



**HAL**  
open science

# Caractérisation des troubles ventilatoires nocturnes et de leur influence sur la synchronisation posturo-ventilatoire chez les patients dysmorphiques avant et après chirurgie correctrice

Adeline Kerbrat

► **To cite this version:**

Adeline Kerbrat. Caractérisation des troubles ventilatoires nocturnes et de leur influence sur la synchronisation posturo-ventilatoire chez les patients dysmorphiques avant et après chirurgie correctrice. Biomécanique [physics.med-ph]. HESAM Université, 2023. Français. NNT : 2023HESAE078 . tel-04496296

**HAL Id: tel-04496296**

**<https://pastel.hal.science/tel-04496296>**

Submitted on 8 Mar 2024

**HAL** is a multi-disciplinary open access archive for the deposit and dissemination of scientific research documents, whether they are published or not. The documents may come from teaching and research institutions in France or abroad, or from public or private research centers.

L'archive ouverte pluridisciplinaire **HAL**, est destinée au dépôt et à la diffusion de documents scientifiques de niveau recherche, publiés ou non, émanant des établissements d'enseignement et de recherche français ou étrangers, des laboratoires publics ou privés.

**ECOLE DOCTORALE SCIENCES ET METIERS DE L'INGENIEUR**  
**Institut de biomécanique Georges Charpak – Campus de Paris**

# **THESE**

*Présentée par :* **Adeline Kerbrat**

*Soutenue le :* **28 novembre 2023**

*Pour obtenir le grade de :* **Docteur d'HESAM Université**

*préparée à :* **École Nationale Supérieure d'Arts et Métiers**

*Spécialité :* **Biomécanique**

**Caractérisation des troubles ventilatoires nocturnes et  
de leur influence sur la synchronisation posturo-  
ventilatoire chez les patients dysmorphiques avant et  
après chirurgie correctrice**

**THESE dirigée par : M. Thomas SCHOUMAN**

**et co-encadrée par : Mme Valérie ATTALI et M. Philippe ROUCH**

**Jury :**

<b>Mme Anne-Sophie BONNET</b> , Professeur des Universités, ENIM, Université de Lorraine, Metz	Présidente
<b>Mme Natacha KADLUB</b> , Professeur des Universités – Praticien Hospitalier , Université de Paris Cité, Paris	Rapporteuse
<b>M. Thomas ROBERT</b> , Chargé de recherche, LBMC, Université Gustave Eiffel, Bron	Rapporteur
<b>Mme Claire LAUNOIS</b> , Praticien Hospitalier, CHU de Reims, Reims,	Examinatrice
<b>M. Thomas SCHOUMAN</b> , Professeur des Universités – Praticien Hospitalier, Sorbonne Université, Paris	Examineur
<b>Mme Valérie ATTALI</b> , Praticien Hospitalier, UMRS1158 Neurophysiologie Respiratoire Expérimentale et Clinique, Sorbonne Université, INSERM, Paris	Examinatrice
<b>M. Philippe ROUCH</b> , Professeur des Universités, Institut de Biomécanique Humaine Georges Charpak, Arts et Métiers, Paris	Examineur

## REMERCIEMENTS

Je ne suis pas sûre que l'écriture de remerciements avec mon taux d'hormones soit une très bonne chose... Je dois avouer que si j'avais su ce qui m'attendait, je ne sais pas si je me serais embarquée dans cette aventure. Ces quatre années furent compliquées et les 2 dernières années furent plus proche d'un calvaire que d'autres choses. J'espère n'avoir oublié personne.

Pour commencer, je souhaite remercier l'encadrement de ma thèse à commencer par Thomas Schouman. Merci de m'avoir prise sous ton aile depuis mon externat. A tes côtés, j'ai énormément appris (et je continue toujours à apprendre). Je te remercie de ton aide et ton expertise dans ce travail. Je remercie également Valérie Attali, ma « maman » du laboratoire. Merci de m'avoir accueilli dans ta grande famille du laboratoire et de m'avoir épaulée pendant ces quatre ans. Et enfin, je souhaite remercier Philippe Rouch pour son aide à démarrer ce projet et son aide tout au long de cette thèse.

Je souhaite également remercier les membres du jury qui ont accepté d'évaluer mon travail. Je remercie Natacha Kadlub et Thomas Robert pour avoir accepté d'en être les rapporteurs. Je remercie également Anne-Sophie Bonnet et Claire Launois pour leur participation en tant qu'examinatrices.

Je remercie également la Fédération Française d'Orthodontie pour sa confiance et sa contribution financière dans ce projet.

Je souhaite également dire un grand merci à mes collègues du Laboratoire pour leur aide dans ce projet : merci à Sylvain, Marine, Laura, Baptiste et à tous les autres. Merci à Rémi et Yoann, les autres « enfants » de Valérie pour leurs aides lors des manips et sur les codes matlab. Merci à Isabelle Rivals pour son aide précieuse dans ce travail. Aux anciennes du M2 de biomécanique, merci pour ces moments de partage de galères de thèse.

Je souhaite également remercier mes collègues de la Pitié pour leur soutien. Merci à mes cochef de m'avoir aider à me libérer pour finir ce travail et m'avoir soutenu pour ce début de clinicat. Merci à mes anciens co-internes (notamment le pitié summer love, le fond du panier et les anciens de Necker) pour ces moments partagés.

Merci également à ma famille pour son soutien inébranlable. Mention spéciale à mon sponsor officiel qui se reconnaîtra. Merci de m'avoir conseiller de ne rien lâcher même si la tentation fut grande. Merci également à mes amis du lycée, même si vous n'avez pas compris pourquoi je m'embarquais la dedans (rétrospectivement, moi non plus). A Carlos, mon fidèle compagnon à moustaches que tout le monde connaît.

Je souhaite terminer cette longue liste en remerciant mon Jupiter, Antony. Merci pour ton soutien et de ton réconfort lors de ces quatre années. Sans toi, j'aurais probablement lâché prise il y a deux ans.

Merci pour tout ce que tu m'apportes au quotidien (et pas que tes qualités de cuisinier). Maintenant on s'embarque dans une autre aventure...

A Agathe

# TABLE DES MATIERES

<b>REMERCIEMENTS</b> .....	<b>2</b>
<b>TABLE DES MATIERES</b> .....	<b>4</b>
<b>ABBREVIATIONS</b> .....	<b>8</b>
<b>PREAMBULE</b> .....	<b>9</b>
<b>PARTIE 1 : INTRODUCTION ET OBJECTIFS</b> .....	<b>11</b>
<b>1. Ventilation</b> .....	<b>11</b>
1.1. Définitions .....	11
1.2. Anatomie .....	11
1.3. Fonctions des VAS.....	13
1.4. Mécanique ventilatoire .....	14
1.5. Contrôle de la ventilation .....	14
1.6. Dysfonction ventilatoire : définition utilisée dans cette thèse.....	15
<b>2. Dysmorphie maxillo-mandibulaire</b> .....	<b>15</b>
2.1. Généralités .....	15
2.2. Diagnostic positif.....	16
2.3. Traitements .....	18
<b>3. Système postural et dysfonction posturale</b> .....	<b>19</b>
3.1. Définition .....	19
3.2. Notion d'équilibre postural.....	19
3.3. Dysfonction posturale.....	21
3.4. Analyse de la posture à l'aide de l'imagerie biplanare .....	21
3.5. Association entre dysmorphie, alignement postural et équilibre (cf. partie 2, chapitre 1) .....	23
3.6. Lien entre ventilation orale, posture et dysmorphie.....	24
<b>4. Couplage posturo-ventilatoire</b> .....	<b>24</b>
4.1. Couplage structurel .....	24
4.2. Perturbation de l'équilibre par la ventilation .....	25
4.3. Contrôle central du couplage posturo-ventilatoire.....	25
4.4. Méthode d'analyse du couplage posturo-ventilatoire – notion d'émergence.....	26
<b>5. Le syndrome d'apnées obstructives du sommeil</b> .....	<b>26</b>
5.1. Définition et diagnostic .....	26
5.2. Physiopathologie du SAOS.....	29
5.3. Traitements du SAOS.....	30
5.4. SAOS et troubles posturaux.....	31
5.5. relations entre SAOS et dysmorphie .....	32
<b>6. Objectifs de la thèse</b> .....	<b>33</b>
<b>PARTIE 2 : TRAVAIL PERSONNEL</b> .....	<b>34</b>
<b>CHAPITRE 1 : REVUE DE LITTERATURE</b> .....	<b>34</b>
<b>1. Matériels et méthodes</b> .....	<b>34</b>

1.1.	<i>Stratégie de recherche et critères de sélection des articles</i> .....	34
1.2.	<i>Évaluation de la qualité et du risque de biais</i> .....	34
1.3.	<i>Extraction des données</i> .....	35
<b>2.</b>	<b>Résultats</b> .....	<b>36</b>
2.1.	<i>Évaluation de la qualité des études et du risque de biais</i> .....	36
2.2.	<i>Évaluation de la DMM</i> .....	37
2.3.	<i>Méthodes d'évaluation de la posture</i> .....	39
2.4.	<i>Lien entre la posture et les dysmorphies</i> .....	40
2.5.	<i>Lien entre équilibre postural et dysmorphies</i> .....	42
2.6.	<i>Impact de la chirurgie orthognathique sur la posture</i> .....	43
<b>3.</b>	<b>Conclusion</b> .....	<b>44</b>
<b>4.</b>	<b>Points clés</b> .....	<b>44</b>
<b>CHAPITRE 2 : CARACTERISATION DE LA MORPHOLOGIE FACIALE A L'AIDE DE L'IMAGERIE</b>		
<b>BIPLANAIRE</b> .....		
<b>1.</b>	<b>Introduction</b> .....	<b>45</b>
<b>2.</b>	<b>Matériel et méthodes</b> .....	<b>45</b>
2.1.	Sujets.....	45
2.2.	Acquisition des images.....	46
2.3.	Comparaison de la bpxr et des telerradiographies de profil .....	46
2.4.	Analyse statistique .....	48
<b>3.</b>	<b>Résultats (le détail des résultats est disponible en annexe 2 de cette thèse)</b> .....	<b>49</b>
3.1.	Sur le positionnement des points.....	49
3.2.	Angles.....	50
<b>4.</b>	<b>Discussion</b> .....	<b>51</b>
<b>5.</b>	<b>Conclusion</b> .....	<b>53</b>
<b>6.</b>	<b>Points clés</b> .....	<b>53</b>
<b>CHAPITRE 3 : ANALYSE DE LA DYSFONCTION POSTURALE CHEZ LES PATIENTS DYSMORPHIQUES</b>		
<b>1.</b>	<b>Introduction</b> .....	<b>54</b>
<b>2.</b>	<b>Matériels et méthodes</b> .....	<b>54</b>
2.1.	Patients.....	54
2.2.	Groupe contrôle .....	55
2.3.	Évaluation de la typologie faciale.....	55
2.4.	Évaluation posturale.....	57
2.5.	Mesure du volume des voies aériennes supérieures .....	59
2.6.	Analyse statistique .....	60
<b>3.</b>	<b>Résultats</b> .....	<b>60</b>
3.1.	Population .....	60
3.2.	Données préopératoires .....	62
3.3.	Résultats postopératoires .....	69
<b>4.</b>	<b>Points clés</b> .....	<b>72</b>

<b>CHAPITRE 4 : ANALYSE POLYSOMNOGRAPHIQUE DANS UNE POPULATION DE PATIENTS AVEC DMM</b> .....	<b>73</b>
<b>1. Introduction</b> .....	<b>73</b>
<b>2. Matériels et méthodes</b> .....	<b>73</b>
2.1. <i>Sujets</i> .....	73
2.2. <i>Polysomnographie</i> .....	74
2.3. <i>Évaluation clinique et radiographique</i> .....	74
2.4. <i>Mesure du volume des voies aériennes supérieures</i> .....	74
2.5. <i>Analyse statistique</i> .....	74
<b>3. Résultats</b> .....	<b>75</b>
3.1. <i>Patients</i> .....	75
3.2. <i>Données cliniques et polysomnographiques</i> .....	78
3.3. <i>Volume des voies aériennes</i> .....	78
3.4. <i>modèles prédictifs d'un iah <math>\geq</math> 5/h</i> .....	78
3.5. <i>Résultats postopératoires</i> .....	80
<b>4. Points clés</b> .....	<b>81</b>
<b>CHAPITRE 5 : COUPLAGE POSTURO-VENTILATOIRE ET DYSMORPHIE. PRESENTATION DU PROTOCOLE.</b> .....	<b>82</b>
<b>1. Introduction</b> .....	<b>82</b>
<b>2. Matériels et méthodes</b> .....	<b>82</b>
2.1. <i>Patients et groupe contrôle</i> .....	82
2.2. <i>Protocole expérimental</i> .....	83
2.3. <i>Paramètres étudiés</i> .....	83
<b>3. Conclusion</b> .....	<b>85</b>
<b>PARTIE 3 : DISCUSSION</b> .....	<b>86</b>
<b>1. Analyse du sommeil chez les patients dysmorphiques</b> .....	<b>86</b>
<b>2. Dysfonction posturale des patients dysmorphiques</b> .....	<b>87</b>
2.1. <i>Alteration de l'alignement postural chez les patients dysmorphiques</i> .....	88
2.2. <i>Phénotypes posturaux chez les patients dysmorphiques</i> .....	88
2.3. <i>Impact de la chirurgie sur la posture</i> .....	89
2.4. <i>Limites</i> .....	89
<b>3. Rôle des voies aériennes supérieures</b> .....	<b>90</b>
<b>CONCLUSION ET PERSPECTIVES</b> .....	<b>92</b>
Dysfonction posturale.....	92
Troubles du sommeil et DMM.....	92
Conclusion .....	93
<b>BIBLIOGRAPHIE</b> .....	<b>94</b>
<b>TABLE DES FIGURES</b> .....	<b>115</b>
<b>TABLE DES TABLEAUX</b> .....	<b>116</b>

<b>ANNEXES.....</b>	<b>117</b>
<b>Annexe 1 : article 1 (publie dans l'International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery) .....</b>	<b>117</b>
<b>Annexe 2 : Article 2 publié dans le Journal of Clinical Medicine.....</b>	<b>126</b>
<b>Annexe 3 : Article 3 (soumis mais non publié) .....</b>	<b>138</b>

## ABBREVIATIONS

ACP : Analyse en composantes principales

AVC : Accident Vasculaire Cérébral

AP : Amplitudes antéro-postérieures

BPXR : Biplanar Xray, Radiographie biplanaire 2D/3D

CP : Centre de Pression

CPP : Comité de protection des personnes

DICOMs : Digital Imaging and Communications in Medicine

DMM : Dymorphie maxillo-mandibulaire

DT : Distance totale parcourue

FR : Fréquence Respiratoire

IAH : Index apnée-hypopnée

IMC : Indice de masse corporelle

ML : Amplitudes médio-latérales

Na : Nasion

OD : Odontoide

PA : Postéro-antérieure

PPC : Pression positive continue

PSG : Polysomnographie

Rem : Émergence respiratoire

S : Selle Turcique

SAOS : Syndrome d'apnée obstructive du sommeil

SVA : Sagittal vertical axis

VAS : Voies aériennes supérieures

VM : Vitesse moyenne de déplacement

## PREAMBULE

Les dysmorphies maxillo-mandibulaires (DMM) sont définies par une position anormale de la mandibule et/ou du maxillaire par rapport à la base du crâne. Ce travail de thèse aborde deux comorbidités potentielles de la DMM, la dysfonction posturale et le syndrome d'apnées obstructives du sommeil (SAOS), qui semblent partager une origine physiopathologique commune, l'altération des propriétés mécaniques des voies aériennes supérieures.

Les DMM peuvent s'inscrire dans le cadre de syndromes : dans ces cas, l'atteinte cranio-faciale peut être sévère, avec des malformations pouvant aller jusqu'à l'absence d'une partie de la mandibule dans le cas de syndromes oto-mandibulaires. Cependant, la grande majorité des DMM est isolée. La génétique joue un rôle dans l'apparition et le développement des dysmorphies. Cependant, l'apparition d'une ou de plusieurs dysfonctions (dysfonction des articulations temporo-mandibulaires, dysfonction linguale, ventilation orale) ou d'attitudes déformantes comme la succion du pouce par exemple sont également responsables de DMM. Le traitement de ces dysmorphies est orthopédique chez l'enfant et chirurgical chez l'adulte (ostéotomie maxillaire et/ou ostéotomie mandibulaire).

Certaines données de la littérature internationale soutiennent l'existence d'une dysfonction posturale chez les patients adultes avec une DMM. La plupart des articles disponibles se sont intéressés à la posture de la tête et du rachis cervical : une altération de la posture cervicale avec une projection antérieure de la tête responsable d'une hyperextension cervicale haute, s'aggravant au cours du temps, a été mise en évidence. Quelques études ont exploré les conséquences de la posture cervicale sur l'équilibre, mais leurs résultats sont contradictoires. Sur le plan physiopathologique, un lien entre hyperextension cervicale et ventilation orale a été suggéré dans la DMM. Cependant, ce lien n'a pour le moment pas été démontré.

Les patients avec un SAOS et les patients avec une DMM présentent certaines similitudes. En effet, ces deux pathologies présentent des anomalies anatomiques des voies aériennes supérieures (VAS) qui peuvent être similaires et la même intervention chirurgicale est pratiquée dans ces deux pathologies. Il est retrouvé dans la littérature que la rétrognathie est un facteur de risque de SAOS. Cependant, le raisonnement des études publiant ces résultats est altéré : en effet, ils sont partis de cohorte de patient avec un SAOS et ont recherché des facteurs prédisposants. De plus, le terme de rétrognathie est très imparfait : la « rétrognathie » peut être liée à une rétromandibulie (mandibule positionnée trop en arrière), à une promaxillie (maxillaire trop en avant), à une combinaison des deux. Devant les similitudes entre ces deux pathologies, la prévalence de SAOS chez les patients dysmorphiques est théoriquement élevée. Cependant, celle-ci n'est pas réellement connue, en préopératoire et plus généralement dans la population générale des patients dysmorphiques. En pratique, un dépistage du SAOS n'est pas proposé systématiquement en préopératoire pour des raisons de délais et d'accès à l'examen polysomnographique et il n'existe pas de recommandation permettant de cibler les patients les plus à risque de SAOS sévère.

Les hypothèses de ce travail de thèse s'appuient sur ces constatations et sur l'existence en physiologie d'un couplage entre la posture et la ventilation. En effet, la posture est perturbée par la ventilation : il existe donc un système de contre-perturbation physiologique permettant de maintenir l'équilibre postural. Les conséquences de l'hyperextension cervicale sur l'alignement postural global,

sur l'équilibre et sur le couplage neuromécanique entre la ventilation et l'équilibre ne sont pas connues. Le premier objectif de ce travail de thèse était de les décrire. Dans ce contexte, une revue de littérature a été réalisée. Elle a été suivie d'une phase expérimentale comportant une analyse posturale par imagerie tridimensionnelle du squelette, une analyse de l'équilibre et une évaluation du couplage posturo-ventilatoire chez des patients qui ont été explorés avant la chirurgie orthognathique et dans les mois qui ont suivi celle-ci. Ce premier objectif a nécessité de mener une étude de validation méthodologique portant sur l'analyse céphalométrique à partir d'une imagerie biplanaire. Le second objectif de ce travail était d'évaluer la prévalence du SAOS dans la population des patients présentant une DMM et ayant reçu une indication opératoire. Cent patients ont bénéficié d'une polysomnographie préopératoire et une partie de ces patients a été à nouveau enregistrée en postopératoire. Ces données ont permis d'analyser la qualité du sommeil et d'établir une prévalence de SAOS dans la population concernée, d'identifier des profils de patients à risque de SAOS chez lesquels un dépistage serait indispensable en préopératoire et d'évaluer les effets de la chirurgie sur la ventilation nocturne et le sommeil.

# PARTIE 1 : INTRODUCTION ET OBJECTIFS

## 1. VENTILATION

### 1.1. DEFINITIONS

La ventilation correspond à l'action mécanique de conduction de l'air jusqu'au poumon afin de permettre l'hématose (échanges gazeux au niveau des poumons). Elle nécessite, en plus des voies aériennes qui constituent le conduit où circule l'air, l'action mécanique de muscles ventilatoires, notamment du diaphragme et des muscles dilatateurs pharyngés.

La respiration correspond à l'ensemble de fonctions qui régissent les échanges gazeux, principalement ceux de l'oxygène et du gaz carbonique. Ainsi, la respiration correspond à l'addition de la ventilation et de l'hématose.

### 1.2. ANATOMIE

Le système respiratoire ou appareil respiratoire comprend l'ensemble des organes et des tissus qui participent à la respiration. Il est composé :

- Des voies aériennes supérieures (VAS) comprenant les cavités nasales, la bouche, le pharynx et le larynx (*figure 1*). Les VAS ne sont pas un conduit rigide comme les voies inférieures : la trachée et le larynx sont constitués principalement de cartilage, ce qui les rend non collabables. Le pharynx est un conduit musculaire, souple et donc susceptible de se collaber.
- Des voies aériennes inférieures constituées de la trachée, des bronches et des poumons.
- Des poumons.
- De la plèvre.
- De la cage thoracique.
- Des muscles ventilatoires.

L'ensemble de ces structures va permettre d'acheminer l'air inspiré vers les alvéoles pulmonaires, structures où ont lieu les échanges gazeux.

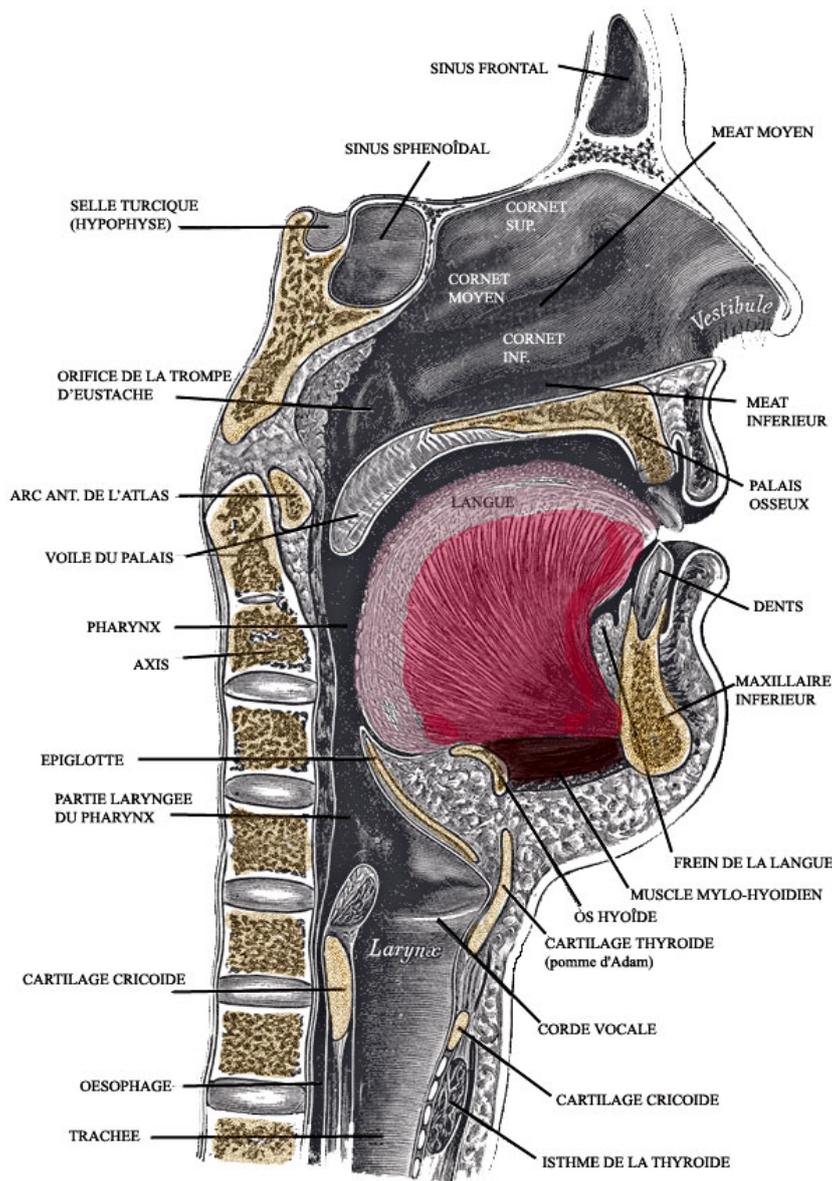


FIGURE 1 : SCHEMA DES VAS (HENRY GRAY, 1918)

Le pharynx est l'organe clé des VAS. C'est une structure complexe qui peut se diviser en trois régions anatomiques distinctes : le nasopharynx (zone en arrière des fosses nasales), l'oropharynx (zone en arrière de la cavité orale) et l'hypopharynx. Il est constitué de nombreux muscles et d'un fascia comme représenté sur la *figure 2*. Les muscles du pharynx sont organisés en deux groupes en fonction de l'orientation de leurs fibres :

- Les muscles constricteurs du pharynx : muscles constricteurs supérieurs, muscles constricteurs moyens et muscles constricteurs inférieurs.
- Les muscles longitudinaux : le muscle stylo-pharyngien, le muscle salpingo-pharyngien et le muscle palato-pharyngien.

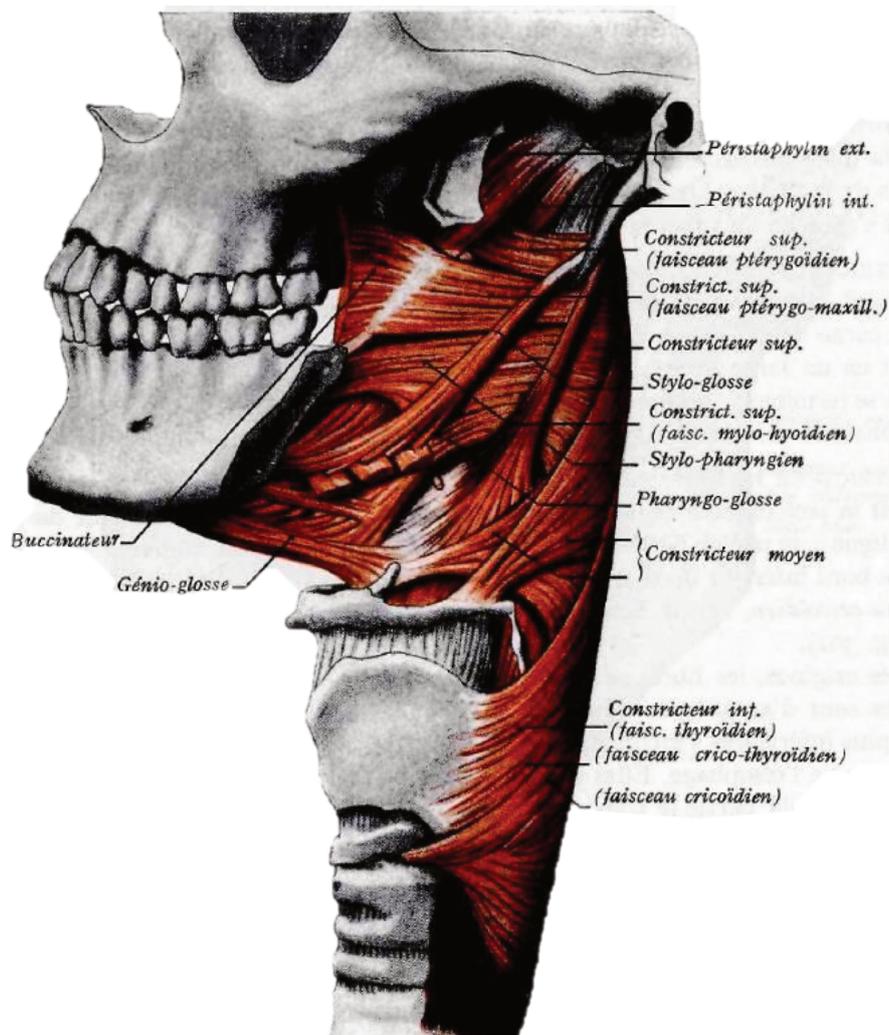


FIGURE 2: ANATOMIE MUSCULAIRE DU PHARYNX (ROUVIERE & DELMAS, 1985)

Si les bords supérieur et antérieur des parois du pharynx sont attachés à de l'os (notamment les os du massif facial), du cartilage et des ligaments, leur insertion postérieure se situe au niveau du raphé pharyngien. Il s'agit d'un tissu conjonctif allant du tubercule pharyngien de la base du crâne jusqu'à la vertèbre C6 où ce raphé, en se mélangeant avec du tissu conjonctif, constitue la paroi postérieure de l'œsophage. Le raphé pharyngien est à proximité immédiate du rachis cervical.

### 1.3. Fonctions des VAS

Le pharynx est un conduit musculo-membraneux étendu de la base du crâne en haut à la sixième vertèbre cervicale en bas. Il s'agit d'un organe complexe, unique, au carrefour des systèmes respiratoires et digestifs qui va participer à la mastication en propulsant le bol alimentaire vers l'œsophage et à la ventilation en conduisant l'air de l'extérieur aux voies aériennes inférieures. Le pharynx participe également à la phonation et à l'aération de l'oreille moyenne (Fakhry et al., 2014).

#### 1.4. MECANIQUE VENTILATOIRE

L'inspiration est un phénomène actif au cours duquel le volume pulmonaire augmente.

Elle est liée principalement à la contraction du diaphragme et des muscles intercostaux. Lors de l'inspiration, la contraction des muscles va augmenter le volume et le diamètre antéro-postérieur de la cage thoracique, ce qui diminue la pression dans les poumons et entraîne l'arrivée de l'air. L'expiration est un phénomène passif, qui résulte de la relaxation des muscles inspiratoires et du retour élastique du tissu pulmonaire.

L'inspiration génère une pression négative intraluminale qui tend à collaber les VAS. Leur perméabilité est donc garantie par la contraction phasique des muscles dit « dilatateurs » des VAS, principalement un muscle lingual, le génioglosse. A ce titre, les muscles dilatateurs des VAS sont des muscles ventilatoires et sont sous la dépendance du contrôle ventilatoire.

Au repos, au niveau des VAS, la ventilation physiologique doit être exclusivement nasale. L'air inspiré est conditionné dans les fosses nasales : il est réchauffé, humidifié et filtré avant de cheminer dans le pharynx. L'anatomie des cavités nasales avec la présence des cornets (supérieur, moyen et inférieur), ainsi que d'un épithélium cilié tapissant les fosses nasales sont parfaitement adaptés à ces fonctions. La ventilation orale est possible de façon physiologique en cas d'obstruction nasale transitoire (lors d'une rhinite, par exemple) ou lors d'une augmentation rapide des besoins (effort physique, par exemple). Cependant, la ventilation orale chronique aura des conséquences délétères sur la croissance du massif facial et sur la stabilité des VAS. La croissance maxillaire des enfants avec une ventilation orale est ralentie, notamment dans les dimensions transversales et sagittales, et l'orientation du plan mandibulaire est progressivement modifié (Bruwier & Limme, 2019).

#### 1.5. CONTROLE DE LA VENTILATION

Les structures nerveuses impliquées dans le contrôle respiratoire sont situées à distance du système thoraco-pulmonaire, ce qui constitue une particularité comparativement aux autres fonctions végétatives. Une autre particularité est l'existence d'un double contrôle respiratoire avec une commande automatique bulbaire susceptible d'être relayée par une commande supra-pontique.

Les structures impliquées dans le contrôle automatique de la respiration sont présentes dans plusieurs groupes de neurones situés au niveau du tronc cérébral modulant le rythme ventilatoire. La principale région d'intérêt est le complexe pré-Bötzinger composé de neurones « pace-maker », générateurs du rythme ventilatoire. La commande automatique est distribuée aux muscles ventilatoires via les motoneurones médullaires (Del Negro et al., 2002; Paul A. Gray et al., 2010). Elle est modulée par les conditions métaboliques PaCO<sub>2</sub> et pH, également PaO<sub>2</sub> (Fleetham et al., 1980).

Les muscles respiratoires reçoivent également une commande corticale, impliquant notamment les aires motrice, prémotrice et l'aire motrice supplémentaire (M. Raux et al., 2007). Elle commande les actions ventilatoires volontaires (souffler une bougie, par exemple) et certaines actions non respiratoires utilisant les structures anatomiques du système ventilatoire (chanter, par exemple).

De manière schématique, on considère que la commande corticale n'est pas sensible aux conditions métaboliques, elle est en revanche sensible à la « charge inspiratoire ». Au repos, la commande automatique est prédominante et la commande corticale pas ou peu active. La commande corticale s'active lorsque le système ventilatoire est sollicité volontairement. Elle s'active également lorsque le besoin ventilatoire augmente, par exemple lors de l'application expérimentale d'une charge inspiratoire chez le sujet sain ou dans des maladies respiratoires chroniques associées à une « charge intrinsèque » appliquée au système respiratoire. Dans le SAOS, les VAS constituent un modèle de charge intrinsèque car elles sont moins stables et offrent plus de résistance à l'écoulement de l'air (Launois et al., 2015). Lorsque la commande respiratoire corticale est activée de manière continue, on observe alors une « signature » électro-encéphalographique sous la forme de potentiels pré-inspiratoires (PPI) (Mathieu Raux et al., 2019), ce qui a été vérifié dans le SAOS (Launois et al., 2020). Les PPI sont généralement associés à un inconfort respiratoire ou à une dyspnée. Dans le cas du SAOS, l'inconfort respiratoire est « masqué » et les patients n'ont pas de plainte spontanée ; cependant, ils signalent un meilleur confort respiratoire lorsque leurs VAS sont stabilisées à l'éveil, par exemple par une orthèse d'avancée mandibulaire (Launois et al., 2020).

## *1.6. DYSFONCTION VENTILATOIRE : DEFINITION UTILISEE DANS CETTE THESE*

Dans ce manuscrit, nous ne traiterons que des voies aériennes supérieures. Ainsi, la dysfonction ventilatoire correspond ici à la ventilation orale. Elle ne concerne pas la mécanique ventilatoire de la cage thoracique et des poumons.

## **2. DYSMORPHIE MAXILLO-MANDIBULAIRE**

### *2.1. GENERALITES*

Les dysmorphies maxillo-mandibulaires (DMM) sont définies par une position incorrecte du maxillaire et/ou de la mandibule. La position de l'os maxillaire et/ou mandibulaire s'observe dans les dimensions de l'espace : la dimension sagittale (c'est-à-dire antéro-postérieure), la dimension verticale (la hauteur faciale) et la dimension transversale. On peut distinguer deux grands groupes de dysmorphies : les dysmorphies s'inscrivant dans le cadre de syndromes cranio-faciaux et les dysmorphies isolées. Nous ne traiterons dans ce travail que des dysmorphies isolées qui correspondent à la très grande majorité des patients.

La grande majorité des dysmorphies débutent lors de l'enfance et s'accroissent avec la croissance. Les causes de dysmorphies sont multiples et parfois intriquées (D'Onofrio, 2019). Il existe une part de prédisposition génétique associée à une ou plusieurs dysfonctions : dysfonction masticatoire, dysfonction linguale, « dysfonction ventilatoire » (pour rappel, la dysfonction ventilatoire dans ce manuscrit correspond à la ventilation orale)... et probablement également dysfonction posturale.

Les dysmorphies sont souvent associées à une malocclusion dentaire. La principale classification des malocclusions est la classification d'Angle (Angle, 1899) : elle est basée sur la première molaire (Figure 3). Il existe peu de données dans la littérature sur la prévalence des dysmorphies. En effet, la définition même de la dysmorphie maxillo-mandibulaire est variable en fonction des auteurs, d'un pays à l'autre ou en fonction des ethnies. Cependant, une étude menée par Proffit *et al.* a estimé que 2 % de la population générale pourrait relever d'une correction chirurgicale (Proffit *et al.*, 1998). Une des raisons pour laquelle on ne connaît pas la prévalence des DMM est liée à la difficulté de définir la normalité. Tous les patients dysmorphiques ne ressentent pas nécessairement l'anormalité de leur squelette facial et parfois encore moins le besoin d'être traité. Cependant, les patients consultant pour lesquels une indication chirurgicale est posée ont généralement une gêne importante, fonctionnelle et/ou esthétique.

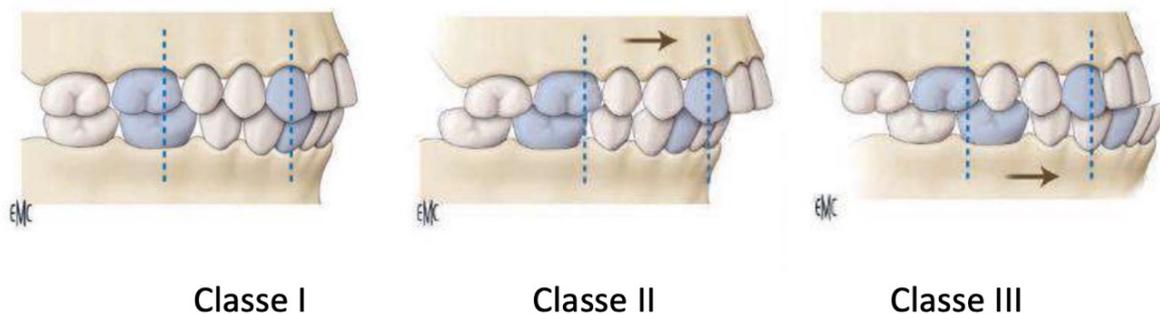


FIGURE 3: CLASSIFICATION D'ANGLE, SCHEMA ISSU DE L'ENCYCLOPEDIE MEDICO-CHIRURGICALE (DEFRENNES ET AL., 2016)

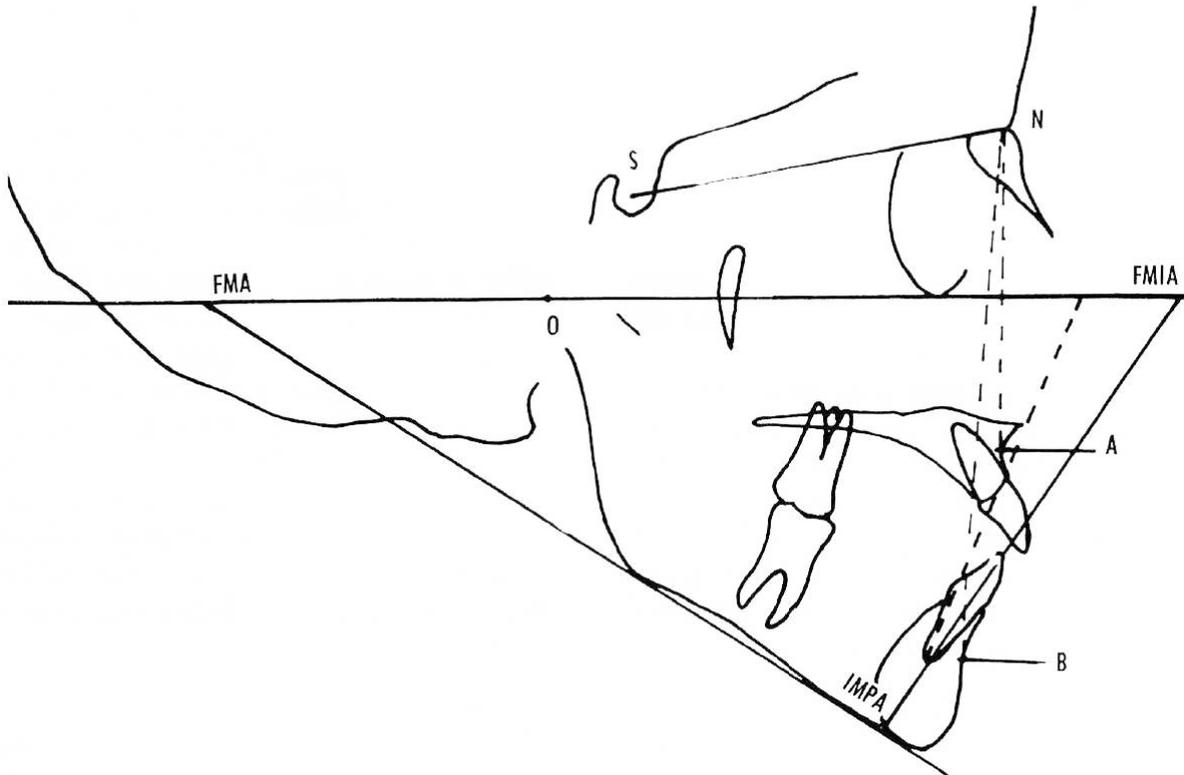
## 2.2. DIAGNOSTIC POSITIF

Le diagnostic de dysmorphie maxillo-mandibulaire (DMM) est clinique et radiologique. Un examen clinique facial puis buccal est nécessaire pour caractériser la dysmorphie et rechercher des dysfonctions associées. L'examen clinique est alors complété par un bilan radiologique comprenant une radiographie panoramique dentaire et des téléradiographies du crâne et de la face afin de procéder à une analyse céphalométrique. Il s'agit d'une étude sur des radiographies du crâne entier (téléradiographie de profil et/ou face) (Delaire *et al.*, 1981). L'objectif du tracé céphalométrique est d'obtenir une caractérisation squelettique du patient étudié en référence à un équilibre de référence considérée par l'analyse. Les différents paramètres normatifs ont été définis statistiquement et individuellement dans un échantillon de populations sélectionnées selon des critères de « normalité » clinique (occlusion, proportions cranio-faciales, etc.) (Delaire *et al.*, 1981; Sassouni, 1955; C. H. Tweed, 1946). La notion de norme étant discutable, on préfère parler d'équilibre facial.

