

Alexander Rahman*, Knut Adam*, Nicole Winkler, Nelly Schulz-Weidner, Ingmar Staufenbiel

Karieserfahrung bei Kindern mit Marfan-Syndrom – eine nicht-interventionelle Fall-Kontroll-Studie**

Warum Sie diesen Beitrag lesen sollten

Die Evidenz zur Karieserfahrung bei Kindern und Jugendlichen mit Marfan-Syndrom ist begrenzt. Die vorliegende, nicht-interventionelle Fall-Kontroll-Studie liefert neue Erkenntnisse zu diesem Thema.

Einführung: Das Marfan-Syndrom ist eine seltene Bindegewebserkrankung mit autosomal-dominantem Erbgang. Ziel der vorliegenden Studie war es, die Karieserfahrung bei Kindern und Jugendlichen mit Marfan-Syndrom zu untersuchen.

Material und Methode: Es wurden 31 Kinder mit Marfan-Syndrom (Marfan-Gruppe; Durchschnittsalter: $8,77 \pm 3,72$ Jahre) und 31 internistisch gesunde Kinder (Kontrollgruppe; Durchschnittsalter: $9,77 \pm 3,72$ Jahre) gemäß WHO-Kriterien zahnärztlich untersucht. Zu den aufgenommenen Parametern gehörten der dmft/DMFT (differenziert in dt/DT, mt/MT, ft/FT), der dmfs/DMFS (differenziert in ds/DS, ms/MS, fs/FS), der Kariessanierungsgrad (KSG) und der Hygieneindex (HI). Die statistische Auswertung erfolgte mittels t-Tests für unabhängige Stichproben und Chi-Quadrat-Tests ($p \leq 0,05$) unter Verwendung des Statistikprogramms IBM SPSS Statistics 26.

Ergebnisse: Die Kinder der Marfan-Gruppe hatten einen signifikant kleineren dmft ($p = 0,040$) und ft ($p = 0,040$) als Kinder der Kontrollgruppe. Bei Betrachtung der bleibenden Dentition gab es keine signifikanten Unterschiede zwischen beiden Gruppen. In der Marfan-Gruppe lag jedoch tendenziell ein geringerer DMFT ($p = 0,064$), DT ($p = 0,076$) und FT ($p = 0,059$) vor als in der Kontrollgruppe. Der HI war in der Kontrollgruppe signifikant besser als in der Marfan-Gruppe ($p < 0,001$).

Schlussfolgerung: In der vorliegenden Studie zeigten Kinder und Jugendliche mit Marfan-Syndrom im Vergleich zu einer internistisch gesunden Kontrollklientel keine größere Karieserfahrung.

Schlüsselwörter: dmft/DMFT; dmfs/DMFS; Jugendliche; Karieserfahrung; Kinder; Marfan-Syndrom

Klinik für Zahnerhaltung, Parodontologie und Präventive Zahnheilkunde, Medizinische Hochschule Hannover: PD Dr. Alexander Rahman, Dr. Knut Adam, Dr. Nicole Winkler, Prof. Dr. Ingmar Staufenbiel

Poliklinik für Kinderzahnheilkunde, Justus-Liebig-Universität Gießen: Dr. Nelly Schulz-Weidner

* gleichberechtigte Erstautoren

**Deutsche Version der englischen Erstveröffentlichung Rahman A, Adam K, Winkler N, Schulz-Weidner N, Staufenbiel I: Caries experience in children with Marfan syndrome – a non-interventional case-control study. Dtsch Zahnärztl Z Int 2021; 3: 200–205

Zitierweise: Rahman A, Adam K, Winkler N, Schulz-Weidner N, Staufenbiel I: Karieserfahrung bei Kindern mit Marfan-Syndrom – eine nicht-interventionelle Fall-Kontroll-Studie. Dtsch Zahnärztl Z 2022; 77: 97–103

Peer-reviewed article: eingereicht: 12.05.2020, revidierte Fassung akzeptiert: 18.09.2020

DOI.org/10.53180/dzz.2022.0009

Caries experience in children with Marfan syndrome – a non-interventional case-control study

Introduction: The Marfan syndrome is a rare connective tissue disorder with autosomal dominant inheritance. The aim of the present study was to evaluate the caries experience in children and adolescents with Marfan syndrome.

Materials and Methods: 31 children with Marfan syndrome (Marfan group; mean age: 8.77 ± 3.72 years) and 31 systemically healthy children (control group; mean age: 9.77 ± 3.72 years) were dentally examined according to WHO criteria. The recorded parameters included the dmft/DMFT (differentiated into dt/DT, mt/MT, ft/FT), the dmfs/DMFS (differentiated into ds/DS, ms/MS, fs/FS), the caries restoration index (CRI), and the hygiene index (HI). Statistical evaluation was carried out using t-test for independent samples and chi-square test ($p \leq 0.05$) using the statistics software IBM SPSS Statistics 26.

