA jest zmniejszenie tylnej wysokości twarzy. Wymiar PFH (*ang. posterior facial high, PFH*) był zredukowany nawet do 56 mm u pacjentów z okluzją dystalną wg Angle'a, natomiast w grupie kontrolnej wynosił 70,3 mm.<sup>23,29,33</sup> Ponownie, w przypadku braku zapalenia SSŻ nie obserwowano zmian w wartości wspomnianego pomiaru, natomiast w przypadku obustronnego zapalenia SSŻ, tylna wysokość twarzy była zmniejszona nawet o 10,3 mm w porównaniu do grupy kontrolnej.<sup>29</sup> Fjeld i wsp.<sup>33</sup> zauważyli, że różnica w długości tylnej wysokości twarzy pomiędzy dziećmi chorymi a zdrowymi zwiększa się wraz z wiekiem. W wieku 9 lat dysproporcja wynosiła 2,1 mm, po 3 latach 4,8 mm, natomiast po zakończeniu wzrostu 6,1 mm. Odmienne wyniki opisał badacz, który nie odnotował różnicy w wartości PFH między ocenianymi populacjami.<sup>27</sup> Doniesienia o długości całkowitej przedniej wysokości twarzy (*ang. total anterior facial high, TAFH*) również są niejednoznaczne. Z pracy Billiau i wsp.<sup>11</sup> wynika, że wymiar TAFH jest w grupie chorych z zapaleniem SSŻ zwiększo-





to the mandibular plane (ML) was found to be  $98.3^\circ$ .<sup>25,33</sup> However, *Kjellberg* et al.<sup>23</sup> did not find any difference in the inclination angle of the lower incisors between the study groups.<sup>23</sup> Most authors are consistent in their opinions of the inter incisal angle which was reduced in JIA patients.<sup>23,27,33</sup> The inter incisal angle was normal in a sample of patients without inflammatory changes in the TMJ and with normal occlusion.<sup>11,23,25</sup>

## Summary

The craniofacial morphology in JIA is highly differentiated. The lack of inflammatory symptoms in the TMJ can determine normal development and growth of the facial skeleton. Chronic inflammation impairs the growth of the structures of the facial skeleton, leading to mandibular hypoplasia, which is reflected in reduced SNB and ANB angles. It also increases the divergence of the jaw bases, with the predominance of the vertical growth, dento-alveolar anomalies and the so-called “bird face” profile.

Further long-term studies are needed to compare the growth of the facial skeleton in patients with and without TMJ involvement in the respective types of the disease.

ny w relacji do grupy kontrolnej natomiast nie różni się statystycznie w grupie bez zapalenia SSŻ. Nieco inne dane podają *Kjellberg*, *Arvidsson* i wsp.,<sup>23,29</sup> którzy nie dostrzegli różnicy odnośnie TAFH wśród dzieci chorych i zdrowych, a *Hu* i wsp.<sup>27</sup> podali zmniejszenie całkowitej przedniej wysokości twarzy u dzieci z JIA w porównaniu do grupy kontrolnej.

Stosunek przedniej i tylnej wysokości twarzy w przebiegu JIA jest zwiększony, co potwierdza wertykalny kierunek wzrostu. Największa wartość procentowa wskaźnika została zaobserwowana wśród dzieci z obustronnym zapaleniem SSŻ i wyniosła 167,3% oraz z II klasą wg Angle’a – 184,1%. Neutralny kierunek wzrostu zauważono wśród chorych bez zapalenia SSŻ oraz okluzją w I klasie wg Angle’a.<sup>23,29,33</sup>