De très nombreux angles et tracés sont disponibles dans la littérature, de nombreux auteurs ont proposé leur analyse. Chaque auteur utilise des points et des angles différents. Les analyses les plus couramment utilisées en France sont les analyses de Tweed, Steiner, Delaire, Ricketts et Sassouni. Les principaux angles utilisés sont :

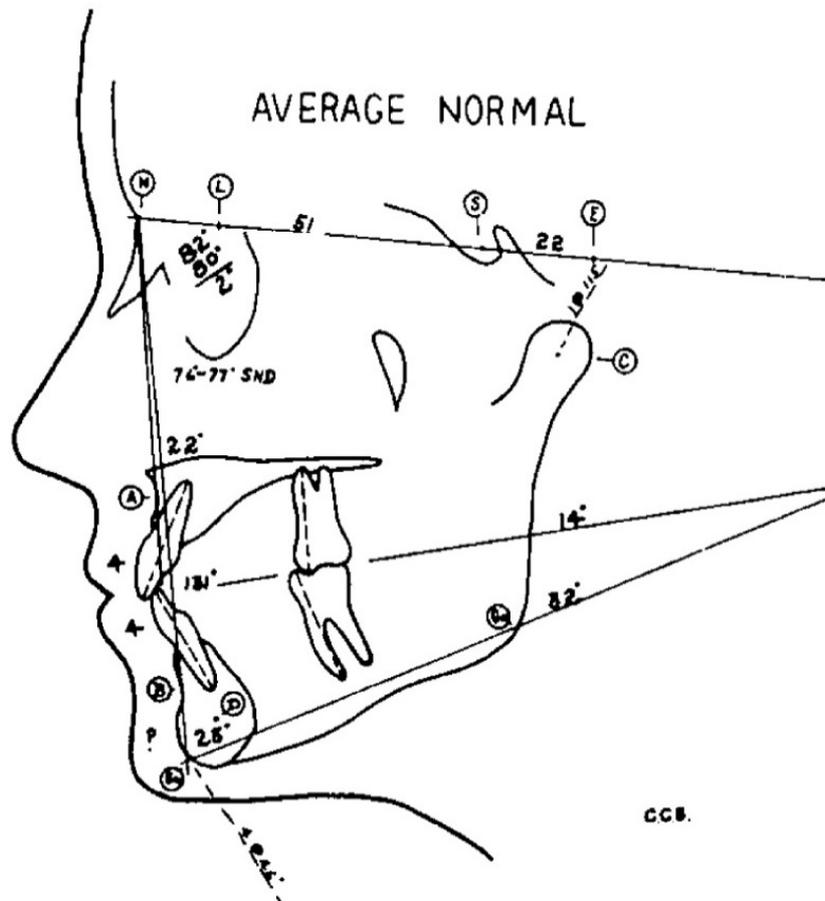
- L'angle FMA utilisé dans l'analyse de Tweed. Il s'agit de l'angle entre le plan de Francfort (plan passant par le rebord infra-orbitaire et le Porion) et le plan mandibulaire (Figure 4).

- Les angles SNA, SNB et ANB décrits par Steiner. L'angle SNA est l'angle entre la ligne passant par le Nasion (N) et le centre de la selle turcique (S) et entre la ligne passant par le Nasion et le point A (le point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure du maxillaire). L'angle SNB est l'angle entre la droite passant par N et S et la droite passant par N et le point B (le point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure de la mandibule). L'angle ANB est l'angle entre la droite passant par N et le point A et la droite passant par N et le point B (figure 5).



Triangle de Tweed. FMA : angle entre le plan de Francfort (plan passant par le rebord infra-orbitaire et le Porion) et le plan mandibulaire, IMPA : angle entre le plan mandibulaire et l'axe de l'incisive mandibulaire, FMIA : angle entre le plan de Francfort et l'axe de l'incisive mandibulaire (Charles H. Tweed, 1966).

**FIGURE 4: ANALYSE DE TWEED**



SNA : angle entre la ligne passant par le Nasion (N) et le centre de la selle turcique (S) et entre la ligne passant par le Nasion et le point A (le point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure du maxillaire) SNB : angle entre la droite passant par N et S et la droite passant par N et le point B (le point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure de la mandibule). L'angle ANB est l'angle entre la droite passant par N et le point A et la droite passant par N et le point B. (Steiner, 1959)

FIGURE 5: ANALYSE DE STEINER

### 2.3. TRAITEMENTS

Le traitement est différent en fonction de l'âge du patient. Chez l'enfant, il existe un potentiel de croissance des os de la face. En utilisant des traitements orthopédiques qui stimulent ou freinent cette croissance, il est possible de corriger cette dysmorphie. En cas de dysfonctions associées (une dysfonction linguale ou une ventilation orale, par exemple), il convient de corriger la ou les dysfonctions associées pour éviter les récives. Par exemple, en cas de déglutition primaire, c'est-à-dire avec la langue qui « pousse » sur les dents lors de la déglutition, il est indispensable de faire une rééducation chez un kinésithérapeute spécialisé ou un orthophoniste. Une prise en charge précoce d'une dysfonction permet d'éviter un traitement qui, chez l'adulte, sera plus lourd.

Chez l'adulte, le traitement est orthodontico-chirurgical. Pour réaliser l'intervention, il est nécessaire d'avoir une concordance entre l'arcade maxillaire et l'arcade mandibulaire satisfaisante.

Ainsi, dans la majorité des cas, il faut un alignement orthodontique préalable à la chirurgie pour permettre l'engrènement des arcades maxillaire et mandibulaire lors de l'intervention. La grande majorité des patients ont donc un traitement orthodontique préparatoire, qui comprend un alignement des dents sur l'arcade dentaire. Ce traitement dure en général un an et demi ou deux ans. Il est cependant parfois possible de faire la chirurgie dans un premier temps, puis de réaliser l'alignement dentaire. La chirurgie peut être maxillaire, mandibulaire ou maxillo-mandibulaire en fonction du bilan diagnostique. L'objectif de la chirurgie est multiple : l'intervention permet non seulement de rétablir une occlusion satisfaisante en corrigeant la mauvaise position des bases osseuses, mais elle a également un impact esthétique et fonctionnel. En corrigeant les malpositions osseuses, on harmonise l'équilibre facial. Il est important de souligner que l'aspect fonctionnel est également primordial dans la prise en charge chirurgicale (Patcas et al., 2017). Ainsi, la chirurgie a aussi pour objectif de restaurer les fonctions oro-faciales du patient, notamment de rétablir la ventilation nasale.

En effet, la ventilation orale n'est physiologique que chez le nouveau-né et temporairement en cas de nécessité de suppléance (obstruction nasale aigüe lors d'une rhinopharyngite). Chez l'enfant, une obstruction nasale chronique va entraîner un défaut de croissance du maxillaire, qui va se traduire par des narines et un palais étroit. Cette ventilation orale est responsable d'une spirale morpho-dysfonctionnelle qui va se traduire par une modification progressive du schéma de la croissance faciale, et en particulier mandibulaire, une bascule du plan d'occlusion mandibulaire et l'apparition du phénotype facial hyperdivergent ou « face longue » (Harari et al., 2010). L'incompétence labiale ou la persistance de tics de succion (en particulier celle du pouce) peuvent favoriser l'apparition et/ou le développement d'une ventilation orale (Bruwier & Limme, 2019). La correction du mode de ventilation est nécessaire, chez l'adulte et chez l'enfant, pour permettre d'obtenir une correction de la DMM stable dans le temps et éviter le risque de récurrence (D'Onofrio, 2019).

### 3. SYSTEME POSTURAL ET DYSFONCTION POSTURALE

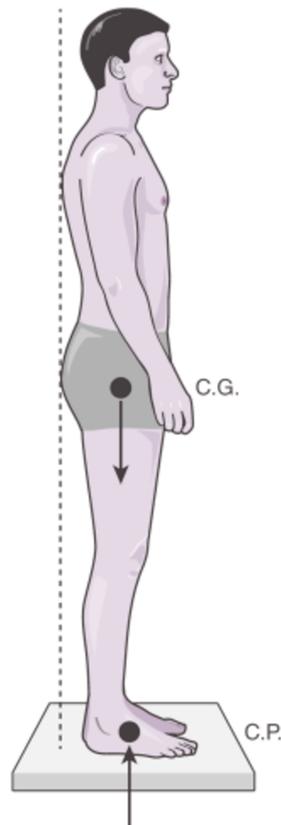
#### 3.1. DEFINITION

Le système postural a pour fonction le maintien de la station debout érigée et la stabilité du corps dans l'espace. La dysfonction posturale se définit comme l'incapacité à obtenir ou à maintenir un équilibre postural en station debout ou pendant un mouvement (Alexandra S. Pollock et al., 2016). Pour obtenir un équilibre postural et maintenir une position érigée, le rachis de l'être humain est composé de courbures physiologiques permettant d'avoir la tête située verticalement au-dessus du pelvis (Amabile et al., 2018; Pérennou et al., 2008). Ainsi, la lordose cervicale succède à la cyphose thoracique, qui est elle-même poursuivie par une lordose lombaire.

#### 3.2. NOTION D'EQUILIBRE POSTURAL

Lors de la station debout, le centre de gravité (CG), correspondant au point d'application de la résultante des forces de gravité, se projette dans le polygone de sustentation (surface obtenue en

reliant entre elles les limites extrêmes de la surface d'appui). Le centre de pression (CP) est le point d'application de la résultante des forces de réaction appliquées sur la surface d'appui, il résume en un point l'ensemble des pressions des pieds sur le sol (*figure 6*). Schématiquement, chez l'humain immobile en position debout, le CP correspond à la projection à la verticale du CG. L'équilibre en station debout est un phénomène actif, sous la dépendance du tonus postural de base. De façon physiologique, le CP est en perpétuel mouvement : le tonus des muscles posturaux n'est pas continu. En effet, les unités motrices n'ont pas la capacité de maintenir un tonus de base constant, elles doivent se relâcher périodiquement, créant ainsi de minimes oscillations posturales.



**FIGURE 6: POSITION DU CENTRE DE PRESSION ET DU CENTRE DE GRAVITE (PENINOU & COLNE, 2018)**

Le contrôle de l'équilibre postural est sous la dépendance d'afférences visuelles, proprioceptives et cérébelleuses, qui renseignent en permanence le système nerveux central sur l'état d'équilibre du sujet et guident les adaptations posturales. Ainsi, en cas d'altération d'un des systèmes de contrôle, l'équilibre postural sera compromis. Par exemple, la perte de la vision altère le contrôle de l'équilibre postural en augmentant la rigidité du système musculo-squelettique (Collins & De Luca, 1995) et une atteinte du système vestibulaire sera responsable d'une augmentation du déplacement du centre de pression (Lacour et al., 1997).

L'équilibre postural bénéficie également d'une régulation attentionnelle dépendante de structures corticales. En effet, les patients ayant eu un accident vasculaire cérébral peuvent présenter des troubles de l'équilibre en rapport avec une altération de la perception corticale de la verticalité (Pérennou et al., 2008). L'implication de structures corticales dans la modulation de l'équilibre a été

également mise en évidence par des études utilisant la méthode de la double tâche. Dans ce contexte expérimental, l'ajout d'une charge cognitive consomme de la ressource attentionnelle normalement utilisée pour le maintien de l'équilibre. Chez les sujets jeunes, une charge cognitive modérée est associée à une surcompensation de l'équilibre (le sujet a alors un meilleur équilibre), alors que chez le sujet âgé elle perturbe l'équilibre (Lacour et al., 2008).

### 3.3. DYSFONCTION POSTURALE

La dysfonction posturale se définit par l'incapacité de maintenir, d'atteindre ou de rétablir un état d'équilibre dans n'importe quelle posture ou pendant n'importe quelle activité.

La posture d'un individu n'est pas fixe dans le temps, elle évolue et se modifie. Ainsi, les personnes âgées présentent une cyphose thoracique T1T12 plus importante que les adultes asymptomatiques (Amabile et al., 2018). Cette augmentation de la cyphose est attribuée entre autres à des modifications des propriétés mécaniques thoraco-pulmonaires (Galetke et al., 2007). En cas d'altération de l'alignement rachidien (comme lors d'une hyperlordose lombaire ou d'une hypercyphose thoracique), des mécanismes de compensation apparaissent progressivement pour maintenir la tête au-dessus du bassin. Cette adaptation augmente progressivement le déséquilibre sagittal du rachis jusqu'à ce que la compensation ne soit plus possible ((Le Huec et al., 2011). Lorsque les mécanismes de compensation sont dépassés, le déséquilibre sagittal du rachis a des conséquences cliniques. Par exemple, l'hypercyphose thoracique est associée à une morbi-mortalité plus élevée dans une population âgée (Kado et al., 2007). Il s'agit dans ce cas d'une altération de l'alignement postural responsable d'une dysfonction à long terme quand les mécanismes compensatoires sont dépassés.

L'équilibre postural peut également être perturbé sans altération de l'alignement. C'est ce qui se produit en cas d'atteinte d'un des éléments régulant l'équilibre. Ainsi, le système vestibulaire, comprenant l'oreille interne, le nerf cochléo-vestibulaire et les noyaux vestibulaires, participe au contrôle de l'équilibre : il détecte la position de la tête dans l'espace à l'aide des canaux semi-circulaires présents dans l'oreille interne. En cas d'atteinte de ce système, comme dans les suites d'un accident vasculaire cérébral (AVC) ou d'une maladie neuro-dégénérative, des troubles de l'équilibre vont apparaître. Ils sont responsables d'une augmentation de la morbidité et de la mortalité des patients en augmentant le risque de chute (Cronin et al., 2017).

### 3.4. ANALYSE DE LA POSTURE A L'AIDE DE L'IMAGERIE BIPLANAIRE

La technologie de radiographie biplanaire 2D/3D (BPXR) (EOS imaging®, Paris, France) basée sur un système de radiographie à faible dose permet de prendre simultanément des images 2D stéréo-correspondantes postéro-antérieures (PA) et latérales de l'ensemble du corps, y compris de la tête, dans un environnement calibré (*figure 7*). Elle a été développée à partir des travaux de Georges Charpak et initialement pour étudier les patients avec une scoliose. La BPXR utilise des détecteurs à chambre proportionnelle multifilaire ultrasensible pour détecter les rayons X, limitant ainsi la dose de

rayons X absorbée par le patient. Ce système fournit des images 2D fiables de la colonne vertébrale et est validé pour la pratique clinique en orthopédie (Amabile et al., 2016; Ilharreborde et al., 2014).

Le système d'imagerie EOS 2D/3D permet la reconstruction semi-automatisée en 3D de l'ensemble du squelette en dehors du crâne à partir des radiographies bidimensionnelles acquises en position verticale. Ainsi, à l'aide du logiciel IdefX® (EOS imaging, Paris, France), il est possible d'obtenir un modèle 3D du bassin et du rachis (de C3 à L5) spécifique à chaque patient (*figure 8*).



FIGURE 7: RADIOGRAPHIE DE FACE ET DE PROFIL OBTENUE PAR BPXR



FIGURE 8: MODELE 3D OBTENU AVEC LA BPXR

### 3.5. ASSOCIATION ENTRE DYSMORPHIE, ALIGNEMENT POSTURAL ET EQUILIBRE (CF. PARTIE 2, CHAPITRE 1)

De nombreuses données sont disponibles sur l'association entre rachis cervical et dysmorphie mais peu d'études se sont portées sur le rachis entier et sur l'équilibre postural. Ainsi, nous avons réalisé une revue systématique de la littérature dont les résultats ont été publiés. La revue est détaillée dans la partie 2 de la thèse. Cette revue avait pour objectifs :

- 1- De caractériser la relation entre posture et dysmorphie.
- 2- De présenter les mécanismes physio-pathologiques supposés.
- 3- D'évaluer l'impact de la chirurgie correctrice sur la posture.

Nous avons extrait 13 articles de la littérature internationale portant sur la relation entre posture corporelle et dysmorphie. La majorité des articles soutiennent une interaction entre la dysfonction posturale et la dysmorphie, bien que l'hétérogénéité des méthodes d'analyse de la posture et de la dysmorphie ainsi que le niveau de preuve faible limitent leurs conclusions. Cependant, la chirurgie orthognathique semblait avoir un impact favorable sur la posture. Enfin, si ces études suggéraient l'implication de la ventilation orale dans la survenue d'une altération de l'alignement postural, aucune n'apportait d'élément clair sur le mécanisme physiopathologique.

### 3.6. LIEN ENTRE VENTILATION ORALE, POSTURE ET DYSMORPHIE

L'hypothèse d'un lien de causalité entre ventilation orale, d'une part, et dysfonction posturale cervicale et projection antérieure de la tête, d'autre part, dans la dysmorphie est soutenue par plusieurs études publiées (Huggare & Laine-Alava, 1997; Seo-Young Lee et al., 2015). La ventilation orale est fréquente chez les enfants atteints de dysmorphie. Elle nécessite un traitement orthodontique précoce (Huggare & Laine-Alava, 1997). En l'absence de traitement, la ventilation orale se poursuit à l'âge adulte (Milanesi et al., 2011). L'hyperextension cervicale est un mécanisme adaptatif compensatoire qui augmente le volume des voies aériennes supérieures (Solow et al., 1996) et facilite la ventilation (Wei et al., 2017). De plus, la flexion cervicale augmente le risque de collapsus des voies aériennes supérieures, alors que l'extension cervicale augmente la stabilité des voies aériennes supérieures (Verin et al., 2002). Cette posture du rachis cervical et de la tête se retrouve également chez les patients présentant des dysfonctionnements anatomiques ou physiologiques des voies aériennes supérieures, comme le syndrome d'apnées obstructives du sommeil (SAOS) (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020).

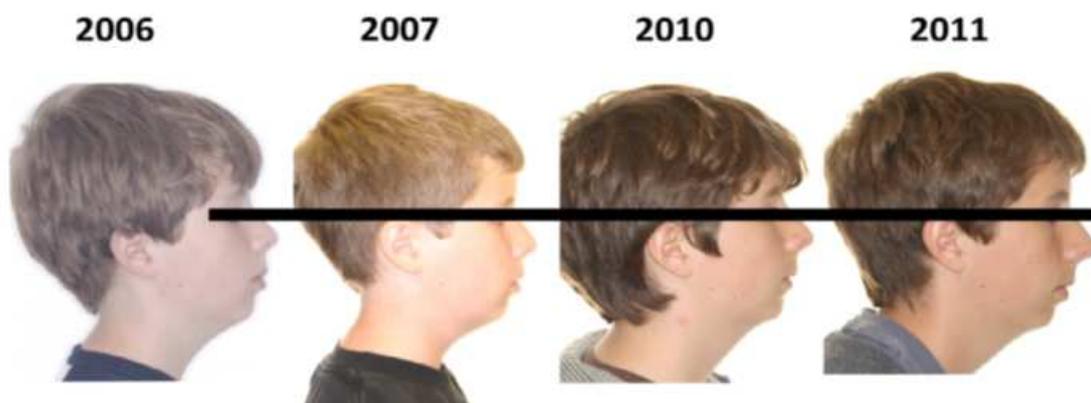


FIGURE 9: ÉVOLUTION DE LA POSTURE CERVICALE PATHOLOGIQUE CHEZ UN ENFANT VENTILATEUR BUCCAL (GUILLEMINAULT ET AL., 2013)

## 4. COUPLAGE POSTURO-VENTILATOIRE

### 4.1. COUPLAGE STRUCTUREL

En situation physiologique, le système postural est étroitement lié au système respiratoire (Perry & Carrier, 2006). En effet, les muscles respiratoires (notamment le diaphragme) sont des muscles posturaux et ont un rôle de maintien de l'équilibre et de la posture. Ainsi, le diaphragme et les muscles abdominaux sont activés lors de mouvements impliquant la nécessité de "fixer" le rachis lombaire, comme par exemple lors d'efforts de soulèvement (Wedin et al., 1988). De même, lors de mouvements de rotation du tronc, il existe une activation du diaphragme (Hudson et al., 2011).

Il a également été montré que la cage thoracique et les variations du volume pulmonaire jouent un rôle dans l'alignement postural. Chez l'adulte sain, l'inspiration maximale s'accompagne d'une réduction de la cyphose thoracique, alors qu'une hypercyphose est observée lors de l'expiration

maximale. Ces variations de courbure thoracique sont compensées par des modifications de l'orientation du bassin et des modifications de la statique rachidienne cervicale (Attali, *et al.*, 2019). De même, Khalifé, *et al.* ont confirmé le lien entre l'anatomie de la cage thoracique et l'alignement postural : ils ont montré une corrélation entre la cyphose thoracique, l'épaisseur de la cage thoracique et le volume de la cage thoracique (l'augmentation de la cyphose était associée à une augmentation de volume thoracique et de l'épaisseur du thorax). Il existe également une corrélation similaire entre ces paramètres anatomiques de la cage thoracique et la lordose lombaire (Khalifé, *et al.*, 2022).

#### 4.2. PERTURBATION DE L'ÉQUILIBRE PAR LA VENTILATION

Les mouvements ventilatoires perturbent cycliquement la posture. Le maintien de l'équilibre nécessite des adaptations constantes au cours du cycle ventilatoire (Kantor *et al.*, 2001) en mobilisant notamment les muscles paravertébraux lombaires, les articulations des hanches, les muscles du plancher pelvien de manière cyclique (Shirley, *et al.*, 2003). De fait, il existe, à l'état normal, chez des sujets se tenant immobiles en position debout, des oscillations minimales du centre de pression (Gurfinkel *et al.*, 1971; Kantor *et al.*, 2001) dont le lien avec la respiration est démontré par leur quasi-abolition lors de l'apnée (Caron *et al.*, 2004; Kantor *et al.*, 2001) et par leur phasage avec la respiration lorsque le rythme de celle-ci fait l'objet d'une modification volontaire (Hunter & Kearney, 1981). Ces données mettent en évidence l'existence d'un phénomène de perturbation (ventilatoire)/contre-perturbation (posturale), témoignant d'un couplage posturo-ventilatoire.

#### 4.3. CONTRÔLE CENTRAL DU COUPLAGE POSTURO-VENTILATOIRE

La ventilation fait l'objet d'un double contrôle : d'un contrôle automatique, dépendant des structures du tronc cérébral et également d'un contrôle volontaire, dépendant des aires motrices et de l'aire motrice supplémentaire. En ventilation spontanée, le contrôle automatique prédomine : elle reçoit de multiples afférences dans le but d'adapter la ventilation aux changements métaboliques (changement de pH dans le sang, par exemple). Le contrôle volontaire n'est activé qu'en cas d'augmentation des besoins ou, par exemple, pour réaliser une apnée (M. Raux *et al.*, 2007). La posture est aussi sous contrôle cortical, comme cela a été décrit dans le paragraphe 3.2 (Notion d'équilibre postural).

Le couplage posturo-ventilatoire est également sous contrôle central. La double tâche, procédé fréquemment utilisé en neurologie, se base sur l'hypothèse que les deux tâches réalisées simultanément utilisent des sous-systèmes fonctionnels et/ou cérébraux identiques. La double tâche va entraîner une augmentation des ressources attentionnelles : la performance du sujet sur une des deux tâches sera réduite (Pernon *et al.*, 2013). Lors d'une double tâche, il a été observé chez le sujet sain des modifications de la distribution des contre-perturbations à travers les différentes articulations (chevilles, genoux, pelvis, rachis cervical) (Clavel, Attali, *et al.*, 2020). De même, il a été démontré que le couplage posturo-ventilatoire augmente avec l'âge (Manor *et al.*, 2012), est influencé par une tâche

posturale sous-jacente (Kuznetsov et al., 2011) et est plus marqué yeux fermés que yeux ouverts, surtout chez les patients ayant souffert d'un accident vasculaire cérébral (Manor et al., 2012).

#### 4.4. METHODE D'ANALYSE DU COUPLAGE POSTURO-VENTILATOIRE – NOTION D'EMERGENCE

Le couplage posturo-ventilatoire est calculé à partir de données dynamiques comprenant la fréquence respiratoire et de données stabilométriques. Il faut donc deux éléments indispensables : une plateforme de force qui fournira les informations stabilométriques et une méthode de mesure de la fréquence respiratoire. Pour la fréquence respiratoire, une ceinture de pléthysmographie thoraco-abdominale permettant de mesurer les mouvements du thorax et/ou de l'abdomen peut être utilisée. L'émergence respiratoire (REm) est un critère qui permet d'évaluer le poids de la composante ventilatoire sur les mouvements cinématiques. Pour chaque signal cinématique, la REm est calculée comme le rapport de la puissance fréquentielle extraite de la bande fréquentielle de 0,08Hz centrée sur la fréquence ventilatoire par la puissance fréquentielle moyenne du signal (Clavel 2019; Hamaoui et al., 2010). Plus la REm tend vers 100, plus la composante ventilatoire dans le mouvement cinématique est importante (Clavel, 2019).

## 5. LE SYNDROME D'APNEES OBSTRUCTIVES DU SOMMEIL

### 5.1. DEFINITION ET DIAGNOSTIC

Le SAOS est défini par la survenue répétée d'obstructions des voies aériennes supérieures lors du sommeil, responsable de multiples micro-éveils et de désaturations intermittentes. Le diagnostic est clinique et polysomnographique et nécessite en particulier la mesure de l'index apnées-hypopnées (IAH).

On parle de SAOS en cas de présence des critères A ou B, et de la présence du critère C ("Recommandations pour la Pratique Clinique", 2010):

- A. Somnolence diurne excessive non expliquée par d'autres facteurs.
- B. Deux au moins des critères suivants, non expliqués par d'autres facteurs :
  - Ronflements sévères et quotidiens.
  - Sensations d'étouffement ou de suffocation pendant le sommeil.
  - Sommeil non réparateur.
  - Fatigue diurne.
  - Difficultés de concentration.
  - Nycturie (plus d'une miction par nuit).
- C. Critère polysomnographique ou polygraphique : apnées + hypopnées 5 par heure de sommeil (IAH  $\geq$  5).

En cas de suspicion de SAOS, un enregistrement polygraphique ou polysomnographique est réalisé pour confirmer le diagnostic et établir la sévérité de la pathologie. La sévérité du SAOS est basée

principalement sur la valeur de l'IAH. On dit que le SAOS est de sévérité légère si l'IAH est compris entre 5 et 15, modéré si l'IAH est compris entre 15 et 30 et sévère si l'IAH est supérieur à 30. La somnolence diurne est objectivée par l'interrogatoire et par l'échelle d'Epworth (Figure 10).

**ÉCHELLE DE SOMNOLENCE D'EPWORTH**

**Consigne de passation :**  
 Afin de pouvoir mesurer chez vous une éventuelle somnolence dans la journée, voici quelques situations relativement usuelles, où nous vous demandons d'évaluer le risque de vous assoupir. Aussi, si vous n'avez pas été récemment dans l'une de ces situations, essayez d'imaginer comment cette situation pourrait vous affecter.

Pour répondre, utilisez l'échelle suivante en entourant le chiffre le plus approprié pour chaque situation :

0 = aucune chance de somnoler ou de s'endormir  
 1 = faible chance de s'endormir  
 2 = chance moyenne de s'endormir  
 3 = forte chance de s'endormir

Situation	Chance de s'endormir			
Assis en train de lire	0	1	2	3
En train de regarder la télévision	0	1	2	3
Assis, inactif dans un lieu public (cinéma, théâtre, réunion)	0	1	2	3
Comme passager d'une voiture (ou transport en commun) roulant sans arrêt pendant une heure	0	1	2	3
Allongé l'après-midi lorsque les circonstances le permettent	0	1	2	3
Étant assis en parlant avec quelqu'un	0	1	2	3
Assis au calme après un déjeuner sans alcool	0	1	2	3
Dans une voiture immobilisée depuis quelques minutes	0	1	2	3

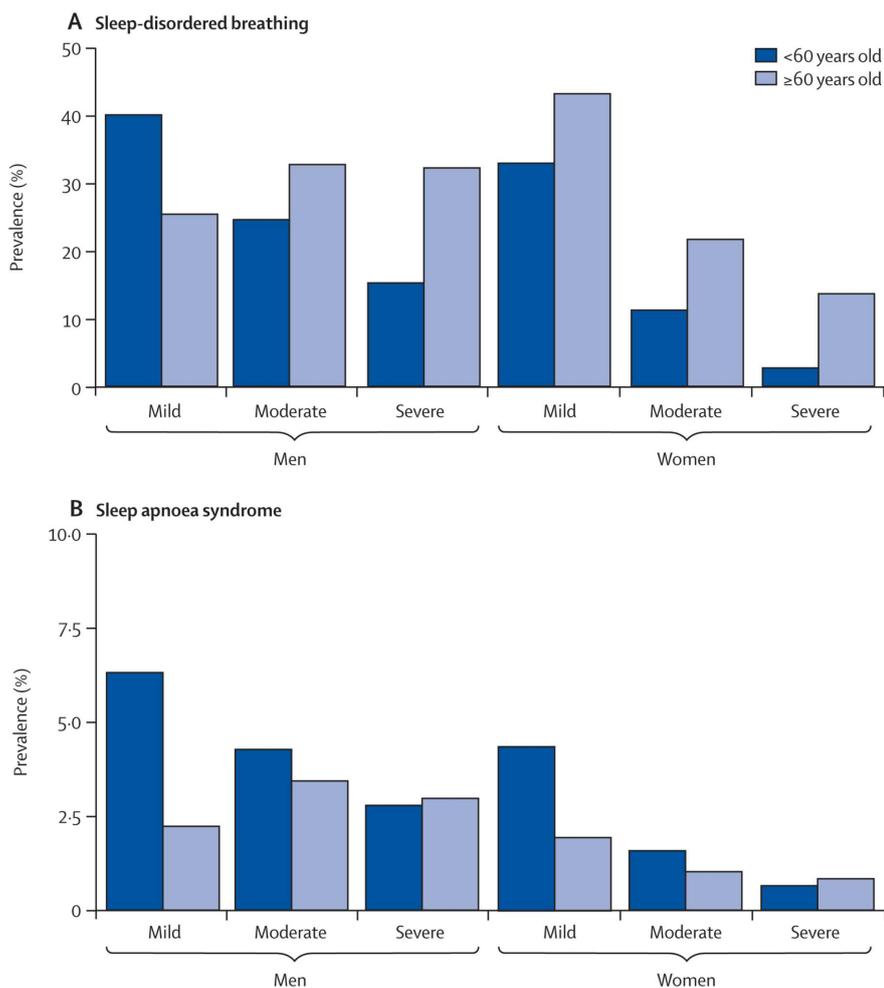
Total:

FIGURE 10: ECHELLE D'EPWORTH

L'obésité, l'âge supérieur à 60 ans, l'augmentation du périmètre cervical et le sexe masculin sont des facteurs associés au SAOS. Il s'agit d'une pathologie fréquente, dont la prévalence est variable suivant les études en fonction de leur méthodologie (cohorte ou échantillon, réalisation ou non de polysomnographies, définition du SAOS, seuil d'IAH, ...). Cette prévalence est probablement en augmentation en raison du vieillissement de la population et de l'augmentation de la prévalence de l'obésité. D'autre part, il y a souvent une confusion entre prévalence d'un IAH supérieur à 5, 10 ou 15 et prévalence du SAOS. On rappelle à cet effet que le SAOS est défini par un tableau clinique et un seuil d'IAH.

Les cohortes dites « historiques », qui ont été publiées entre les années 90 et 2000, rapportent une prévalence entre 1 et 5% . Dans l'étude de Young publiée en 1993, la prévalence de la pathologie était d'environ 4% des hommes et 2% des femmes en utilisant un seuil d'IAH > 5/h associée à une

hypersomnolence (Young et al., 1993). De même, Bixler *et al.* ont obtenu une prévalence de 3,9% chez l'homme, 1,2 % chez la femme en utilisant un seuil d'IAH > 10/h et une hypersomnolence (Bixler et al., 2001). Duran *et al.* ont obtenu une prévalence de 3,4% chez l'homme, 3% chez la femme avec les mêmes critères que Bixler (Durán et al., 2001). Dans une cohorte plus récente, l'étude Hypnolaus, publiée en 2015, la prévalence d'un IAH  $\geq 15$ /h était de 23% chez les femmes et de 49,7% chez les hommes (Heinzer et al., 2015). La figure ci-dessous (*figure 11*) extraite de l'étude Hypnolaus montre les prévalences respectives d'un IAH  $\geq 15$  et d'un SAOS défini par un IAH  $\geq 15$  et d'un score d'Epworth supérieur à 10.



**FIGURE 11: FIGURE ISSUE DE L'ETUDE D'HEINZER ET AL.. A : PREVALENCE D'UN IAH > 15/H .B : PREVALENCE D'UN SAOS DEFINI PAR UN IAH  $\geq 15$  ET D'UN SCORE D'EPWORTH SUPERIEUR A 10.**

L'augmentation constatée de la prévalence des troubles respiratoires nocturnes rapportée dans cette étude comparativement aux cohortes historique, peut en partie s'expliquer par l'amélioration de la détection des événements respiratoires par pression nasale associée à la thermistance, permettant de détecter des événements non vus avec une thermistance nasale seule (montage utilisé dans les cohortes historiques). D'autre part, cette étude a montré qu'un IAH > 20.6/h était associé de manière indépendante à l'hypertension artérielle, au diabète, au syndrome métabolique et à la dépression. Sur la base de ces résultats récents majeurs, les auteurs proposent de

réviser la définition du SAOS notamment le seuil d'IAH à considérer, l'intégration des différences hommes/femmes et la prise en considération des comorbidités.

Les patients atteints de SAOS sévère peuvent avoir un sommeil fragmenté par les événements respiratoires et globalement de mauvaise qualité, à l'origine d'une somnolence diurne. Cette somnolence est corrélée à l'augmentation du risque accidentel (Findley, *et al.*, 1988) et d'une altération de la qualité de vie (Kaplan, 1992). Le SAOS sévère est également un facteur de risque indépendant de comorbidités cardiovasculaires, métaboliques et neurocognitives (Heinzer *et al.*, 2015) ainsi que de décès (Gottlieb *et al.*, 2010; Redline *et al.*, 2010; Young *et al.*, 2008).

## 5.2. PHYSIOPATHOLOGIE DU SAOS

D'un point de vue physiopathologique, le SAOS est secondaire à une obstruction répétée des VAS lors du sommeil. Le collapsus survient lors d'un déséquilibre entre les « forces d'ouverture » et les « forces de fermeture » des VAS. L'obstruction peut être complète (le patient sera alors en apnée obstructive, alors qu'il continue à avoir des mouvements ventilatoires de plus en plus amples pour lutter contre l'obstacle) ou partielle (il s'agira alors d'une hypopnée obstructive). Ce collapsus est lié à l'anatomie des VAS : en effet, comme il a été présenté dans la première partie, les VAS sont un conduit souple, musculaire, susceptible de se collaber. Le muscle génioglosse permet physiologiquement de maintenir la perméabilité des VAS durant tout le cycle ventilatoire (Cheng *et al.*, 2008). Il se contracte avant le diaphragme, provoquant un déplacement antérieur de la langue durant l'inspiration, luttant ainsi contre la pression négative induite par la contraction du diaphragme et permettant ainsi de stabiliser les VAS. Dans le SAOS, au cours de la nuit, ce mécanisme protecteur du pharynx est mis en défaut et une obstruction se produit. L'absence d'apnée obstructive à l'éveil s'explique dans ce cas par l'existence d'un mécanisme adaptatif pathologique du cortex respiratoire qui renforce le couplage VAS/diaphragme (Launois *et al.*, 2015).

Le SAOS est une pathologie multifactorielle et plusieurs phénotypes de patients apnéiques peuvent être observés. Chez les patients obèses, l'accumulation de tissu adipeux dans les tissus mous pharyngés va entraîner une augmentation de la pression de fermeture qui finira par dépasser la capacité des muscles dilatateurs à maintenir les VAS ouvertes. Il en va de même chez les patients avec une hypertrophie amygdalienne. Dans d'autres cas, le SAOS est lié à une diminution de l'activité des muscles dilatateurs du pharynx, notamment du muscle génioglosse et du muscle tenseur du voile. C'est ce mécanisme qui est présent en cas de prise médicamenteuse ou d'alcool ou de manière intrinsèque.

Par ailleurs, il existe une proximité anatomique entre les VAS et le rachis cervical. Cette proximité explique le rôle que peut jouer le rachis cervical dans le SAOS. Certaines anomalies anatomiques du rachis cervical peuvent être responsables, dans certains cas, de SAOS en comprimant les VAS comme, par exemple, la présence d'ostéophytes de grande taille sur le rachis cervical (Khan *et al.*, 2014). De plus, l'alignement du rachis cervical joue un rôle dans la stabilité des VAS : la flexion du rachis cervical augmentait le risque de collapsus des voies aériennes supérieures (VAS), alors que l'extension augmentait la stabilité des VAS (Verin, *et al.*, 2002).

### 5.3. TRAITEMENTS DU SAOS

#### 5.3.1. Traitements non chirurgicaux

Le traitement de première intention du SAOS sévère ou modéré, avec soit des facteurs de sévérité cardiovasculaires sévères (hypertension artérielle résistante, fibrillation auriculaire récidivante, insuffisance ventriculaire gauche sévère ou maladie coronaire mal contrôlée, antécédent d'accident vasculaire cérébral), soit une somnolence diurne sévère, est la mise en place d'une ventilation par pression positive continue (PPC) nocturne (Cheng et al., 2008). Elle a prouvé son efficacité sur la normalisation de l'IAH chez les patients avec un SAOS modéré à sévère (Buchner et al., 2007). De même, elle diminue la somnolence des patients avec un SAOS et tend à améliorer leur qualité de vie (Venkatnarayan et al., 2021). Son principal inconvénient est la mauvaise observance des patients. En effet, l'observance à plus d'un an de traitement est comprise entre 65 et 85 % en fonction des études (Meurice et al., 1996; Wright et al., 1997). L'abandon se fait principalement dans les six premiers mois.

L'alternative à la PPC chez les patients porteurs d'un SAOS est l'orthèse d'avancée mandibulaire. Son efficacité a été largement démontrée dans de nombreuses études cliniques (Bloch et al., 2000; Lawton et al., 2005; Vecchierini et al., 2016). Elle est cependant moins efficace que la PPC sur la réduction de l'IAH (Lim *et al.*, 2006). En maintenant la mandibule en protrusion, les orthèses augmentent le calibre des voies aériennes, ce qui diminue leur collapsus au cours du sommeil (Fransson, 2003).

En cas de SAOS positionnel léger, un traitement positionnel peut être proposé. Il consiste à éviter le décubitus dorsal pendant le sommeil. Il faudra cependant vérifier l'efficacité de ce traitement par un enregistrement du sommeil

Les mesures hygiéno-diététiques sont toujours indiquées dans la prise en charge d'un patient souffrant d'un syndrome d'apnées obstructives du sommeil. Une réduction pondérale (en cas d'obésité ou de surpoids) et un arrêt des perturbateurs du sommeil (alcool, médicaments) doivent être proposés, mais également la reprise d'une activité physique régulière et une bonne hygiène de sommeil. La recherche et le traitement d'éventuelles comorbidités doivent être entrepris. Un suivi régulier pour favoriser la compliance au traitement et pour surveiller l'apparition de complications (syndrome métabolique, hypertension artérielle, cardiopathie) devra être initié.

#### 5.3.2. Traitement chirurgicaux

Il existe également des solutions chirurgicales. La chirurgie peut être proposée pour le traitement du SAOS dans les trois situations suivantes :

- En intention initiale de guérir.
- En aide à la compliance à la PPC ou à l'orthèse d'avancée mandibulaire (OAM).
- En solution de recours en cas d'échec des autres traitements.