Results: The children of the Marfan group had a significantly lower dmft ($p = 0.040$) and ft ($p = 0.040$) than children in the control group. There were no significant differences between the two groups when considering permanent dentition. However, the Marfan group tended to have a lower DMFT ($p = 0.064$), DT ($p = 0.076$) and FT ($p = 0.059$) than the control group. The HI was significantly higher in the control group than in the Marfan group ($p < 0.001$).

Conclusion: In the present study, children and adolescents with Marfan syndrome did not show a greater caries experience compared to a systemically healthy control group.

Keywords: adolescents; caries experience; children; dmft/DMFT; dmfs/DMFS; Marfan syndrome

Einleitung

Das Marfan-Syndrom ist eine seltene Bindegewebserkrankung mit autosomal-dominantem Erbgang [23]. Die Inzidenz des klassischen Marfan-Syndroms wird in der Literatur unabhängig von Geschlecht und ethnischer Zugehörigkeit mit 2–3 pro 10.000 Einwohner angegeben [18]. Personen mit Marfan-Syndrom weisen meist eine große, hagere Statur, lange Extremitäten, Arachnodaktylie (Abb. 1), Gelenkhypermobilität sowie Deformitäten im Bereich des Brustkorbs und der Wirbelsäule (z.B. Skoliose) auf [7]. Mehr als 1000 unterschiedliche Mutationen im Fibrillin-1-Gen (FBN1-Gen) auf Chromosom 15 konnten als Ursache für das klassische Marfan-Syndrom identifi-

ziert werden [26]. Da das klinische Bild des Marfan-Syndroms variabel und auch die genetischen Ursachen heterogen sind, ist eine Abgrenzung zu anderen Erkrankungen des Bindegewebes (z.B. Loeys-Dietz-Syndrom, Ehlers-Danlos-Syndrom, Shprintzen-Goldberg-Syndrom, Weill-Marchesani-Syndrom) erschwert [1]. Für die Diagnostik des Marfan-Syndroms hat sich die Verwendung der überarbeiteten Version der Gent-Nosologie bewährt, bei der neben dem Nachweis einer FBN1-Mutation und einer familiären Vorgeschichte vor allem die Manifestationen eines Aortenaneurysmas und einer Ectopia lentis Berücksichtigung finden [9, 22]. Kardiovaskuläre Komplikationen wie die Aortendilatation, -dissektion und

-ruptur waren der wesentliche Grund dafür, dass Patienten mit Marfan-Syndrom im Vergleich zur Normalbevölkerung eine reduzierte Lebenserwartung aufwiesen [24]. Obwohl eine Kausaltherapie für das Marfan-Syndrom nach wie vor nicht zur Verfügung steht, konnte durch die medikamentöse Therapie und in fortgeschrittenen Fällen durch die Herz- und Gefäßchirurgie die Lebenserwartung der Betroffenen deutlich gesteigert werden [19, 29].

Für das Marfan-Syndrom sind auch im orofazialen Bereich charakteristische Manifestationen wie Retrognathie, Dolichocephalie, gotischer Gaumen, craniomandibuläre Dysfunktionen und Oligodontie bzw. Hypodontie beschrieben worden [2, 8, 12]. Zudem konnte eine gesteigerte Prävalenz von Pulpakalzifikationen nachgewiesen werden [3]. Ein vermehrtes Auftreten parodontaler Erkrankungen wird in der Literatur kontrovers diskutiert, konnte jedoch von unserer Arbeitsgruppe nicht bestätigt werden [30–32]. Da das Gebiss von Patienten mit Marfan-Syndrom häufig Eng- bzw. Schachtelstände aufweist, die eine effektive häusliche Mundhygiene erschweren, erscheint auch eine höhere Kariesprävalenz durchaus nachvollziehbar. Neben Fallberichten, die einen starken Kariesbefall beschreiben [5, 13], gibt es bislang nur eine Fall-Kontroll-Studie, die kariöse Läsionen bei Personen mit Marfan-Syndrom untersucht hat. In dieser von De Coster et al. im Jahr 2002 veröffentlichten Arbeit wurden 23 Personen mit Marfan-Syndrom (Marfan-Gruppe) zahnmedizinisch untersucht und mit 69 zufällig ausgewählten Personen (Kontrollgruppe) verglichen [8]. Während bei der Betrachtung aller Studienteilnehmer kein signifikanter Unterschied zwischen der Marfan- und Kontrollgruppe vorlag, war der DMFT-Index in der Altersgruppe von 0 bis 17 Jahren in der Marfan-Gruppe signifikant größer als in der Kontrollgruppe. Einschränkung muss an dieser Stelle erwähnt werden, dass in der Marfan-Gruppe keine repräsentative Fallzahl ($n = 8$) vorlag und dass der DMFT-Index lediglich als gesamter Wert und nicht in seinen Einzelkomponenten dargestellt wurde.