## Relacje zębowe

W piśmiennictwie relacje zębowe w przebiegu JIA zostały ocenione na podstawie kątów U1/NS lub NL, L1/ML oraz U1/L1. Kąt inklinacji zębów siecznych górnych w stosunku do podstawy szczęki w analizowanym piśmiennictwie wahał się od  $91,8^\circ$  do  $110,5^\circ$  i nie odbiegał od pomiarów wykonanych w grupach kontrolnych.<sup>23,25</sup> Zmniejszenie kąta nachylenia zębów siecznych górnych w stosunku do przedniego dołu czaszki w porównaniu do pomiarów w grupie kontrolnej zaobserwowano w grupie 35-latków ze średnio 29-letnim czasem trwania choroby ( $98,2^\circ$  vs  $100,7^\circ$ ).<sup>33</sup> Odnotowano zwiększoną proklinację zębów siecznych dolnych w stosunku do podstawy trzonu żuchwy. Największa wartość nachylenia dolnego zęba siecznego względem podstawy żuchwy (ML) wyniosła  $98,3^\circ$ ,<sup>25,33</sup> natomiast sprzeczne wyniki podają *Kjellberg* i wsp.<sup>23</sup>, którzy nie zauważyli różnicy między kątem inklinacji zębów siecznych dolnych w badanych grupach.<sup>23</sup> Większość autorów jest zgodnych odnośnie wartości kąta międzysiecznego, który charakteryzował się zmniejszoną wartością w grupach osób z JIA.<sup>23,27,33</sup> Podkreślono, że kąt międzysieczny miał prawidłową wartość w próbie składającej się z osób chorych bez zapalnych zmian w SSŻ oraz z okluzją normalną.<sup>11,23,25</sup>



## Podsumowanie

Morfologia struktur twarzowej części czaszki w przebiegu JIA jest wysoce zróżnicowana, a brak objawów zapalnych w SSŻ może warunkować również prawidłowy rozwój i wzrost twarzowej części czaszki. Przewlekły proces zapalny wpływa na zakłócenie wzrostu struktur twarzowej części czaszki, prowadząc do niedorozwoju żuchwy mającego swoje odzwierciedlenie w zmniejszonych wartościach kąta SNB i ANB. Jest również czynnikiem powodującym zwiększenie dywergencji podstaw szczęk z przewagą pionowego kierunku wzrostu, anomalie zębowo-wyrostkowe oraz tzw. „ptasi profil” twarzy.

Istnieje dalsza potrzeba prowadzenia kolejnych, długoterminowych badań skupiających się na porównaniu wzrostu twarzowej części czaszki pacjentów bez i z objęciem zapaleniem SSŻ w poszczególnych typach choroby.

## References

1. *Still GF*: On a form of chronic joint disease in children. *Med Chir Trans* 1897; 80: 47-59 reprinted in *Arch Dis Child* 1941; 16: 156-165.
2. *Petty RE, Southwood TR, Manners P, Baum J, Glass DN, Goldenberg J*, et al.: International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision, Edmonton, 2001. *J Rheumatol* 2004; 31: 390-392.
3. *Hauser RA, Schroeder S, Cannizzaro E, Muller L, Kellenberger CJ, Saurenmann RK*: How important is early magnetic resonance imaging of the temporomandibular joint for the treatment of children with juvenile idiopathic arthritis: a retrospective analysis. *Pediatr Rheumatol* 2014; 12: 36.
4. *Cedströmer AL, Ahlqwist M, Andlin-Sobocki A, Berntson L, Hedenberg-Magnusson B, Dahlström L*: Temporomandibular condylar alterations in juvenile idiopathic arthritis most common in longitudinally severe disease despite medical treatment. *Pediatr Rheumatol* 2014; 12: 43.
5. *Müller L, Kellenberger CJ, Cannizzaro E, Ettl D, Schraner T, Bolt IB*, et al.: Early diagnosis of temporomandibular joint involvement in juvenile idiopathic arthritis: a pilot study comparing clinical examination and ultrasound to magnetic resonance imaging. *Rheumatol* 2009; 48: 680-685.
6. *Mohammed Y, Saeed O, Zaghloul N, Samer S, Mahmud S, Abdulah A*: Juvenile idiopathic arthritis and the temporomandibular joint. *Alex J Med* 2012; 48: 123-129.
7. *Twilt M, Mobers SM, Arends LR, Cate R, van Suijlekom-Smit L*: Temporomandibular involvement in juvenile idiopathic arthritis. *J Rheumatol* 2004; 31: 1418-1422.
8. *Sidiropoulou-Chatzigianni S, Papadopoulos MA, Kolokithas G*: Mandibular condyle lesions in children with juvenile idiopathic arthritis. *Cleft Palate Craniofac J* 2008; 45: 57-62.
9. *Ronchezel MV, Hilário MO, Goldenberg J, Lederman HM, Faltin K, Azevedo MF*, et al.: Temporomandibular joint and mandibular growth alterations in patients with juvenile rheumatoid arthritis. *J Rheumatol* 1995; 22: 1956-1961.
10. *Rönning O, Väliäho ML, Laaksonen AL*: The involvement of the temporomandibular joint in juvenile rheumatoid arthritis. *Scand J Rheumatol* 1974; 3: 89-96.
11. *Billiau AD, Hu Y, Verdonck A, Carels C, Wouters C*: Temporomandibular joint arthritis in juvenile