Il existe plusieurs interventions pouvant être entreprises :

- La chirurgie des bases osseuses (chirurgie orthognathique) : il est recommandé de proposer une chirurgie d'avancée maxillo-mandibulaire chez des patients de moins de 65 ans, avec un SAHOS sévère (IAH  $\geq$  30/h) et/ou symptomatique, en échec ou en refus d'un traitement par PPC et OAM, en l'absence d'obstruction vélo-amygdalienne patente et de comorbidité exposant à un risque anesthésique ("Recommandations pour la Pratique Clinique", 2010).
- La chirurgie du voile du palais et des amygdales : seule l'amygdalectomie en cas d'obstruction amygdalienne importante peut être proposée car elle a prouvé son efficacité. L'uvulopalatoplastie, qui consiste à retirer du tissu au niveau de la luette et du voile du palais, a longtemps été pratiquée pour les SAOS. Son efficacité n'ayant pas été démontrée, elle n'est pas recommandée.
- La chirurgie linguale : en cas d'obstacle purement lingual objectivé par une fibroscopie pharyngée, une chirurgie de réduction de la base de la langue ou de repositionnement de la langue peut être proposée. Bien que cette intervention chirurgicale figure dans les recommandations pour la pratique clinique de 2010, cette intervention n'est quasiment jamais proposée ou réalisée.

La PPC et l'OAM sont des traitements symptomatiques et « palliatifs » : ils agissent en stabilisant les VAS lors du port de l'orthèse ou du masque, mais ils ne permettent pas une guérison. Le seul traitement curatif est la chirurgie orthognathique (ostéotomie d'avancée maxillo-mandibulaire ou OMM) (Goodday 2009; Vigneron *et al.*, 2017). Même si la technique chirurgicale est similaire à celle utilisée pour une dysmorphie, les mouvements à réaliser lors de l'intervention sont plus importants pour les patients atteints de SAOS: l'avancée doit être d'au moins 6 mm pour le maxillaire et 1 cm pour la mandibule et une rotation du complexe maxillo-mandibulaire dans le sens anti-horaire pour augmenter de façon optimale le volume des VAS doit être réalisée (Vigneron *et al.*, 2017).

Enfin, la neurostimulation du nerf hypoglosse est en cours d'évaluation. L'objectif est de stimuler unilatéralement le nerf hypoglosse (XII) à l'aide d'un dispositif implantable. La stimulation du muscle génioglosse est responsable d'une protraction de la langue (Lim *et al.*, 2006). Son application en pratique courante n'est pour le moment pas recommandée en France.

#### 5.4. SAOS ET TROUBLES POSTURAUX

Sur un plan structurel, des modifications statiques du rachis cervical et de la position de la tête ont été décrites dans le SAOS (Guilleminault & Huang, 2013; Sonnesen, 2010). L'apparition progressive de cette position de la tête chez des enfants SAOS incorrectement traités plaide en faveur d'une attitude compensatrice visant à favoriser une ventilation correcte (Guilleminault & Huang, 2013).

La thèse de Louis Clavel (Clavel, 2019) a permis de mettre en évidence une dysfonction posturale chez les patients avec un SAOS. Des anomalies de la statique rachidienne ont été observées : les sujets atteints de SAOS présentaient une hyperextension du rachis cervical, ainsi qu'une hypercyphose compensatrice du rachis thoracique (Clavel *et al.*, 2020b). Il a également été mis en évidence à l'éveil chez ces patients une altération du profil stabilométrique et une dysfonction du

couplage posturo-ventilatoire d'origine vraisemblablement centrale. Ces deux mécanismes physiopathologiques semblent liés à l'altération des propriétés mécaniques des VAS, qui serait secondaire pour l'altération du couplage posturo-ventilatoire à l'adaptation pathologique du cortex respiratoire. L'hyperextension du rachis cervical permettrait de stabiliser les VAS et de faciliter la ventilation (Wei et al., 2017). Il a en effet été montré que l'hyperflexion du rachis cervical augmentait le risque de collapsus des voies aériennes supérieures (VAS), alors que l'extension augmentait la stabilité des VAS (Verin et al., 2002). L'altération du couplage posturo-ventilatoire aurait une origine centrale potentiellement secondaire à l'adaptation pathologique du cortex respiratoire à l'éveil précédemment décrite dans le SAOS (Launois et al., 2015). Cette adaptation pathologique se manifestant par une signature électro-encéphalographique à type de potentiel pré-inspiratoire est impliquée dans les mécanismes protecteurs du collapsus des VAS à l'éveil. La présence de cette signature corticale pourrait altérer directement le couplage posturo-ventilatoire. D'autre part, elle est généralement associée à une consommation de ressources cognitives (Taytard et al., 2022) qui seraient potentiellement détournées de l'équilibre vers la ventilation, en altérant l'équilibre.

### *5.5. RELATIONS ENTRE SAOS ET DYSMORPHIE*

Comme évoqué précédemment, il existe différents phénotypes de SAOS. Chez certains patients, l'étranglement des VAS et certaines dysmorphies, notamment celles associées à une face longue, sont réputées être des facteurs favorisant l'instabilité des VAS et l'association à un SAOS. La possibilité de guérir certains patients avec une chirurgie d'avancée maxillo-mandibulaire (chirurgie orthognathique) augmentant le volume des VAS plaide également en faveur d'un lien entre la morphologie des VAS et le SAOS, en particulier chez des patients non obèses. Cette chirurgie est d'ailleurs le seul traitement curatif du SAOS (Vigneron et al., 2017).

Les patients avec un SAOS et les patients avec dysmorphies partagent également une autre similitude, la dysfonction ventilatoire. En effet, la ventilation orale est très fréquente dans ces deux populations de patients. Ruhle et al. ont observé une prévalence de 25 % de la ventilation orale chez une population de patients apnéiques (Ruhle & Nilius, 2008). Elle n'est cependant quasiment jamais recherchée par les cliniciens. La prévalence de la ventilation orale chez les patients dysmorphiques est difficile à chiffrer. Cependant, cette dysfonction ventilatoire est associée à un excès vertical antérieur et à un déficit transversal (Posnick & Agnihotri, 2010).

## 6. OBJECTIFS DE LA THESE

L'objectif de ce travail est double. Il s'agit dans un premier temps d'analyser la dysfonction posturale et le couplage posturo-ventilatoire chez les patients dysmorphiques. Nous faisons l'hypothèse que les patients dysmorphiques présentent une dysfonction posturale similaire aux patients qui ont un SAOS et que cette dysfonction posturale est associée à la ventilation orale. Il existe probablement une dysfonction posturale chez les patients présentant une dysmorphie maxillo-mandibulaire. Cependant, il n'est actuellement pas possible de caractériser la dysfonction posturale chez dysmorphiques avec les données actuelles de la littérature. Ainsi, avec ce travail, nous avons étudié les caractéristiques posturales statiques (alignement postural) et dynamiques (étude stabilométrique), ainsi que le couplage posturo-ventilatoire de 30 patients avant chirurgie orthognathique. Les données de ces 30 patients ont été comparées à celles de 20 sujets sains. De plus, nous avons étudié l'impact de la chirurgie orthognathique sur cette dysfonction posturale : l'analyse posturale et posturo-ventilatoire des sujets dysmorphiques a été refaite à 1 an post-opératoire.

Dans un second temps, nous souhaitons étudier la prévalence du SAOS dans une population de dysmorphiques. En effet, si certaines dysmorphies sont réputées être associées à un risque de SAOS, la prévalence du SAOS chez les patients présentant une dysmorphie avec indication opératoire et plus généralement dans la population générale des patients dysmorphiques n'est en réalité pas connue. Un des objectifs de cette thèse était d'évaluer la prévalence du SAOS dans une population de dysmorphiques avant chirurgie correctrice. Dans cette partie, nous avons également analysé les caractéristiques anatomiques des voies aériennes des patients dysmorphiques pour analyser le lien entre volume des voies aériennes et SAOS.

## PARTIE 2 : TRAVAIL PERSONNEL

### CHAPITRE 1 : REVUE DE LITTERATURE

Cette revue de littérature a fait l'objet d'un article publié dans l'*International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery* (Cf. Annexe 1). L'objectif de cette revue était de caractériser la relation entre posture et dysmorphie, de présenter les mécanismes physiopathologiques supposés et d'évaluer l'impact de la chirurgie correctrice sur la posture.

#### 1. MATERIELS ET METHODES

##### 1.1. STRATEGIE DE RECHERCHE ET CRITERES DE SELECTION DES ARTICLES

Nous avons procédé à une analyse systématique de la littérature conformément aux lignes directrices PRISMA (Hutton et al., 2015). Deux investigateurs ont indépendamment recherché des études dans les bases de données MEDLINE, SCOPUS et WEB OF SCIENCE et dans la bibliothèque COCHRANE. Nous avons inclus tous les articles originaux sur la posture et la DMM chez les adultes, rédigés en anglais et publiés entre 1900 et mars 2020. Nous avons exclu les études portant uniquement sur l'évaluation cervicale et les rapports de cas (*case reports*), et les études ne comportant pas d'évaluation posturale. Les études évaluant l'impact du positionnement mandibulaire (par exemple, en utilisant des attelles pour simuler différentes positions occlusales) ou portant uniquement sur des patients présentant des malocclusions de classe I ont également été exclues. La séquence de recherche comprenait plusieurs mots-clés et termes MeSH pour une large couverture du sujet. La recherche a consisté en une combinaison des titres suivants : 1) évaluation posturale, 2) malocclusion. Les mots-clés relatifs à la posture étaient les suivants : "posture", "postural evaluation", "postural balance", "postural assessment", "sagittal balance". Les mots-clés utilisés pour la DMM étaient les suivants : "orthognathic surgery", "malocclusion", "dysgnathia", "jaw abnormalities", "dentofacial deformities", "jaw deformities", "dysmorphia". La revue a été enregistrée dans la base de données PROSPERO (numéro 160990).

##### 1.2. ÉVALUATION DE LA QUALITE ET DU RISQUE DE BIAIS

Pour évaluer la qualité, le risque de biais et l'applicabilité de chaque étude, les informations ont été recueillies à l'aide d'une liste de contrôle adapté (*tableau 1*), basée sur l'outil QUADAS-2 (Whiting et al., 2011) et les recommandations du *Cochrane Handbook for Systematic Reviews of Diagnostic Test Accuracy* (Leeftang et al., 2008). Si l'étude ne contenait pas suffisamment de détails, le risque de biais a été jugé "incertain". Ces décisions ont été prises indépendamment par deux des auteurs de la revue. Les désaccords ont été résolus par la discussion et, en cas d'échec, par la consultation d'un troisième auteur pour arbitrage.

TABLEAU 1: ÉVALUATION DE LA QUALITE ET DU RISQUE DE BIAIS

Domain 1: Patient selection	
A. Risk of bias	
Describe methods of patient selection:	
• Was a consecutive or random sample of patients enrolled?	Yes/No/Unclear
• Did the sample include an appropriate spectrum of objects (patients)?	Yes/No/Unclear
• Did the study avoid inappropriate exclusions?	Yes/No/Unclear
<b>Could the selection of patients have introduced bias?</b>	<b>RISK: LOW/HIGH/UNCLEAR</b>
B. Concerns regarding applicability	
Describe included patients (medical history, type of skeletal malocclusion):	
<b>Is there concern that the included patients do not match the review question?</b>	<b>CONCERN: LOW/HIGH/UNCLEAR</b>
Domain 2: Postural evaluation	
A. Risk of bias	
Describe the index test and how it was conducted and interpreted:	
• Was the postural evaluation performed with an objective test?	Yes/No/Unclear
• Was the execution of the postural evaluation described in sufficient detail to permit its replication?	Yes/No/Unclear
• Was there a controlled group?	Yes/No/Unclear
• Was the postural test validated?	Yes/No/Unclear
<b>Could the conduct or interpretation of the postural evaluation have introduced bias?</b>	<b>RISK: LOW/HIGH/UNCLEAR</b>
B. Concerns regarding applicability	
<b>Is there concern that the postural evaluation, its conduct, or interpretation differ from the review question?</b>	<b>CONCERN: LOW/HIGH/UNCLEAR</b>

### 1.3. Extraction des données

Les articles inclus ont été examinés en détail par les deux investigateurs. Les données de chaque étude concernant l'année de publication, le nombre de patients, le sexe, l'âge moyen, la population, la conception de l'étude et les résultats ont été extraites. Des informations supplémentaires sur les méthodes d'évaluation posturale, les résultats primaires et secondaires, le type de dysmorphie et l'impact de la chirurgie orthognathique sur la posture ont été enregistrées.

## 2. RESULTATS

Nous avons identifié 801 articles dans notre base de données. Après l'examen du titre et du résumé, 773 articles ont été exclus. Quinze articles ont été exclus après examen du texte intégral. Au total, 13 études cliniques ont été incluses (*figure 12*).

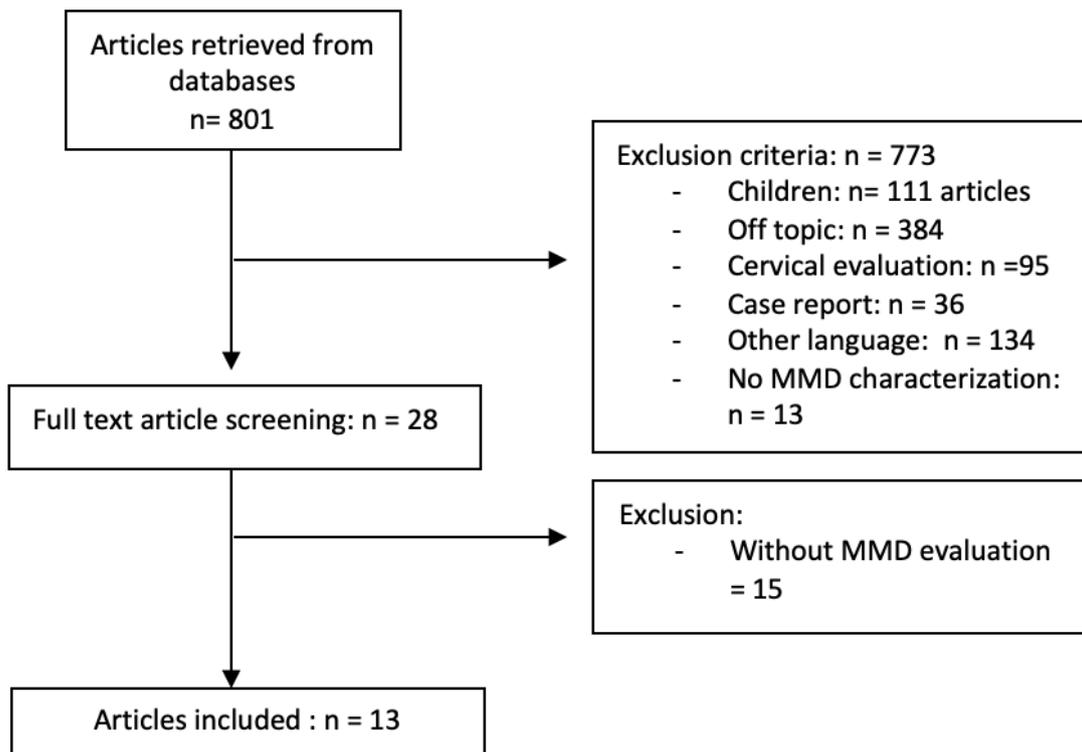


FIGURE 12: FLOW CHART DE LA REVUE DE LITTÉRATURE

### 2.1. ÉVALUATION DE LA QUALITE DES ETUDES ET DU RISQUE DE BIAIS

Aucune des études incluses ne portait sur des patients consécutifs ou randomisés. Deux articles présentaient des biais de sélection importants : une étude avait un sex-ratio de 0,16 (25 femmes et 4 hommes) (Iacob et al., 2018) et une étude n'incluait que des hommes (Scharnweber et al., 2017). Quatre études ont utilisé des méthodes d'évaluation posturale non validées (Iacob et al., 2018; Nobili & Adversi, 1996; Scharnweber et al., 2017; Zhou et al., 2013). Quatre études n'ont pas spécifié de critères d'exclusion (Nakashima et al., 2016, 2018; Sinko et al., 2006; Zhou et al., 2013). Sur ces 13 études cliniques, deux présentaient un risque majeur de biais (biais de sélection) et une qualité médiocre. Les onze études restantes peuvent être considérées comme étant de qualité moyenne à bonne (*tableau 2*).

TABLEAU 2: ÉVALUATION DU RISQUE DE BIAIS ET DE LA QUALITE DES ETUDES

	Risk of bias		Applicability concerns	
	Patient selection	Postural evaluation/ Index test	Patient selection	Postural evaluation/ Index test
Iacob <i>et al.</i> 2020	H	L	?	H
Paya-Argoud <i>et al.</i> 2019	L	L	L	L
Nakashima <i>et al.</i> 2018	?	L	L	L
Kulczynski <i>et al.</i> 2018	L	?	L	L
Kulczynski <i>et al.</i> 2017	L	?	L	L
Scharnweber <i>et al.</i> 2017	H	?	H	H
Nakashima <i>et al.</i> 2016	?	L	L	L
Zhou <i>et al.</i> 2013	?	?	L	?
Lippold <i>et al.</i> 2007	L	L	L	L
Lippold <i>et al.</i> 2006	L	L	L	L
Lippold <i>et al.</i> 2006	L	L	L	L
Sinko <i>et al.</i> 2006	?	L	?	L
Nobili <i>et al.</i> 1996	L	?	L	L

**L** low risk of bias, **?** unclear, **H** high risk of bias

## 2.2. ÉVALUATION DE LA DMM

Les méthodes d'évaluation sont résumées dans le *tableau 3*. Quatre études ont caractérisé la DMM en se basant uniquement sur l'occlusion. Parmi elles, une étude a évalué l'occlusion dentaire à l'aide de modèles en plâtre. Cinq études ont examiné la morphologie cranio-faciale à l'aide de radiographies : quatre études ont évalué la DMM sur un seul cliché (soit sur une téléradiographie de face, soit sur une téléradiographie de profil) et l'une d'entre elles s'est appuyée sur les deux, mais n'a détaillé que l'évaluation frontale. Dans quatre études, la méthode d'évaluation de la DMM n'était pas détaillée.

TABLEAU 3: METHODES D'ANALYSE DE LA DYSMORPHIE RELEVÉES DANS LA LITTÉRATURE

Author	Year	Type of MMD evaluation	Parameter	Method of evaluation
Paya-Argoud <i>et al.</i>	2019	N/A	Skeletal class	N/A
Iacob <i>et al.</i>	2018	clinical evaluation	Dental occlusion	Right and left Angle class
Nakashima <i>et al.</i>	2018	Postero-anterior cephalometric radiographs	Lateral deviation of the mandible	Angle between the vertical axis and menton (Me).
Kulczynski <i>et al.</i>	2018	N/A	Skeletal class	N/A
Kulczynski <i>et al.</i>	2017	N/A	skeletal class	N/A
Scharnweber <i>et al.</i>	2017	Plaster models	Dental occlusion	First molar relation
				Cuspid relation
				Overjet and overbite
				Crossbite
				Midline shift/deviation
Nakashima <i>et al.</i>	2016	N/A	Skeletal class	ANB angle (A point, Nasion, B point)
		Postero-anterior radiographs	Lateral deviation of the mandibule	Angle between the vertical axis and menton (Me)
Zhou <i>et al.</i>	2013	Postero-anterior radiographs	Mandibular deviation	Obvious difference in the lengths of the two mandibular rami, and a vertical distance from the chin ridge to inferior orbital fissure (IOF) line greater than 2 mm.
Lippold <i>et al.</i>	2007	Lateral radiographs	Cephalometric analysis	Facial axis: Ba-N-Pt-GnK
				Mandibular plane angle: P-Or-Me-hT
				Inner gonial angle: Xi-Spa-Xi-Pm
				Lower facial height: Xi-DC-Xi-Pm
				Facial depth: P-Or-N-Po
				Maxillary position: Ba-N-N-A

Lippold <i>et al.</i>	2006	Clinical evaluation	Dental occlusion	Overjet: Class I "normal overjet" 1 – 3 mm, Class II "increased overjet" 4 – 10 mm and Class III "reversed overjet" < 1 mm
Lippold <i>et al.</i>	2006	Lateral radiographs	Cephalometric analysis	Facial axis: Ba-N–Pt–GnK
				Mandibular plane angle: P–Or–Me–hT
				Inner gonial angle: Xi–Spa–Xi–Pm
				Lower facial height: Xi–DC–Xi–Pm
				Facial depth: P–Or–N–Po
				Maxillary position: Ba–N–N–A
Sinko <i>et al.</i>	2006	N/A	Skeletal class	N/A
			Mandibular asymmetry	N/A
Nobili <i>et al.</i>	1996	Clinical evaluation	Dental occlusion	Angle Class
<i>N/A : information not available. Ba: Basion, N: Nasion, Pt: foramen rotandum, GnK: Gnathion, P: Porion, Or: Orbital, Me: Menton, hT: horizontal mandibular tangential point, Xi: Xilion, Spa: anterior nasal spine, Pm: Suprapogonion, DC: condyle</i>				

### 2.3. METHODES D'EVALUATION DE LA POSTURE

Dix études ont évalué la posture de manière « statique », dont quatre se sont appuyées sur la rastéréographie (Lippold *et al.*, 2006b, 2006a, 2007; Sinko *et al.*, 2006), deux sur la photogrammétrie (Kulczynski *et al.*, 2018; Kulczynski *et al.*, 2017) et trois sur les radiographies (Nakashima *et al.*, 2016, 2018; Zhou *et al.*, 2013). La photogrammétrie quantifie l'évaluation posturale en mesurant les distances linéaires et les angles formés entre les lignes reliant les marqueurs corporels et les lignes horizontales ou verticales sur des photographies numériques à l'aide d'un logiciel spécialement conçu à cet effet. La rastéréographie est une procédure de multi-coupes lumineuses simultanées : 81 sections lumineuses sont projetées sur le dos du sujet, ce qui produit un motif unique de lignes légères et lourdes. La surface incurvée du dos entraîne une distorsion des lignes. Le motif lumineux est enregistré à l'aide d'une caméra vidéo et une analyse de la forme de la surface est effectuée par ordinateur. En ce qui concerne les évaluations radiographiques, seule une radiographie du thorax de face a été réalisée dans une étude afin de rechercher une scoliose (Nakashima *et al.*, 2016), tandis que les deux autres études ont complété l'examen postural par des photographies ou des radiographies de la tête (Zhou *et al.*, 2013).

Trois études ont évalué l'équilibre corporel à l'aide de plateformes de force (Nobili & Adversj, 1996; Scharnweber *et al.*, 2017), dont une a complété l'examen postural par des photographies (Paya-Argoud *et al.*, 2019).

## 2.4. LIEN ENTRE LA POSTURE ET LES DYSMORPHIES

Parmi les dix études cliniques qui ont évalué l'interaction entre la posture corporelle et la DMM, huit ont trouvé une association significative. Deux études ont montré une corrélation entre l'augmentation de la lordose cervicale et les patients avec une classe III (Kulczynski *et al.*, 2018; Kulczynski *et al.*, 2017). Au niveau du rachis thoracique, deux études ont montré une interaction entre la déviation mandibulaire et la scoliose (Nakashima *et al.*, 2016; Zhou *et al.*, 2013) et une étude a montré que les patients avec une classe II ou III présentaient une apex de cyphose thoracique à l'apex plus haut que les témoins (Sinko *et al.*, 2006).

Quatre études ont démontré une association significative entre l'anatomie de la colonne lombaire et du bassin et les DMM. Les patients présentant une classe III présentaient une antéversion pelvienne, une inclinaison du bassin et des angles de lordose lombaire plus importants que les témoins (Kulczynski *et al.*, 2018; Sinko *et al.*, 2006). Les patients avec une classe II présentaient également une inclinaison du bassin plus importante que les témoins (Sinko *et al.*, 2006). Lippold *et al.*, ont constaté que l'angle de lordose lombaire était en corrélation avec certains paramètres céphalométriques décrivant la hauteur faciale. Dans une seconde étude, les mêmes auteurs ont également démontré une corrélation entre la torsion pelvienne et céphalométriques, certains paramètres céphalométriques décrivant la hauteur faciale. Un article a mis en évidence une interaction entre l'inclinaison de la tête et la déviation mandibulaire. Les résultats sont résumés dans le *tableau 4*.

TABLEAU 4: TABLEAU RESUMANT LE LIEN ENTRE POSTURE ET DYSMORPHIE

1st author	Nb of patients	Type of MMD / malocclusion	N of patient in the control group	Nature of control group	Postural evaluation method	Main finding
Iacob <i>et al.</i>	10	Abnormal occlusion (class II or class III)	14	Angle class I	Posturescreen® software	No significant difference between the 2 groups
Nakashima <i>et al.</i>	45	Non syndromic patients needing orthognathic surgery	45	Preoperative patients	Chest Xrays	In the vertebrae deviation group (over 10°), vertebrae deviation tended to decrease after surgery
					Photographs	One patient with leftward mandibular deviation tended to incline the head in a cranially right and caudally left (counterclockwise) direction
Kulczynski <i>et al.</i>	16	Class III patients who underwent orthognathic surgery	15	Class III patients not operated yet	Photogrammetry	Significant difference between preoperative and postoperative patients, correction of cervical lordosis
						Significant difference between preoperative and postoperative patient : greater pelvic anteversion in the control group
Kulczynski <i>et al.</i>	40	Class III patients needing orthognathic surgery	N/A	No control group, values compared to reference values	Photogrammetry	Decreased cervical lordosis
						Increased kyphosis
						Scapular horizontal asymmetry
Nakashima <i>et al.</i>	79	Non syndromic patients needing orthognathic surgery	N/A	N/A	Chest Xrays	Positive correlation between Cobb's angle and the degree of mandibular deviation in the group with an ANB angle < 0
Zhou <i>et al.</i>	35	Patients with skeletal mandibular deviation	10	Neutral occlusion, normal facial appearance	Full spine X rays	Positive correlation between the degree of mandibular deviation and trunk balance
						Degree of scoliosis higher in the group with mandibular deviation
Lippold <i>et al.</i>	53	Patients with class II and III malocclusion. Cephalometric analysis	N/A		Rastereography	Pelvic torsion is correlated with some cephalometric parameters (the facial axis and the facial depth)
Lippold <i>et al.</i>	84	Patients with class II and class III malocclusion	14	normal overjet	Rastereography	No significant differences

Lippold <i>et al.</i>	53	Patients with class II and III malocclusion. Cephalometric analysis	N/A		Rastereography	Lordotic angle is correlated with some cephalometric parameters (the facial axis, the inner gonial angle and the mandibular plane angle)
						Pelvic inclination is correlated with some cephalometric parameters ( the facial axis, the inner gonial angle, the mandibular plane angle and the facial depth )
Sinko <i>et al.</i>	29	Patients needing orthognathic surgery	12	Normal occlusion and no MMD	Rastereography	The apex of lumbar lordosis was more caudal in class II than in healthy controls. The lumbar lordosis angle is more pronounced in class III patients compared to control
						The tilt of the iliac crest in patient with class II and III differed minimally but significantly from that of healthy controls.
N/A: Not applicable						

## 2.5. LIEN ENTRE EQUILIBRE POSTURAL ET DYSMORPHIES

Parmi les trois études cliniques comprenant une évaluation de l'équilibre, deux études ont comparé des patients présentant une malocclusion de classe II à des patients présentant une malocclusion de classe III. Une étude a mis en évidence une interaction entre la malocclusion et l'équilibre, avec un centre de masse déplacé vers l'avant chez les sujets présentant une malocclusion de classe II et un centre de masse déplacé vers l'arrière chez les sujets présentant une malocclusion de classe III (Nobili & Adversi, 1996), tandis que l'autre étude clinique n'a montré aucune différence entre les patients de classe II et les patients de classe III (Scharnweber et al., 2017). Une étude a évalué l'équilibre de patients avec des classes II et des classes III avant et après l'intervention chirurgicale : l'article ne fournit aucune information sur la différence d'équilibre corporel entre les sujets avant l'intervention (Paya-Argoud et al., 2019). Les résultats sont présentés dans le *tableau 5*.

TABLEAU 5: LIEN ENTRE EQUILIBRE POSTURAL ET DYSMORPHIE

1st author	Nb of patients	Type of MMD / malocclusion	N of patient in the control group	Nature of control group	Postural evaluation method	Main finding
Paya-Argoud <i>et al.</i>	22	Orthognathic surgery was needed to treat dysmorphic jaws in sagittal deformity (class II (n=10), class III (n=10)) or vertical deformity (n=2).	22	Preoperative patients	Photographs	Surgery significantly improved head orientation when patients were tested in Eyes Closed and in occlusion condition
					Force platform	Surgery had a larger impact on the velocity of the CoP in the Resting Position condition
						Spectral power density was significantly decreased after orthognathic surgery
Scharnweber <i>et al.</i>	87	Male patients without medical history	N/A	Comparison of subgroups according to angle class, overjet or crossbite	Force platform	No statistical difference
Nobili <i>et al.</i>	50	Patients without medical history	N/A	Comparison of subgroups according to angle class	Force platform	Class II patients have a more anterior displaced posture. Class III patients a more posterior

N/A: not applicable, CoP: center of pressure

## 2.6. IMPACT DE LA CHIRURGIE ORTHOGNATHIQUE SUR LA POSTURE

Quatre articles ont évalué l'impact de la chirurgie orthognathique sur la posture. Dans trois études, une amélioration a été mise en évidence. Les résultats sont résumés dans les tableaux 4 et 5. Sinko *et al.* n'ont trouvé aucun effet de la chirurgie sur la posture, tandis que Kulczynski *et al.* ont démontré un déplacement postérieur important du tronc, permettant un réalignement corporel global et une correction de la lordose cervicale chez les patients avec une malocclusion de classe III. L'inclinaison de la tête et la scoliose se sont significativement améliorées un an après la chirurgie chez les patients présentant une asymétrie sévère de la mâchoire (la scoliose n'est cependant pas guérie après une chirurgie orthognathique). En ce qui concerne l'équilibre corporel, la stabilité a été améliorée après la chirurgie orthognathique dans l'étude de Paya *et al.*

### 3. CONCLUSION

L'objectif de cette étude était de faire une revue systématique de la littérature pour évaluer le niveau de preuve existant sur le lien entre la DMM et la posture dans la littérature. Dix des treize articles inclus ont démontré des corrélations statistiquement significatives. Par conséquent, l'interaction entre la posture et la DMM est hautement probable. En outre, l'amélioration de la posture globale du corps constatée après une chirurgie orthognathique dans quelques études plaide également en faveur d'une interaction entre la posture et la DMM. Cependant, nous avons observé une grande hétérogénéité au sein des études en ce qui concerne la population étudiée, les méthodes d'évaluation de la posture, les méthodes d'évaluation de la dysmorphie et les critères d'évaluation de la posture. Ainsi, sur les treize articles étudiés, six méthodes d'évaluation de la posture ont été utilisées : cinq méthodes pour évaluer la posture du corps (photogrammétrie, rastéréographie, radiographie du thorax, radiographie complète de la colonne vertébrale et PostureScreen®, une application sur téléphone) et une méthode pour évaluer l'équilibre corporel (plateforme de force). La rastéréographie est la méthode d'évaluation la plus utilisée (quatre articles). Cependant, les critères diffèrent dans la plupart des études (seules deux études ont évalué la posture en utilisant les mêmes critères de rastéréographie). De plus, les études incluses dans notre revue ont caractérisé la posture par l'évaluation de différents segments de la colonne vertébrale : deux articles ont eu des résultats significatifs concernant la morphologie de la colonne cervicale, trois articles sur la colonne thoracique et quatre articles sur la colonne lombaire et le bassin.

### 4. POINTS CLES

En résumé, cette revue est en faveur d'un lien entre posture et dysmorphie. Cependant, il n'y a pas suffisamment de données disponibles dans la littérature internationale pour relier un type d'altération de l'alignement de la colonne vertébrale à une dysmorphie spécifique.

# CHAPITRE 2 : CARACTERISATION DE LA MORPHOLOGIE FACIALE A L'AIDE DE L'IMAGERIE BIPLANAIRE

## 1. INTRODUCTION

Un des objectifs de cette thèse était d'étudier la dysfonction posturale des patients dysmorphiques en utilisant l'imagerie biplanaire (BPXR) type EOS® (EOS imaging, Paris) (cf. Chapitre 3). Les données posturales obtenues chez les patients dysmorphiques à l'aide de la BPXR sont comparées à celles de sujets sains issus d'une base de données de patients sans dysfonction posturale. Cependant, les informations disponibles sur les sujets de cette base de données ne comprennent pas la morphologie faciale. Ainsi, les patients de cette base de données peuvent être dysmorphiques. Il est nécessaire de caractériser ces sujets sains sur le plan facial afin d'exclure de cette base de données les patients dysmorphiques.

L'analyse céphalométrique est une technique basée sur les téléradiographies de face et de profil, du crâne et de la face, couramment utilisée par les orthodontistes et les chirurgiens maxillo-faciaux pour compléter le diagnostic clinique d'une DMM. De nombreuses analyses ont été décrites pour caractériser la position théorique du maxillaire, de la mandibule, des incisives maxillaires et mandibulaires... Les téléradiographies (surtout les téléradiographies de profil) sont couramment utilisées pour établir un plan de traitement ou pour le suivi des patients avec une DMM. Elles sont également réalisées dans le bilan des patients avec un SAOS, avant un traitement par OAM. L'analyse céphalométrique traditionnelle est basée sur des repères et des lignes dessinés sur des calques en acétate ou sur des images radiographiques numérisées, et sur le calcul d'indices linéaires et angulaires spécifiques entre ces repères (Chen et al., 2004). La BPXR permet d'obtenir deux radiographies corps entiers en simultanée : une radiographie de face et une radiographie de profil. Berg *et al.* ont démontré que les radiographies obtenues (face et profil) par la BPXR du squelette facial étaient suffisantes pour l'évaluation de repères faciaux (Berg et al., 2020). Cependant, la radiographie latérale de la BPXR n'a jamais été utilisée pour l'évaluation céphalométrique.

L'objectif de notre étude était d'évaluer la faisabilité d'une analyse céphalométrique basée sur les images radiographiques latérales du crâne du BPXR pour caractériser avec précision la morphologie faciale. Cette étude a été publiée dans le *Journal of Clinical Medicine* et est disponible en *Annexe 2*.

## 2. MATERIEL ET METHODES

### 2.1. SUJETS

Les données d'imagerie de 22 patients ayant eu une téléradiographie de profil et une BPXR dans le cadre d'une étude clinique portant sur leur posture ont été recueillies dans le service de chirurgie maxillo-faciale de l'hôpital de la Pitié-Salpêtrière, à Paris. L'étude a inclus 14 patients présentant un SAOS (ISRCTN70932171) et 8 patients présentant une DMM (NCT03532828). Cette

étude a reçu l'approbation des comités d'éthique concernés (Comité de Protection des Personnes (CPP) Sud-Méditerranée 2018-A00362-53 et CPP Ile de France VI 2006-A00386-45). Tous les patients ont fourni un consentement éclairé écrit.

Huit patients ont été exclus car leurs téléradiographies n'étaient pas numérisées et ne pouvaient pas être importées au format DICOM (*digital imaging and communication in medicine*). Un patient a été exclu parce que sa tête était incomplète sur la vue latérale EOS. Nous avons analysé les données des 13 patients restants.

## 2.2. ACQUISITION DES IMAGES

Deux radiographies perpendiculaires biplanaires ont été obtenues simultanément à l'aide du système d'imagerie EOS dans une position standardisée, les mains reposant sur les joues (position libre modifiée par la *Scoliosis Research Society*) et les pieds étant positionnés comme décrit par Chaibi *et al.* (Chaibi *et al.*, 2012). La BPXR fournit deux radiographies orthogonales simultanées : une vue postéro-antérieure (PA) et une vue latérale. Les téléradiographies de profil ont été obtenues à l'aide d'un appareil céphalométrique numérique (Planmeca Promax, Planmeca®, Finlande). Les téléradiographies et la BPXR ont été réalisées à deux jours différents.

## 2.3. COMPARAISON DE LA BPXR ET DES TELERADIOGRAPHIES DE PROFIL

Pour comparer les deux types d'images, nous avons utilisé des angles céphalométriques courants (voir *tableau 6*). Les images DICOM des radiographies de profil obtenues par BPXR (*figure 13*) et des téléradiographies ont été importées dans IdefX (v5.1.0, Paris, France). IdefX est un logiciel développé pour traiter les images de BPXR afin de générer des modèles 3D à partir des deux radiographies biplanaires orthogonales. Les points de repère utilisés pour l'analyse sont présentés dans la *figure 14*. Les angles obtenus à partir du positionnement des repères ont été enregistrés. Les angles utilisés dans cette étude sont présentés dans le *tableau 6*. Pour le BPXR, les angles ont été obtenus de trois manières différentes :

- 1) Angles entre les lignes construites à partir des points positionnés sur la vue latérale du BPXR (BPXR-L).
- 2) Angles entre les lignes construites à partir des points positionnés sur la vue latérale du BPXR, positionnés à l'aide de la vue PA correspondante (une ligne indique la hauteur correspondante du point sur la vue PA lorsque le point est positionné sur la vue latérale dans Idefix (BPXR-LPA)).
- 3) Angles entre les lignes tracées directement sur la vue latérale BPXR, sans identification préalable du repère (BPXR-A).

Sur les téléradiographies de profil, l'analyse céphalométrique et le calcul des angles ont été effectués selon deux méthodes différentes : avec la construction de lignes droites directement sur la radiographie, sans positionner les points de repère (LC-A) et en utilisant les points (LC-L). La

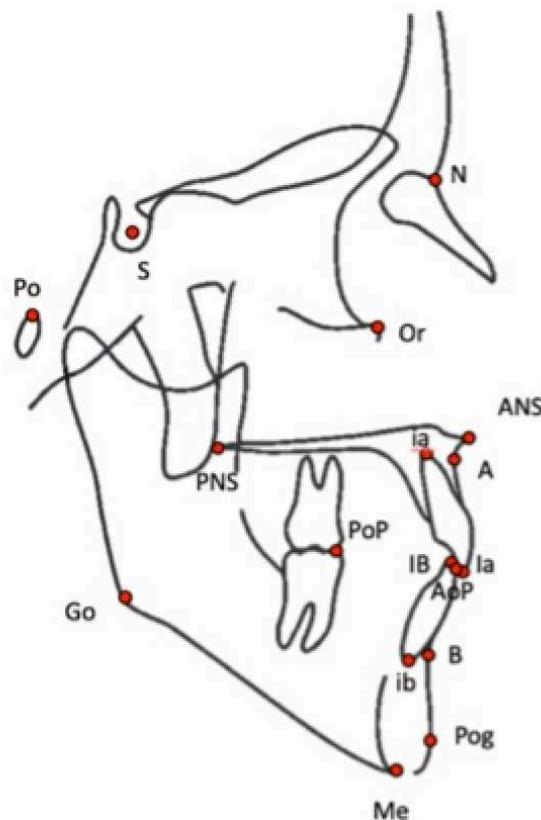
concordance des trois méthodes de BPXR avec la méthode de référence (LC-A) a ensuite été évaluée afin de déterminer la méthode de tracé sur BPXR la plus fiable.



FIGURE 13: VUE LATÉRALE DU CRÂNE ET DE LA FACE OBTENUE PAR BPXR

TABLEAU 6: ANGLES UTILISÉS DANS L'ÉTUDE DE REPRODUCTIBILITÉ

Angle	Definition
SNA	Angle entre la ligne passant par les points S et N et la ligne passant par les points S et A
SNB	Angle entre la ligne passant par les points S et N et la ligne passant par les points S et B
ANB	Angle entre la ligne passant par les points A et N et la ligne passant par les points N et B
FMIA	Angle entre le plan de Francfort (Or-Po) et la ligne représentant l'axe de l'incisive mandibulaire (Bi-bi)
FMA	Angle entre le plan de Francfort et le plan mandibulaire (Go-Me)
IMPA	Angle entre la ligne représentant l'axe de l'incisive mandibulaire (Bi-bi) et le plan mandibulaire
I/SN	Angle entre la ligne représentant l'axe de l'incisive maxillaire (Ia-ia) et la ligne passant par S et N
I/i	Angle entre la ligne représentant l'axe de l'incisive maxillaire (Ia-ia) et la ligne représentant l'axe de l'incisive mandibulaire (Bi-bi)
SN/Pocc	Angle entre la ligne passant par les points S et N et le plan d'occlusion (AoP – PoP)
Fr/Pocc	Angle entre le plan de Francfort et le plan d'occlusion
Max/Mand	Angle entre le plan maxillaire (ENA-ENP) et le plan mandibulaire



S : Centre de la selle turcique, N: Nasion, ANS : Épine nasale antérieure, PNS: épine nasale postérieure, A : point le plus postérieur de l'image de la concavité antérieure du prémaxillaire, B : point le plus postérieur de l'image de la concavité antérieure de la symphyse, Me : Menton, Po : Porion, Or: Orbital, Pg : Pogonion (point le plus antérieur de la symphyse mandibulaire), Go : Gonion, AI : Point médian du bord incisif de l'incisive centrale supérieure, BI: Point médian du bord incisif de l'incisive centrale inférieure, ai : Apex de la racine de l'incisive maxillaire, bi: Apex de la racine de l'incisive mandibulaire, AoP : point occlusal antérieur, PoP: point occlusal postérieur.