Ziel der vorliegenden Arbeit war es daher, die Karieserfahrung bei Kindern mit Marfan-Syndrom in größerer Fallzahl und in detaillierter Form zu untersuchen. Als Hypothese wurde formuliert, dass Kinder und Jugendliche mit Marfan-Syndrom im Vergleich zu einer internistisch gesunden Kontrollgruppe mit vergleichbarer Altersstruktur und Geschlechterverteilung keine erhöhte Karieserfahrung aufweisen.

Material und Methode

Die Studie wurde von der Ethik-Kommission der Medizinischen Hochschule Hannover (Nr. 5113) genehmigt. Bei Kindern der Marfan-Gruppe musste die Diagnose des klassischen Marfan-Syndroms durch eine molekulargenetische Untersuchung bestätigt worden sein. Die Untersuchungen dieser Kinder erfolgte in der Klinik für Zahnerhaltung, Parodontologie und Präventive Zahnheilkunde der Medizinischen Hochschule Hannover sowie auf den Jahrestagungen und Eltern-Kind-Seminaren der Selbsthilfegruppe „Marfan-Hilfe (Deutschland) e.V.“. Die Kinder der Kontrollgruppe waren allgemeinmedizinisch gesund und wurden in einer niedergelassenen Zahnarztpraxis rekrutiert und untersucht. Alle klinischen Untersuchungen wurden von einer Zahnärztin (NW) durchgeführt.

Die zahnärztliche Untersuchung erfolgte gemäß WHO-Kriterien [34]. Hierzu wurden eine Lupenbrille, Watteballen zur relativen Trockenlegung und Untersuchungsbestecke bestehend aus zwei planen Mundspiegeln, einer zahnärztlichen Pinzette und einer Diagnostiksonde verwendet. Untersuchungen, die auf den Jahrestagungen und Eltern-Kind-Seminaren der „Marfan-Hilfe (Deutschland) e.V.“ durchgeführt wurden, erfolgten unter Zuhilfenahme eines Stuhls mit Kopfnacken-Stütze und einer portablen LED-Lampe. Mithilfe des zahnärztlichen Befundes wurden für die Beurteilung der Zahnhartsubstanz der dmft- und der dmfs-Index für die Zähne der ersten Dentition sowie der DMFT- und DMFS-Index für die Zähne der zweiten Dentition (Decayed: kariös, Missing: fehlend, Filled: gefüllt, Teeth: Zähne, Surfaces: Zahnflä-

	Marfan	Kontrolle	Signifikanz (p-Wert)
	n = 31	n = 31	
Alter [Jahre]	8,77 ± 3,72	9,77 ± 3,72	0,294*
HI [%]	75,36 ± 16,58	89,44 ± 8,59	< 0,001*
Bleibende Zähne	n = 29	n = 28	
DMFT	0,52 ± 1,64	1,57 ± 2,46	0,064*
DT	0,03 ± 0,19	0,36 ± 0,91	0,076*
MT	0,14 ± 0,74	0,00 ± 0,00	0,326*
FT	0,34 ± 1,05	1,25 ± 2,24	0,059*
DMFS	1,59 ± 6,70	2,61 ± 4,24	0,496*
DS	0,07 ± 0,37	0,46 ± 1,26	0,121*
MS	0,69 ± 3,71	0,00 ± 0,00	0,326*
FS	0,83 ± 3,08	2,18 ± 4,05	0,163*
DMFT = 0	n = 24	n = 15	0,018#
KSG (bleibende Zähne)	80,00 ± 44,72	76,26 ± 40,71	0,867*
Milchzähne	n = 22	n = 20	
dmft	0,41 ± 0,59	1,35 ± 1,84	0,040*
dt	0,23 ± 0,43	0,15 ± 0,49	0,077*
mt	0,00 ± 0,00	0,10 ± 0,45	0,330*
ft	0,18 ± 0,40	1,05 ± 1,73	0,040*
dmfs	0,77 ± 1,15	3,05 ± 4,92	0,056*
ds	0,41 ± 0,80	0,30 ± 0,98	0,693*
ms	0,00 ± 0,00	0,50 ± 2,24	0,330*
fs	0,36 ± 0,79	2,20 ± 4,10	0,063*
dmft = 0	n = 14	n = 10	0,372#
KSG (Milchzähne)	43,75 ± 49,55	80,00 ± 42,16	0,113*

HI: Hygiene-Index; dmft/DMFT: Decayed Missing Filled Teeth Index; dt/DT: Decayed Teeth; mt/MT: Missing Teeth; ft/FT: Filled Teeth; dmfs/DMFS: Decayed Missing Filled Surface Index; ds/DS: Decayed Surfaces; ms/MS: Missing Surfaces; fs/FS: Filled Surfaces; KSG: Kariessanierungsgrad; *: t-Test für unabhängige Stichproben; #: Chi-Quadrat-Test nach Pearson

Tabelle 1 Klinische Parameter differenziert nach Marfan- und Kontrollgruppe

chen) berechnet [21]. Zur weiteren Differenzierung wurden der dmft/DMFT und der dmfs/DMFS in die Einzelkomponenten dt/DT, mt/MT, ft/FT bzw. ds/DS, ms/MS, fs/FS unterteilt. Bei Kindern und Jugendlichen mit einem dmft bzw. DMFT > 0 wurde mithilfe folgender Formel der Kariessanierungsgrad (KSG) errechnet: KSG (Milchzähne) = $(mt + ft) / dmft \times 100$ in Prozent; KSG (bleibende Zähne) = $(MT + FT) / DMFT \times 100$ in Prozent [33].