- idiopathic arthritis: prevalence, clinical and radiological signs, and relation to dentofacial morphology. *J Rheumatol* 2007; 34: 1925-1933.
12. *Küseler A, Pedersen TK, Herlin T, Gelineck J*: Contrast enhanced magnetic resonance imaging as a method to diagnose early inflammatory changes in the temporomandibular joint in children with juvenile chronic arthritis. *J Rheumatol* 1998; 25: 1406-1412.
  13. *Mayne JG, Hatch GS*: Arthritis of the temporomandibular joint. *J Am Dent Assoc* 1969; 79: 125-130.
  14. *Zygmunt A, Biernacka-Zielińska M, Brózik H*: Choroby reumatyczne w populacji dzieci i młodzieży z regionu łódzkiego. *Pediatr Pol* 2005; 80: 995-1001.
  15. *Wolny-Niedzielska A*: Choroby układu ruchu u dzieci kierowanych do Poradni Reumatologicznej w Kielcach w latach 1999-2003. *Reumatologia* 2005; 43: 265-273.
  16. *Hu YS, Schneiderman ED, Harper RP*: The temporomandibular joint in juvenile rheumatoid arthritis: part II. Relationship between computed tomographic and clinical findings. *Pediatr Dent* 1996; 18: 312-319.
  17. *Svensson B, Adell R, Kopp S*: Temporomandibular disorders in juvenile chronic arthritis patients. A clinical study. *Swed Dent J* 2000; 24: 83-92.
  18. *Larheim TA*: Role of magnetic resonance imaging in the clinical diagnosis of the temporomandibular joint. *Cells Tissues Organs* 2005; 180: 6-21
  19. *Küseler A, Pedersen TK, Gelineck J, Herlin T*: A 2-year follow up study of enhanced magnetic resonance imaging and clinical examination of the temporomandibular joint in children with juvenile idiopathic arthritis. *J Rheumatol* 2005; 32: 162-169.
  20. *Peltomäki T, Kreiborg S, Pedersen TK, Øgaard B*: Craniofacial growth and dento-alveolar development in juvenile idiopathic arthritis patients. *Semin Orthod* 2015 (article in press).
  21. *Svensson B, Larsson A, Adell R*: The mandibular condyle in juvenile chronic arthritis patients with mandibular hypoplasia: a clinical and histological study. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2001; 30: 300-305.
  22. *Twilt M, Schulten AJM, Nicolaas P, Dülger A, van Suijlekom-Smit LWA*: Facioskeletal changes in children with juvenile idiopathic arthritis. *Ann Rheum Dis* 2006; 65: 823-825.
  23. *Kjellberg H, Kiliaridis S, Thilander B*: Dentofacial growth in orthodontically treated and untreated children with juvenile chronic arthritis (JCA). A comparison with Angle Class II division 1 subjects. *Eur J Orthod* 1995; 17: 357-373.
  24. *Kjellberg H, Fasth A, Kiliaridis S, Wenneberg B, Thilander B*: Craniofacial structure in children with juvenile chronic arthritis (JCA) compared with healthy children with ideal or post normal occlusion. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1995; 107: 67-78.
  25. *Sidiropoulou-Chatzigianni S, Papadopoulos MA, Kolokithas G*: Dentoskeletal morphology in children with juvenile idiopathic arthritis compared with healthy children. *J Orthod* 2001; 28: 53-58.
  26. *Fjeld MG, Birkeland K, Arvidsson LZ, Larheim TA, Øgaard B*: Dento-alveolar changes and need of treatment in JIA patients followed from childhood to adulthood. *Dentistry* 2014; S2:003. doi:10.4172/2161-1122.S2-003.
  27. *Hu Y, Billiau AD, Verdonck A, Wouters C, Carels C*: Variation in dentofacial morphology and occlusion in juvenile idiopathic arthritis subjects: a case-control study. *Eur J Orthod* 2009; 31: 51-58.
  28. *Cannizzaro E, Schroeder S, Müller LM, Kellenberg CJ, Saurenmann RK*: Temporomandibular joint involvement in children with juvenile idiopathic arthritis. *J Rheumatol* 2011; 38: 510-515.
  29. *Arvidsson LZ, Fjeld MG, Smith HJ, Flatø B, Øgaard B, Larheim TA*: Craniofacial growth disturbance is related to temporomandibular joint abnormality in patients with juvenile idiopathic arthritis, but normal facial profile was also found at the 27-year follow-up. *Scand J Rheumatol* 2010; 39: 373-379.
  30. *Arvidsson LZ, Flatø B, Larheim TA*: Radiographic TMJ abnormalities in patients with juvenile idiopathic arthritis followed for 27 years. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009; 108: 114-123.
  31. *Barriga B, Lewis TM, Law DB*: An investigation of the dental occlusion in children with juvenile rheumatoid arthritis. *Angle Orthod* 1974; 44: 329-35.
  32. *Larheim TA, Haanaes HR, Dale K*: Radiographic temporomandibular joint abnormality in adults with micrognathia and juvenile rheumatoid arthritis. *Acta Radiol Diagn* 1981; 22: 495-504.
  33. *Fjeld MG, Arvidsson LZ, Stabrun AE, Birkelana K, Larheim TA, Øgaard B*: Average craniofacial development from 6 to 35 years of age in a mixed group of patients with juvenile idiopathic arthritis. *Acta Odontol Scand* 2009; 67: 153-160.
  34. *Twilt M, Schulten AJM, Prahl-Andersen B, van*