FIGURE 14: POINTS UTILISES POUR L'ANALYSE CEPHALOMETRIQUE

Pour chaque méthode, afin d'estimer la reproductibilité intra- et inter-opérateurs, la mesure de l'angle a été effectuée par les trois opérateurs, répétée trois fois pour les opérateurs 1 et 2 et deux fois pour l'opérateur 3, avec un intervalle minimum de deux semaines. Une session de formation a été organisée deux semaines avant la prise des mesures. Toutes les mesures ont été effectuées à l'aide d'IdefX.

## 2.4. ANALYSE STATISTIQUE

### Reproductibilité intra-opérateur

Pour chaque opérateur, la reproductibilité intra-opérateur (c'est-à-dire test-retest) a été étudiée :

- 1) Pour le positionnement des points (pour les trois méthodes utilisant des points de repère avant de tracer les lignes, c'est-à-dire LC-L, BPXR-L et BPXR-LPA).
- 2) Pour les angles (pour les cinq méthodes).

Cette reproductibilité a été évaluée à l'aide d'un coefficient de corrélation intraclasse ICC(A,1) selon la notation utilisée par McGraw et Wong (McGraw & Wong, 1996). L'ICC(A,1) est le rapport de variance quantifiant la concordance absolue entre les deux ou trois mesures d'un opérateur pour chacun des 13 patients (modèle ANOVA à deux voies). Les valeurs ICC inférieures à 0.5, comprises entre 0.5 et 0.75, entre 0.75 et 0.9 et supérieures à 0.9 indiquent respectivement une fiabilité médiocre, moyenne, bonne et excellente (Koo & Li, 2016). Les intervalles de confiance ont été estimés comme dans McGraw et Wong. Pour résumer les résultats, les ICC moyens de chaque opérateur ont été calculés avec la transformation de Fisher (c'est-à-dire  $\ln((1+r)/(1-r))$ ) des ICC individuels et retransformés.

### **Reproductibilité inter-opérateur**

La reproductibilité inter-opérateur a été étudiée :

- 1) Pour le positionnement des points (pour les trois méthodes utilisant les points avant de tracer les lignes, c'est-à-dire LC-L, BPXR-L et BPXR-LPA).
- 2) Pour les angles (pour les cinq méthodes).

Cette reproductibilité a également été évaluée à l'aide de l'ICC(A,1). Ici, le rapport de variance quantifie la concordance absolue entre une seule mesure des trois opérateurs pour chacun des 13 patients. Pour chaque patient, une seule mesure de chaque opérateur a été choisie au hasard parmi les deux ou trois qu'ils ont effectuées. Les moyennes des ICC pour les angles ou les méthodes ont été calculées à l'aide de la transformation de Fisher.

### **Concordance avec la méthode de référence**

Pour chaque opérateur, la concordance avec la méthode de référence (LC-A) a été étudiée pour chacune des quatre autres méthodes d'identification des angles. Cette concordance a également été évaluée à l'aide de l'ICC(A,1), ici le rapport de variance quantifiant la concordance absolue entre la mesure d'un opérateur utilisant la méthode d'intérêt et celle obtenue avec la méthode de référence, pour chacun des 13 patients. Pour synthétiser les ICC des trois opérateurs, les moyennes ont été calculées à l'aide de la transformation de Fisher.

L'analyse statistique a été réalisée avec MATLAB (version 9.10.0.1684407 (R2021a) update 3).

## **3. RESULTATS (LE DETAIL DES RESULTATS EST DISPONIBLE EN ANNEXE 2 DE CETTE THESE)**

### **3.1. SUR LE POSITIONNEMENT DES POINTS**

Nous avons constaté une excellente reproductibilité intra-opérateur pour la plupart des points. Tous les points avaient un ICC intra-opérateur > 0.9, quelle que soit la méthode. La reproductibilité inter-opérateur était également excellente. L'ICC inter-opérateur moyen était supérieur à 0.9 pour tous les points, à l'exception de "x-Or" (0.88) et "x-PoP" (0.76) pour la méthode LC-L.

### 3.2. ANGLES

La reproductibilité intra-opérateur était meilleure pour la méthode LC-A (ICC moyen de 0.95 pour les trois opérateurs et tous les angles). Sur la vue latérale de la BPXR, les angles mesurés entre les lignes tracées directement sur la radiographie (BPXR-A) ont présenté de meilleurs résultats (ICC moyen pour tous les angles = 0.94) que ceux acquis sur la base de l'identification des points ; l'ICC moyen était de 0.92 pour la méthode BPXR-LPA et de 0.90 pour la méthode BPXR-L.

La reproductibilité inter-opérateur était meilleure pour la méthode LC-A (ICC moyen de 0.87 pour les trois opérateurs) que pour la méthode LC-L (ICC moyen = 0.83). Les résultats pour chaque angle sont présentés dans le *tableau 7*. Pour la téléradiographie de profil, avec la construction de lignes droites pour effectuer l'analyse sans positionner préalablement les points, tous les angles ont montré une bonne ou excellente reproductibilité sauf les angles Fr/Pocc et I/SN. Pour la méthode LC-A, quatre angles présentaient une reproductibilité faible ou moyenne. Pour la méthode BPXR, la reproductibilité était meilleure avec la construction de lignes droites directement sans positionner préalablement les points (BPXR-A). Un seul angle présentait une reproductibilité faible ou moyenne avec cette méthode (ICC moyen de 0.42 pour Fr/Pocc). La reproductibilité était faible ou modérée pour cinq angles avec la méthode BPXR-LPA et pour quatre angles avec la méthode BPXR-L.

TABLEAU 7: REPRODUCTIBILITE INTER-OPERATEUR EN FONCTION DES ANGLES ET DES METHODES DE MESURE

Angle	LC-A <sup>1</sup>	BPXR-A <sup>2</sup>	BPXR-LPA <sup>3</sup>	LC-L <sup>4</sup>	BPXR-L <sup>5</sup>	Moyenne
SNA	0.84	0.92	0.92	0.78	0.95	0.90
SNB	0.98	0.93	0.95	0.87	0.94	0.94
ANB	0.79	0.84	0.90	0.87	0.73	0.84
FMIA	0.82	0.78	0.70	0.78	0.84	0.79
FMA	0.90	0.93	0.75	0.94	0.95	0.91
IMPA	0.83	0.77	0.70	0.73	0.68	0.75
I/SN	0.73	0.80	0.73	0.69	0.65	0.72
I/i	0.79	0.82	0.82	0.69	0.55	0.75
SN/ Pocc	0.92	0.79	0.91	0.83	0.71	0.85
Fr/Pocc	0.62	0.42	0.38	0.45	0.38	0.45
Max/Mand	0.96	0.92	0.93	0.96	0.86	0.93
Moyenne	0.87	0.84	0.83	0.82	0.81	-

1)LC-A: lateral cephalograms angles, angles obtenus en traçant directement les lignes sur la téléradiographie de profil 2)BPXR-A : BPXR angles, angles obtenus en traçant directement les lignes sur la BPXR , 3) BPXR-PA: angles obtenus après positionnement des points, aidé de la vue de face de la BPXR, 4) LC-L : angles obtenus après positionnement des points, sur la téléradiographie de profil, 5) BPXR-L: angles obtenus après positionnement des points sur la BPXR

La concordance avec la méthode de référence était meilleure avec la méthode BPXR-A : l'ICC moyen des angles était de 0.86. Il était de 0.84 pour la méthode BPXR-LPA et de 0.82 pour la méthode BPXR-L. La concordance avec la méthode de référence était bonne ou excellente pour la plupart des angles, à l'exception de Fr/Pocc (ICC moyen = 0.72).

## 4. DISCUSSION

A notre connaissance, notre étude est la première à évaluer la reproductibilité intra- et inter-observateur de trois méthodes d'analyse céphalométrique à partir des radiographies latérales obtenues par la BPXR. La meilleure concordance avec la méthode de référence (basée sur une téléradiographie de profil) a été obtenue en mesurant les angles d'intérêt par la construction directement de lignes droites sur les vues latérales de la BPXR.

Les méthodes d'acquisition de la BPXR et des téléradiographies sont intrinsèquement différentes. Le BPXR est principalement utilisé pour fournir des images fiables de la colonne vertébrale et de l'ensemble du squelette, tandis que la téléradiographie est dédiée à l'évaluation de la morphologie de la face et du crâne. Le système d'imagerie BPXR utilise une chambre proportionnelle multifil avec deux tubes à rayons X indépendants, chacun produisant un faisceau de rayons X en éventail de 45 cm de large, et des plaques de détection des rayons X (G. Charpak, 1981). Les faisceaux de rayon X balayent le sujet de la tête au pied avec une vitesse de 25 cm/seconde, verticalement de haut en bas et de manière perpendiculaire. Une téléradiographie de profil est une radiographie standardisée et reproductible prise à une distance de 1.5 m, la tête formant un angle droit avec le faisceau de rayons X. Le détecteur de rayons X est situé à 15 cm de la tête. La tête du patient est positionnée dans un céphalostat, qui comprend deux montants qui sont placés dans les méats auditifs externes, tandis que le plan sagittal du patient doit être parallèle au film radiographique. Les dents sont en occlusion centrée et le plan de Frankfort est aligné horizontalement. Comme les rayons X émanant de la source ont un schéma divergent, le degré d'agrandissement de l'objet varie sur la radiographie (Rino Neto et al., 2013). Les fabricants d'appareils de téléradiographie numériques incorporent des algorithmes après l'acquisition de la radiographie qui corrigent la distorsion de l'image produite par des géométries de faisceau potentiellement aberrantes (Chadwick et al., 2009). La position de la tête pendant l'acquisition de l'image diffère également entre les deux techniques d'imagerie. Pour la téléradiographie de profil, la tête est positionnée précisément à l'horizontale à l'aide d'un céphalostat, en maintenant la tête strictement orthogonale au faisceau de rayons X afin d'obtenir un "profil réel". Avec cette technique d'acquisition, on s'attend à une grande reproductibilité du positionnement de la tête. Cependant, la reproductibilité de la tête et des postures cervicales est faible (Wybier & Bossard, 2013). Lors de l'acquisition avec la BPXR, le patient se tient dans une position standardisée, les mains reposant sur les joues. Par conséquent, la position de la tête est libre afin de se positionner le plus naturellement possible. Même si le patient est placé dans l'alignement de la source de rayons X et dans l'axe latéral à l'aide d'autocollants au sol et de lignes de référence sur les murs de la cabine (*figure 15*), l'image latérale de la tête peut ne pas être un "vrai profil" parfait. Ces différences auraient pu avoir un impact sur nos résultats. Cependant, il semble que l'impact sur la concordance entre les deux méthodes d'imagerie soit faible, même si l'évaluation de la variabilité de l'acquisition n'a pas été effectuée dans cette étude.



**FIGURE 15: CABINE D'IMAGERIE DE BPXR (EOS IMAGING SYSTEM)**

La BPXR offre l'avantage de permettre des reconstructions 3D de la colonne vertébrale, y compris la colonne cervicale, avec une reproductibilité de l'équilibre sagittal plus élevée qu'avec l'imagerie 2D (Okamoto et al., 2018). Dans ce contexte, le BPXR est utilisé en pratique courante pour les décisions thérapeutiques lors du suivi de la scoliose. Les patients atteints de scoliose passent de nombreux examens par BPXR pour étudier l'évolution de leur état vertébral. L'incidence de la malocclusion dans cette population est plus élevée que chez les personnes sans scoliose (Laskowska et al., 2019). En outre, la dysfonction posturale semble être liée à des pathologies associées à des anomalies céphalométriques et à la ventilation orale, telles que les dysmorphies (Kerbrat, Schouman, et al., 2021), ou à l'instabilité des voies aériennes supérieures, telle que le SAOS (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020; Kerbrat, Schouman, et al., 2021). Par conséquent, l'utilisation de la BPXR pourrait permettre une évaluation simultanée des anomalies posturales et céphalométriques, qui sont souvent liées, tout en limitant l'exposition aux rayons X.

La position standardisée utilisée dans la BPXR décrite par Chaibi *et al.* est une position debout avec les mains reposant sur les joues (Chaibi et al., 2012). Elle augmente la superposition des structures anatomiques et donc la difficulté de positionnement des points utilisés pour l'analyse céphalométrique, en particulier les points dentaires. Il est bien connu que la superposition des éléments est une source d'erreur dans l'analyse céphalométrique et le positionnement des points (Houston et al., 1986). Dans notre étude, la reproductibilité intra-opérateur et inter-opérateur pour la mesure des angles était meilleure avec la téléradiographie de profil. Cependant, l'analyse de la vue latérale de la BPXR avec le tracé directement des lignes a également été associée à une reproductibilité intra-opérateur et inter-opérateur bonne à excellente. La superposition des mains reposant sur la mandibule a eu un impact négligeable sur l'analyse. Ce résultat est cohérent avec ceux de Berg *et al.*

qui n'ont pas trouvé de différences significatives dans la précision du positionnement des points anatomiques avec ou sans superposition des mains sur le squelette facial (Berg et al., 2020).

Dans notre étude, la reproductibilité inter- et intra-opérateur du positionnement de points anatomiques était satisfaisante pour les deux techniques d'imagerie. Dans la littérature, une seule étude a réalisé une évaluation similaire sur le squelette facial. Berg *et al.* ont évalué la faisabilité de l'évaluation précise des repères anatomiques du squelette facial sur la BPXR (Berg et al., 2020). Les points étaient détectables avec précision, même lorsque les patients avaient les mains devant le visage. Cependant, dans notre étude, les repères des deux techniques d'imagerie ont été obtenus dans deux cadres géométriques différents. La téléradiographie de profil ne contient que le crâne et la colonne cervicale, alors que le BPXR comprend l'ensemble du squelette. Les coordonnées « y » ne sont donc pas comparables. C'est pourquoi nous avons comparé les angles obtenus entre les deux techniques d'imagerie afin d'évaluer la faisabilité et la précision de l'analyse céphalométrique. En effet, seuls les angles sont des indices pertinents pour la pratique clinique, les points de repère anatomique isolés n'ont pas d'intérêt en pratique clinique.

La céphalométrie sur les images de la BPXR présentait une autre difficulté liée à l'acquisition à faible dose : le contraste des images de la BPXR était inférieur à celui des téléradiographies. Certains points anatomiques, en particulier les points dentaires, étaient difficiles à identifier sur les images de la BPXR. Cependant, certains points dentaires (en particulier les apex dentaires) sont connus pour être plus difficiles à identifier que les points squelettiques. Le placement des points de repère au niveau des apex dentaires est souvent basé sur la connaissance générale du taux de conicité attendu entre la couronne et la partie visible de la racine. Cette difficulté a été soulignée par plusieurs auteurs (Baumrind & Frantz, 1971; Tng et al., 1994). Dans notre étude, les angles les moins fiables étaient ceux qui impliquaient des points dentaires : les angles I/SN et Fr/Pocc. Pour évaluer la morphologie faciale sur la BPXR, il faut privilégier les angles squelettiques.

## 5. CONCLUSION

La BPXR fournit une radiographie du crâne et de la face adaptée à l'analyse céphalométrique avec une bonne fiabilité par rapport aux analyses céphalométriques basées sur les téléradiographies. Chez les patients nécessitant une évaluation posturale répétée avec l'imagerie BPXR, tels que les patients scoliotiques, ou ceux souffrant de SAOS ou de dysmorphie et d'une dysfonction posturale associée, une analyse céphalométrique et posturale concomitante est possible sur la seule BPXR, ce qui permet d'éviter une irradiation radiologique supplémentaire.

## 6. POINTS CLES

Il est possible de réaliser une analyse céphalométrique sur la radiographie de profil obtenue avec l'imagerie BPXR. Nous allons donc pouvoir caractériser sur le plan facial la base de données de sujets sains afin d'extraire les patients sans DMM.

## CHAPITRE 3 : ANALYSE DE LA DYSFONCTION POSTURALE CHEZ LES PATIENTS DYSMORPHIQUES

Cette partie a fait l'objet d'un article en cours de publication (*cf. Annexe 3*).

### 1. INTRODUCTION

Nous avons vu dans un chapitre précédant qu'il existe un certain nombre d'arguments en faveur d'une relation entre DMM et les troubles posturaux. En effet, ces patients présentent une attitude en hyperextension du rachis cervical. En revanche, les conséquences de cette altération de l'alignement cervical chez les patients dysmorphiques sur la posture corporelle globale sont inconnues. Chez les patients souffrant de SAOS, qui présente une posture cervicale comparable, une hypercyphose thoracique compensatoire a été décrite en réponse à l'hyperextension du rachis cervical (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020). Dans la littérature, aucune étude n'a évalué l'alignement postural des patients atteints de DMM avec des radiographies de face et de profil du rachis entier. Les études portant sur l'équilibre postural des patients avec une DMM se sont basées sur des méthodes non invasives indirectes comme la rastéréographie ou sur des radiographies incomplètes (radiographie du thorax seul ou du rachis entier mais que dans le plan frontal).

L'objectif de notre étude est d'évaluer la dysfonction posturale des patients dysmorphiques en utilisant la BPXR, de la comparer avec une cohorte de sujets sains. L'impact de la chirurgie sur la posture a également été étudié.

### 2. MATERIELS ET METHODES

#### 2.1. PATIENTS

Les patients ont été recrutés lors de la consultation préopératoire orthodontico-chirurgicale de l'Hôpital de la Pitié Salpêtrière, à Paris. Les patients inclus étaient des patients majeurs, en attente d'une chirurgie orthognathique et acceptant de participer à l'étude. Étaient exclus les patients qui présentaient les critères suivants : grossesse et/ou allaitement, antécédent de trouble postural traité (chirurgie rachidienne, scoliose traitée par corset, par exemple), malformation cranio-faciale syndromique, tutelle ou curatelle. L'étude a été validée par le Comité de Protection des Personnes (CPP) Sud Méditerranée en avril 2018 (numéro 2018-A00362-53).

## 2.2. GROUPE CONTROLE

Nous avons utilisé une base de données de 50 participants (Institut de Biomécanique Humaine Georges Charpak, ENSAM, Paris, France). Tous étaient exempts de troubles posturaux et aucun d'entre eux ne présentait de plainte évocatrice de dysmorphie. Tous les sujets ont eu une BPXR du corps entier dans le cadre d'une autre étude ((Clavel *et al.*, 2020), CPP Ile de France V n°06036). Une évaluation céphalométrique a été réalisée sur la BPXR (voir ci-dessous pour la procédure d'analyse céphalométrique utilisant la BPXR et pour la définition des variables céphalométriques) et a été réalisable pour 42 participants. Nous avons pris en compte les participants dont les variables céphalométriques se situaient dans une fourchette de normalité. La déviation par rapport à la norme était définie par trois variables céphalométriques en dehors de la norme ( $80^\circ < SNA < 84^\circ$ ,  $78^\circ < SNB < 82^\circ$ ,  $1^\circ < ANB < 4^\circ$ ,  $20^\circ < FMA < 28^\circ$ , rapport d'Izard  $> 0,47$ ) ou par une variable dépassant de 2,5 déviations standard la valeur normale ( $SNA < 77$  ou  $> 86^\circ$ ,  $SNB < 75^\circ$  ou  $> 84^\circ$ ,  $ANB < -1^\circ$  ou  $> 8^\circ$ ,  $FMA > 35^\circ$  ou  $< 15^\circ$  et rapport d'Izard  $< 0,45$ ). Enfin, 20 participants correspondant au groupe DMM en termes d'âge et de sexe ont constitué le groupe de contrôle.

## 2.3. ÉVALUATION DE LA TYPOLOGIE FACIALE

Dans le groupe présentant une DMM, une analyse clinique de la dysmorphie a été réalisée. Les données cliniques suivantes ont été relevées :

- Hauteurs faciales cliniques : le rapport entre la longueur du tiers moyen de la face (distance entre l'ophryon cutané et la columelle) et la longueur du tiers inférieur de la face (distance entre la columelle et le menton cutané) a été relevé (*figure 16*). En fonction des résultats, une typologie de type face longue (excès du tiers inférieur de la face), équilibré ou face courte (insuffisance du tiers inférieur de la face) est établie.
- La classe dentaire : la classe dentaire I, II ou III selon la classification d'Angle (*figure 1, partie 1*).
- Le mode ventilatoire : ventilation orale ou nasale. Les patients ayant une ventilation mixte (nasale et orale) sont considérés dans cette étude comme des ventilateurs oraux.

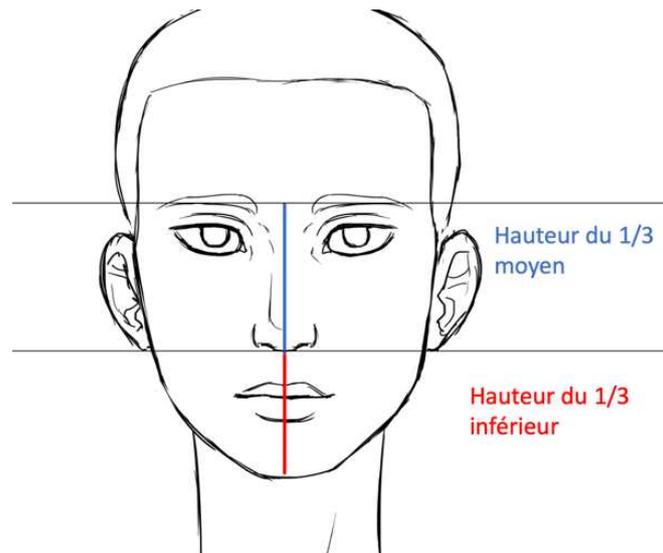


FIGURE 16: MESURE DES HAUTEURS FACIALES

Pour tous les patients, une analyse céphalométrique a été réalisée à partir des images de face et de profil du crâne obtenues avec l'imagerie biplanaire. Les mesures suivantes ont été relevées (figure 17 A et B) :

- Angle SNA : angle entre les points S (selle turcique), N (Nasion) et A (point le plus postérieur de l'image de la concavité antérieure du prémaxillaire).
- Angle SNB : angle entre les points S, N et B (point le plus postérieur de l'image de la concavité antérieure de la symphyse).
- Angle ANB : angle entre les points A, N et B.
- Angle FMA : angle entre le plan de Francfort (plan passant par le Porion (sommet du conduit auditif externe) et le point Or (point le plus inférieur de l'orbite)) et le plan mandibulaire.
- Rapport d'Izard : rapport entre la distance inter-molaire (entre les faces vestibulaires des couronnes des premières molaires maxillaires) et la distance bizygomatique.

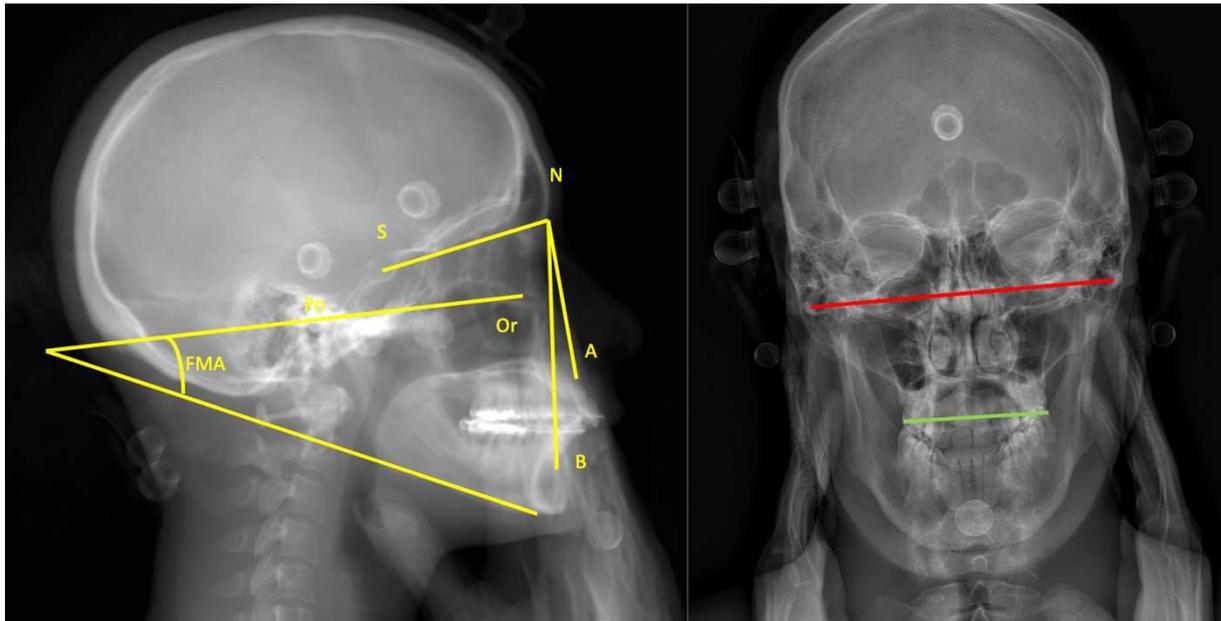


FIGURE 17A ET B: ANALYSE CEPHALOMETRIQUE SUR L'IMAGE OBTENUE AVEC LA BPXR

Sur la vue latérale, N : Nasion, A : point A (point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure du maxillaire), S : centre de la selle turcique, B : point B (Point le plus déclive, sur la ligne médiane de l'image de la concavité antérieure de la mandibule), Po : Porion, Or : Orbital. SNA : angle entre la ligne passant par Na et S et la ligne passant par Na et le point A. SNB : angle entre la droite passant par Na et S et la droite passant par Na et le point B, ANB : angle entre la droite passant par Na et le point A et la droite passant par Na et le point B. FMA : angle entre le plan de Frankfort et le plan mandibulaire.

Sur la radiographie de face : Ligne rouge : distance entre les arcades zygomatiques, ligne verte : distance entre les molaires maxillaires. Rapport d'izard : rapport entre la distance entre les molaires maxillaires et la distance entre les deux os zygomatiques.

La faisabilité, la reproductibilité et la fiabilité d'une analyse céphalométrique avec la BPXR ont été exposées dans le chapitre précédant et ont fait l'objet d'une étude publiée dans le *Journal of Clinical Medicine* et visible en *Annexe 2*.

Nous avons caractérisé l'équilibre facial dans les trois dimensions : sagittale, verticale et transversale. Nous avons évalué l'équilibre sagittal en divisant les patients en trois classes squelettiques distinctes basées sur la mesure de l'angle ANB : classe I ( $1^\circ \leq ANB \leq 4^\circ$ ), classe II ( $ANB > 4^\circ$ ), classe III ( $ANB < 1^\circ$ ). Dans la dimension verticale, les patients ont également été répartis en fonction de la hauteur faciale, mesurée à l'aide de l'angle FMA, en trois catégories : face courte ( $FMA < 20^\circ$ ), face normale ( $20^\circ \leq FMA \leq 30^\circ$ ), face longue ( $FMA > 30^\circ$ ). Les dimensions transversales ont été définies en fonction du rapport d'izard : insuffisance (rapport Izard  $< 0.47$ ), normale (rapport Izard  $\geq 0.47$ ).

## 2.4. ÉVALUATION POSTURALE

L'acquisition radiologique a été réalisée en position debout, les patients se tenaient dans une position de référence, les mains sur les joues (Chaibi *et al.* 2012). Des reconstructions 3D ont été obtenues à partir du BPXR. Le point OD, défini comme le point le plus élevé de l'apophyse odontoïde de la deuxième vertèbre cervicale (C2), la colonne vertébrale de la troisième vertèbre cervicale (C3) au

sacrum (S1) et le bassin ont été reconstruits en utilisant des méthodes validées (Amabile et al., 2018). Les variables suivantes ont ensuite été calculées (*figure 18 A et B*) :

- La courbure du rachis cervical entre les vertèbres C3 et C7 (angle C3-C7).
- La courbure du rachis thoracique entre les vertèbres T1 et T12 (angle T1-T12).
- La courbure du rachis lombaire entre les vertèbres L1 et S1 (angle L1-S1).
- L'incidence pelvienne (représentée par l'angle entre la ligne perpendiculaire au plateau sacré en son point médian et la ligne reliant ce point à l'axe des têtes fémorales).
- La pente sacrée (représentée par l'angle entre le plateau sacré et l'horizontale).
- L'inclinaison pelvienne (représentée par l'angle entre une ligne verticale passant par la tête fémorale et une ligne passant par le plateau médio-sacré et la tête fémorale).
- L'angle entre la verticale et une ligne reliant OD au point médian d'une ligne coupant les têtes fémorales (HA) (angle OH-HA).
- L'angle entre la verticale et une ligne tracée à partir de OD et le point le plus élevé de C7 (OD-C7).
- L'axe vertical sagittal (SVA, correspondant à la distance horizontale entre l'aplomb de C7 et le coin postéro-supérieur de S1).

L'examen postural a eu lieu dans le mois précédant l'intervention et à un an postopératoire.

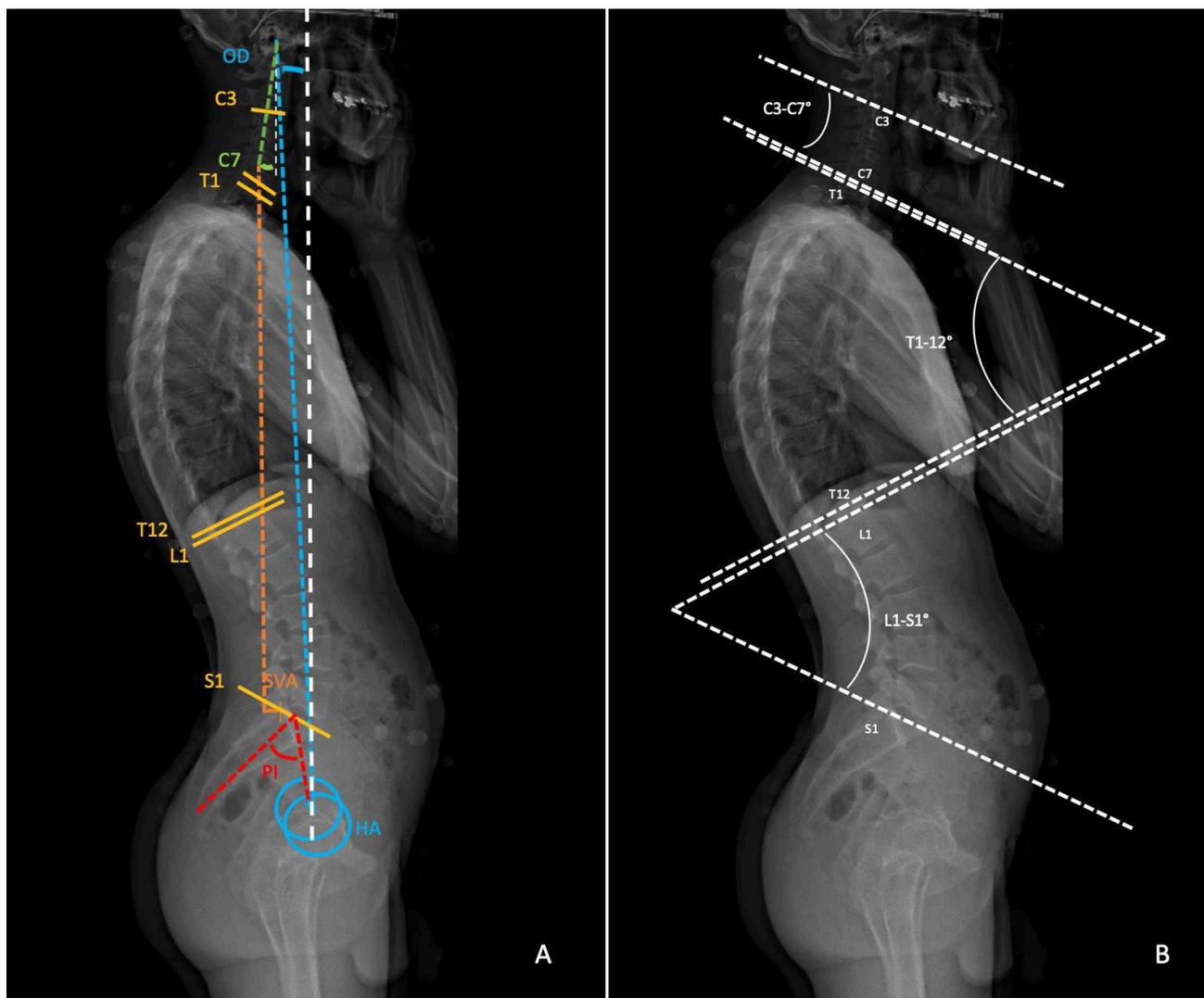


FIGURE 18A ET B: PARAMETRES UTILISES POUR L'ANALYSE POSTURALE

OD : point le plus élevé de l'apophyse odontoïde de la deuxième vertèbre cervicale. Angle C3-C7 : la courbure de la colonne cervicale entre les vertèbres C3 et C7. Angle T1-T12 : courbure du rachis thoracique entre les vertèbres T1 et T12. Angle L1-S1 : la courbure de la colonne lombaire entre les vertèbres L1 et S1. Incidence pelvienne : angle entre la ligne perpendiculaire à la plaque sacrée en son point médian et la ligne reliant ce point à l'axe des têtes fémorales. Angle OH-HA : angle entre la verticale et une ligne reliant OD au milieu d'une ligne coupant les têtes fémorales (HA). OD-C7 : angle entre la verticale et une ligne tracée à partir de OD et le point le plus élevé de C7. SVA : distance horizontale entre l'aplomb de C7 et l'angle postéro-supérieur de S1.

## 2.5. MESURE DU VOLUME DES VOIES AERIENNES SUPERIEURES

Cette évaluation a été réalisée uniquement dans le groupe dysmorphique sur la base d'un scanner préopératoire qui était disponible pour tous les patients sauf un (les scanners n'étaient pas réalisés dans le groupe témoin). De même, l'analyse des VAS n'a pas pu être réalisée à un an postopératoire, les données scanographiques n'ont pas été toutes récupérées lors de l'écriture de ce manuscrit.

Les images ont été extraites sous forme de fichiers au format *Digital Imaging and Communications in Medicine* (DICOM) et importées dans le logiciel ITK-SNAP, un logiciel d'imagerie

avec un algorithme d'analyse d'images en libre accès financé par la *US National Library of Medicine*, validé pour la segmentation et l'analyse du volume des voies aériennes supérieures (Almuzian et al., 2018). Le volume des voies aériennes supérieures a été mesuré en utilisant les limites suivantes : la limite supérieure était le plan parallèle au plan de Frankfort passant par l'épine nasale postérieure, la limite antérieure était le plan perpendiculaire au plan de Frankfort passant par l'épine nasale postérieure, la limite inférieure était le plan parallèle au plan de Frankfort passant par le point le plus haut de l'atlas, les limites latérales et postérieures étaient les parois pharyngées.

## 2.6. ANALYSE STATISTIQUE

La distribution de la majorité des variables ne suivait pas une loi normale. Tous les résultats sont décrits à l'aide de la médiane et des intervalles interquartiles.

Pour les comparaisons univariées des variables posturales entre les groupes contrôle et DMM, le test non paramétrique de Wilcoxon a été effectué pour les variables quantitatives et le test de Fisher a été réalisé pour les variables qualitatives. Des comparaisons multivariées ajustées sur l'âge, le sexe et l'indice de masse corporelle (IMC) ont également été faites. Pour comparer la dispersion des variables continues, un test non paramétrique de Ansari-Bradley a été réalisé.

Les coefficients de corrélations partielles non paramétriques (ajustées sur l'âge, le sexe et l'IMC) entre les variables posturales ont été calculés dans les groupes (contrôle et DMM), ainsi que dans l'ensemble des patients en préopératoire. Ces coefficients ont également été calculés pour l'association entre les variables posturales et les variables céphalométriques. De la même manière, les corrélations entre les variables posturales et le volume des voies aériennes ont été mesurées. Des régressions linéaires multivariées ajustées sur l'âge, le sexe et l'IMC ont également été réalisées. Un test du Chi<sup>2</sup> de Hosmer Lemeshow a été utilisé pour vérifier la qualité de l'ajustement du modèle final.

Des analyses en composantes principales (ACP) sur les contrôles et les dysmorphiques ont été réalisées sur les variables posturales et céphalométriques sur leur matrice de corrélation (avec normalisation). Un groupement par K moyenne a été réalisé pour obtenir deux groupes de patients dysmorphiques. Selon le critère « silhouette », K=2 est optimal. Les variables des deux groupes ont ensuite été comparées en utilisant un test non paramétrique de Wilcoxon. Le niveau de significativité a été fixé à 5 %.

Pour comparer les résultats pré et postopératoire, un test de Wilcoxon a été effectué pour les variables continues et un test de Fisher a été réalisé pour les pourcentages.

## 3. RESULTATS

### 3.1. POPULATION

De mai 2018 à juillet 2021, 476 patients ont été vus en consultation préopératoire. Parmi ces patients, 336 ne présentaient pas de critères d'exclusion et 40 ont accepté de participer à l'étude.

Quatre patients sont sortis de l'étude pour des raisons personnelles et six examens ont dû être annulés pour des raisons variées (pandémie de COVID-19, panne de l'appareil d'imagerie). Au total, l'évaluation posturale à l'aide de la BPXR a été réalisée chez 30 patients (âge : 32 [29 ; 37], BMI : 23.3 [21.7 ; 28.2], sexe ratio : 0.66). Le *flow chart* de l'étude est visualisable sur la *figure 19*. Les caractéristiques générales des patients dysmorphiques et du groupe contrôle sont réunis dans le *tableau 8*. Il n'y avait pas de différences significatives au niveau des caractéristiques générales entre les deux groupes. Les caractéristiques générales du groupe contrôle sont les suivantes : âge médian 30 ans [23 ; 36], IMC médian 22.12 [20.53 ; 23.76]. Le groupe était composé de neuf hommes pour onze femmes.

Sur les 30 patients ayant fait l'examen préopératoire, sept patients n'ont pas souhaité poursuivre l'étude, une patiente n'a pas pu réaliser l'examen à un an postopératoire pour des raisons médicales (grossesse), une patiente a déménagé en Guadeloupe et une patiente n'a finalement pas été opérée. Vingt patients ont donc réalisé l'examen postopératoire. Les images ne sont pas exploitables pour un patient (les reliefs osseux ne sont pas visibles). Les caractéristiques générales des patients sont présentées dans le *tableau 8*. Les patients sont comparables en termes d'âge et de BMI.

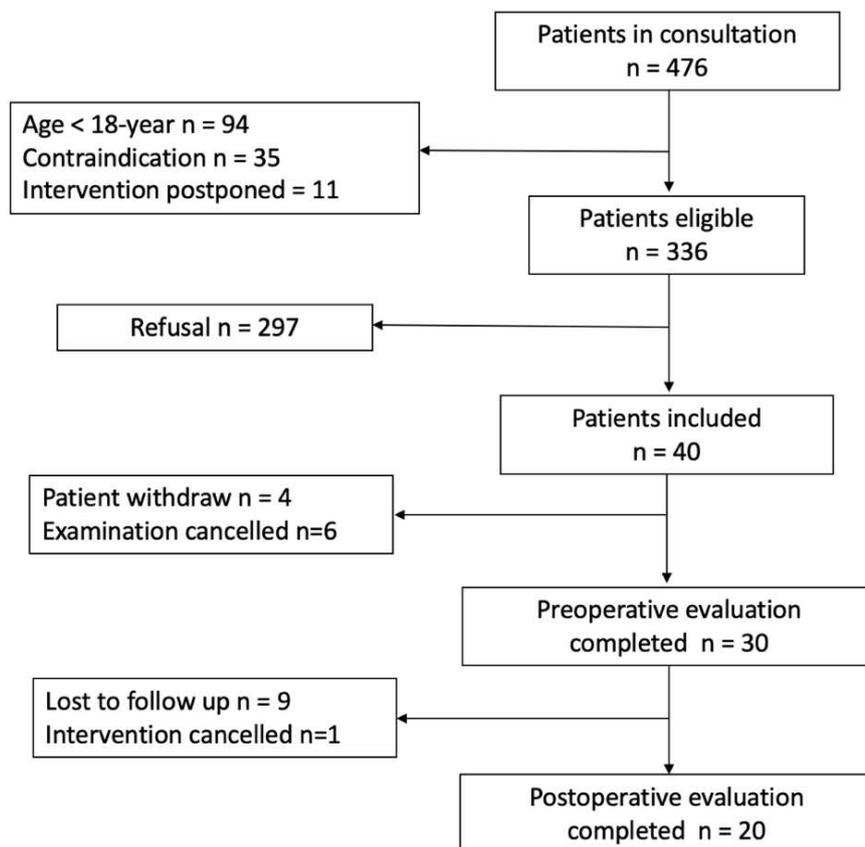


FIGURE 19 : FLOW CHART

## 3.2. DONNEES PREOPERATOIRES

### Variables posturales

Les patients atteints de DMM présentaient une cyphose cervicale basse significativement plus importante (angle C3-C7 plus élevé), une posture de la tête plus en avant (angle OD-C7 plus élevé, hyperextension cervicale haute) et un équilibre sagittal négatif (SVA plus faible), par rapport aux contrôles. Les résultats sont présentés dans le *tableau 8* et *la figure 20*. Aucune différence entre les groupes n'a été trouvée pour les autres variables posturales.