Für die Beurteilung der häuslichen Mundhygiene wurde der Hygieneindex (HI) verwendet [25]. Hierzu wurden die Zähne mit einem Plaquerevelator (Mira-2-Ton; Hager & Werken GmbH & Co. KG, Duisburg, Deutschland) angefärbt und an 4 Messstellen (mesial, bukkal, distal und oral) beurteilt. Der HI wurde mit folgender Formel errechnet: Summe der plaquefreien Messstellen/Summe aller Messstellen $\times 100$ in Prozent.

Die Auswertung der Daten erfolgte mit dem Statistikprogramm IBM SPSS Statistics 26 für Windows (IBM, Armonk, NY, USA). Für den Gruppenvergleich (Marfan- versus Kontrollgruppe) wurden der t-Test für unabhängige Stichproben und der Chi-Quadrat-Test angewendet. Alle Tests wurden zweiseitig mit einem Signifikanzniveau von $p \leq 0,05$ festgelegt.

Ergebnisse

Insgesamt wurden 62 Kinder und Jugendliche (26 weiblich, 36 männlich) mit einem Durchschnittsalter von $9,27 \pm 3,73$ Jahren (Minimum: 2 Jahre, Maximum: 17 Jahre) in die vorliegende Untersuchung einbezogen. Zur Marfan-Gruppe gehörten 31 Kinder mit Marfan-Syndrom (13 weiblich, 18 männlich, Durchschnittsalter: $8,77 \pm 3,72$ Jahre), zur Kontrollgruppe 31 allgemeinmedizinisch gesunde Kinder (13 weiblich, 18 männlich, Durchschnittsalter: $9,77 \pm 3,72$ Jahre). Detaillierte Informationen zur Altersverteilung in der Marfan- und Kontrollgruppe können der Abbildung 2 entnommen werden.

In der Marfan-Gruppe war der dmft signifikant kleiner als in der Kontrollgruppe ($0,41 \pm 0,59$ versus $1,35 \pm 1,84$; $p = 0,040$). Auch der dmfs war in der Marfan-Gruppe klei-



Abbildung 1 Beispiel einer Arachnodaktylie

ner, unterschied sich jedoch aufgrund der großen Standardabweichung nicht signifikant von der Kontrollgruppe ($0,77 \pm 1,15$ versus $3,05 \pm 4,92$; $p = 0,056$). Bei differenzierter Betrachtung der dmft- und dmfs-Indizes wurde deutlich, dass die Anzahl gefüllter Zähne (ft: $0,18 \pm 0,40$ versus $1,05 \pm 1,73$; $p = 0,040$) und gefüllter Zahnflächen (fs: $0,36 \pm 0,79$ versus $2,20 \pm 4,10$; $p = 0,063$) in der Marfan-Gruppe kleiner waren als in der Kontrollgruppe. Der KSG (Milchzähne) und die Anzahl kariöser Zähne (dt), kariöser Zahnflächen (ds), fehlender Zähne (mt) und fehlender Zahnflächen (ms) zeigten keine signifikanten Unterschiede zwischen den beiden Gruppen. Naturgesunde Milchzähne (dmft = 0) lagen bei 14 Kindern (63,6 %) der Marfan- und bei 10 Kindern (50,0 %) der Kontrollgruppe vor. Dieser Unterschied war statistisch nicht signifikant. Der HI war in der Marfan-Gruppe hoch, aber dennoch signifikant kleiner als in der Kontrollgruppe ($75,36 \pm 16,58$ % versus $89,44 \pm 8,59$ %; $p < 0,001$).