- Suijlekom-Smitd LWA*: Long-term follow-up of craniofacial alterations in juvenile idiopathic arthritis. *Angle Orthod* 2009; 79: 1057-1062.
35. *Mandall NA, Gray R, O'Brien KD, Baildam E, Mcfarlane TV, Davidson J*: Juvenile idiopathic arthritis (JIA): a screening study to measure class II skeletal pattern, TMJ PDS and use of systemic corticosteroids. *J Orthod* 2010; 37: 6-15.
36. *Fjeld MG, Arvidsson LZ, Smith H-J, Flatø B, Øgaard B, Larheim TA*: Relationship between disease course in the temporomandibular joints and mandibular growth rotation in patients with juvenile idiopathic arthritis followed from childhood to adulthood. *Pediatr Rheumatol* 2010; 8: 13.
37. *Savioli C, Silva CA, Ching LH, Campos L, Prado E, Siqueira JT*: Dental and facial characteristics of patient with juvenile idiopathic arthritis. *Rev Hosp Clin Fac Med S Paulo* 2004; 59: 93-98
38. *Pearson MH, Rønning O*: Lesions of the mandibular condyle in juvenile chronic arthritis. *Br J Orthod* 1996; 23: 49-56.

Address: 15-269 Białystok, ul. Waszyngtona 15A  
Tel.: +4885 7450964, Fax: +4885 7450963  
e-mail: orthod@umb.edu.pl

Received: 9<sup>th</sup> September 2015

Accepted: 21<sup>st</sup> September 2015