En analyse multivariée, l'angle C3-C7 ( $p=0.007$ ) et l'angle OD-C7 ( $p<0.001$ ) sont restés significativement différents entre les deux groupes, mais pas le SVA ( $p=0.14$ ).

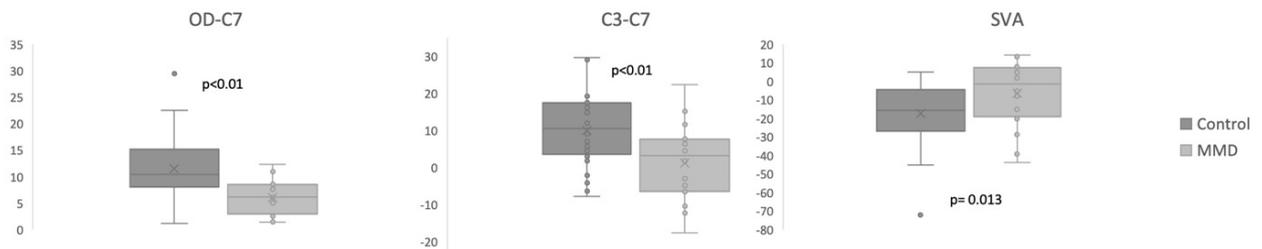
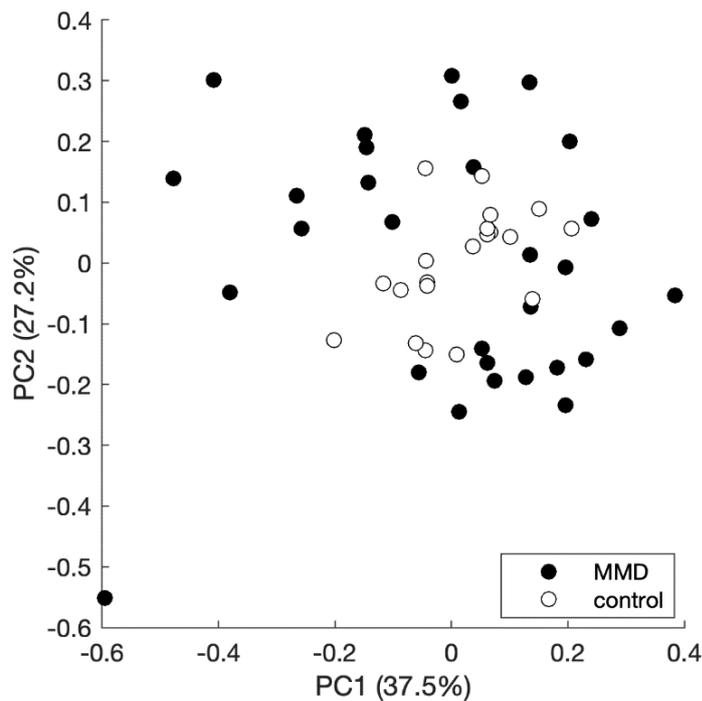


FIGURE 20 : COMPARAISON ENTRE LES 2 GROUPES SUR LES PARAMETRES POSTURAUX

## Paramètres céphalométriques

Des différences ont été observées entre les groupes DMM et contrôle en ce qui concerne la classe squelettique ( $p=0.02$ ) et les hauteurs faciales ( $p=0.049$ ). Les mesures céphalométriques des patients atteints de DMM étaient plus éloignées de la norme que celles des témoins, comme le montre l'analyse en composantes principales (*figure 21*). De plus, la dispersion des angles SNB et ANB et du rapport d'Izard étaient significativement différents dans les deux groupes : SNB avait un intervalle interquartile de [74.9 ; 82.3] dans le groupe DMM alors qu'il était de [77.1 ; 79.8] dans le groupe témoin ( $p < 0.001$ ), ANB avait un intervalle interquartile de [1 ; 7.2] dans le groupe DMM contre [2.65 ; 4.4] dans le groupe témoin ( $p < 0.001$ ) et le ratio d'Izard avait un intervalle interquartile de [0.46 ; 0.50] dans le groupe DMM contre [0.46 ; 0.50] dans le groupe témoin ( $p = 0.01$ ).



Points noirs : patients dysmorphiques, points blancs : patients du groupe contrôle. PC1 : composante principale 1 (ici SNA et SNB) PC2 : composante principale 2 (FMA et ANB). Les patients du groupe contrôle sont regroupés au centre de la figure alors que les dysmorphiques sont éparpillés autour.

**FIGURE 21: ANALYSE EN COMPOSANTE PRINCIPALE DES DYSMORPHIQUES ET DES CONTROLES**

**TABEAU 8: CARACTERISTIQUES CLINIQUES ET CEPHALOMETRIQUES DES PATIENTS**

	Groupe contrôle (n=20)	Groupe dysmorphie (n = 30)	p
<b>Caractéristiques générales</b>			
Age (années)	30 [23 ; 36]	32 [ 29 ; 37]	0.4
Homme/Femme (N)	9/11	12/18	0.2
Index de masse corporelle (kg/m2)	22.12 [20.53 ; 23.76]	23.3 [21.7 ; 28.2]	0.051
<b>Variables posturales</b>			
<i>Courbures rachidiennes</i>			
C3-C7 (°)	3.17 [-6.3 ; 7.6]	10.6 [3.7 ; 17.5]	<b>&lt;0.01</b>
T1-T12 angle (°)	48.5 [40.0 ; 54.1]	45.7 [39.5 ; 50.7]	0.57
L1-S1 angle (°)	-59.1 [-73.0 ; -53.4]	-60.8 [-70.0 ; -53.6]	0.99
<i>Paramètres pelviens</i>			
Version pelvienne (°)	14.0 [9.4 ; 17.3]	14.2 [10.1 ; 18.4]	0.85
Pente sacrée (°)	-45.2 [-50.8 ; -34.3]	-41.6 [-46.2 ; -37.3]	0.74
Incidence pelvienne(°)	57.8 [44.1 ; 64.7]	53.8 [46.2 ; 65.3]	0.81
<i>Alignement</i>			
Angle OD-HA (°)	3.0 [2.0 ; 4.2]	3.12 [2.1 ; 4.3]	0.92
Angle OD-C7 (°)	6.18 [3.0 ; 8.4]	10.5 [8.5 ; 15.1]	<b>&lt; 0.001</b>
SVA (mm)	-1.39 [-17.8 ; 7.0]	-15.71 [-25.9 ; -5.2]	<b>0.013</b>
<i>Scoliose</i>			
N (%)	1 [5%]	6 [20%]	<b>0.2</b>
<b>Variables céphalométriques</b>			
Angle SNA (°)	80.9 [79.7 ; 84.3]	82 [79.4 ; 85.3]	0.56
Angle SNB (°)	78.7 [77.1 ; 79.8]	76.4 [74.9 ; 82.3]	0.37
Angle ANB (°)	3.6 [2.7 ; 4.4]	4.6 [1.0 ; 7.2]	0.36
<i>Classe squelettique</i>			
classe I (1° < ANB < 4°)	11 (55%)	6 (20%)	p
classe II (ANB > 4°)	8 (40%)	16 (53%)	<b>0,02</b>
classe III (ANB < 1°)	1 (5%)	8 (27%)	
FMA angle(°)	21 [18.4 ; 24.5]	23.4 [18.4 ; 27.6]	0.16
<i>Sens vertical</i>			
Insuffisance verticale (FMA < 20°)	8 (40%)	7 (23%)	p
Normal (20° ≤ FMA ≤ 30°)	12 (60%)	16 (53%)	<b>0,049</b>
Excès vertical (FMA > 30°)	0 (0%)	7 (23%)	
Izard ratio	0.48 [0.47 ; 0.49]	0.49 [0.46 ; 0.50]	0.46
<i>Sens transversal (Izard ratio)</i>			
Insuffisance transversale (< 0,47)	2 (10%)	8 (27%)	p
Normal (≥ 0,47)	18 (90%)	22 (73%)	0.28
<b>Volume des VAS (mm3)</b>			
	Non réalisé	12895 [11152 ; 15641]	
<b>Caractéristiques cliniques</b>			
<i>Classe d'Angle</i>			
Classe I	N/A	3 (10%)	
Classe II	N/A	14 (47%)	
Classe III	N/A	13 (43%)	
<i>Typologie faciale</i>			
Face courte	N/A	2 (6.7%)	
Normal	N/A	16 (53.3%)	
Face longue	N/A	12 (40%)	

SNA : angle entre S, N et le point A. SNB : angle entre S, N et le point B. ANB : angle entre les points A, N et B. FMA : angle entre le plan de Frankfort et le plan mandibulaire. Rapport d'Izard : rapport entre la distance entre les molaires maxillaires et la distance entre les os zygomatiques. SVA : axe vertical sagittal. N/A : non applicable

### Corrélations entre les variables

En préopératoire, après ajustement sur l'âge, le sexe et l'IMC, la corrélation en analyse multivariée entre les variables posturales a relevé des associations significatives exclusivement dans le groupe DMM : l'angle T1-T12 était corrélé aux angles C3-C7 ( $r=-0.46$ ,  $p=0.02$ ) et OD-C7 ( $r=0.63$ ,  $p<0.001$ ), l'angle L1-S1 était corrélé à l'inclinaison pelvienne ( $r=-0.45$ ,  $p=0.02$ ) et l'inclinaison pelvienne était corrélée à la pente sacrée ( $r=0.39$ ,  $p=0.04$ ). En revanche, les corrélations suivantes n'ont été observées que dans le groupe témoin : l'angle T1-T12 avec l'angle L1-S1 ( $r=-0.52$ ,  $p=0.03$ ) et l'angle OD-HA avec l'angle OD-C7.

En analysant les corrélations entre les variables céphalométriques et posturales chez l'ensemble des patients, l'angle C3-C7, l'angle OD-C7 et la SVA ont été significativement corrélés avec l'angle FMA dans les deux groupes (*Figure 22*). Les analyses en sous-groupes ont révélé que l'angle C3-C7 et l'angle SVA restaient significativement corrélés à l'angle FMA dans le groupe DMM, mais pas dans le groupe témoin. Bien que non significative, la corrélation FMA/SVA était dans une direction opposée entre le groupe témoin et le groupe DMM.

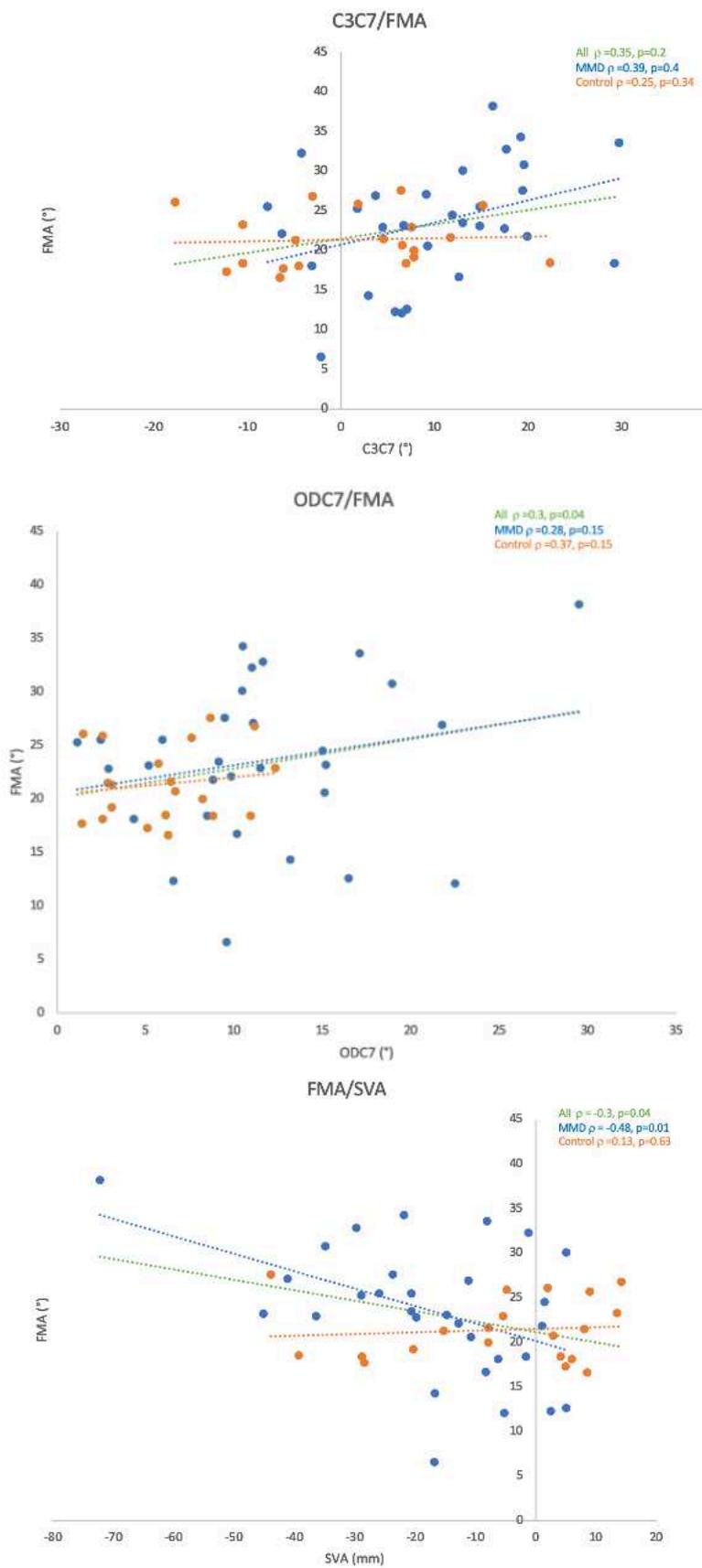


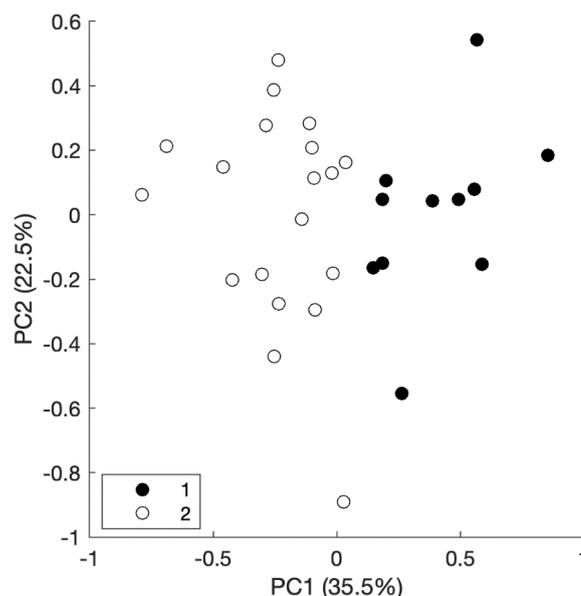
FIGURE 22: CORRELATIONS ENTRE FMA ET LES PARAMETRES POSTURAUX DANS LES 2 GROUPES

### Voies aériennes supérieures dans le groupe DMM et corrélations avec les variables céphalométriques et posturales

Chez les patients atteints de DMM, le volume des voies aériennes supérieures était de 12895 [11152 ; 15641] mm<sup>3</sup>. En ce qui concerne les variables céphalométriques, l'angle SNB ( $r = 0.48$ ,  $p = 0.01$ ) et la classe squelettique III ( $r = 0.40$ ,  $p = 0.02$ ) étaient corrélés au volume des voies aériennes supérieures : une augmentation de l'angle SNB est associée à des volumes de voies aériennes supérieures plus importants. Aucune autre corrélation significative n'a été trouvée entre les angles céphalométriques et le volume des voies aériennes supérieures. Il n'y avait pas de corrélation significative entre le volume des voies aériennes et les variables posturales.

### Phénotypes posturaux des patients dysmorphiques

En utilisant l'analyse en composantes principales et le regroupement par K moyens ( $k=2$ ), deux phénotypes posturaux ont été observés, discriminés par les variables pelviennes et la lordose lombaire (angle L1-S1). Un sous-groupe présentait une faible incidence pelvienne ( $48.1^\circ$  [44.9 ; 53.8]), une lordose lombaire normale ( $-55.4^\circ$  [-73.0 ; -53.4]) et une inclinaison pelvienne normale ( $11,8^\circ$  [7.32 ; 14.3]), tandis que l'autre sous-groupe présentait une incidence pelvienne élevée ( $69.6$  [64.2 ; 74.2]), une lordose lombaire élevée ( $-74.3^\circ$  [-76.8 ; -68.6]) et une rétroversion pelvienne ( $18.7$  [17.4 ; 23.9]). Les deux sous-groupes de dysmorphiques n'étaient pas différents en ce qui concerne les paramètres céphalométriques. Les résultats sont présentés dans les *figures 23 et 24* et dans le *tableau 9*.



PC1 : composante principale 1 (pente sacré, incidence pelvienne lordose lombaire). PC2 : cyphose thoracique, angle ODC7. Les groupes de patients 1 et 2 sont séparés par la composante principale 1.

**FIGURE 23: REGROUPEMENT PAR K MOYENNE (K=2) DES DYSMORPHIQUES**

**TABEAU 9: CARACTERISTIQUES DES 2 GROUPES DE DYSMORPHIQUES**

	Groupe 1 (n=19)	Groupe 2 (n=11)	p
<b>Caractéristiques générales</b>			
Age (années)	33 [29 ; 37]	31 [ 29,5 ; 42]	0.9
Homme/Femme (N)	10/9	2/9	0.12
Indice de masse corporelle (kg/m2)	23 [21.9 ; 25.8]	28.6 [21.4 ; 31.8]	0.44
<b>BPXR Postural variables</b>			
<i>Courbures rachidiennes</i>			
C3-C7 angle (°)	12.6 [4.1 ; 16.9]	9.2 [4.2 ; 15.3]	0.83
T1-T12 angle (°)	44.6 [38.7 ; 50]	48.1 [45.7 ; 50.3]	0.2
L1-S1 angle (°)	- 55.4 [-73.0 ; -53.4]	-74.3 [-76.8 ; -68.6]	<b>p&lt;0.001</b>
<i>Paramètres pelviens</i>			
Version pelvienne (°)	11.8 [7.3 ; 14.3]	18.7 [17.4 ; 23.9]	<b>0.001</b>
Pente sacrée (°)	-37.5 [-41.6 ; -31.8]	-51.9 [-53.6 ; -44.4]	<b>p&lt;0.001</b>
Incidence pelvienne(°)	48.1 [44.9 ; 53.8]	69.6 [64.2 ; 74.2]	<b>p&lt;0.001</b>
<i>Alignement</i>			
Angle OD-HA (°)	2.7 [2.1 ; 3.7]	4.1 [2.8 ; 4.7]	0.19
Angle OD-C7 (°)	10.2 [6.3 ; 12.3]	11.6 [9.5 ; 15.2]	0.37
SVA (mm)	-12.8 [-21.2 ; -5.7]	-20.6 [-29.3 ; -6]	0.55
<i>Scoliose</i>			
N (%)	2 [10%]	4 [36%]	0.15
<b>Variables céphalométriques</b>			
Angle SNA (°)	82.2 [79.8 ; 84.7]	81.1 [78.4 ; 86]	0.73
Angle SNB (°)	78.7[73.6 ; 82.3]	75.8 [75.6 ; 81.1]	0.89
Angle ANB (°)	4.8 [1.1 ; 6.9]	4.4 [1.9 ; 7.9]	0.66
<i>Classe squelettique</i>			
classe I ( $1^{\circ} < ANB < 4^{\circ}$ )	5 (26%)	3 (27%)	p
classe II ( $ANB > 4^{\circ}$ )	8 (52%)	7 (64%)	0.7
classe III ( $ANB < 1^{\circ}$ )	4 (22%)	1 (9%)	
FMA angle(°)	22.9 [18.5 ; 27]	24.5 [21.9 ; 29.2]	0.66
<i>Sens vertical</i>			
Insuffisance verticale ( $FMA < 20^{\circ}$ )	6 (31%)	2 (18%)	p
Normal ( $20^{\circ} \leq FMA \leq 30^{\circ}$ )	9 (47%)	6 (55%)	0,78
Excès vertical ( $FMA > 30^{\circ}$ )	4 (22%)	3 (27%)	
Izard ratio	0.48 [0.46 ; 0.48]	0.5 [0.475 ; 0.50]	0.49
<i>Sens transversal (Izard ratio)</i>			
Insuffisance transversale ( $< 0,47$ )	4 (22%)	3 (27%)	p
Normal ( $\geq 0,47$ )	15 (78%)	8 (73%)	1
<b>Caractéristiques dentofaciales cliniques</b>			
<i>Classe d'Angle</i>			
Classe I	3 (16%)	0 (0%)	0.2
Classe II	7 (37%)	7 (64%)	
Classe III	9 (47%)	4 (36%)	
<i>Typologie faciale</i>			
Face courte	2 (11%)	0 (0%)	
Normal	8 (42%)	8 (73%)	0.28
Face longue	9 (47%)	3 (27%)	

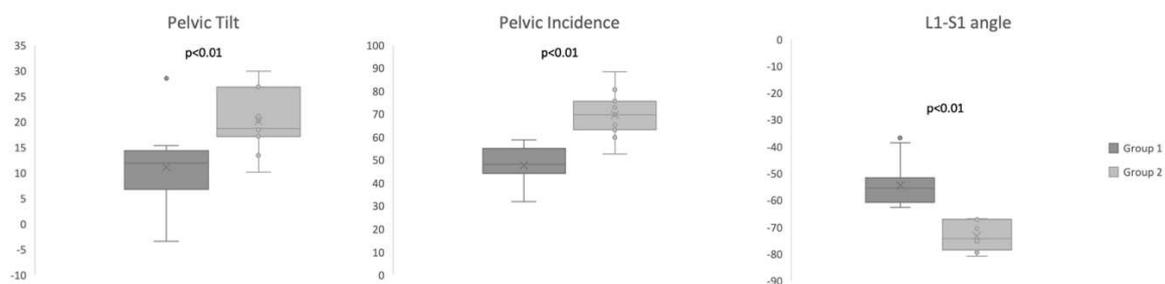


FIGURE 24: COMPARAISON DES VARIABLES POSTURALES ENTRE LES 2 PHENOTYPES POSTURAUX DE DYSMORPHIQUES

### 3.3. RESULTATS POSTOPERATOIRES

#### Variables posturales

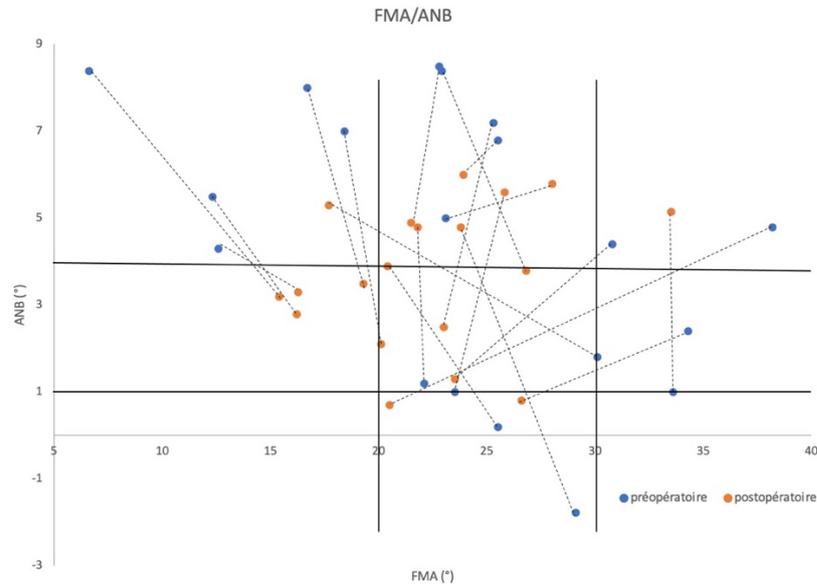
Il existe une diminution significative de l'angle de cyphose cervicale en postopératoire : l'angle C3-C7 médian était de 13° [5.1 ; 18.3] versus 10.8 [0.1 ; 17.3] à un an postopératoire. Bien que non significatives, il existe une diminution de l'angle ODC7 (9.8 [6.2 ; 14] versus 8.1 [4.7 ; 10.7],  $p = 0.07$ ) et une augmentation de SVA (-19.8 [-27.4 ; -8.2] versus -14.2 [-27 ; -7.3]). Il n'existe pas d'autre différence significative entre les deux groupes. Les résultats sont présentés dans le *tableau 10*.

**TABEAU 10: COMPARAISON DES DONNEES PREOPERATOIRES ET POSTOPERATOIRES**

	Préopératoire (n=19)	Post opératoire (n=19)	p
<b>Caractéristiques générales</b>			
Age (années)	36 [30,5 ; 43]	37 [ 32 ; 43]	
Homme/Femme (N)	6/13	6/13	
Indice de masse corporelle (kg/m2)	24,3 [21.9 ; 27.1]	23.5 [21.9 ; 28.0]	
<b>BPXR Postural variables</b>			
<i>Courbures rachidiennes</i>			
C3-C7 angle (°)	13 [5.1 ; 18.3]	10.8 [0.1 ; 17.3]	<b>0.049</b>
T1-T12 angle (°)	44.9 [39.5 ; 50.3]	48.5 [38.3 ; 54]	0.24
L1-S1 angle (°)	- 60.8 [-65.1 ; -53.9]	-59.1 [-61.8 ; 52.9]	0.4
<i>Paramètres pelviens</i>			
Version pelvienne (°)	14.3 [8.9 ; 17.4]	14.3 [7.5 ; 21.1]	0.9
Pente sacrée (°)	-41.5 [-44,4 ; -35.2]	-37.3 [-39.8 ; -35]	0.35
Incidence pelvienne(°)	55 [44.9 ; 61]	54.5 [42.4 ; 59.9]	0.14
<i>Alignement</i>			
Angle OD-HA (°)	3.1 [2.3 ; 4.4]	3.6 [2.5 ; 4.5]	0.25
Angle OD-C7 (°)	9.8 [6.2 ; 14]	8.1 [4.7 ; 10.7]	0.07
SVA (mm)	-19.8 [-27.4 ; -8.2]	-14.2 [-27 ; -7.3]	0.65
<b>Variables céphalométriques</b>			
Angle SNA (°)	81.8 [79.9 ; 85.1]	81.8 [80 ; 87,9]	0.69
Angle SNB (°)	77.9 [74.4 ; 82.3]	79 [75.6 ; 82.6]	0.6
Angle ANB (°)	4.8 [1.5 ; 7.1]	3.8 [2.7 ; 5]	0.39
<i>Classe squelettique</i>			
classe I ( $1^\circ < ANB < 4^\circ$ )	5 (26%)	9 (47%)	<b>0.007</b>
classe II ( $ANB > 4^\circ$ )	12 (63%)	8 (42%)	
classe III ( $ANB < 1^\circ$ )	2 (11%)	2 (11%)	
FMA angle(°)	23.5 [20.3 ; 29.6]	21.8 [19.7 ; 24.9]	0.35
<i>Sens vertical</i>			
Insuffisance verticale (FMA < 20°)	5 (26%)	5 (26%)	<b>&lt;0.001</b>
Normal ( $20^\circ \leq FMA \leq 30^\circ$ )	9 (48%)	13 (68%)	
Excès vertical (FMA > 30°)	5 (26%)	1 (6%)	
Izard ratio	0.47 [0.47 ; 0.50]	0.49 [0.47 ; 0.50]	0.33
<i>Sens transversal (Izard ratio)</i>			
Insuffisance transversale (< 0,47)	5 (26 %)	2 (11%)	<b>0.01</b>
Normal ( $\geq 0,47$ )	14 (74%)	17 (89%)	

## Variables céphalométriques

En postopératoire, il existe plus de patients en classe I (et en corolaire, moins de patients en classe II,  $p = 0.007$ ), moins de patients présentant une face longue ( $p < 0.001$ ) et une insuffisance transversale ( $p = 0.01$ ) (figure 25).



Points bleus : données préopératoires, points oranges : données postopératoire. Traits noirs continus : seuils des valeurs normales, traits noirs en pointillés : évolution des données céphalométriques pour chaque patient.

FIGURE 25: DISPERSION DES PATIENTS AVEC UNE DMM EN FONCTION DES ANGLES ANB ET FMA

## Corrélations entre les variables

En postopératoire, la corrélation entre T1-T12 et C3-C7 est toujours observée ( $r = -0.5979$ ,  $p = 0.006$ ). En revanche, la corrélation entre l'angle T1-T12 et OD-C7 ( $r = 0.0838$  avec  $p = 0.7$  et  $r = -0.0845$  avec  $p = 0.73$ ) n'est plus retrouvée. En analysant les corrélations entre les variables céphalométriques et posturales, il ne persiste que la corrélation entre C3-C7 et FMA. Les résultats sont présentés sur la figure 26.

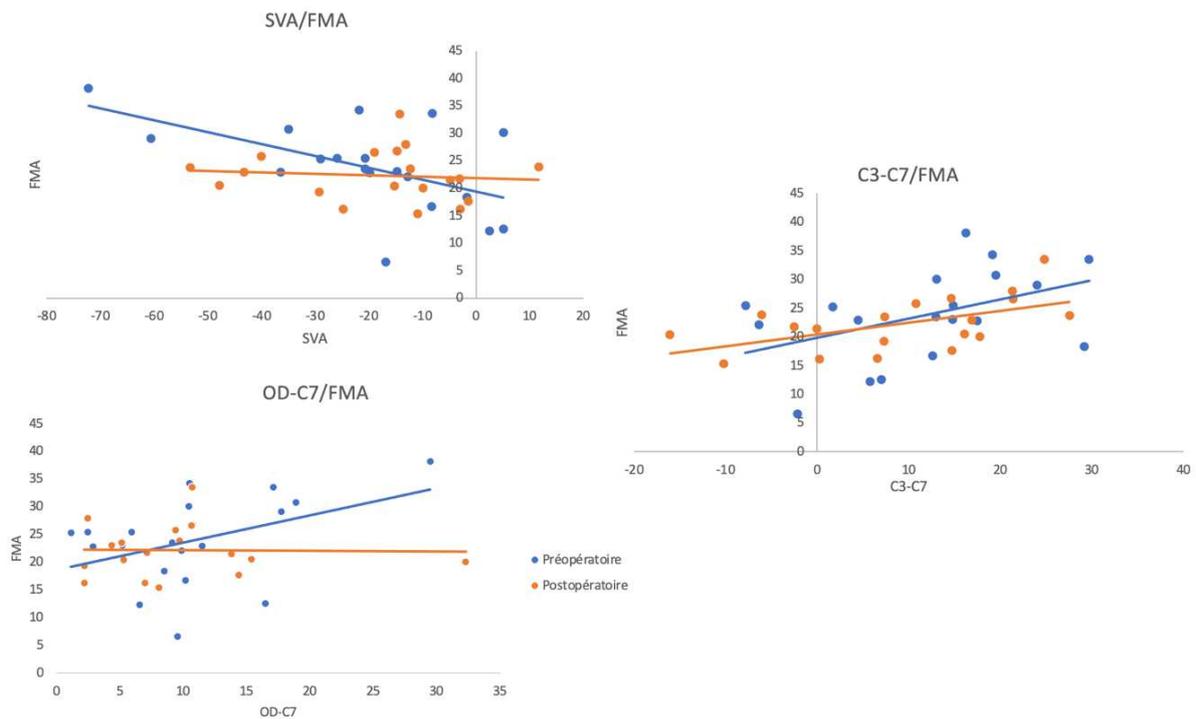


FIGURE 26: CORRELATIONS ENTRE L'ANGLE FMA ET LES PARAMETRES POSTURAUX

#### 4. POINTS CLES

- Cette étude met en évidence une altération de l'alignement postural spécifique chez les patients dysmorphiques caractérisée par une posture de la tête en avant (hyperextension cervicale haute), une hypercyphose de la partie inférieure du rachis cervical (à partir de C3 jusqu'à C7) et un équilibre sagittal négatif.
- Par ailleurs, deux phénotypes posturaux ont été observés chez les patients atteints de DMM : ces deux phénotypes différaient uniquement sur les variables pelviennes et sur la lordose lombaire, mais étonnamment pas sur l'alignement cervical, suggérant au moins pour un phénotype une origine liée à la croissance.
- La chirurgie orthognathique permet une correction partielle de l'altération de l'alignement postural et soutient l'hypothèse d'un lien entre la ventilation orale et l'alignement postural.

Ces différents points seront discutés dans la partie 3 du manuscrit.

## CHAPITRE 4 : ANALYSE POLYSOMNOGRAPHIQUE DANS UNE POPULATION DE PATIENTS AVEC DMM

### 1. INTRODUCTION

Certaines dysmorphies sont associées à un risque théorique de SAOS ; cependant, à notre connaissance, aucune étude prospective n'a été menée à cet effet. Posnik *et al.* ont mené une étude rétrospective pour évaluer la prévalence de ce qu'ils appellent le SAOS « silencieux » chez 262 patients atteints de DMM et d'obstruction nasale chronique avant une chirurgie orthognathique (Posnick et al., 2018). Ils définissent le SAOS « silencieux » comme un IAH > 5/heure chez des patients ne présentant pas ou peu de symptômes cliniques de SAOS ; 23 % des patients avaient un indice d'apnée/hypopnée > 5/heure (IAH) (Posnick et al., 2018). Cependant, la polysomnographie (PSG) n'était pas systématiquement réalisée dans cette étude : seuls les patients présentant des symptômes suggérant la présence d'un SAOS (ronflement ou somnolence diurne) ou des facteurs de risque ont passé une PSG. Par conséquent, leur résultat ne reflète pas la prévalence du SAOS dans une population de patients atteints de DMM.

L'objectif de notre étude est :

- d'évaluer la prévalence du SAOS dans une population de patients dysmorphiques avant leur intervention chirurgicale ;
- d'analyser la qualité du sommeil des patients atteints de dysmorphie ;
- d'analyser l'impact de la chirurgie sur le sommeil et la ventilation nocturne.

### 2. MATERIELS ET METHODES

#### 2.1. SUJETS

Les patients ont été recrutés au sein de la consultation préopératoire multidisciplinaire du service de chirurgie maxillo-faciale de l'hôpital de la Pitié-Salpêtrière / Hôpital Charles-Foix. Les critères d'inclusion étaient : âge > 18 ans, DMM avec une date opératoire, patients capables de comprendre les informations de l'étude et de signer le formulaire de consentement. Les critères d'exclusion étaient : antécédents de maladie pulmonaire ou neuromusculaire, antécédents de syndrome cranio-facial, grossesse, antécédents de chirurgie orthognathique antérieure.

L'étude a reçu l'approbation du comité d'éthique (Comité de Protection des Personnes Sud-Méditerranée, CPP numéro 2018-A00362-53) en avril 2018. Tous les patients ont donné leur consentement éclairé écrit. L'étude a été menée conformément aux principes de la Déclaration d'Helsinki.

## 2.2. POLYSOMNOGRAPHIE

Les patients acceptant de participer à l'étude ont fait une vidéo-polysomnographie (PSG) à un mois préopératoire dans le service de pathologies du sommeil du Groupe Hospitalier Pitié-Salpêtrière / Hôpital Charles-Foix. L'enregistrement de la PSG a été réalisé manuellement selon les directives de l'*American Academy of Sleep Medicine* (American Academy of Sleep Medicine Task Force, 1999). L'apnée obstructive était définie comme un arrêt du flux d'air pendant plus de 10 secondes sur la canule de pression. L'hypopnée était définie comme une réduction de plus de 50 % du débit d'air ou une réduction de moins 50 % associée à une diminution de plus de 3 % de la saturation artérielle en oxyhémoglobine (SPO2) enregistrée à l'aide d'un oxymètre de pouls au doigt. L'enregistrement du sommeil a également été réalisé à un an postopératoire.

## 2.3. ÉVALUATION CLINIQUE ET RADIOGRAPHIQUE

Une évaluation clinique de la dysmorphie a été réalisée lors de la consultation préopératoire. Les éléments cliniques précédemment décrits comme la hauteur faciale et la classe dentaire ont été relevés. Les symptômes suivants en faveur de troubles du sommeil ont également été recueillis : la somnolence diurne (avec l'échelle de somnolence d'Epworth), le ronflement, les sueurs nocturnes, la nycturie, l'asthénie, les apnées constatées et les céphalées matinales. Tous les patients ont également eu, lors de l'évaluation préopératoire, des téléradiographies de face et de profil. Pour tous les patients, une analyse céphalométrique a été effectuée sur les téléradiographies de face et de profil. Les angles suivants ont été mesurés : SNA, SNB, ANB, FMA, rapport d'Izard.

En postopératoire, plus d'un tiers des patients n'ont pas de téléradiographies. L'analyse céphalométrique postopératoire n'a donc pas été réalisée.

## 2.4. MESURE DU VOLUME DES VOIES AERIENNES SUPERIEURES

Le procédé de segmentation des VAS précédemment utilisé dans le *chapitre 4* a été utilisé dans ce chapitre. Le volume et la surface minimale des voies aériennes supérieures (mCSA) ont été mesurés pour tous les patients en préopératoire. En postopératoire, les mesures n'ont pas pu être réalisées devant le manque de données (seulement sept patients ont un scanner postopératoire).

## 2.5. ANALYSE STATISTIQUE

La distribution des données ne suit pas une loi normale. Les résultats sont présentés avec la médiane et les intervalles interquartiles.

Pour les comparaisons univariées des variables polysomnographiques, céphalométriques et cliniques entre les patients en préopératoire et en postopératoire, ainsi qu'entre les patients avec un index  $\geq 5$  et les patients avec index  $< 5$ /heure, le test non paramétrique de Wilcoxon a été effectué pour les variables quantitatives et le test de Fisher pour les variables qualitatives.

De plus, des corrélations entre les paramètres céphalométriques et les données de sommeil ont été estimées, ainsi que des corrélations entre les variables morphologiques des VAS et les données de sommeil, entre les variables des VAS et les paramètres céphalométriques (corrélation de Pearson). Le risque d'erreur de première espèce a été fixé à 5 %.

Enfin, des modèles de régression logistique multivariés ont été mis au point afin de mettre en évidence les paramètres cliniques prédisant la présence d'un SAOS. Les paramètres avec  $p < 0.2$  selon l'analyse univariée ont été considérés comme entrées candidates, et la sélection a été effectuée à l'aide d'une procédure pas-à-pas additive et soustractive. La qualité des modèles a été évaluée à l'aide de leur courbe ROC et de l'aire sous cette dernière (AUC). À des fins de décision, le seuil a été choisi pour optimiser le critère de Youden, c'est-à-dire la moyenne de la sensibilité et de la spécificité.

### 3. RESULTATS

#### 3.1. PATIENTS

De mai 2018 à avril 2022, sur les 755 patients qui ont été vus en consultation préopératoire, 559 patients ne présentaient pas de critères d'exclusions. Parmi ces 559 patients, 364 patients ont refusé de participer, 195 patients ont été inclus dans cette étude mais seulement 100 ont réalisé la polysomnographie avant l'intervention. Le *flow chart* de l'étude est présenté en *figure 27*.

Les patients inclus avaient les caractéristiques générales suivantes : l'âge médian était de 30.5 ans [23 – 38], avec un index de masse corporelle (IMC) médian de 23 kg.m<sup>-2</sup> [20.6 – 25]. Le groupe était composé de 59 femmes pour 41 hommes. Treize patients présentaient une occlusion dentaire de type classe I d'Angle, 53 une classe II et 34 une classe III. De plus, 44 présentaient une typologie faciale de type face longue, 12 une face courte et 44 des hauteurs faciales équilibrées. Cinquante-six patients avaient une ventilation orale et 44 une ventilation nasale. Les caractéristiques générales et faciales sont visibles dans le *tableau 11*.