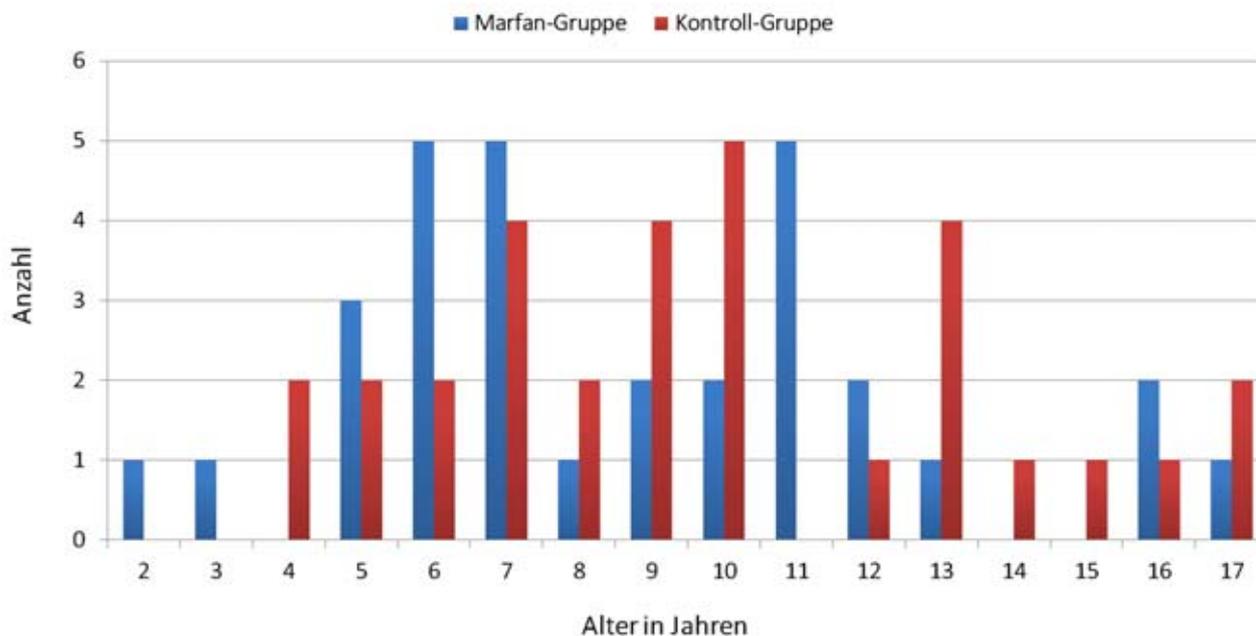
Im Gebiss der zweiten Dentition war der DMFT in der Marfan-Gruppe kleiner als in der Kontrollgruppe ($0,52 \pm 1,64$ versus $1,57 \pm 2,46$; $p = 0,064$). Auch der Anteil an gefüllten Zähnen (FT) war in der Marfan-

Gruppe kleiner als in der Kontrollgruppe ($0,34 \pm 1,05$ versus $1,25 \pm 2,24$; $p = 0,059$). In beiden Fällen verfehlte der Unterschied das Signifikanzniveau nur knapp. Naturgesunde bleibende Zähne (DMFT = 0) waren in der Marfan-Gruppe signifikant häufiger vertreten als in der Kontrollgruppe (24 versus 15; $p = 0,018$). Alle anderen untersuchten Parameter zeigten keine signifikanten Unterschiede zwischen den beiden Gruppen (Tab. 1).

Diskussion

In der Literatur existieren Fallberichte, die bei Kindern und Jugendlichen mit Marfan-Syndrom einen erhöhten Kariesbefall dokumentieren [5, 13]. Auch die einzige Fall-Kontroll-Studie zur Karieserfahrung bei Patienten mit Marfan-Syndrom konnte insbesondere für die Altersgruppe 0 bis 17 Jahre ein erhöhtes Kariesrisiko nachweisen [8].

Das klassische Marfan-Syndrom ist eine autosomal-dominant vererbte Bindegewebserkrankung, die durch eine FBN1-Mutation verursacht wird [23, 26]. Abgesehen von einem vermehrten Auftreten von Eng- und Schachtelständen und einer deshalb erschwerten Mundhygiene weisen Patienten mit Marfan-Syndrom im Bereich der Zahnkrone keine struktu-



Tab. 1, Abb. 1, 2: A. Rahman und K. Adam

Abbildung 2 Darstellung der Altersverteilung

rellen Besonderheiten auf, die die Entstehung einer Karies begünstigen. So konnte in einer kürzlich veröffentlichten tierexperimentellen Untersuchung zur Zahnentwicklung gezeigt werden, dass FBN1 nicht bei der Entwicklung der Zahnkrone, sondern erst bei der Entwicklung der Zahnwurzel exprimiert wird [20]. Hypothese der vorliegenden Untersuchung war es, dass Kinder und Jugendliche mit Marfan-Syndrom im Vergleich zu einer allgemeinmedizinisch gesunden Kontrollgruppe keine erhöhte Karieserfahrung aufweisen.

Zur Beurteilung der Karieserfahrung wurden der dmft, dmfs, DMFT, DMFS und die jeweiligen Einzelkomponenten dieser Indizes verwendet. Repräsentative epidemiologische Daten zur Kariesprävalenz in Deutschland sind vom Institut der Deutschen Zahnärzte (IDZ) sowie von der Deutschen Arbeitsgemeinschaft für Jugendzahnpflege e.V. (DAJ) für unterschiedliche Altersgruppen erarbeitet worden [10, 11, 15–17]. In der vorliegenden Untersuchung wiesen die Kinder mit Milchzähnen, die zur Errechnung des dmft, des dmfs und der entsprechenden Einzelkomponenten verwendet wurden, ein Durchschnittsalter von $6,95 \pm 2,36$ Jahren (Marfan-Gruppe) bzw. $7,60 \pm 2,09$ Jahren (Kontrollgruppe) auf. Für diese Werte bietet

sich ein Vergleich mit den Daten der DAJ (Epidemiologische Begleituntersuchungen zur Gruppenprophylaxe 2009 und 2016) an, welche bundeslandspezifisch Informationen zum Kariesbefall von 6- bis 7-jährigen liefern. Die Kinder und Jugendlichen mit bleibenden Zähnen, die zur Errechnung des DMFT, des DMFS und der entsprechenden Einzelkomponenten verwendet wurden, zeigten in der Marfan-Gruppe ein Durchschnittsalter von $9,21 \pm 3,44$ Jahren und in der Kontrollgruppe von $10,36 \pm 3,42$ Jahren. Diese Daten werden in der Folge mit denen der Dritten, Vierten und Fünften Deutschen Mundgesundheitsstudie (DMS III, DMS IV, DMS V) verglichen, welche die Karieserfahrung von 12-Jährigen vorstellen.

In der ersten Dentition zeigten 14 von 22 Kindern mit Marfan-Syndrom (63,6 %) ein naturgesundes Gebiss. In der Kontrollgruppe war dies bei lediglich 10 von 20 Kindern (50,0 %) der Fall. Die Daten der DAJ zeigen für den bundesweiten Durchschnitt, dass 53,9 % (2009) bzw. 56,4 % (2016) der 6- bis 7-jährigen Kinder ein kariesfreies, naturgesundes Milchgebiss aufwiesen. Der dmft war in der Marfan-Gruppe signifikant kleiner als in der Kontrollgruppe ($0,41 \pm 0,59$ versus $1,35 \pm 1,84$). Eine vergleichbare Ver-

teilung war auch für den dmfs ($0,77 \pm 1,15$ versus $3,05 \pm 4,92$) zu beobachten. Laut DAJ (2016) lag der dmft bei den 6- bis 7-jährigen Kindern zwischen 1,37 in Bayern und 2,31 in Sachsen-Anhalt und im bundesweiten Durchschnitt bei 1,73. Diese Werte verdeutlichen, dass sowohl die Kinder der Kontrollgruppe, aber insbesondere die der Marfan-Gruppe überdurchschnittlich gute dmft-Werte aufwiesen. Bei der Betrachtung der Einzelkomponenten zeigte sich, dass der ft in der Marfan-Gruppe signifikant kleiner war als in der Kontrollgruppe ($0,18 \pm 0,40$ versus $1,05 \pm 1,73$). Weder der dt noch der mt unterschieden sich signifikant zwischen den beiden Gruppen. Laut DAJ (2016) wiesen 6- bis 7-jährige Kinder in Deutschland durchschnittlich 0,74 kariöse Milchzähne (dt), 0,19 fehlende Milchzähne (mt) und 0,80 gefüllte Milchzähne (ft) auf. Ein Vergleich mit diesen Daten belegt, dass in der Marfan-Gruppe für alle Einzelkomponenten überdurchschnittlich gute Werte vorlagen.

Hinsichtlich der zweiten Dentition besaßen 82,8 % der Kinder und Jugendlichen der Marfan-Gruppe und 53,8 % der Kinder und Jugendlichen der Kontrollgruppe Gebisse ohne Karieserfahrung (DMFT = 0). Die DMS III, IV und V stellen Daten aus

den Jahren 1997, 2005 und 2014 vor und zeigen für 12-Jährige eine kontinuierliche Zunahme des Anteils an naturgesunden Gebissen (DMS III: 41,8 %; DMS IV: 70,1 %; DMS V: 81,3 %). Der mittlere DMFT war in der Marfan-Gruppe kleiner als in der Kontrollgruppe ($0,52 \pm 1,64$ versus $1,57 \pm 2,46$). Dieser Unterschied verfehlte das Signifikanzniveau jedoch knapp. Im Rahmen der DMS III, IV und V konnte mit Blick auf den mittleren DMFT eine kontinuierliche Verringerung der Karieserfahrung bei 12-Jährigen verzeichnet werden (DMS III: 1,7; DMS IV: 0,7; DMS V: 0,5) [15–17]. Auch die Einzelkomponenten zeigten bei den Ergebnissen der DMS III, IV und V für die 12-Jährigen eine positive Entwicklung. So reduzierte sich die Zahl kariöser Zähne (DT) von durchschnittlich 0,4 (1997) auf 0,1 (2014) und die Zahl gefüllter Zähne (FT) von 1,3 (1997) auf 0,3 (2014). Ein Vergleich mit den Ergebnissen unserer Studie belegen, dass die Kinder und Jugendlichen mit Marfan-Syndrom auch bei den Einzelkomponenten Werte aufweisen (DT: $0,03 \pm 0,19$; MT: $0,14 \pm 0,74$; FT: $0,34 \pm 1,05$), die denen des bundesweiten Durchschnitts entsprechen.