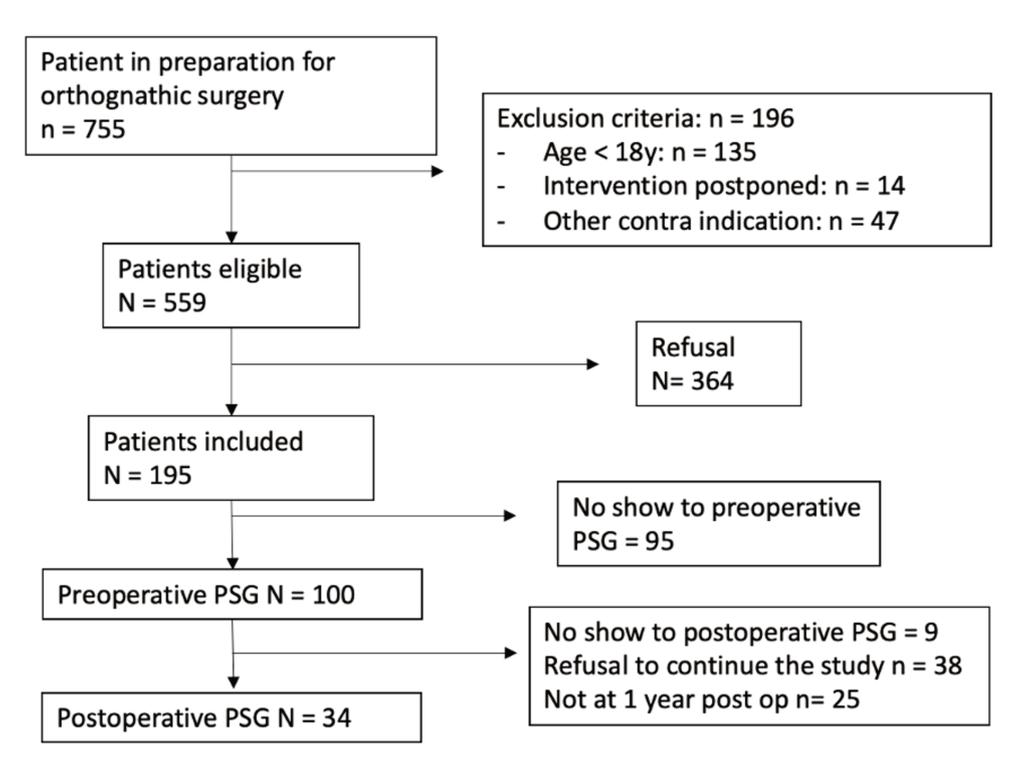


FIGURE 27: FLOW CHART

TABLEAU 11 : TABLEAU RECAPITULATIF COMPARANT LES PATIENTS AVEC UN IHA > 5 ET LES PATIENTS AVEC UN IAH <5

Population		Population Générale	IAH ≥ 5	IAH < 5	p
Caractéristiques générales (%)	Nombre	100	20	80	
	Sexe				
	Homme/Femme	41/ 59	8/12	45/35	0.21
	Age	30.5 [23 – 39]	34.5 [26.5 – 50]	29 [22 – 36.3]	0.06
	IMC	23.0 [20.6 – 25]	23.0 [20.4 – 29.2]	22.9 [20.6 – 24.9]	0.69
Caractéristiques faciales (%)	<i>Classe d'Angle</i>				
	Classe I, n (%)	13	3 (15)	10 (12)	0.31
	Classe II, n (%)	53	13 (65)	40 (50)	
	Classe III, n(%)	34	4 (20)	30 (38)	
	<i>Hauteurs faciales</i>				
	Courte	12	1 (5)	11 (14)	0.14
	Équilibrée	44	13 (65)	31 (38)	
Longue	44	6 (30)	38 (48)		
<i>Ventilation</i>					
Nasale/Orale	40/60	8/12	32/48	0.56	
Caractéristiques céphalométriques (degré)	SNA	81.8 [78.6 – 84.5]	82.4 [78.6 – 85.6]	81.6 [78.5 – 84.1]	0.9
	SNB	76.8 [73.6 – 81]	75.3 [72.7 – 81.3]	76.9 [74 – 80.6]	0.27
	ANB	4.5 [0.75 – 7.5]	6.8 [3.3 – 8.2]	4.2 [0.2 – 7.3]	0.09
	FMA	26 [20.9 – 31.8]	26.2 [17.3 – 33.4]	25.7 [21.2 – 31.4]	0.87
	Izard index	0.48 [0.46 – 0.5]	0.48 [0.46 – 0.52]	0.48 [0.46 – 0.49]	0.9

Voies aériennes	Volume (mm3)	11 100 [8665 ; 14 125]	10 330 [7397.7 ; 13 290]	11 340 [8891 ; 14 200]	0.55
	mCSA (mm2)	189 [175 ; 203]	81.7 [63.3 ; 132.8]	119.2 [84.7 ; 196.5]	0.08
Symptômes de SAOS (%)	Ronflement, n (%)	54	16 (80)	38 (48)	<b>0.01</b>
	Apnées constatées, n (%)	16	3 (15)	13 (16)	1
	Céphalées matinales, n (%)	16	4 (20)	12 (15)	0.73
	Somnolence diurne excessive, n (%)	32	6 (30)	26 (33)	0.76
	Asthénie/fatigue, n (%)	47	11 (55)	36 (45)	0.2
	Nycturie (plus de 2/nuit), n (%)	14	6 (30)	8 (10)	<b>0.03</b>
	Sueurs nocturnes, n (%)	17	4 (20)	13 (16)	0.46
	2 symptômes et plus, n(%)	59	16 (80)	43 (53)	<b>0.04</b>
1 symptôme en plus du ronflement, n(%)	43	15 (75)	28 (35)	<b>p&lt;0.01</b>	
Score d'Epworth, 0-24		7 [4 ; 11]	7 [3 ; 11]	7 [4 ; 11]	0.6
Variables polysomnographique	Temps de sommeil total	449 [392 - 509]	419 [357 - 473.8]	457.8 [408 - 510.5]	0.1
	Veille intra sommeil, min	60 [33 - 93]	86.6 [43.5 - 113.3]	55.8 [33.8 - 84.3]	0.17
	Efficacité, %	90.1 [83.5 - 94.8]	86.5 [79.4 - 92.9]	90.6 [84.8 - 95.2]	0.14
	Latence, min				
	Endormissement	13 [8 - 24]	14.5 [8 - 32]	13 [8 - 22]	0.51
	Sommeil lent profond	14.5 [10.1 - 22.9]	17.3 [10.6 - 37.3]	14.5 [10.4 - 20.6]	0.22
	Sommeil paradoxal	82.5 [63.8 - 40.5]	76.8 [65.9 - 137.9]	83.5 [63.5 - 139]	0.82
	Stade de sommeil, %				
	Stade 1	1.8 [0.9 - 2.9]	2.8 [1 - 3.6]	1.6 [0.7 - 2.9]	0.1
	Stade 2	53.7 [48.7 - 58]	53.6 [48.1 - 58.1]	53.9 [49.1 - 57.9]	0.77
	Sommeil lent profond	23.4 [19.1 - 27]	23.7 [19.2 - 28.4]	23.4 [19.2 - 26.2]	0.82
	Sommeil paradoxal	21.4 [17.1 - 25.5]	20.7 [16.1 - 24.1]	21.5 [17.5 - 25.5]	0.35
	Micro éveil, Nd d'évènement/h	7 [4.5 - 10]	6.7 [4.5 - 9.2]	10 [6.7 - 16.8]	<b>0.01</b>
	Index d'apnée/ hypopnée nb/h	1.6 [0.3 - 3.9]	1 [0.2 - 2]	9.1 [7.5 - 13.7]	<b>&lt;0.001</b>
	5 ≤ IAH < 15, Nb de sujets	16	0	16	
15 ≤ IAH < 30, Nb de sujets	2	0	2		
IAH ≥ 30, Nb de sujets	2	0	2		
Index d'apnée/ hypopnée dorsal nb/h	1.7 [0 - 5.6]	1.2 [0 - 3.1]	14.7 [9.9 - 25.8]	<b>&lt;0.001</b>	
Saturation en oxygène durant le sommeil, %	96 [95 - 97]	96 [95 - 97]	96 [96 - 97]	0.22	
Saturation en oxygène minimale, %	91 [89 - 93]	89.5 [87 - 91]	91 [89 - 93]	<b>0.03</b>	
Temps passé sous 90%, %	0 [0 - 0.1]	0 [0 - 0]	0 [0 - 1.3]	0.07	
Index de désaturation	0.2 [0 - 1]	0.1 [0 - 0.5]	2.2 [0.5 - 7.3]	<b>&lt;0.001</b>	

### 3.2. DONNEES CLINIQUES ET POLYSOMNOGRAPHIQUES

Les patients avec un IAH  $\geq 5$ /heure étaient au nombre de 20 dans notre étude (soit 20 % de la cohorte), 12 femmes et 8 hommes. Leurs caractéristiques sont regroupées dans le *tableau 11*. La majorité des patients avec un IAH  $\geq 5$ /heure sont des patients avec une occlusion dentaire de classe II d'Angle et des hauteurs faciales équilibrées. La distribution des hauteurs faciales et des classes d'Angle ne sont pas significativement différentes entre les patients avec un IAH  $\geq 5$ /heure et les patients avec un index normal.

Quatre patients présentent un IAH  $\geq 15$ /heures, deux hommes âgés de 27 et 40 ans et deux femmes âgées de 24 et 66 ans. Sur ces quatre patients, une patiente présentait une occlusion dentaire de classe III d'Angle, deux autres une classe II d'Angle et un patient une classe I. De même, deux patients avaient des hauteurs faciales équilibrée et deux patients présentaient une face longue. Trois patients sur les quatre n'étaient pas en surpoids alors que la dernière patiente présentait une obésité (IMC à 38.5 kg/m<sup>2</sup>).

Les patients avec un IAH  $\geq 5$ /h étaient plus symptomatiques que les patients avec un IAH  $< 5$ /h, avec une prévalence plus importante du ronflement ( $p = 0.01$ ) et de la nycturie ( $p = 0.03$ ). La qualité du sommeil était similaire dans les deux groupes à l'exception de l'index de micros-éveils qui était plus élevé dans le groupe IAH  $\geq 5$ /h.

### 3.3. VOLUME DES VOIES AERIENNES

En comparant le volume des VAS des patients avec un IAH  $\geq 5$ /heure au volume des patients avec un IAH normal, on n'observe pas de différence significative. De plus, il n'y a pas de différence de mCSA (diamètre minimal sectionnel) entre les deux groupes, même si le résultat est proche du seuil de significativité ( $p = 0.08$ ). Les résultats sont présentés dans le *tableau 11*. Il n'existe pas de corrélations entre le volume des voies aériennes ou le mCSA et l'IAH ( $\rho = 0.0101$  et  $-0.0932$  respectivement). De même, l'IAH dorsal n'est pas corrélé aux paramètres anatomiques des VAS.

### 3.4. MODELES PREDICTIFS D'UN IAH $\geq 5$ /H

Des corrélations linéaires entre les différents critères cliniques et céphalométriques d'une part et l'IAH d'autre part ayant été calculées, seulement deux paramètres présentent une association significative : l'âge ( $p = 0.03$ ) et le ronflement ( $p = 0.01$ ). Le reste des paramètres cliniques et céphalométriques ne sont pas significativement corrélés avec l'IAH. De même, l'IAH dorsal est corrélé à l'âge ( $p = 0.49$ ) et au ronflement ( $p = 0.01$ ) mais n'est pas corrélé aux paramètres céphalométriques.

A l'aide d'une régression logistique pas-à-pas, deux facteurs prédictifs d'un IAH  $\geq 5$ /heure ont été identifiés : le ronflement et l'âge (*figure 28*). Avec le seuil de décision optimal, ce modèle équivaut à un seuil sur l'âge de 57 ans pour les non-ronfleurs et de 24 ans pour les ronfleurs.

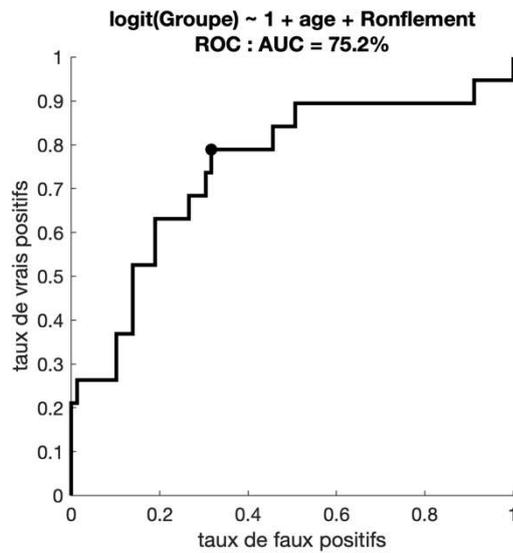


FIGURE 28: COURBE ROC DE PREDICTION D'UN IAH > 5 OBTENUE A PARTIR D'UN MODELE DE REGRESSION LOGISTIQUE. LE POINT MATERIALISE LE SEUIL OPTIMAL AU SENS DE YODEN.

Si on utilise un nouveau descripteur correspondant à la présence d'un symptôme en plus du ronflement (symplusR), c'est lui qui sort avec l'âge et c'est un tout petit peu mieux (figure 29). Avec le seuil de décision optimal, ce second modèle équivaut à un seuil sur l'âge de 57 ans pour les non-symptomatiques et de 24 ans pour les symptomatiques.

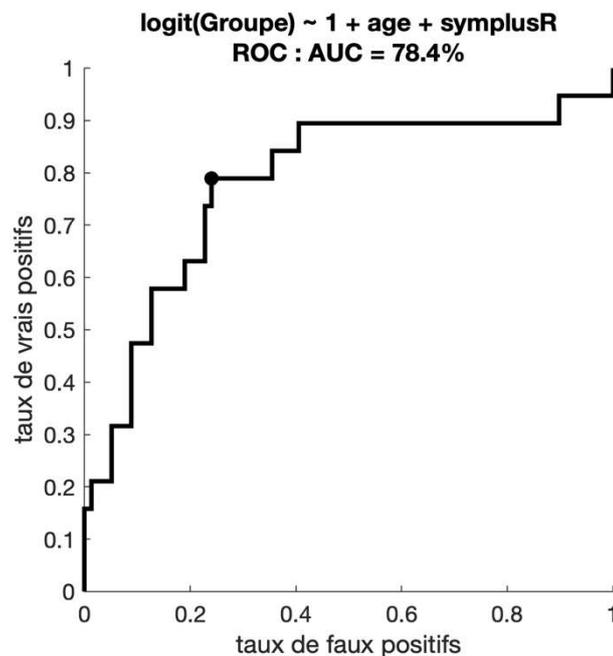


FIGURE 29: COURBE ROC DE PREDICTION D'UN IAH > 5 OBTENUE A PARTIR D'UN MODELE DE REGRESSION LOGISTIQUE. LE POINT MATERIALISE LE SEUIL OPTIMAL AU SENS DE YODEN.

### 3.5. RESULTATS POSTOPERATOIRES

Sur les 100 patients ayant réalisé un enregistrement du sommeil avant l'intervention, 34 ont bénéficié d'un enregistrement postopératoire (38 patients ont refusé la PSG, 9 ne se sont pas présentés et 25 n'avaient pas encore eu leur évaluation à un an postopératoire). L'âge médian des patients était de 34.5 ans [26.3 ; 45.8], 35 % des patients étaient des hommes, avec un IMC médian de 23.5 kg/m<sup>2</sup> [20.9 ; 26]. L'IAH et l'IAH dorsal ont diminué significativement après l'intervention : l'IAH médian est passé de 2.1 [1 ; 7.4] à 1.7 [0.9 ; 3.5] (p = 0.01) et l'IAH dorsal de 4.1 [0.7 ; 11.1] à 2.2 [0.9 ; 4.8] (p = 0.03). De même, il a été observé une augmentation significative de la saturation en oxygène (p = 0.04) en postopératoire. Le score d'Epworth, l'index de micro-éveil et l'index de désaturation n'ont pas été significativement modifiés. Les résultats sont visibles dans le *tableau 12*.

TABLEAU 12: COMPARAISON DES CARACTERISTIQUES POLYSOMNOGRAPHIQUES DES PATIENTS EN PREOPERATOIRE ET POSTOPERATOIRE

Groupe	Préopératoire	Post opératoire	p
Temps de sommeil total, min	433.5 [374.5 - 485.5]	419.8 [367.4 - 493.5]	0.6
Veille intra sommeil, min	70 [40.6 - 96.3]	54.5 [32- 129]	0.8
Efficacité, %	89.4 [83.2 – 94.5]	90.5 [78.7– 94.7]	0.7
Latence, min			
Endormissement	13 [8 – 24]	11 [6.5 – 21]	0.78
Sommeil lent profond	14.5 [10.1 – 22.9]	14.5 [9.6 – 22.4]	0.35
Sommeil paradoxal	82.5 [63.8 – 140.5]	76.5 [64.5 – 132]	0.52
Stade de sommeil, %			
Stade 1	2.1 [0.9 – 3.3]	1.6 [0.6 – 2.4]	0.34
Stade 2	52.4 [48 – 55.2]	51.6 [48.5 – 55.7]	0.49
Sommeil lent profond	23.9 [18.7 – 27.2]	22 [17.8 – 25.6]	0.24
Sommeil paradoxal	23.1 [16.5 – 26.6]	23.9 [20.1 – 26.8]	0.3
Micro éveil, Nd d'évènements/h	6.9 [4.6 – 10.5]	7.6 [5.7 – 15.4]	0.4
Index d'apnée/hypopnée nb/h	2.1 [1 – 7.4]	1.7 [0.9 – 3.5]	<b>0.01</b>
5≤AHI < 15, Nb de sujets	8	2	
15 ≤AHI < 30, Nb de sujets	2	1	
AH I≥30, Nb de sujets	2	0	
Index d'apnée/hypopnée dorsal nb/h	4.1 [0.7 – 11.1]	2.2 [0.9 – 4.8]	<b>0.04</b>
Saturation en oxygène durant le sommeil, %	96 [95 – 97]	97 [96 – 97]	<b>0.04</b>
Saturation en oxygène minimale, %	90 [87.2 – 92]	92 [91 – 93]	0.07
Temps passé sous 90%, %	0 [0– 0.2]	0 [0– 0]	0.23

Chez les patients qui avaient un IAH  $\geq 5/h$  en préopératoire, il a été observé une diminution significative de l'IAH (2.3 [1.5 ; 4] versus 8.95 [7.4 ; 22.9],  $p < 0.001$ ) et de l'IAH dorsal (3.5 [1.4 ; 6.9] versus 17.6 [9.9 ; 34.3],  $p = 0.07$ ) en préopératoire. Il n'a pas été observé d'autres différences significatives chez ces patients.

#### 4. POINTS CLES

- La prévalence d'un IAH  $\geq 5$ /heure dans notre cohorte est de 20 %. Ce chiffre n'est pas supérieur à celui de la population générale.
- Les patients avec un IAH  $\geq 5$ /heure avaient plus souvent une malocclusion de type classe II d'Angle et des hauteurs faciales équilibrées, mais il n'a pas été observé de corrélation entre les critères céphalométriques et l'IAH.
- Un âge supérieur à 24 ans et un ronflement quotidien sont prédictifs d'un IAH  $\geq 5$ /heure

## CHAPITRE 5 : COUPLAGE POSTURO-VENTILATOIRE ET DYSMORPHIE. PRESENTATION DU PROTOCOLE.

Cette dernière étude avait pour objectif d'approcher les mécanismes physiopathologiques de la dysfonction posturale au cours des DMM, avec comme principale hypothèse et par analogie avec ce qui a été décrit précédemment dans le SAOS l'existence d'une altération du couplage posturo-ventilatoire. Les résultats sont en cours d'analyse et ne seront pas présentés dans ce manuscrit de thèse, mais nous décrivons ci-dessous le protocole expérimental utilisé.

### 1. INTRODUCTION

Pour rappel, en situation physiologique, les fonctions posturale et ventilatoire sont étroitement couplées. Des modifications du couplage posturo-ventilatoire ont été démontrées chez les patients présentant un SAOS. Comparés à un groupe contrôle, les patients avec un SAOS présentaient une émergence respiratoire plus importante, c'est-à-dire un couplage posturo-ventilatoire plus important, représentée par un déplacement médio-latéral du centre de pression plus important chez les patients SAOS que chez les sujets contrôles associé à une augmentation de l'émergence (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020). Les patients avec un SAOS et les patients avec une DMM présentent une altération de l'alignement postural commune : la tête est en hyperextension, compensée par une augmentation de la cyphose thoracique. Il est donc légitime de se demander si les patients avec une DMM présentent également une altération du couplage posturo-ventilatoire.

### 2. MATERIELS ET METHODES

#### 2.1. PATIENTS ET GROUPE CONTROLE

Les patients inclus ont été recrutés lors de la consultation préopératoire orthodontico-chirurgicale de l'Hôpital de la Pitié Salpêtrière. Il s'agit des 30 mêmes patients que dans le chapitre 3 de la thèse. Le groupe contrôle est également composé des 20 mêmes patients. Les patients dysmorphiques ont également effectué une analyse à un an postopératoire. Tous les patients ont donné leur consentement écrit pour cette étude.

## 2.2. PROTOCOLE EXPERIMENTAL

L'examen postural a eu lieu dans la salle d'analyse du mouvement du laboratoire de biomécanique Georges Charpak. Les paramètres stabilométriques et ventilatoires ont été obtenus avec le système d'analyse du mouvement utilisant des capteurs opto-électroniques (Vicon® avec Nexus 2.5, Oxford, UK) qui a été synchronisé avec une plateforme de force (BP 4051040-2K, ATMI, Watertown, USA). Le déplacement du centre de pression (CP) sur la plateforme de force a été enregistré à la fréquence de 100Hz. Les patients ont été équipés de 65 marqueurs réfléchissants : 41 marqueurs ont été disposés sur le thorax, quatre sur la tête, sept sur chaque jambe et trois sur chaque pied. Les sujets se tenaient debout, les bras le long du corps, pieds nus sur la plateforme de force. Un repère visuel situé à hauteur des yeux a été positionné pour que les sujets regardent droit devant. Quatre conditions différentes de ventilation spontanée naturelle ont été enregistrées : yeux ouverts avec les dents serrées (YoDs), yeux ouverts avec les dents « ouvertes », non en contact (YoDo), yeux fermés avec les dents serrées (YfDs) et yeux fermés avec les dents « ouvertes » (YfDo). Les quatre conditions ont été enregistrées dans un ordre aléatoire pour chaque sujet et contrôle. Les enregistrements duraient une minute. Quarante-cinq secondes de chaque enregistrement ont été analysées avec la méthode développée par Louis Clavel (Clavel, Attali, et al., 2020).

## 2.3. PARAMETRES ETUDIES

### Profil stabilométrique

Pour chaque segment du corps, un point représentatif a été défini. Ainsi, pour la cheville, il s'agit du centre de la ligne passant entre la malléole latérale et la malléole médiale ; pour les genoux, du centre de la ligne passant entre l'épicondyle latéral du fémur et le condyle médial du tibia; pour le bassin, du barycentre des quatre repères placés sur les épines iliaques antérieure et postérieure; pour la tête, du barycentre des quatre repères de la tête; pour le thorax, de la huitième vertèbre thoracique; pour les épaules, de l'acromion.

Les mouvements du CP et des points représentants les différents segments du corps ont été analysés de façon similaire dans un plan parallèle au sol. Pour chaque point, nous avons analysé la vitesse moyenne de déplacement (VM), la distance totale parcourue (DT) et l'ellipse de confiance à 95 % de leur mouvement, ainsi que les amplitudes antéro-postérieures (AP) et médio-latérales (ML) de l'ellipse (*figure 30*). Il s'agit du protocole décrit par Lespert *et al.* (article en revue).

### Ventilation

A partir des 41 marqueurs positionnés sur le thorax, il est possible d'extraire la fréquence respiratoire (FR), le temps inspiratoire (Ti) et le temps expiratoire (Te) à l'aide de la méthode décrite par Louis Clavel (Clavel, Attali, et al., 2020).

## Couplage posturo-ventilatoire

A partir des données synchronisées dans le temps de l'analyse du mouvement (signaux ventilatoires et variation des angles cinématiques de la colonne cervicale, du bassin, des genoux et des chevilles) et de l'analyse stabilométrique, le couplage posturo-ventilatoire a ensuite été calculé en utilisant la méthode de l'émergence respiratoire (REm) décrite par Hamaoui *et al.* (Hamaoui *et al.*, 2010). L'émergence est définie comme le pourcentage d'oscillation posturale liée à la ventilation. Pour la calculer, nous avons extrait l'énergie d'une sous-bande de 0,08 Hz centrée sur la fréquence respiratoire (énergie locale) du signal spectral du centre de pression (*figure 30*). Le rapport entre l'énergie locale et l'énergie totale du spectre a ensuite été calculé. L'émergence peut avoir théoriquement des valeurs comprises entre 0 et 100 %, mais elle est située entre 10 et 20 % chez les sujets sains (Clavel *et al.*, 2020a; Hamaoui *et al.*, 2010).

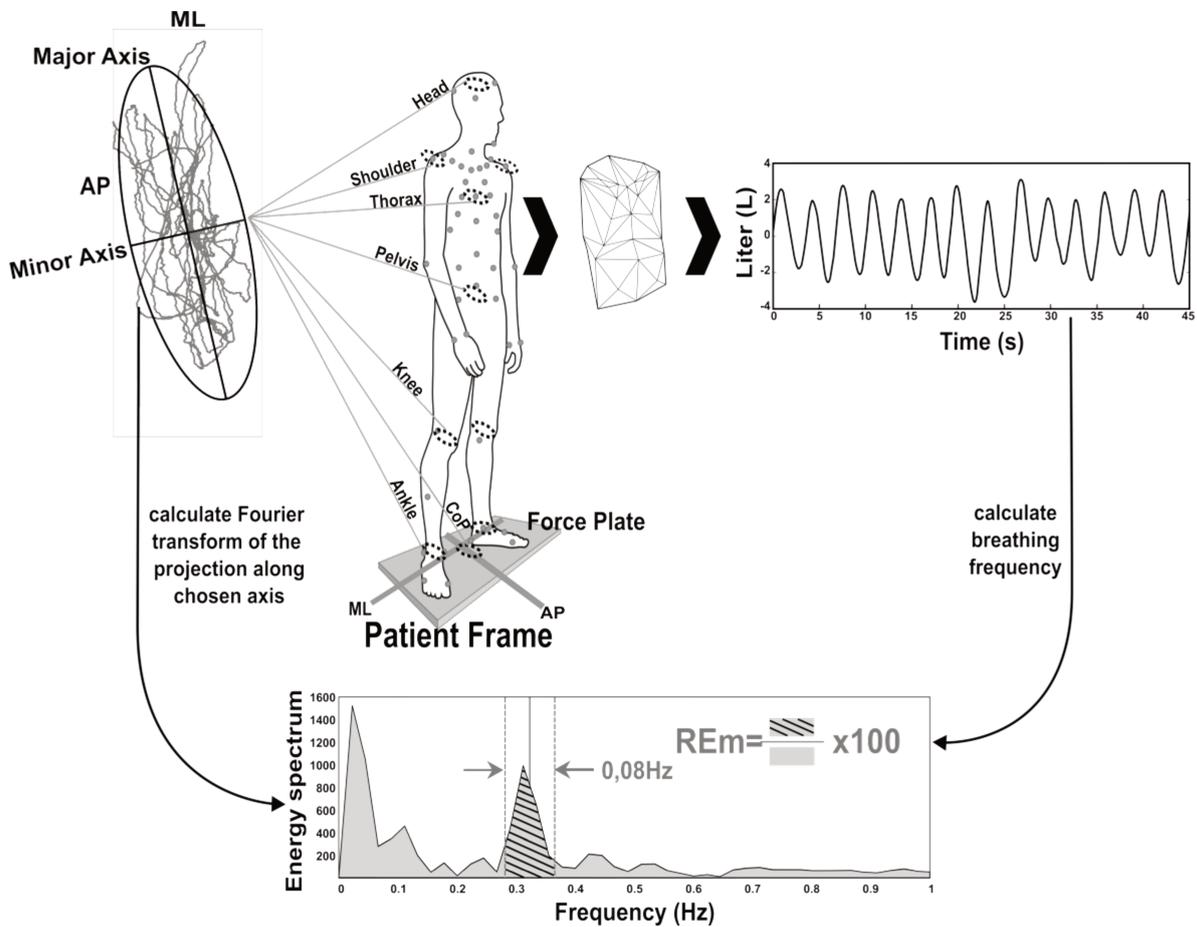


FIGURE 30: SCHEMA DU CALCUL DE L'EMERGENCE, SELON LESPERT ET AL.

### 3. CONCLUSION

L'analyse du couplage posturo-ventilatoire des patients dysmorphiques va permettre de compléter l'analyse de la dysfonction posturale observée lors de l'analyse « statique » obtenue par l'imagerie EOS. Cette analyse dynamique va permettre d'observer de potentielles compensations au niveau des membres inférieurs et d'observer une possible altération du couplage posturo-ventilatoire similaire à celle des patients avec un SAOS.

## PARTIE 3 : DISCUSSION

Cette thèse s'est organisée autour de deux grands axes : étudier la prévalence du SAOS dans une population de patients dysmorphiques et étudier le couplage posturo-ventilatoire de ces patients. Ces deux axes de travail sont reliés par une unité anatomique et fonctionnelle commune : les voies aériennes supérieures.

### 1. ANALYSE DU SOMMEIL CHEZ LES PATIENTS DYSMORPHIQUES

Un risque théorique de SAOS est évoqué dans certaines dysmorphies, en particulier celles associées à une face longue. Cependant, peu de données sont disponibles dans la littérature, toutes issues de cohortes rétrospectives et aucune étude prospective n'a, à ce jour, étudié la prévalence du SAOS dans cette population. Dans notre étude, un des objectifs était d'obtenir la prévalence du SAOS dans une population de patients dysmorphiques avec indication opératoire.

La prévalence d'un IAH  $\geq 5$ /heure dans notre cohorte est de 20 %. Ce chiffre n'est pas supérieur à celui de la population générale. Plusieurs études ont cherché à établir la prévalence d'un IAH  $\geq 5$ /heure dans la population générale. Ainsi, Heinzer *et al.* ont étudié le sommeil de 2121 patients : 83 % des hommes de plus de 40 ans et 61 % des femmes présentaient un IAH  $\geq 5$ /heure (Heinzer *et al.*, 2015). Cependant, leur cohorte de patients était plus âgée que dans la nôtre. Or, il est désormais démontré que la prévalence du SAOS augmente avec l'âge. De façon similaire, Tufik *et al.* ont étudié les polysomnographies de 1042 patients brésiliens : 12 % des hommes de moins de 30 ans et 23 % des hommes de moins de 40 ans avaient un IAH  $\geq 5$ /heure. Chez les femmes, la prévalence était de 1,4 % pour les sujets de moins de 30 ans et 17 % chez les moins de 40 ans (Tufik *et al.*, 2010). Ces chiffres sont similaires à ceux de notre étude. Notre population de patients dysmorphiques ne présente pas une prévalence de trouble obstructif du sommeil supérieur à la population générale.

Le choix d'un seuil d'index d'apnées hypopnées de 5/h peut se discuter mais a été choisi dans notre étude pour les raisons suivantes :

- Un seuil d'IAH de 15/h aurait été cohérent avec à la fois les recommandations de traitement des sociétés savantes et avec le seuil minimal associé aux comorbidités spécifique. Cependant, seuls quatre patients avaient un IAH  $\geq 15$ /h dans notre cohorte, ne permettant pas des comparaisons valides entre deux groupes.
- Un seuil d'IAH de 5/h est néanmoins significatif d'un point de vue physiopathologique, dans la mesure où il témoigne d'une instabilité des VAS.
- Concernant la prise en charge chirurgicale de ces patients, il est habituel de proposer une adaptation de la chirurgie prenant en compte l'existence d'un SAOS (avancée supérieure par exemple). Il n'existe aucune recommandation quant au seuil d'IAH à considérer dans ce contexte (5 ou plus). Les patients opérés sont généralement jeunes et on peut supposer qu'une instabilité

des VAS avec un faible IAH va potentiellement s'aggraver avec l'âge. En ce sens, considérer un seuil d'IAH de 5/h n'est pas forcément illogique même si des études complémentaires seront nécessaires pour déterminer le meilleur seuil à considérer d'un point de vue chirurgical.

- Cette approche est soutenue par les données cliniques puisque les patients avec un IAH  $\geq$  5/heure étaient significativement plus symptomatiques.
- Cette approche est également soutenue par l'amélioration des paramètres respiratoires au cours du sommeil en postopératoire.

Notre étude avait également pour objectif de proposer des recommandations pour la réalisation d'une polysomnographie préopératoire. A partir des modèles prédictifs présentés dans la thèse, nous proposons de dépister tous les patients âgés d'au moins 50 ans et les patients âgés d'au moins 24 ans qui présentent un ronflement et un autre symptôme de SAOS. En revanche, aucune donnée céphalométrique n'était prédictive d'un IAH  $\geq$  5/heure (limite pour ANB), de même que le volume des VAS. Il n'y a donc pas, d'après nos données, de profil particulier de dysmorphie nécessitant plus que les autres un dépistage de SAOS. Ces données sont en accord avec la littérature. En effet, *Polis et al.* et *Stipa et al.* ont trouvé des résultats similaires aux nôtres : il n'y a pas de corrélations entre paramètres céphalométriques et sévérité du SAOS, et donc de l'IAH (*Pollis et al., 2022; Stipa et al., 2020*). Cette absence de corrélation est potentiellement liée à la physiopathologie complexe et multifactorielle du SAOS : un critère anatomique seul n'est pas toujours suffisant pour provoquer un SAOS.

Notre étude comporte plusieurs limites. La première est l'absence de groupe contrôle. Cependant, la prévalence d'un IAH  $\geq$  5/heure dans notre étude n'est pas importante. Le groupe contrôle aurait surtout trouvé un intérêt si nous avions montré une prévalence plus élevée que dans la population générale. La seconde limite est commune à toutes les études analysant le volume des VAS chez des patients suspects de troubles du sommeil : les scanners sont réalisés éveillés. Or, il a été démontré que les muscles pharyngés se contractent pendant l'éveil, surtout chez les patients avec un SAOS. Ainsi, les mesures volumétriques acquises avec le scanner ne reflètent pas les volumes des VAS pendant le sommeil. La dernière limite de notre étude est le manque de données radiographiques en postopératoire. Ainsi, seuls sept patients sur 38 (18 % de la cohorte) ont un scanner postopératoire. Il est donc difficile d'étudier l'impact de la chirurgie sur les VAS. De plus, 13 patients soit 34 % de notre cohorte n'ont pas de téléradiographies postopératoires (les examens n'ont pas tous pu être récupérés pour l'écriture du manuscrit ; les radiographies ont été prescrites mais elles n'ont pas encore été réalisées par certains patients). Cependant, l'étude du sommeil des patients dysmorphiques en postopératoire n'était pas un objectif majeur de ce travail.

## 2. DYSFONCTION POSTURALE DES PATIENTS DYSMORPHIQUES

Cette thèse met en évidence une altération de l'alignement postural spécifique chez les patients dysmorphiques caractérisée par une posture de la tête en avant, une hypercyphose de la partie inférieure du rachis cervical et un équilibre sagittal négatif.

## 2.1. *ALTERATION DE L'ALIGNEMENT POSTURAL CHEZ LES PATIENTS DYSMORPHIQUES*

Nous avons trouvé des différences significatives entre le groupe DMM et le groupe contrôle sur la posture cervicale et la position de la tête : les patients dysmorphiques présentaient une altération de la courbure du rachis cervical caractérisée par une lordose accrue de sa partie supérieure et une cyphose accrue de sa partie inférieure, entraînant une posture de la tête vers l'avant (augmentation de l'angle OD-C7). Cette posture cervicale altérée a déjà été rapportée chez des patients présentant une malocclusion de classe III d'Angle avant une chirurgie orthognathique (Kulczynski et al., 2017) et chez les patients présentant une malocclusion de classe II ou III d'Angle par rapport aux patients présentant une occlusion de classe I d'Angle (Iacob et al., 2018). Cependant, ces études n'ont pas évalué l'alignement global du patient, en ne prenant pas en compte, par exemple, l'orientation du bassin.

Notre étude est la première à montrer une altération de la posture globale chez les patients atteints de DMM, avec notamment un équilibre sagittal négatif. Une posture normale nécessite un alignement vertical de la tête et du bassin (Amabile et al., 2018). Fait intéressant, l'alignement vertical tête-bassin est préservé chez les patients atteints de DMM (angle OD-HA normal) malgré l'altération de la posture cervicale. Cela suggère que l'altération de la posture cervicale déclenche des mécanismes compensatoires entraînant une augmentation de la cyphose thoracique. Cette hypothèse est étayée par la corrélation entre OD-C7 et la courbure thoracique (plus l'ODC7 est élevée, plus la cyphose thoracique est élevée) observée dans le groupe DMM mais pas dans le groupe contrôle.

## 2.2. *PHENOTYPES POSTURAUX CHEZ LES PATIENTS DYSMORPHIQUES*

Deux phénotypes posturaux ont été observés chez les patients atteints de DMM : ces deux phénotypes différaient uniquement sur les variables pelviennes et sur la lordose lombaire, mais étonnamment pas sur l'alignement cervical. Nous avons notamment observé une grande différence entre les phénotypes sur l'incidence pelvienne qui est connue pour augmenter pendant la croissance et finalement se stabiliser chez les adultes. Cet angle morphologique constant détermine alors les courbures vertébrales et la forme du dos. Par conséquent, l'adaptation posturale chez les patients atteints de DMM pourrait être due non seulement à des altérations mécaniques des voies respiratoires supérieures, mais également à des mécanismes de croissance altérés : notre cohorte de patients atteints de MMD comprenait un taux élevé de patients atteints de scoliose (20 %), ce qui est également lié à une altération de la croissance (de Sèze & Cugy, 2012; Horne et al., 2014). Cependant, il ne s'agit que d'une hypothèse qui nécessite de plus amples investigations.

### 2.3. IMPACT DE LA CHIRURGIE SUR LA POSTURE

Très peu de données sont disponibles dans la littérature. Seulement 5 articles ont évalué l'impact de la chirurgie orthognathique sur la posture. Les résultats sont en faveur d'une amélioration de la posture cervicale. Ainsi, les patients de l'étude de Nakashima *et al.* qui présentaient une inclinaison de la tête dans le plan frontal en préopératoire corrige leur posture en postopératoire, les patients en classe III de l'étude de Lima Santos *et al.* et ceux de l'étude de Kulczynski *et al.* ont une diminution de la projection antérieure de la tête en postopératoire (Kulczynski *et al.*, 2018; Nakashima *et al.*, 2017; Santos *et al.*, 2021a). Ces données sont concordantes avec les données de notre étude : nous avons également mis en évidence une diminution significative de la cyphose cervicale. De plus, dans notre étude, nous avons mis évidence une tendance à la diminution de la projection antérieure de la tête (diminution de OD-C7, bien que non significative).

Cependant, les résultats de ces articles sur le reste de l'alignement postural sont en faveur d'une absence d'amélioration. Ces résultats sont similaires à ceux de notre étude : nous n'avons pas de différence significative de SVA ou des autres paramètres posturaux. La valeur médiane de SVA dans notre cohorte est passée de -19.8 à -14.2 mm, loin de la norme établie pour cette mesure (0 +/- 2,5 mm (Lafage *et al.*, 2008) ou 0 +/- 5 mm (Cirillo Toteria *et al.*, 2021) en fonction des auteurs). Sinko *et al.* et Lima Santos *et al.* n'ont également pas trouvé de correction posturale en postopératoire sur l'alignement postural global (Santos *et al.*, 2021b; Sinko *et al.*, 2006). Nakashima *et al.* n'ont pas observé de correction de l'angle de Cobb au niveau thoracique en postopératoire et Kulczynski *et al.* ont simplement mis en évidence un « réalignement du tronc vers l'arrière ». Or, il est difficile d'établir des conclusions avec ces études. En effet, la grande majorité des études (quatre études sur cinq) ont évalué la posture par des méthodes indirectes (photographies ou vidéo-rastéréographie). Or, ces méthodes sont moins précises et moins fiables pour analyser l'équilibre postural que l'imagerie radiographique conventionnelle ou l'imagerie biplanaire EOS® (de Albuquerque *et al.*, 2018; Wanke-Jellinek *et al.*, 2019). Ainsi, notre étude est la seule à évaluer l'impact de la chirurgie orthognathique sur l'alignement postural global avec une méthode d'analyse posturale validée. Dans notre étude, nous observons une amélioration posturale postopératoire partielle : la posture cervicale est significativement modifiée mais la chirurgie n'a pas d'impact sur le reste de l'alignement postural.

### 2.4. LIMITES

Nous avons constitué notre groupe contrôle à partir d'une base de données. Ces patients ne présentaient pas de symptômes de dysmorphie et un équilibre facial normal. Cependant, il n'existe pas de définition ou de standardisation d'un « équilibre facial normal ». Même si des normes ont été établies lors d'études céphalométriques, les angles en question ont été étudiés indépendamment et non dans leur ensemble. Cependant, nous avons utilisé des critères restrictifs, prenant en compte l'architecture faciale dans les trois dimensions de l'espace.