Insgesamt belegen die Ergebnisse unserer Studie, dass Kinder und Jugendliche mit Marfan-Syndrom keine erhöhte Karieserfahrung aufweisen. Die einleitend formulierte Hypothese konnte somit bestätigt werden. Einschränkung sollte an dieser Stelle Erwähnung finden, dass die Gruppengrößen mit einer Fallzahl von 31 recht klein sind und dass für repräsentative Aussagen weitere Untersuchungen erforderlich sind. Der Grund für die niedrige Karieserfahrung in der Marfan-Gruppe liegt vermutlich in der konsequenten Umsetzung geeigneter Prophylaxe-Maßnahmen. Diese bestehen aus einer zahn- gesunden Ernährung, einem effektiven Biofilmmangement, einer gezielten Fluoridanwendung sowie regelmäßigen Zahnarztbesuchen [14, 27]. Als Limitation muss Erwähnung finden, dass in unserer Untersuchung diese Maßnahmen zur Kariesprophylaxe nicht abgefragt wurden. Ein weiterer Grund für die niedrige Karieserfahrung könnte die Tatsache sein,

dass ein Großteil der vom Marfan-Syndrom betroffenen Familien an Aktivitäten der Selbsthilfegruppe „Marfan Hilfe (Deutschland) e.V.“ teilnahm. Untersuchungen zum Thema Selbsthilfe haben gezeigt, dass Selbsthilfegruppen durch Erfahrungsaustausch und Informationsvermittlung einen wesentlichen Beitrag zur persönlichen Entwicklung und Verhaltensänderung von Personen mit Behinderungen leisten [4]. Dies führt zu einer vernünftigeren Inanspruchnahme von Leistungen des professionellen Versorgungssystems (des Gesundheitssystems) und einer überdurchschnittlichen Mitarbeit. Für die Kinder und Jugendlichen der Marfan-Gruppe ist außerdem anzunehmen, dass sie bei ihrer Zahn- und Mundgesundheit eine besonders fürsorgliche Betreuung durch ihre Eltern erfahren haben.

Abschließend bleibt festzuhalten, dass Patientinnen und Patienten mit Marfan-Syndrom ein erhöhtes Endokarditis-Risiko aufweisen und daher eine Sonderstellung in der zahnärztlichen Praxis einnehmen. Um unnötige zahnärztliche Behandlungen zu vermeiden, kommt der Prävention von Karies in der ersten und zweiten Dentition eine entscheidende Rolle zu.

Interessenkonflikte

Die Autoren erklären, dass kein Interessenkonflikt im Sinne der Richtlinien des International Committee of Medical Journal Editors besteht.

Literatur

1. Arslan-Kirchner M, von Kodolitsch Y, Schmidke J: Genetische Diagnostik beim Marfan-Syndrom und verwandten Erkrankungen. Dtsch Arztebl 2008; 105: 483–491
2. Bauss O, Sadat-Khonsari R, Fenske C, Engelke W, Schweska-Polly R: Temporomandibular joint dysfunction in Marfan syndrome. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2004; 97: 592–598
3. Bauss O, Neter D, Rahman A: Prevalence of pulp calcifications in patients with Marfan syndrome. Oral Surg Oral

Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2008; 106: e56–e61

4. Borgetto B, von dem Knesebeck O: Patientenselbsthilfe, Nutzerperspektive und Versorgungsforschung. Bundesgesundheitsbl – Gesundheitsforsch – Gesundheitsschutz 2009; 52: 21–29
5. Bostanci B, Korkut E, Unlu N: Dental findings in marfan syndrome: a case report. J Istanb Univ Fac Dent 2017; 51: 61–67
6. Bratthall D: Introducing the significant caries index together with a proposal for a new global oral health goal for 12-year-olds. Int Dent J 2000; 50: 378–84
7. Dean JC: Marfan syndrome: clinical diagnosis and management. Eur J Hum Genet 2007; 15: 724–733
8. De Coster PJ, Martens LC, De Paeppe A: Oral manifestations of patients with marfan syndrome: A case-control study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2002; 93: 564–72
9. De Paeppe A, Devereux RB, Dietz HC, Hennekam RC, Pyeritz RE: Revised diagnostic criteria for the Marfan syndrome. Am J Med Genet 1996; 62: 417–26
10. Deutsche Arbeitsgemeinschaft für Jugendzahnpflege e.V. (DAJ): Epidemiologische Begleituntersuchungen zur Gruppenprophylaxe 2009, Bonn 2010, https://www.daj.de/fileadmin/user_upload/PDF_Downloads/Studie_Korrektur.pdf (Letzter Zugriff am 05.05.2020)
11. Deutsche Arbeitsgemeinschaft für Jugendzahnpflege e.V. (DAJ): Epidemiologische Begleituntersuchungen zur Gruppenprophylaxe 2016, Bonn 2017, https://www.daj.de/fileadmin/user_upload/PDF_Downloads/Epi_2016/Epi_final_BB1801_final.pdf (Letzter Zugriff am 05.05.2020)
12. Galletti C, Camps-Font O, Teixidó-Turà G, Llobet-Poal I, Gay-Escoda C: Association between Marfan syndrome and oral health status: A systematic review and meta-analysis. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2019; 24: e473–e482
13. Ganesh R, Vijayakumar R, Selvakumar H: Marfan syndrome: a case report. Case Rep Dent 2012; 2012: 595343. doi: 10.1155/2012/595343
14. Geurtsen W, Hellwig E, Klimek J: S2k-Leitlinie (Langversion) – Kariesprophylaxe bei bleibenden Zähnen – grundlegende Empfehlungen. AWMF-Registernummer: 083–021. https://www.awmf.org/uploads/tx_szleitlinien/083-021_S2k_Kariesprophylaxe_2017-03.pdf (Letzter Zugriff am 08.05.2020)
15. Institut der Deutschen Zahnärzte (IDZ): Dritte Deutsche Mundgesundheitsstudie (DMS III). Deutscher Ärzteverlag DÄV, Köln 1999