Onze patients, soit 35 % de notre cohorte, n'ont pas réalisé l'examen postopératoire. Cette diminution d'effectif a donc provoqué un manque de puissance dans nos résultats statistiques, ne permettant pas de refaire l'analyse de sous-groupe en fonction du phénotype postural en postopératoire.

Par ailleurs, trop peu de patients ont réalisé un scanner du massif facial après l'intervention. Nous n'avons donc pas les informations sur le volume et la morphologie des voies aériennes supérieures en postopératoire.

### 3. ROLE DES VOIES AERIENNES SUPERIEURES

Il existe une relation étroite entre la morphologie faciale et les propriétés mécaniques des voies respiratoires supérieures. Dans l'enfance, la ventilation orale peut altérer la croissance maxillo-mandibulaire et favoriser l'apparition et le développement d'une DMM, en particulier le phénotype clinique de « face longue » ou radiologique d'« hyperdivergent » (angle FMA augmenté) (D'Onofrio, 2019). La DMM induite par la ventilation orale est caractérisée par une déformation en rotation horaire de la mandibule, avec une augmentation de la hauteur faciale antérieure et une diminution de la hauteur faciale postérieure (Harari et al., 2010) et un maxillaire étroit (Lione et al., 2014). Elle nécessite un traitement orthopédique précoce pour rétablir un schéma de croissance normal (S.H. Lee et al., 2015; Mattar et al., 2011).

Toutes les DMM de notre cohorte ne sont pas liés à une ventilation orale pendant l'enfance. Cependant, nos résultats soutiennent la relation entre la ventilation orale et l'adaptation de la posture cervicale. En effet, nous avons trouvé des corrélations entre l'angle FMA et l'angle C3-C7 d'une part, et avec l'angle OD-C7, d'autre part. Ainsi, plus l'angle FMA est élevé, plus le patient positionne sa tête vers l'avant et plus la cyphose cervicale est élevée. De plus, cette projection antérieure de la tête et l'altération de l'alignement postural cervical que nous avons trouvés chez les patients dysmorphiques ont précédemment été rapportés chez les patients atteints de SAOS. Chez ces patients, l'altération de l'alignement postural entraîne une altération de l'équilibre et du couplage posturo-respiratoire liée à l'instabilité des voies aériennes supérieures pendant l'éveil. Cela soutient indirectement l'hypothèse d'une adaptation posturale liée aux VAS dans la dysmorphie.

La corrélation trouvée dans notre cohorte entre un volume accru des voies aériennes supérieures et un angle SNB élevé illustre les conséquences d'une position avancée de la mandibule et, par conséquent, de la langue et de la base de la langue sur les VAS. Cependant, la taille ou la forme normale des voies respiratoires supérieures et sa relation avec la respiration buccale restent floues (Seung Hoon Lee et al., 2007). La modification du volume ou de la forme des voies respiratoires supérieures par une intervention chirurgicale peut affecter ses propriétés mécaniques, à savoir la stabilité. Cependant, ces mesures ne sont que des variables facilement disponibles qui sont indirectement liées aux changements de stabilité, mais elles peuvent ne pas refléter la stabilité intrinsèque des voies respiratoires supérieures sans aucun changement, en particulier chez les patients non opérés. Cela pourrait expliquer pourquoi nous n'avons trouvé aucune corrélation entre le volume des voies respiratoires supérieures et la fonction respiratoire chez nos patients.

Autrement dit, une petite mandibule est associée à de petites voies respiratoires supérieures, mais pas nécessairement à des voies respiratoires supérieures instables et collapsables.

Dans cette thèse, nous avons évalué le volume des VAS et le diamètre sectionnel minimal des VAS chez 100 patients ayant eu une polysomnographie avant une chirurgie orthognathique. Nous n'avons pas mis en évidence de lien entre le volume/le diamètre des VAS et les paramètres céphalométriques et entre le volume/diamètre des VAS et la présence d'un SAOS. De plus, l'IAH n'était pas corrélé aux paramètres des VAS. Ces résultats sont similaires à la littérature (Wang et al., 2022). De même, nous n'avons pas trouvé de différence de volume ou de diamètre des VAS entre le groupe avec un index  $\geq 5$ /heure et le groupe avec index  $< 5$ /heure. Cependant, au niveau du diamètre minimal sectionnel, la différence était proche du seuil de significativité ( $p = 0.08$ ). Dans la littérature, les résultats sont discordants. Mouhanna *et al.* ont comparé le volume des VAS de 27 patients avec un SAOS et 27 patients contrôles à l'aide de cone beam (CBCT) : ils ont mis en évidence un diamètre sectionnel significativement inférieur dans le groupe SAOS (Mouhanna-Fattal et al., 2019). Dans une étude comparable, Ogawa *et al.* n'ont pas mis en évidence de différence de volume entre un groupe de dix patients avec un SAOS et un groupe de dix patients contrôle mais ils ont trouvé un diamètre sectionnel significativement inférieur dans le groupe SAOS (Ogawa et al., 2007). Cependant, nous avons seulement étudié le volume global des VAS ainsi que le diamètre sectionnel minimum. Il est prévu, dans un temps ultérieur, d'analyser la morphologie des VAS, d'analyser le diamètre minimum et d'étudier le volume des VAS en fonction de différents sites anatomiques.

En postopératoire, on observe une différence significative de la valeur de l'angle C3-C7 associé à une diminution proche de la significativité de l'angle OD-C7 (9.8 [6.2 ; 14] versus 8.1 [4.7 ; 10.7],  $p = 0.07$ ), ce qui signifie que les patients ont une projection antérieure de la tête moins importante. De plus, on observe la disparition de certaines corrélations mises en évidence en préopératoire, notamment celles impliquant l'angle FMA. Les corrélations entre les angles SVA et FMA, ainsi que celles entre les angles FMA et C3-C7 ne sont ainsi plus retrouvées. Cette disparition est probablement liée à la modification de l'angle FMA et à la correction, même partielle, de la dysfonction ventilatoire. Cette correction de la dysfonction ventilatoire entraîne probablement une correction partielle de la dysfonction posturale.

## CONCLUSION ET PERSPECTIVES

### DYSFONCTION POSTURALE

Avec ce travail, nous avons mis en évidence une dysfonction posturale chez les patients présentant une DMM : ils présentaient une posture cervicale vers l'avant, compensée par une augmentation de la cyphose thoracique, avec un équilibre sagittal négatif. De même, deux phénotypes posturaux ont été observés, qui différaient sur les critères posturaux. Les critères cliniques et céphalométriques n'avaient aucun lien avec ces deux sous-groupes : ils se différenciaient par l'incidence pelvienne et la lordose lombaire, critères ayant un lien étroit avec la croissance des individus.

La dysfonction posturale chez les patients dysmorphiques est probablement liée à deux phénomènes : la ventilation orale et une probable anomalie de la croissance. En postopératoire, la dysfonction posturale s'améliore (diminution de la projection antérieure de la tête), mais cette amélioration n'est que partielle. Cette correction est probablement secondaire à la restauration d'une ventilation nasale (disparition d'une partie des corrélations entre les paramètres posturaux et l'angle FMA, marqueur indirect de la ventilation orale). Le couplage posturo-ventilatoire des patients dysmorphiques n'est pas décrit dans ce manuscrit. Les résultats seront présentés lors de la soutenance puis publiés avec les résultats de l'analyse posturale statique postopératoire.

### TROUBLES DU SOMMEIL ET DMM

Ce travail est la première étude prospective à étudier la prévalence du SAOS dans une population de patients dysmorphiques. Il n'a pas été mis en évidence de prévalence accrue du SAOS. Nous n'avons pas trouvé de corrélation entre l'IAH et les paramètres céphalométriques. Les critères prédictifs d'un IAH  $\geq$  5/heure sont le ronflement, la présence d'un second symptôme évocateur de SAOS (notamment la nycturie) et l'âge, mais pas la somnolence diurne.

En postopératoire, il existe une amélioration de l'IAH dans notre population. Cette amélioration était attendue : en augmentant le volume des VAS, la chirurgie orthognathique est le seul traitement curatif du SAOS à l'heure actuelle.

Lors de ce travail, nous avons également étudié les VAS de notre cohorte de patients. Nous n'avons pas mis en évidence de lien entre le volume des VAS et la présence d'un SAOS ni d'un lien avec la sévérité du SAOS. En revanche, le diamètre minimal sectionnel était inférieur, proche du seuil de significativité, chez les patients avec un IAH  $\geq$  5/heure.

Il reste cependant un peu de travail avant de pouvoir publier les résultats de cette partie de la thèse. Nous allons compléter l'étude des VAS afin d'évaluer plus finement leur lien éventuel avec le SAOS en fonction des régions anatomiques. De plus, les téléradiographies manquantes sont en cours de collections pour compléter l'analyse postopératoire.

## **CONCLUSION**

Les patients avec une DMM ne présentent pas plus de SAOS que la population générale. En revanche, ils ont une altération de l'alignement postural caractérisée par une projection antérieure de la tête compensée par un équilibre sagittal négatif et une augmentation de la cyphose thoracique qui ne se corrige que partiellement après une chirurgie correctrice de la DMM. Cette altération de l'alignement postural semble corrélée à la ventilation orale.

## BIBLIOGRAPHIE

- Almuzian, Mohammed, Ghatam, Hind Mohammed Al, & Al-Muzian, Lubna. (2018). Assessing the validity of ITK-SNAP software package in measuring the volume of upper airway spaces secondary to rapid maxillary expansion. *Journal of Orthodontic Science*, 7, 7. [https://doi.org/10.4103/jos.JOS\\_93\\_17](https://doi.org/10.4103/jos.JOS_93_17)
- Amabile, Celia, Le Huec, Jean-Charles, & Skalli, Wafa. (2018). Invariance of head-pelvis alignment and compensatory mechanisms for asymptomatic adults older than 49 years. *European Spine Journal: Official Publication of the European Spine Society, the European Spinal Deformity Society, and the European Section of the Cervical Spine Research Society*, 27(2), 458–466. <https://doi.org/10.1007/s00586-016-4830-8>
- Amabile, Celia, Pillet, H el ene, Lafage, Virginie, Barrey, C edric, Vital, Jean-Marc, & Skalli, Wafa. (2016). A new quasi-invariant parameter characterizing the postural alignment of young asymptomatic adults. *European Spine Journal: Official Publication of the European Spine Society, the European Spinal Deformity Society, and the European Section of the Cervical Spine Research Society*, 25(11), 3666–3674. <https://doi.org/10.1007/s00586-016-4552-y>
- American Academy of Sleep Medicine Task Force. (1999). Sleep-Related Breathing Disorders in Adults: Recommendations for Syndrome Definition and Measurement Techniques in Clinical Research. *Sleep*, 22(5), 667–689. <https://doi.org/10.1093/sleep/22.5.667>
- Angle, E. H. (1899). Classification of malocclusion. *The Dental Cosmos*, 41(3), 248–264.
- Attali, Val erie, Clavel, Louis, Rouch, Philippe, Rivals, Isabelle, R emy-N eris, S egol ene, Skalli, Wafa, Sandoz, Baptiste, & Similowski, Thomas. (2019). Compensation of Respiratory-Related Postural Perturbation Is Achieved by Maintenance of Head-to-Pelvis Alignment in Healthy Humans. *Frontiers in Physiology*, 10. <https://doi.org/10.3389/fphys.2019.00441>
- Baumrind, S., & Frantz, R. C. (1971). The reliability of head film measurements. 1. Landmark identification. *American Journal of Orthodontics*, 60(2), 111–127. [https://doi.org/10.1016/0002-9416\(71\)90028-5](https://doi.org/10.1016/0002-9416(71)90028-5)

- Berg, Britt-Isabelle, Laville, Aurélien, Courvoisier, Delphine S., Rouch, Philippe, & Schouman, Thomas. (2020). Experiences with a new biplanar low-dose X-ray device for imaging the facial skeleton: A feasibility study. *PLOS ONE*, *15*(7), e0235032. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0235032>
- Bixler, Edward O., Vgontzas, Alexandros N., Lin, Hung-Mo, Ten Have, Thomas, Rein, Jennifer, Vela-Bueno, Antonio, & Kales, Anthony. (2001). Prevalence of Sleep-disordered Breathing in Women. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, *163*(3), 608–613. <https://doi.org/10.1164/ajrccm.163.3.9911064>
- Bloch, K. E., Iseli, A., Zhang, J. N., Xie, X., Kaplan, V., Stoeckli, P. W., & Russi, E. W. (2000). A randomized, controlled crossover trial of two oral appliances for sleep apnea treatment. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, *162*(1), 246–251. <https://doi.org/10.1164/ajrccm.162.1.9908112>
- Bruwier, Annick, & Limme, Michel. (2019, March 22). *Ventilation buccale et SAOS chez l'enfant*. L'Information Dentaire. <https://www.information-dentaire.fr/formations/ventilation-buccale-et-saos-chez-l-enfant/>
- Buchner, Nikolaus J., Sanner, Bernd M., Borgel, Jan, & Rump, Lars C. (2007). Continuous positive airway pressure treatment of mild to moderate obstructive sleep apnea reduces cardiovascular risk. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, *176*(12), 1274–1280. <https://doi.org/10.1164/rccm.200611-1588OC>
- Burgersdijk, Rob, Truin, Gert-Jan, Frankenmolen, Frans, Kalsbeek, Huib, Hot, Martin van't, & Mulder, Jan. (1991). Malocclusion and orthodontic treatment need of 15–74-year-old Dutch adults. *Community Dentistry and Oral Epidemiology*, *19*(2), 64–67. <https://doi.org/10.1111/j.1600-0528.1991.tb00111.x>
- Caron, Olivier, Fontanari, Pierre, Cremieux, Jacques, & Joulia, Fabrice. (2004). Effects of ventilation on body sway during human standing. *Neuroscience Letters*, *366*(1), 6–9. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2004.04.085>

- Chadwick, Jeffrey W., Prentice, Ricarda N., Major, Paul W., & Lam, Ernest W. N. (2009). Image distortion and magnification of 3 digital CCD cephalometric systems. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontics*, *107*(1), 105–112. <https://doi.org/10.1016/j.tripleo.2008.09.025>
- Chaibi, Y., Cresson, T., Aubert, B., Hausselle, J., Neyret, P., Hauger, O., de Guise, J. A., & Skalli, W. (2012). Fast 3D reconstruction of the lower limb using a parametric model and statistical inferences and clinical measurements calculation from biplanar X-rays. *Computer Methods in Biomechanics and Biomedical Engineering*, *15*(5), 457–466. <https://doi.org/10.1080/10255842.2010.540758>
- Chen, Ssu-Kuang, Chen, Yi-Jane, Yao, Chung-Chen Jane, & Chang, Hsin-Fu. (2004). Enhanced speed and precision of measurement in a computer-assisted digital cephalometric analysis system. *The Angle Orthodontist*, *74*(4), 501–507. [https://doi.org/10.1043/0003-3219\(2004\)074<0501:ESAPOM>2.0.CO;2](https://doi.org/10.1043/0003-3219(2004)074<0501:ESAPOM>2.0.CO;2)
- Cheng, S., Butler, J. E., Gandevia, S. C., & Bilston, L. E. (2008). Movement of the tongue during normal breathing in awake healthy humans. *The Journal of Physiology*, *586*(17), 4283–4294. <https://doi.org/10.1113/jphysiol.2008.156430>
- Cirillo Totera, Juan I., Fleiderman Valenzuela, José G., Garrido Arancibia, Jorge A., Pantoja Contreras, Samuel T., Beaulieu Lalanne, Lyonel, & Alvarez-Lemos, Facundo L. (2021). Sagittal balance: From theory to clinical practice. *EFORT Open Reviews*, *6*(12), 1193–1202. <https://doi.org/10.1302/2058-5241.6.210062>
- Clavel, Louis. (2019). *Analyse et modélisation de l'interaction posturo-ventilatoire en physiologie et application en pathologie respiratoire chronique* [These de doctorat, Sorbonne université]. <https://www.theses.fr/2019SORUS061>
- Clavel, Louis, Attali, Valérie, Rivals, Isabelle, Niérat, Marie-Cécile, Laveneziana, Pierantonio, Rouch, Philippe, Similowski, Thomas, & Sandoz, Baptiste. (2020). Decreased respiratory-related postural perturbations at the cervical level under cognitive load. *European Journal of Applied Physiology*, *120*(5), 1063–1074. <https://doi.org/10.1007/s00421-020-04345-1>

- Clavel, Louis, Rémy-Neris, Ségolène, Skalli, Wafa, Rouch, Philippe, Lespert, Yoann, Similowski, Thomas, Sandoz, Baptiste, & Attali, Valérie. (2020). Cervical Spine Hyperextension and Altered Posturo-Respiratory Coupling in Patients With Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Frontiers in Medicine*, 7, 30. <https://doi.org/10.3389/fmed.2020.00030>
- Collins, J. J., & De Luca, C. J. (1995). The effects of visual input on open-loop and closed-loop postural control mechanisms. *Experimental Brain Research*, 103(1), 151–163. <https://doi.org/10.1007/BF00241972>
- Cronin, Thomas, Arshad, Qadeer, & Seemungal, Barry M. (2017). Vestibular Deficits in Neurodegenerative Disorders: Balance, Dizziness, and Spatial Disorientation. *Frontiers in Neurology*, 8, 538. <https://doi.org/10.3389/fneur.2017.00538>
- de Albuquerque, Priscila Maria Nascimento Martins, de Alencar, Geisa Guimarães, de Oliveira, Daniela Araújo, & de Siqueira, Gisela Rocha. (2018). Concordance and Reliability of Photogrammetric Protocols for Measuring the Cervical Lordosis Angle: A Systematic Review of the Literature. *Journal of Manipulative and Physiological Therapeutics*, 41(1), 71–80. <https://doi.org/10.1016/j.jmpt.2017.08.004>
- de Sèze, M., & Cugy, E. (2012). Pathogenesis of idiopathic scoliosis: A review. *Annals of Physical and Rehabilitation Medicine*, 55(2), 128–138. <https://doi.org/10.1016/j.rehab.2012.01.003>
- Deffrennes, G., Ferri, J., Garreau, E., & Deffrennes, D. (2016). Ostéotomies maxillo-mandibulaires: Bases fondamentales et analytiques cliniques. In *EMC techniques chirurgicales—Tête et cou* (Masson). Masson.
- Del Negro, Christopher A., Morgado-Valle, Consuelo, & Feldman, Jack L. (2002). Respiratory Rhythm: An Emergent Network Property? *Neuron*, 34(5), 821–830. [https://doi.org/10.1016/S0896-6273\(02\)00712-2](https://doi.org/10.1016/S0896-6273(02)00712-2)
- Delaire, J., Schendel, S. A., & Tulasne, J. F. (1981). An architectural and structural craniofacial analysis: A new lateral cephalometric analysis. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology*, 52(3), 226–238. [https://doi.org/10.1016/0030-4220\(81\)90252-8](https://doi.org/10.1016/0030-4220(81)90252-8)

- D'Onofrio, Linda. (2019). Oral dysfunction as a cause of malocclusion. *Orthodontics & Craniofacial Research*, 22(Suppl 1), 43–48. <https://doi.org/10.1111/ocr.12277>
- Dubousset, J., Charpak, G., Dorion, I., Skalli, W., Lavaste, F., de Guise, J. A., Kalifa, G., & Ferey, S. (2005). Le système EOS. Nouvelle imagerie Ostéo-Articulaire basse dose en position debout. *E-Mémoires de l'Académie Nationale de Chirurgie*, 4(4), Article 4. <https://doi.org/10.14607/emem.2005.4.22>
- Durán, J., Esnaola, S., Rubio, R., & Iztueta, A. (2001). Obstructive sleep apnea-hypopnea and related clinical features in a population-based sample of subjects aged 30 to 70 yr. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, 163(3 Pt 1), 685–689. <https://doi.org/10.1164/ajrccm.163.3.2005065>
- Fakhry, N., Rossi, M. E., & Reyre, A. (2014). Anatomie du pharynx. In *EMC Oto-rhino-laryngologie*. <https://www.em-consulte.com/article/1276/anatomie-du-pharynx>
- Findley, L. J., Unverzagt, M. E., & Suratt, P. M. (1988). Automobile accidents involving patients with obstructive sleep apnea. *The American Review of Respiratory Disease*, 138(2), 337–340. <https://doi.org/10.1164/ajrccm/138.2.337>
- Fleetham, J. A., Bradley, C. A., Kryger, M. H., & Anthonisen, N. R. (1980). The effect of low flow oxygen therapy on the chemical control of ventilation in patients with hypoxemic COPD. *The American Review of Respiratory Disease*, 122(6), 833–840. <https://doi.org/10.1164/arrd.1980.122.6.833>
- Fransson, Anette. (2003). A mandibular protruding device in obstructive sleep apnea and snoring. *Swedish Dental Journal. Supplement*, 163, 1–49.
- G. Charpak. (1981). *La détection des particules*. 128, 1384–1396.
- Galetke, W., Feier, C., Muth, T., Rühle, K. H., Borsch-Galetke, E., & Randerath, W. (2007). Reference values for dynamic and static pulmonary compliance in men. *Respiratory Medicine*, 101(8), 1783–1789. <https://doi.org/10.1016/j.rmed.2007.02.015>
- Goodday, Reginald. (2009). Diagnosis, Treatment Planning, and Surgical Correction of Obstructive Sleep Apnea. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 67(10), 2183–2196. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2009.03.035>

- Gottlieb, Daniel J., Yenokyan, Gayane, Newman, Anne B., O'Connor, George T., Punjabi, Naresh M., Quan, Stuart F., Redline, Susan, Resnick, Helaine E., Tong, Elisa K., Diener-West, Marie, & Shahar, Eyal. (2010). Prospective study of obstructive sleep apnea and incident coronary heart disease and heart failure: The sleep heart health study. *Circulation*, *122*(4), 352–360. <https://doi.org/10.1161/CIRCULATIONAHA.109.901801>
- Gray, Henry. (1918). *Anatomy of the Human Body*. Lea & Febiger.
- Gray, Paul A., Hayes, John A., Ling, Guang Y., Llona, Isabel, Tupal, Srinivasan, Picardo, Maria Cristina D., Ross, Sarah E., Hirata, Tsutomu, Corbin, Joshua G., Eugenín, Jaime, & Del Negro, Christopher A. (2010). Developmental Origin of PreBötzing Complex Respiratory Neurons. *The Journal of Neuroscience*, *30*(44), 14883–14895. <https://doi.org/10.1523/JNEUROSCI.4031-10.2010>
- Guilleminault, Christian, & Huang, Yu shu. (2013). Pediatric Obstructive Sleep Apnea and the Critical Role of Oral-Facial Growth: Evidences. *Frontiers in Neurology*, *3*, 184. <https://doi.org/10.3389/fneur.2012.00184>
- Gurfinkel, V. S., Kot, Y. M., Paltsev, E. I., & Feldman, A. G. (1971). The compensation of respiratory disturbances of the erect posture of man as an example of the organization of interarticular interaction. In *Models of the structural-functional organization of certain biological systems* (pp. 382-395.). Mass.MIT Press.
- Hamaoui, Alain, Gonneau, Eric, & Le Bozec, Serge. (2010). Respiratory disturbance to posture varies according to the respiratory mode. *Neuroscience Letters*, *475*(3), 141–144. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2010.03.064>
- Harari, Doron, Redlich, Meir, Miri, Shalish, Hamud, Tachsin, & Gross, Menachem. (2010). The effect of mouth breathing versus nasal breathing on dentofacial and craniofacial development in orthodontic patients. *The Laryngoscope*, *120*(10), 2089–2093. <https://doi.org/10.1002/lary.20991>
- Heinzer, R., Vat, S., Marques-Vidal, P., Marti-Soler, H., Andries, D., Tobback, N., Mooser, V., Preisig, M., Malhotra, A., Waeber, G., Vollenweider, P., Tafti, M., & Haba-Rubio, J. (2015). Prevalence of sleep-

- disordered breathing in the general population: The HypnoLaus study. *The Lancet. Respiratory Medicine*, 3(4), 310–318. [https://doi.org/10.1016/S2213-2600\(15\)00043-0](https://doi.org/10.1016/S2213-2600(15)00043-0)
- Horne, John P., Flannery, Robert, & Usman, Saif. (2014). Adolescent idiopathic scoliosis: Diagnosis and management. *American Family Physician*, 89(3), 193–198.
- Hosmer, D. W., Hosmer, T., Le Cessie, S., & Lemeshow, S. (1997). A comparison of goodness-of-fit tests for the logistic regression model. *Statistics in Medicine*, 16(9), 965–980. [https://doi.org/10.1002/\(sici\)1097-0258\(19970515\)16:9<965::aid-sim509>3.0.co;2-o](https://doi.org/10.1002/(sici)1097-0258(19970515)16:9<965::aid-sim509>3.0.co;2-o)
- Houston, W. J. B., Maher, R. E., McElroy, D., & Sherriff, M. (1986). Sources of error in measurements from cephalometric radiographs. *European Journal of Orthodontics*, 8(3), 149–151. <https://doi.org/10.1093/ejo/8.3.149>
- Hudson, Anna L., Butler, Jane E., Gandevia, Simon C., & De Troyer, Andre. (2011). Role of the diaphragm in trunk rotation in humans. *Journal of Neurophysiology*, 106(4), 1622–1628. <https://doi.org/10.1152/jn.00155.2011>
- Huggare, J. A., & Laine-Alava, M. T. (1997). Nasorespiratory function and head posture. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics: Official Publication of the American Association of Orthodontists, Its Constituent Societies, and the American Board of Orthodontics*, 112(5), 507–511. [https://doi.org/10.1016/s0889-5406\(97\)70078-7](https://doi.org/10.1016/s0889-5406(97)70078-7)
- Hunter, I. W., & Kearney, R. E. (1981). Respiratory components of human postural sway. *Neuroscience Letters*, 25(2), 155–159. [https://doi.org/10.1016/0304-3940\(81\)90324-4](https://doi.org/10.1016/0304-3940(81)90324-4)
- Hutton, Brian, Salanti, Georgia, Caldwell, Deborah M., Chaimani, Anna, Schmid, Christopher H., Cameron, Chris, Ioannidis, John P. A., Straus, Sharon, Thorlund, Kristian, Jansen, Jeroen P., Mulrow, Cynthia, Catalá-López, Ferrán, Gøtzsche, Peter C., Dickersin, Kay, Boutron, Isabelle, Altman, Douglas G., & Moher, David. (2015). The PRISMA extension statement for reporting of systematic reviews incorporating network meta-analyses of health care interventions: Checklist and explanations. *Annals of Internal Medicine*, 162(11), 777–784. <https://doi.org/10.7326/M14-2385>

- Iacob, Simona Maria, Chisnoiu, Andrea Maria, Lascu, Liana Maria, Berar, Antonela Marcela, Studnicska, Daniela, & Fluerasu, Mirela Ioana. (2018). Is PostureScreen® Mobile app an accurate tool for dentists to evaluate the correlation between malocclusion and posture? *Cranio: The Journal of Craniomandibular Practice*, 1–7. <https://doi.org/10.1080/08869634.2018.1512197>
- Ilharreborde, Brice, Dubousset, Jean, & Le Huec, Jean-Charles. (2014). Use of EOS imaging for the assessment of scoliosis deformities: Application to postoperative 3D quantitative analysis of the trunk. *European Spine Journal: Official Publication of the European Spine Society, the European Spinal Deformity Society, and the European Section of the Cervical Spine Research Society*, 23 Suppl 4, S397-405. <https://doi.org/10.1007/s00586-014-3334-7>
- Kado, Deborah M., Huang, Mei-Hua, Nguyen, Claude B., Barrett-Connor, Elizabeth, & Greendale, Gail A. (2007). Hyperkyphotic posture and risk of injurious falls in older persons: The Rancho Bernardo Study. *The Journals of Gerontology. Series A, Biological Sciences and Medical Sciences*, 62(6), 652–657. <https://doi.org/10.1093/gerona/62.6.652>
- Kantor, Eléonore, Poupard, Laurent, Le Bozec, Serge, & Bouisset, Simon. (2001). Does body stability depend on postural chain mobility or stability area? *Neuroscience Letters*, 308(2), 128–132. [https://doi.org/10.1016/S0304-3940\(01\)01986-3](https://doi.org/10.1016/S0304-3940(01)01986-3)
- Kaplan, R. (1992). Obstructive sleep apnoea and depression—Diagnostic and treatment implications. *The Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, 26(4), 586–591. <https://doi.org/10.3109/00048679209072093>
- Kerbrat, A., Rivals, I., Dupuy, P., Dot, G., Berg, B. I., Attali, V., & Schouman, T. (2021). Biplanar Low-Dose Radiograph Is Suitable for Cephalometric Analysis in Patients Requiring 3D Evaluation of the Whole Skeleton. *Journal of Clinical Medicine*, 10(23), 5477. <https://doi.org/10.3390/jcm10235477>
- Kerbrat, A., Schouman, T., Decressain, D., Rouch, P., & Attali, V. (2021). Interaction between posture and maxillomandibular deformity: A systematic review. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, S0901502721001703. <https://doi.org/10.1016/j.ijom.2021.05.003>

- Khalifé, Marc, Vergari, Claudio, Ferrero, Emmanuelle, Attali, Valérie, Heidsieck, Cécile, Assi, Ayman, & Skalli, Wafa. (2022). The rib cage: A new element in the spinopelvic chain. *European Spine Journal*, 31(6), 1457–1467. <https://doi.org/10.1007/s00586-022-07216-9>
- Khan, Adam, Than, Khoi D., Chen, Kevin S., Wang, Anthony C., La Marca, Frank, & Park, Paul. (2014). Sleep apnea and cervical spine pathology. *European Spine Journal*, 23(3), 641–647. <https://doi.org/10.1007/s00586-013-3046-4>
- Koo, Terry K., & Li, Mae Y. (2016). A Guideline of Selecting and Reporting Intraclass Correlation Coefficients for Reliability Research. *Journal of Chiropractic Medicine*, 15(2), 155–163. <https://doi.org/10.1016/j.jcm.2016.02.012>
- Krooks, Laura, Pirttiniemi, Pertti, Kanavakis, Georgios, & Lähdesmäki, Raija. (2016). Prevalence of malocclusion traits and orthodontic treatment in a Finnish adult population. *Acta Odontologica Scandinavica*, 74(5), 362–367. <https://doi.org/10.3109/00016357.2016.1151547>
- Kulczynski, Fernando Zugno, & al. (2017). *Postural Assessment in Class III Patients Before Orthognathic Surgery*. - PubMed—NCBI. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/28822721>
- Kulczynski, Fernando Zugno, de Oliveira Andriola, Fernando, Deon, Pedro Henrique, da Silva Melo, Denizar Alberto, & Pagnoncelli, Rogério Miranda. (2018). Postural assessment in class III patients before and after orthognathic surgery. *Oral and Maxillofacial Surgery*, 22(2), 143–150. <https://doi.org/10.1007/s10006-018-0681-2>
- Kuznetsov, Nikita A., Shockley, Kevin D., Richardson, Michael J., & Riley, Michael A. (2011). Effect of precision aiming on respiration and the postural-respiratory synergy. *Neuroscience Letters*, 502(1), 13–17. <https://doi.org/10.1016/j.neulet.2011.07.012>
- Lacour, M., Barthelemy, J., Borel, L., Magnan, J., Xerri, C., Chays, A., & Ouaknine, M. (1997). Sensory strategies in human postural control before and after unilateral vestibular neurotomy. *Experimental Brain Research*, 115(2), 300–310. <https://doi.org/10.1007/pl00005698>

- Lacour, M., Bernard-Demanze, L., & Dumitrescu, M. (2008). Posture control, aging, and attention resources: Models and posture-analysis methods. *Neurophysiologie Clinique = Clinical Neurophysiology*, *38*(6), 411–421. <https://doi.org/10.1016/j.neucli.2008.09.005>
- Lafage, Virginie, Schwab, Frank, Skalli, Wafa, Hawkinson, Nicola, Gagey, Pierre-Marie, Ondra, Stephen, & Farcy, Jean-Pierre. (2008). Standing balance and sagittal plane spinal deformity: Analysis of spinopelvic and gravity line parameters. *Spine*, *33*(14), 1572–1578. <https://doi.org/10.1097/BRS.0b013e31817886a2>
- Laskowska, M., Olczak-Kowalczyk, D., Zadurska, M., Czubak, J., Czubak-Wrzosek, M., Walerzak, M., & Tyrakowski, M. (2019). Evaluation of a relationship between malocclusion and idiopathic scoliosis in children and adolescents. *Journal of Children's Orthopaedics*, *13*(6), 600–606. <https://doi.org/10.1302/1863-2548.13.190100>
- Launois, Claire, Attali, Valérie, Georges, Marjolaine, Raux, Mathieu, Morawiec, Elise, Rivals, Isabelle, Arnulf, Isabelle, & Similowski, Thomas. (2015). Cortical Drive to Breathe during Wakefulness in Patients with Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *Sleep*, *38*(11), 1743–1749. <https://doi.org/10.5665/sleep.5156>
- Launois, Claire, Nierat, Marie-Cécile, Attali, Valérie, Raux, Mathieu, Arnulf, Isabelle, Similowski, Thomas, & Redolfi, Stefania. (2020). Postural preinspiratory cortical activity, genioglossus activity and fluid shift in awake obstructive sleep apnoea patients. *Experimental Physiology*, *105*(2), 370–378. <https://doi.org/10.1113/EP087804>
- Lawton, H. M., Battagel, J. M., & Kotecha, B. (2005). A comparison of the Twin Block and Herbst mandibular advancement splints in the treatment of patients with obstructive sleep apnoea: A prospective study. *European Journal of Orthodontics*, *27*(1), 82–90. <https://doi.org/10.1093/ejo/cjh067>
- Le Huec, J. C., Charosky, S., Barrey, C., Rigal, J., & Aunoble, S. (2011). Sagittal imbalance cascade for simple degenerative spine and consequences: Algorithm of decision for appropriate treatment. *European Spine Journal*, *20*(Suppl 5), 699–703. <https://doi.org/10.1007/s00586-011-1938-8>

- Lee, Sang Hwa, Kaban, Leonard B., & Lahey, Edward T. (2015). Skeletal stability of patients undergoing maxillomandibular advancement for treatment of obstructive sleep apnea. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery: Official Journal of the American Association of Oral and Maxillofacial Surgeons*, 73(4), 694–700. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2014.10.018>
- Lee, Seo-Young, Guilleminault, Christian, Chiu, Hsiao-Yean, & Sullivan, Shannon S. (2015). Mouth breathing, “nasal disuse,” and pediatric sleep-disordered breathing. *Sleep & Breathing = Schlaf & Atmung*, 19(4), 1257–1264. <https://doi.org/10.1007/s11325-015-1154-6>
- Lee, Seung Hoon, Choi, Ji Ho, Shin, Chol, Lee, Heung Man, Kwon, Soon Young, & Lee, Sang Hag. (2007). How does open-mouth breathing influence upper airway anatomy? *The Laryngoscope*, 117(6), 1102–1106. <https://doi.org/10.1097/MLG.0b013e318042aef7>
- Leeflang, Mariska M. G., Deeks, Jonathan J., Gatsonis, Constantine, Bossuyt, Patrick M. M., & Cochrane Diagnostic Test Accuracy Working Group. (2008). Systematic reviews of diagnostic test accuracy. *Annals of Internal Medicine*, 149(12), 889–897. <https://doi.org/10.7326/0003-4819-149-12-200812160-00008>
- Lim, J., Lasserson, T. J., Fleetham, J., & Wright, J. (2006). Oral appliances for obstructive sleep apnoea. *The Cochrane Database of Systematic Reviews*, 1, CD004435. <https://doi.org/10.1002/14651858.CD004435.pub3>
- Lione, Roberta, Buongiorno, Marco, Franchi, Lorenzo, & Cozza, Paola. (2014). Evaluation of maxillary arch dimensions and palatal morphology in mouth-breathing children by using digital dental casts. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 78(1), 91–95. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2013.09.028>
- Lippold, Carsten, Danesh, Gholamreza, Hoppe, Gloria, Drerup, Burkhard, & Hackenberg, Lars. (2007). Trunk inclination, pelvic tilt and pelvic rotation in relation to the craniofacial morphology in adults. *The Angle Orthodontist*, 77(1), 29–35. <https://doi.org/10.2319/121205-434R.1>

- Lippold, Carsten, Danesh, Gholamreza, Schilgen, Markus, Drerup, Burkhard, & Hackenberg, Lars. (2006a). Relationship between thoracic, lordotic, and pelvic inclination and craniofacial morphology in adults. *The Angle Orthodontist*, 76(5), 779–785. [https://doi.org/10.1043/0003-3219\(2006\)076\[0779:RBTLAP\]2.0.CO;2](https://doi.org/10.1043/0003-3219(2006)076[0779:RBTLAP]2.0.CO;2)
- Lippold, Carsten, Danesh, Gholamreza, Schilgen, Markus, Drerup, Burkhard, & Hackenberg, Lars. (2006b). Sagittal jaw position in relation to body posture in adult humans – a rasterstereographic study. *BMC Musculoskeletal Disorders*, 7, 8. <https://doi.org/10.1186/1471-2474-7-8>
- Manor, Brad D., Hu, Kun, Peng, Chung-Kang, Lipsitz, Lewis A., & Novak, Vera. (2012). Posturo-respiratory synchronization: Effects of aging and stroke. *Gait & Posture*, 36(2), 254–259. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2012.03.002>
- Mattar, Sara E. M., Valera, Fabiana C. P., Faria, Gisele, Matsumoto, Miriam A. N., & Anselmo-Lima, Wilma T. (2011). Changes in facial morphology after adenotonsillectomy in mouth-breathing children. *International Journal of Paediatric Dentistry*, 21(5), 389–396. <https://doi.org/10.1111/j.1365-263X.2011.01117.x>
- McGraw, Kenneth O., & Wong, S. P. (1996). Forming inferences about some intraclass correlation coefficients. *Psychological Methods*, 1(1), 30–46. <https://doi.org/10.1037/1082-989X.1.1.30>
- Melhem, Elias, Assi, Ayman, El Rachkidi, Rami, & Ghanem, Ismat. (2016). EOS® biplanar X-ray imaging: Concept, developments, benefits, and limitations. *Journal of Children's Orthopaedics*, 10(1), 1–14. <https://doi.org/10.1007/s11832-016-0713-0>
- Meurice, J. C., Marc, I., & Sériès, F. (1996). Efficacy of auto-CPAP in the treatment of obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, 153(2), 794–798. <https://doi.org/10.1164/ajrccm.153.2.8564134>
- Milanesi, Jovana M., Borin, Graciele, Corrêa, Eliane C. R., da Silva, Ana M. T., Bortoluzzi, Daniel C., & Souza, Juliana A. (2011). Impact of the mouth breathing occurred during childhood in the adult age:

Biophotogrammetric postural analysis. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, 75(8), 999–1004. <https://doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.04.018>

Morel, Baptiste, Moueddeb, Sonia, Blondiaux, Eleonore, Richard, Stephen, Bachy, Manon, Vialle, Raphael, & Ducou Le Pointe, Hubert. (2018). Dose, image quality and spine modeling assessment of biplanar EOS micro-dose radiographs for the follow-up of in-brace adolescent idiopathic scoliosis patients. *European Spine Journal*, 27(5), 1082–1088. <https://doi.org/10.1007/s00586-018-5464-9>

Mouhanna-Fattal, Carole, Papadopoulos, Moschos, Bouserhal, Joseph, Tauk, Alain, Bassil-Nassif, Nayla, & Athanasiou, Athanasios. (2019). Evaluation of upper airway volume and craniofacial volumetric structures in obstructive sleep apnoea adults: A descriptive CBCT study. *International Orthodontics*, 17(4), 678–686. <https://doi.org/10.1016/j.ortho.2019.08.005>

Nakashima, Azusa, Nakano, Hiroyuki, Yamada, Tomohiro, Inoue, Kazuya, Sugiyama, Goro, Kumamaru, Wataru, Nakajima, Yasumichi, Sumida, Tomoki, Yokoyama, Takeshi, Mishiama, Katsuaki, & Mori, Yoshihide. (2016). The relationship between lateral displacement of the mandible and scoliosis. *Oral and Maxillofacial Surgery*, 21(1), 59–63. <https://doi.org/10.1007/s10006-016-0607-9>

Nakashima, Azusa, Nakano, Hiroyuki, Yamada, Tomohiro, Inoue, Kazuya, Sugiyama, Goro, Kumamaru, Wataru, Nakajima, Yasumichi, Sumida, Tomoki, Yokoyama, Takeshi, Mishiama, Katsuaki, & Mori, Yoshihide. (2017). The relationship between lateral displacement of the mandible and scoliosis. *Oral and Maxillofacial Surgery*, 21(1), 59–63. <https://doi.org/10.1007/s10006-016-0607-9>

Nakashima, Azusa, Yamada, T., Nakano, H., Sugiyama, G., Sugi, T., Kamata, Y. U., Sumida, T., & Mori, Y. (2018). Jaw asymmetry may cause bad posture of the head and the spine—A preliminary study. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, Medicine, and Pathology*, 30(3), 242–246. Scopus. <https://doi.org/10.1016/j.ajoms.2018.01.001>

Nobili, A., & Adversi, R. (1996). Relationship between posture and occlusion: A clinical and experimental investigation. *Cranio: The Journal of Craniomandibular Practice*, 14(4), 274–285. <https://doi.org/10.1080/08869634.1996.11745978>

- Ogawa, Takumi, Enciso, Reyes, Shintaku, Werner H., & Clark, Glenn T. (2007). Evaluation of cross-section airway configuration of obstructive sleep apnea. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology, and Endodontics*, *103*(1), 102–108. <https://doi.org/10.1016/j.tripleo.2006.06.008>
- Okamoto, Masashi, Jabour, Fouad, Sakai, Kenichiro, Hatsushikano, Shun, Le Huec, J. C., & Hasegawa, Kazuhiro. (2018). Sagittal balance measures are more reproducible when measured in 3D vs in 2D using full-body EOS® images. *European Radiology*, *28*(11), 4570–4577. <https://doi.org/10.1007/s00330-018-5485-0>
- Oliven, Arie, O’Hearn, Daniel J., Boudewyns, An, Odeh, Majed, De Backer, Wilfried, van de Heyning, Paul, Smith, Philip L., Eisele, David W., Allan, Larry, Schneider, Hartmut, Testerman, Roy, & Schwartz, Alan R. (2003). Upper airway response to electrical stimulation of the genioglossus in obstructive sleep apnea. *Journal of Applied Physiology (Bethesda, Md.: 1985)*, *95*(5), 2023–2029. <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.00203.2003>
- Patcas, Raphael, Cunningham, Susan J., Shute, Justin, Lloyd, Timothy, Obwegeser, Joachim A., Arjomand, Lida, & Sharma, Sujata. (2017). Motivation for orthognathic treatment and anticipated satisfaction levels- a two-centre cross-national audit. *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery: Official Publication of the European Association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery*, *45*(6), 1004–1009. <https://doi.org/10.1016/j.jcms.2017.03.012>
- Paya-Argoud, M., Tardieu, C., Cheynet, F., Raskin, A., & Borel, L. (2019). Impact of orthognathic surgery on the body posture. *Gait & Posture*, *67*, 25–30. <https://doi.org/10.1016/j.gaitpost.2018.09.019>
- Péniou, Gilles, & Colné, Patrick. (2018). *La posture debout: Biomécanique fonctionnelle, de l’analyse au diagnostic*. Elsevier-Masson.
- Pérennou, D. A., Mazibrada, G., Chauvineau, V., Greenwood, R., Rothwell, J., Gresty, M. A., & Bronstein, A. M. (2008). Lateropulsion, pushing and verticality perception in hemisphere stroke: A causal relationship? *Brain: A Journal of Neurology*, *131*(Pt 9), 2401–2413. <https://doi.org/10.1093/brain/awn170>

- Pernon, M., Trocello, J. M., Vaissière, J., Cousin, C., Chevaillier, G., Rémy, P., Kidri-Osmani, K., Fougeron, C., & Woimant, F. (2013). Le débit de parole du patient wilsonien dysarthrique peut-il être amélioré en condition de double tâche ? *Revue Neurologique*, 169(6), 502–509. <https://doi.org/10.1016/j.neurol.2012.12.003>
- Perry, Steven F., & Carrier, David R. (2006). The Coupled Evolution of Breathing and Locomotion as a Game of Leapfrog. *Physiological and Biochemical Zoology*, 79(6), 997–999. <https://doi.org/10.1086/507657>
- Pollis, Matteo, Lobbezoo, Frank, Aarab, Ghizlane, Ferrari, Marco, Marchese-Ragona, Rosario, & Manfredini, Daniele. (2022). Correlation between Apnea Severity and Sagittal Cephalometric Features in a Population of Patients with Polysomnographically Diagnosed Obstructive Sleep Apnea. *Journal of Clinical Medicine*, 11(15), 4572. <https://doi.org/10.3390/jcm11154572>
- Pollock, A. S., Durward, B. R., Rowe, P. J., & Paul, J. P. (2000). What is balance? *Clinical Rehabilitation*, 14(4), 402–406. <https://doi.org/10.1191/0269215500cr342oa>
- Pollock, Alexandra S., Durward, Brian R., Rowe, Philip J., & Paul, John P. (2016). What is balance?: *Clinical Rehabilitation*. <https://doi.org/10.1191/0269215500cr342oa>
- Posnick, Jeffrey C., Adachie, Anayo, Singh, Neeru, & Choi, Elbert. (2018). “Silent” Sleep Apnea in Dentofacial Deformities and Prevalence of Daytime Sleepiness After Orthognathic and Intranasal Surgery. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 76(4), 833–843. <https://doi.org/10.1016/j.joms.2017.09.003>
- Posnick, Jeffrey C., & Agnihotri, Neil. (2010). Consequences and management of nasal airway obstruction in the dentofacial deformity patient. *Current Opinion in Otolaryngology & Head and Neck Surgery*, 18(4), 323–331. <https://doi.org/10.1097/MOO.0b013e32833b9d6f>
- Proffit, W. R., Fields, H. W., & Moray, L. J. (1998). Prevalence of malocclusion and orthodontic treatment need in the United States: Estimates from the NHANES III survey. *The International Journal of Adult Orthodontics and Orthognathic Surgery*, 13(2), 97–106.