16. Institut der Deutschen Zahnärzte (IDZ): Vierte Deutsche Mundgesundheitsstudie (DMS IV). Deutscher Zahnärzte Verlag DÄV, Köln 2006

17. Institut der Deutschen Zahnärzte (IDZ): Fünfte Deutsche Mundgesundheitsstudie (DMS V). Deutscher Zahnärzte Verlag DÄV, Köln 2016

18. Judge DP, Dietz HC: Marfan's syndrome. *Lancet* 2005; 366: 1965–1976

19. Keane MG, Pyeritz RE: Medical management of Marfan syndrome. *Circulation* 2008; 117: 2802–2813

20. Kira-Tatsuoka M, Oka K, Tsuruga E, Ozaki M, Sawa Y: Immunohistochemical expression of fibrillin-1 and fibrillin-2 during tooth development. *J Periodontol Res* 2015; 50: 714–720

21. Klein H, Palmer C: Studies on dental caries. *Pub Hlth Rep* 1938, 53: 1353–1364

22. Loeys BL, Dietz HC, Braverman AC et al.: The revised Ghent nosology for the Marfan syndrome. *J Med Genet* 2010; 47: 476–485

23. McKusick VA: The defect in Marfan syndrome. *Nature* 1991; 352: 279–281

24. Murdoch JL, Walker BA, Halpern BL, Kuzma JW, McKusick VA: Life expectancy and causes of death in the Marfan syndrome. *N Engl J Med* 1972; 286: 804–808

25. O'Leary TJ, Drake RB, Naylor JE: The plaque control record. *J Periodontol* 1972; 43: 38

26. Sakai LY, Keene DR, Renard M, De Backer J: FBN1: the disease-causing gene

for Marfan syndrome and other genetic disorders. *Gene* 2016; 591: 279–291

27. Schiffner U: Aktuelle Präventionskonzepte bei Kleinkindern mit erhöhtem Kariesrisiko. *Zahnmedizin up2date* 2019; 13: 343–352

28. Schmoeckel J, Santamaría RM, Basner R, Schüler E, Splieth CH: Introducing a specific term to present caries experience in populations with low caries prevalence: Specific affected Caries index (SaC). *Caries Res* 2019; 53: 527–531

29. Silverman DI, Burton KJ, Gray J et al.: Life expectancy in the marfan syndrome. *Am J Cardiol* 1995; 75: 157–160

30. Staufenbiel I, Hauschild C, Kahl-Nieke B et al.: Periodontal conditions in patients with Marfan syndrome – a multi-center case control study. *BMC Oral Health* 2013; 13: 59

31. Straub AM, Grahame R, Scully C, Tonetti MS: Severe periodontitis in marfan's syndrome: A case report. *J Periodontol* 2002; 73: 823–826

32. Suzuki J, Imai Y, Aoki M et al.: High incidence and severity of periodontitis in patients with Marfan syndrome in Japan. *Heart Vessels* 2015; 30: 692–695

33. van Steenkiste M, Becher A, Banschbach R, Gaa S, Kreckel S, Pocanschi C: Prävalenz von Karies, Fissurenversiegelungen und Füllungsmaterial bei deutschen Kindern und Kindern von Migranten. *Das Gesundheitswesen* 2004; 66: 754–758

34. World Health Organization: Oral health surveys: basic methods. 5th Edition, World Health Organization, Geneva 2013



Foto: MHH

PRIV.-DOZ. DR. ALEXANDER RAHMAN, MME

Oberarzt
 Klinik für Zahnerhaltung,
 Parodontologie und
 Präventive Zahnheilkunde,
 Medizinische Hochschule Hannover
 Carl-Neuberg-Str. 1, 30625 Hannover
 rahman.alexander@mh-hannover.de



Foto: MHH

DR. KNUT ADAM

Klinik für Zahnerhaltung,
 Parodontologie und
 Präventive Zahnheilkunde,
 Medizinische Hochschule Hannover
 Carl-Neuberg-Str. 1, 30625 Hannover
 adam.knut@mh-hannover.de