- Raux, M., Fiamma, M. N., Similowski, T., & Straus, C. (2007). Contrôle de la ventilation: Physiologie et exploration en réanimation. *Réanimation*, 16(6), 511–520. <https://doi.org/10.1016/j.reaurg.2007.09.008>
- Raux, Mathieu, Navarro-Sune, Xavier, Wattiez, Nicolas, Kindler, Felix, Le Corre, Marine, Decavele, Maxens, Demiri, Suela, Demoule, Alexandre, Chavez, Mario, & Similowski, Thomas. (2019). Adjusting ventilator settings to relieve dyspnoea modifies brain activity in critically ill patients: An electroencephalogram pilot study. *Scientific Reports*, 9(1), 16572. <https://doi.org/10.1038/s41598-019-53152-y>
- Recommandations pour la Pratique Clinique. (2010). *Revue des Maladies Respiratoires*, 27(7), 806–833. <https://doi.org/10.1016/j.rmr.2010.05.011>
- Redline, Susan, Yenokyan, Gayane, Gottlieb, Daniel J., Shahar, Eyal, O'Connor, George T., Resnick, Helaine E., Diener-West, Marie, Sanders, Mark H., Wolf, Philip A., Geraghty, Estella M., Ali, Tauqeer, Lebowitz, Michael, & Punjabi, Naresh M. (2010). Obstructive sleep apnea-hypopnea and incident stroke: The sleep heart health study. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, 182(2), 269–277. <https://doi.org/10.1164/rccm.200911-1746OC>
- Rino Neto, José, Paiva, João Batista de, Queiroz, Gilberto Vilanova, Attizzani, Miguel Ferragut, & Miasiro Junior, Hiroshi. (2013). Evaluation of radiographic magnification in lateral cephalograms obtained with different X-ray devices: Experimental study in human dry skull. *Dental Press Journal of Orthodontics*, 18, 17e1-17e7. <https://doi.org/10.1590/S2176-94512013000200005>
- Rouvière, H., & Delmas, A. (1985). *Anatomie humaine* (Vol. 1).
- Ruhle, Karl Heinz, & Nilius, Georg. (2008). Mouth Breathing in Obstructive Sleep Apnea prior to and during Nasal Continuous Positive Airway Pressure. *Respiration*, 76(1), 40–45. <https://doi.org/10.1159/000111806>
- Santos, Joselia Gomes Lima, Montezuma, Thais, Perez, Carla Silva, Sverzut, Cassio Edvard, Trivellato, Alexandre Elias, & Guirro, Elaine Caldeira de Oliveira. (2021a). Body postural realignment in the first

2 months after orthognathic surgery. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 159(3), e281–e290. <https://doi.org/10.1016/j.ajodo.2020.10.019>

Santos, Joselia Gomes Lima, Montezuma, Thais, Perez, Carla Silva, Sverzut, Cassio Edvard, Trivellato, Alexandre Elias, & Guirro, Elaine Caldeira de Oliveira. (2021b). Body postural realignment in the first 2 months after orthognathic surgery. *American Journal of Orthodontics and Dentofacial Orthopedics*, 159(3), e281–e290. <https://doi.org/10.1016/j.ajodo.2020.10.019>

Sassouni, Viken. (1955). A roentgenographic cephalometric analysis of cephalo-facio-dental relationships. *American Journal of Orthodontics*, 41(10), 735–764. [https://doi.org/10.1016/0002-9416\(55\)90171-8](https://doi.org/10.1016/0002-9416(55)90171-8)

Scharnweber, Benjamin, Adjami, Frederic, Schuster, Gabriele, Kopp, Stefan, Natrup, Jorg, Erbe, Christina, & Ohlendorf, Daniela. (2017). Influence of dental occlusion on postural control and plantar pressure distribution. *Cranio-the Journal of Craniomandibular & Sleep Practice*, 35(6), 358–366. <https://doi.org/10.1080/08869634.2016.1244971>

Schlatterer, B., Suedhoff, I., Bonnet, X., Catonne, Y., Maestro, M., & Skalli, W. (2009). Skeletal landmarks for TKR implantations: Evaluation of their accuracy using EOS imaging acquisition system. *Orthopaedics & Traumatology: Surgery & Research*, 95(1), 2–11. <https://doi.org/10.1016/j.otsr.2008.05.001>

Sériès, F., Vérin, E., & Similowski, T. (2005). Impediment in upper airway stabilizing forces assessed by phrenic nerve stimulation in sleep apnea patients. *Respiratory Research*, 6(1), 99. <https://doi.org/10.1186/1465-9921-6-99>

Shirley, D., Hodges, P. W., Eriksson, A. E. M., & Gandevia, S. C. (2003). Spinal stiffness changes throughout the respiratory cycle. *Journal of Applied Physiology (Bethesda, Md.: 1985)*, 95(4), 1467–1475. <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.00939.2002>

Sinko, K., Grohs, J. G., Millesi-Schobel, G., Watzinger, F., Turhani, D., Undt, G., & Baumann, A. (2006). Dysgnathia, orthognathic surgery and spinal posture. *International Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, 35(4), 312–317. <https://doi.org/10.1016/j.ijom.2005.09.009>

- Solow, B., Skov, S., Ovesen, J., Norup, P. W., & Wildschjødtz, G. (1996). Airway dimensions and head posture in obstructive sleep apnoea. *European Journal of Orthodontics*, 18(6), 571–579. <https://doi.org/10.1093/ejo/18.6.571>
- Solow, B., & Tallgren, A. (1976). Head posture and craniofacial morphology. *American Journal of Physical Anthropology*, 44(3), 417–435. <https://doi.org/10.1002/ajpa.1330440306>
- Sonnesen, L. (2010). Associations between the Cervical Vertebral Column and Craniofacial Morphology. *International Journal of Dentistry*, 2010, e295728. <https://doi.org/10.1155/2010/295728>
- Steiner, Cecil C. (1959). Cephalometrics In Clinical Practice. *The Angle Orthodontist*, 29(1), 8–29. [https://doi.org/10.1043/0003-3219\(1959\)029<0008:CICP>2.0.CO;2](https://doi.org/10.1043/0003-3219(1959)029<0008:CICP>2.0.CO;2)
- Stipa, Chiara, Cameli, Matteo, Sorrenti, Giovanni, Ippolito, Daniela R., Pelligra, Irene, & Alessandri-Bonetti, Giulio. (2020). Relationship between cephalometric parameters and the apnoea-hypopnoea index in OSA patients: A retrospective cohort study. *European Journal of Orthodontics*, 42(1), 101–106. <https://doi.org/10.1093/ejo/cjz038>
- Taytard, Jessica, Gand, Camille, Niérat, Marie-Cécile, Barthes, Romain, Lavault, Sophie, Adler, Dan, Morélot-Panzini, Capucine, Gatignol, Peggy, Campion, Sebastien, Serresse, Laure, Wattiez, Nicolas, Straus, Christian, & Similowski, Thomas. (2022). Impact of inspiratory threshold loading on brain activity and cognitive performances in healthy humans. *Journal of Applied Physiology (Bethesda, Md.: 1985)*, 132(1), 95–105. <https://doi.org/10.1152/jappphysiol.00994.2020>
- Tng, T. T., Chan, T. C., Hägg, U., & Cooke, M. S. (1994). Validity of cephalometric landmarks. An experimental study on human skulls. *European Journal of Orthodontics*, 16(2), 110–120. <https://doi.org/10.1093/ejo/16.2.110>
- Tufik, Sergio, Santos-Silva, Rogerio, Taddei, Jose Augusto, & Bittencourt, Lia Rita Azeredo. (2010). Obstructive sleep apnea syndrome in the Sao Paulo Epidemiologic Sleep Study. *Sleep Medicine*, 11(5), 441–446. <https://doi.org/10.1016/j.sleep.2009.10.005>

- Tweed, C. H. (1946). The Frankfort-mandibular plane angle in orthodontic diagnosis, classification, treatment planning, and prognosis. *American Journal of Orthodontics and Oral Surgery*, 32, 175–230. [https://doi.org/10.1016/0096-6347\(46\)90001-4](https://doi.org/10.1016/0096-6347(46)90001-4)
- Tweed, Charles H. (1966). *Clinical Orthodontics*. C. V. Mosby.
- Vecchierini, Marie-Françoise, Attali, Valérie, Collet, Jean-Marc, d'Ortho, Marie-Pia, El Chater, Pierre, Kerbrat, Jean-Baptiste, Leger, Damien, Monaca, Christelle, Monteyrol, Pierre-Jean, Morin, Laurent, Mullens, Eric, Pigearias, Bernard, Meurice, Jean-Claude, & ORCADES investigators. (2016). A custom-made mandibular repositioning device for obstructive sleep apnoea-hypopnoea syndrome: The ORCADES study. *Sleep Medicine*, 19, 131–140. <https://doi.org/10.1016/j.sleep.2015.05.020>
- Venkatnarayan, Kavitha, Devaraj, Uma, Veluthat, Chitra, Louis, Varghese, Ramachandran, Priya, D'Souza, George, & Krishnaswamy, Uma Maheswari. (2021). The effect of CPAP therapy on excessive daytime sleepiness and quality of life in subjects with obstructive sleep apnoea: An AB design study. *Sleep & Breathing = Schlaf & Atmung*, 25(3), 1351–1357. <https://doi.org/10.1007/s11325-020-02237-4>
- Verin, Eric, Sériès, Frédéric, Locher, Chrystèle, Straus, Christian, Zelter, Marc, Derenne, Jean-Philippe, & Similowski, Thomas. (2002). Effects of neck flexion and mouth opening on inspiratory flow dynamics in awake humans. *Journal of Applied Physiology (Bethesda, Md.: 1985)*, 92(1), 84–92. <https://doi.org/10.1152/jappl.2002.92.1.84>
- Vigneron, Aurélie, Tamisier, Renaud, Orset, Emmanuelle, Pepin, Jean-Louis, & Bettega, Georges. (2017). Maxillomandibular advancement for obstructive sleep apnea syndrome treatment: Long-term results. *Journal of Cranio-Maxillo-Facial Surgery: Official Publication of the European Association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery*, 45(2), 183–191. <https://doi.org/10.1016/j.jcms.2016.12.001>
- Wang, Xiaoya, Chen, Hui, Jia, Lu, Xu, Xin, & Guo, Jing. (2022). The relationship between three-dimensional craniofacial and upper airway anatomical variables and severity of obstructive sleep apnoea in adults. *European Journal of Orthodontics*, 44(1), 78–85. <https://doi.org/10.1093/ejo/cjab014>

- Wanke-Jellinek, L., Heese, O., Krenauer, A., Würtinger, C., Siepe, C. J., Wiechert, K., & Mehren, C. (2019). Is there any use? Validity of 4D rasterstereography compared to EOS 3D X-ray imaging in patients with degenerative disk disease. *European Spine Journal: Official Publication of the European Spine Society, the European Spinal Deformity Society, and the European Section of the Cervical Spine Research Society*, 28(9), 2162–2168. <https://doi.org/10.1007/s00586-019-06082-2>
- Wedin, S., Leanderson, R., & Knutsson, E. (1988). The effect of voluntary diaphragmatic activation on back lifting. *Scandinavian Journal of Rehabilitation Medicine*, 20(3), 129–132.
- Wei, Wei, Huang, Shi-Wei, Chen, Lian-Hua, Qi, Yang, Qiu, Yi-Min, & Li, Shi-Tong. (2017). Airflow behavior changes in upper airway caused by different head and neck positions: Comparison by computational fluid dynamics. *Journal of Biomechanics*, 52, 89–94. <https://doi.org/10.1016/j.jbiomech.2016.12.032>
- Whiting, Penny F., Rutjes, Anne W. S., Westwood, Marie E., Mallett, Susan, Deeks, Jonathan J., Reitsma, Johannes B., Leeflang, Mariska M. G., Sterne, Jonathan A. C., Bossuyt, Patrick M. M., & QUADAS-2 Group. (2011). QUADAS-2: A revised tool for the quality assessment of diagnostic accuracy studies. *Annals of Internal Medicine*, 155(8), 529–536. <https://doi.org/10.7326/0003-4819-155-8-201110180-00009>
- Wright, J., Johns, R., Watt, I., Melville, A., & Sheldon, T. (1997). Health effects of obstructive sleep apnoea and the effectiveness of continuous positive airways pressure: A systematic review of the research evidence. *BMJ (Clinical Research Ed.)*, 314(7084), 851–860. <https://doi.org/10.1136/bmj.314.7084.851>
- Wybier, Marc, & Bossard, Philippe. (2013). Musculoskeletal imaging in progress: The EOS imaging system. *Joint Bone Spine*, 80(3), 238–243. <https://doi.org/10.1016/j.jbspin.2012.09.018>
- Young, Terry, Finn, Laurel, Peppard, Paul E., Szklo-Coxe, Mariana, Austin, Diane, Nieto, F. Javier, Stubbs, Robin, & Hla, K. Mae. (2008). Sleep disordered breathing and mortality: Eighteen-year follow-up of the Wisconsin sleep cohort. *Sleep*, 31(8), 1071–1078.

Young, Terry, Palta, Mari, Dempsey, Jerome, Skatrud, James, Weber, Steven, & Badr, Safwan. (1993). The Occurrence of Sleep-Disordered Breathing among Middle-Aged Adults. *New England Journal of Medicine*, 328(17), 1230–1235. <https://doi.org/10.1056/NEJM199304293281704>

Zhou, Shuncheng, Yan, Juanjuan, Da, Hu, Yang, Yang, Wang, Na, Wang, Wenyong, Ding, Yin, & Sun, Shiyao. (2013). A Correlational Study of Scoliosis and Trunk Balance in Adult Patients with Mandibular Deviation. *PLoS ONE*, 8(3), e59929. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0059929>

## TABLE DES FIGURES

Figure 1 : Schéma des VAS (Henry Gray, 1918).....	12
Figure 2: Anatomie musculaire du pharynx (Rouvière & Delmas, 1985) .....	13
Figure 3: Classification d'Angle, shema issu de l'Encyclopédie médico-chirurgicale (Deffrennes et al., 2016) .....	16
Figure 4: Analyse de tweed .....	17
Figure 5: Analyse de steiner .....	18
Figure 6: Position du centre de pression et du centre de gravité (Péninou & Colné, 2018).....	20
Figure 7: Radiographie de face et de profil obtenue par BPXR .....	22
Figure 8: Modèle 3D obtenu avec la BPXR .....	23
Figure 9: Évolution de la posture cervicale pathologique chez un enfant ventilateur buccal (Guilleminault et al., 2013) .....	24
Figure 10: Echelle d'Epworth .....	27
Figure 11: Figure issue de l'étude d'heinzer <i>et al.</i> . A : Prévalence d'un IAH > 15/h .B : prévalence d'un SAOS défini par un IAH ≥15 et d'un score d'Epworth supérieur à 10.....	28
Figure 12: Flow chart de la revue de littérature .....	36
Figure 13: Vue latérale du crâne et de te la face obtenue par BPXR.....	47
Figure 14: Points utilisé pour l'analyse céphalométrique.....	48
Figure 15: Cabine d'imagerie de BPXR (EOS Imaging system) .....	52
Figure 16: Mesure des hauteurs faciales .....	56
Figure 17A et B: ANALYSE CEPHALOMETRIQUE SUR L'IMAGE OBTENUE AVEC LA BPXR .....	57
Figure 18A et B: PARAMETRES UTILISES POUR L'ANALYSE POSTURALE.....	59
Figure 19 : Flow chart .....	61
Figure 20 : Comparaison entre les 2 groupes sur les paramètres posturaux .....	62
Figure 21: Analyse en composante principale des dysmorphiques et des contrôles .....	63
Figure 22: corrélations entre FMA et les paramètres posturaux dans les 2 groupes .....	66
Figure 23: Regroupement par K moyenne (K=2) des dysmorphiques .....	67
Figure 24: Comparaison des variables posturales entre les 2 phénotypes posturaux de dysmorphiques.....	69
Figure 25: Dispersion des patients avec une DMM en fonction des angles ANB et FMA.....	71
Figure 26: Corrélations entre l'angle FMA et les paramètres posturaux.....	72
Figure 27: flow chart.....	76
Figure 28: Courbe ROC de prédiction d'un IAH > 5 obtenue à partir d'un modèle de régression logistique. Le point materialise le seuil optimal au sens de youden.....	79
Figure 29: Courbe ROC de prédiction d'un IAH > 5 obtenue à partir d'un modèle de régression logistique. Le point materialise le seuil optimal au sens de youden.....	79
Figure 30: Schéma du calcul de l'émergence, selon Lespert <i>et al.</i> .....	84

## TABLE DES TABLEAUX

Tableau 1: Évaluation de la qualité et du risque de biais .....	35
Tableau 2: Évaluation du risque de biais et de la qualité des études.....	37
Tableau 3: Méthodes d'analyse de la dysmorphie relevées dans la littérature .....	38
Tableau 4: tableau résumant le lien entre posture et dysmorphie .....	41
Tableau 5: Lien entre équilibre postural et dysmorphie .....	43
Tableau 6: angles utilisés dans l'étude de reproductibilité .....	47
Tableau 7: reproductibilité inter-opérateur en fonction des angles et des méthodes de mesure .....	50
Tableau 8: caractéristiques cliniques et céphalométriques des patients.....	64
Tableau 9: caractéristiques des 2 groupes de dysmorphiques.....	68
Tableau 10: Comparaison des données préopératoires et postopératoires .....	70
Tableau 11 : tableau récapitulatif comparant les patients avec un IHA > 5 et les patients avec un IAH <5.....	76
Tableau 12: Comparaison des caractéristiques polysomnographique des patients en préopératoire et postopératoires .....	80

# ANNEXES

## ANNEXE 1 : ARTICLE 1 (PUBLIE DANS L'INTERNATIONAL JOURNAL OF ORAL AND MAXILLOFACIAL SURGERY)

*Int. J. Oral Maxillofac. Surg.* 2022; 51: 104–112  
<https://doi.org/10.1016/j.ijom.2021.05.003>, available online at <https://www.sciencedirect.com>

International Journal of  
*Oral &  
Maxillofacial  
Surgery*

### Systematic Review Orthognathic Surgery

## Interaction between posture and maxillomandibular deformity: a systematic review

A. Kerbrat, T. Schouman, D. Decressain, P. Rouch, V. Attali: *Interaction between posture and maxillomandibular deformity: a systematic review. Int. J. Oral Maxillofac. Surg.* 2022; 51: 104–112. © 2021 International Association of Oral and Maxillofacial Surgeons. Published by Elsevier Inc. All rights reserved.

A. Kerbrat<sup>1,2</sup>, T. Schouman<sup>1,2</sup>,  
D. Decressain<sup>1</sup>, P. Rouch<sup>2</sup>,  
V. Attali<sup>2,3,4</sup>

<sup>1</sup>Service de Chirurgie Maxillo-Faciale, Sorbonne Université, APHP, Hôpital Pitié-Salpêtrière, Paris, France; <sup>2</sup>Arts et Métiers Sciences et Technologies, Institut de Biomécanique Humaine Georges Charpak, Paris, France; <sup>3</sup>Groupe Hospitalier Universitaire APHP – Sorbonne Université, site Pitié-Salpêtrière, Service des Pathologies du Sommeil (Département R3S), Paris, France; <sup>4</sup>Sorbonne Université, INSERM, UMRS1158 Neurophysiologie Respiratoire Expérimentale et Clinique, Paris, France

**Abstract.** Maxillomandibular deformity (MMD) and body posture appear to be correlated. However, no systematic literature review of the available evidence to support this correlation has been performed to date. The aim of this study was to conduct a systematic literature review on posture and MMD. This systematic literature review was registered in the PROSPERO database. Systematic searches of the MEDLINE, Scopus, Cochrane Library, and Web of Science databases were performed. In total, 13 clinical studies were included. Nine found a significant association between MMD and body posture or body balance: two studies showed a correlation between increased cervical lordosis and skeletal class III MMD, two studies showed an interaction between mandibular deviation and scoliosis, four studies demonstrated a significant association between lumbar column and pelvis anatomy and MMD, and one study found a correlation between displacement of the centre of mass and MMD. However, the level of evidence is low; the methods used to evaluate body posture and MMD were inconsistent. Orthognathic surgery could modify body posture. Although there seems to be an interaction between body posture and facial deformity, the number of studies is too small and the level of evidence too low to strongly support this association.

**Key words:** posture; malocclusion; orthognathic surgery; postural balance; dentofacial deformities.

Accepted for publication 7 May 2021  
Available online 11 June 2021

Maxillomandibular deformity (MMD) is an incorrect relationship of the jaws that causes malocclusion. In addition to the malocclusion, associated symptoms include a variety of oral function disorders, such as masticatory disorder, mouth breathing, temporomandibular joint disorders, facial asymmetry, and tongue dysfunction<sup>1</sup>. Most MMDs are the result of facial skeleton growth

disorders. The prevalence of dental malocclusion is estimated to be between 14% and 23% in the general population<sup>2</sup>. Most malocclusions are treated orthodontically. However, about 2% of patients with malocclusion will eventually require a combination of orthodontic treatment and orthognathic surgery to address the MMD responsible for the malocclusion<sup>3</sup>.

Postural dysfunction is defined as the inability to maintain, achieve, or restore a state of balance in any posture or during any activity<sup>4</sup>. It is associated with an increased risk of degenerative disc disease<sup>5</sup>, back pain<sup>6</sup>, and a higher risk of falls in elderly people<sup>7</sup>.

To stand and keep an upright position, the human spine comprises successive opposing curves that keep the head and pelvis

vertically aligned<sup>18</sup>. In the case of spine misalignment such as lumbar hyperlordosis or thoracic hyperkyphosis, a compensation mechanism gradually develops as spine imbalance increases<sup>9</sup>. When this compensation mechanism reaches its limit, complications may occur. For example, thoracic hyperkyphosis is related to higher morbidity and mortality rates in the elderly, as it increases the risk of falls related to alterations in body biomechanics<sup>7</sup>. Indeed, Sinaki et al. demonstrated that women with osteoporosis and hyperkyphosis had weaker back extensor strength, weaker lower extremity strength, slower gait, poorer balance, and greater body sway, resulting in a propensity to fall<sup>10</sup>. Neurological disorders, such as peripheral neuropathy<sup>11</sup>, Parkinson's disease<sup>12</sup>, and strokes<sup>13</sup>, can also play a part in postural dysfunction resulting from spine misalignment.

There are arguments in favour of a relationship between MMDs and postural dysfunction in children. However, it is unclear whether the postural disorder is a consequence or a cause of the MMD. Muscular dysfunction seems to play a role in this association. The anatomical connections between the mandible and the cervical spine at least, in addition to the high prevalence of MMD in children with scoliosis and functional asymmetry of the trunk muscles, support this hypothesis<sup>14</sup>. The upper airway ventilation dysfunction frequently encountered in MMD could also be involved; mouth breathing induces cervical misalignment characterized by a head forward posture with hyperextension of the cervical spine, particularly in chil-

dren exhibiting class II MMD<sup>15,16</sup> or mandibular retrusion<sup>17</sup>. In these skeletal facial types, cervical hyperextension allows for a protruding head position, which increases upper airway volume and facilitates ventilation<sup>18,19</sup>.

The consequences of this impaired cervical alignment on spine alignment and body balance in children are unknown. In adults, head and cervical postures play an important role in body balance; permanent adjustments of the cervical curvature during standing are needed to preserve an adequate head-to-pelvis alignment, which is critical in maintaining balance<sup>7</sup> and a head position compatible with a horizontal gaze<sup>20</sup>. According to the findings in spine misalignment mentioned above, we may suspect a higher prevalence of balance disorders in adult patients presenting an MMD. Some studies have investigated balance-related parameters in MMD cohorts, but it appears that no literature review has specifically focused on the available evidence supporting this association. Therefore, the aims of the present systematic literature review were to assess (1) the interaction between MMD and body posture and/or body balance, and (2) available evidence of any impact of surgical correction of MMD on body posture and/or body balance.

## Methods

### Search strategy and selection criteria

A systematic literature review was performed according to the PRISMA guide-

lines<sup>21</sup>. Two investigators independently searched for studies in the MEDLINE, Cochrane Library, Scopus, and Web of Science databases. All original articles on posture and MMD in adults, written in English and published from 1900 to March 2020, were included. Studies focusing only on cervical evaluation, case reports, and studies lacking a postural evaluation were excluded. Studies assessing the impact of mandibular positioning (for instance using splints to simulate different occlusal positions) or on patients with class I malocclusions only were also excluded. The search sequence comprised several keywords and medical subject heading (MeSH) terms for a broad coverage of the subject. The search consisted of a combination of the following headlines: (1) postural evaluation, (2) malocclusion. The keywords relating to posture were "posture", "postural evaluation", "postural balance", "postural assessment", and "sagittal balance". The keywords used for MMD were "orthognathic surgery", "malocclusion", "dysgnathia", "jaw abnormalities", "dentofacial deformities", "jaw deformities", and "dysmorphia". The review was registered in the PROSPERO database (number CRD42020160990).

### Quality assessment and risk of bias

To evaluate the quality, risk of bias, and applicability of each study, information was collected using a tailored checklist based on the QUADAS-2 tool and recommendations from the *Cochrane Handbook*

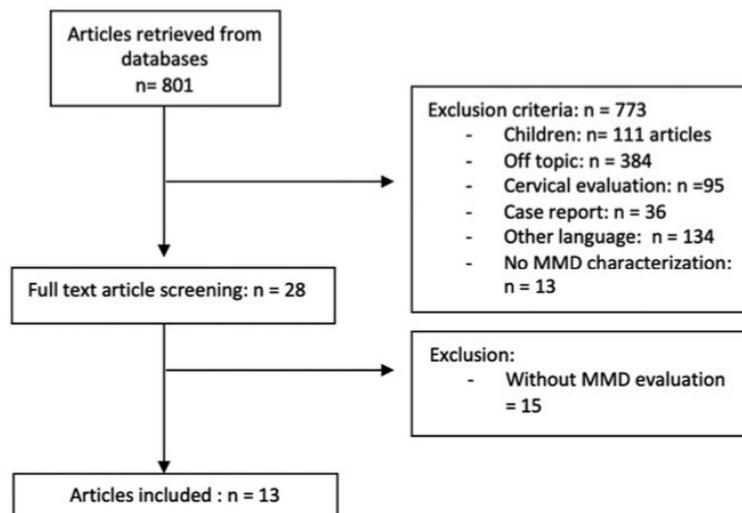


Fig. 1. Flow chart of the article inclusion process.

Table 1. Assessment of bias and applicability of the included studies, using the tailored QUADAS-2 tool.

Author	Risk of bias		Applicability concerns	
	Patient selection	Postural evaluation/index test	Patient selection	Postural evaluation/index test
Iacob et al. 2020 <sup>23</sup>	L	L	L	L
Paya-Argoud et al. 2019 <sup>35</sup>	H	L	?	H
Nakashima et al. 2018 <sup>27</sup>	?	L	L	L
Kulczynski et al. 2018 <sup>33</sup>	L	?	L	L
Kulczynski et al. 2018 <sup>34</sup>	L	?	L	L
Schamweber et al. 2017 <sup>24</sup>	H	?	H	H
Nakashima et al. 2016 <sup>28</sup>	?	L	L	L
Zhou et al. 2013 <sup>26</sup>	?	?	L	?
Lippold et al. 2007 <sup>30</sup>	L	L	L	L
Lippold et al. 2006 <sup>32</sup>	L	L	L	L
Lippold et al. 2006 <sup>31</sup>	L	L	L	L
Sinko et al. 2006 <sup>29</sup>	?	L	?	L
Nobili and Adversi 1996 <sup>25</sup>	L	?	L	L

L, low risk of bias;?, unclear risk of bias; H, high risk of bias.

for *Systematic Reviews of Diagnostic Test Accuracy* (Supplementary Material Table S1)<sup>22</sup>. If there was insufficient detail reported in the study, the risk of bias was deemed 'unclear'. These decisions were made independently by two of the review authors. Disagreements were resolved by discussion and, when this failed, by consulting a third author for arbitration.

#### Data extraction

The included articles were reviewed in detail by the two investigators. Data from each study regarding year of publication, number of patients, sex, mean age, population, study design, and outcome were extracted. Additional information about postural assessment methods, primary and secondary outcomes, type of MMD, and orthognathic surgery outcomes were also recorded.

#### Results

A total of 801 articles were identified in the database research, of which 773 were excluded after title and abstract screening. Fifteen articles were excluded after screening the full text. Finally, 13 clinical studies were included (Fig. 1)<sup>23-35</sup>.

#### Quality assessment and risk of bias

None of the included studies enrolled consecutive or randomized patients. Two articles had major selection biases: one study had a male to female sex ratio of 0.16:1 (25 females and four males)<sup>23</sup> and one study included only males<sup>24</sup>. Four studies used unvalidated postural assess-

ment methods<sup>23-26</sup>. Four studies did not specify exclusion criteria<sup>26-29</sup>. Two of the 13 clinical studies presented a major risk of bias (selection bias) and poor quality. The 11 remaining studies can be considered of moderate to good quality (Table 1).

#### MMD evaluation

The methods of evaluation are summarized in Table 2. Four studies characterized MMD based on occlusion only<sup>23-25,32</sup>. Among them, one study evaluated dental occlusion with dental plaster models<sup>24</sup>. Five studies investigated craniofacial morphology with X-rays only<sup>26-28,30,31</sup>. Three studies used postero-anterior radiographs, while two studies used lateral radiographs to perform the cephalometric analysis. However, four studies evaluated MMD on either frontal or sagittal view only, and one relied on both but detailed only the frontal evaluation. The method of evaluation of the MMD was not detailed in four studies<sup>29,33-35</sup>.

#### Postural assessment methods

Ten studies evaluated body posture, among which four relied on rastereography<sup>29-32</sup>, two on photogrammetry<sup>33,34</sup>, and three on X-rays<sup>26-28</sup>. Photogrammetry quantifies the postural assessment by measuring linear distances and angles formed between lines connecting body markers and horizontal or vertical lines on digital photographs, using software specifically designed for this purpose. Rastereography is a simultaneous multi-light-sectioning procedure: 81 light sections are projected on the back of the subject, which produce a unique pattern of

light and heavy lines. The curved surface of the dorsum causes distortion of the lines. The light pattern is recorded with a video camera and a surface shape analysis is performed by computer. For X-ray evaluations, only a frontal chest X-ray was performed in one study in order to search for scoliosis<sup>28</sup>, while the two remaining studies complemented the postural examination with photographs<sup>27</sup> or head X-rays<sup>26</sup>.

Three studies evaluated body balance using force platforms<sup>24,25,35</sup>, among which one complemented the postural examination with photographs<sup>35</sup>.

#### Interaction between posture and MMD

Among the 10 clinical studies that evaluated the interaction between body posture and MMD, eight found a significant association.

Two studies showed a correlation between increased cervical lordosis and skeletal class III MMD<sup>33,34</sup>. Regarding the thoracic spine, two studies showed an interaction between mandibular deviation and scoliosis<sup>26,28</sup>, and one study showed that patients with skeletal class II or class III MMDs presented a more cranial apex of thoracic kyphosis than controls<sup>29</sup>.

Four studies demonstrated a significant association between lumbar column and pelvis anatomy and MMD. Class III MMD patients had greater pelvic anteversion, greater pelvis tilt, and greater lordosis angles than controls<sup>29,33</sup>. Class II MMD patients also presented a greater pelvis tilt than controls<sup>29</sup>. Lippold et al. found that the angle of lumbar lordosis was correlated with cephalometric parameters describing anteroposterior projection of the face<sup>31</sup>. In a second study, the same authors also demonstrated a correlation between pelvic torsion and cephalometric parameters describing anteroposterior projection of the face<sup>30</sup>. One article found an interaction between head inclination and mandibular deviation<sup>27</sup>. The results are summarized in Table 3.

#### Interaction between balance and MMD

Among the three clinical studies including an evaluation of balance<sup>24,25,35</sup>, two compared patients with class II malocclusion to patients with class III malocclusion. One study found an interaction between malocclusion and balance, with anteriorly displaced centre of mass in subjects with class II malocclusion and posteriorly displaced centre of mass in subjects with class III malocclusion<sup>25</sup>, while the other clinical study showed no difference between class II and class III patients<sup>24</sup>. One study evaluated balance in subjects with skeletal class II and

Table 2. Evaluation of maxillo-mandibular deformity.

Author	Year	Type of maxillo-mandibular deformity evaluation	Parameter	Method of evaluation
Iacob et al. <sup>23</sup>	2019	NA	Skeletal class	NA
Paya-Argoud et al. <sup>35</sup>	2020	Clinical evaluation	Dental occlusion	Right and left Angle class
Nakashima et al. <sup>27</sup>	2018	PA cephalometric radiographs	Lateral deviation of the mandible	Angle between the vertical axis and Me
Kulczynski et al. <sup>33</sup>	2018	NA	Skeletal class	NA
Kulczynski et al. <sup>34</sup>	2018	NA	Skeletal class	NA
Scharnweber et al. <sup>24</sup>	2017	Plaster models	Dental occlusion	First molar relation Cuspid relation Overjet and overbite Crossbite Midline shift/deviation
Nakashima et al. <sup>28</sup>	2016	NA PA radiographs	Skeletal class Lateral deviation of the mandible	ANB angle Angle between the vertical axis and Me
Zhou et al. <sup>26</sup>	2013	PA radiographs	Mandibular deviation	Obvious difference in the lengths of the two mandibular rami, and a vertical distance from the chin ridge to inferior orbital fissure line >2 mm
Lippold et al. <sup>30</sup>	2007	Lateral radiographs	Cephalometric analysis	Facial axis: Ba-N/Pt-Gn Mandibular plane angle: P-Or/Me-hT Inner gonial angle: Xi-Spa/Xi-Pm Lower facial height: Xi-DC/Xi-Pm Facial depth: P-Or/N-Po
Lippold et al. <sup>32</sup>	2006	Clinical evaluation	Dental occlusion	Maxillary position: Ba-N/N-A Overjet: class I 'normal overjet' 1-3 mm, class II 'increased overjet' 4-10 mm, and class III 'reversed overjet' <1 mm
Lippold et al. <sup>31</sup>	2006	Lateral radiographs	Cephalometric analysis	Facial axis: Ba-N/Pt-Gn Mandibular plane angle: P-Or/Me-hT Inner gonial angle: Xi-Spa/Xi-Pm Lower facial height: Xi-DC/Xi-Pm Facial depth: P-Or/N-Po
Sinko et al. <sup>29</sup>	2006	NA	Skeletal class Mandibular asymmetry	NA NA
Nobili and Adversi <sup>25</sup>	1996	Clinical evaluation	Dental occlusion	Angle class

A, A-point; ANB, A-point-nasion-B-point; Ba, basion; DC, condyle; Gn, gnathion; hT, horizontal mandibular tangential point; Me, menton; N, nasion; NA, information not available; Or, orbitale; P, porion; PA, postero-anterior; Po, pogonion; Pm, suprapogonion; Pt, foramen rotundum; Spa, anterior nasal spine; Xi, xilion.

class III MMDs before and after surgery; no information is provided in the article on the difference in body balance between the subjects before surgery<sup>35</sup>. The results are displayed in Table 4.

#### Impact of orthognathic surgery on body posture and body balance

Four articles evaluated the impact of orthognathic surgery on body posture and balance<sup>27,29,33,35</sup>; three of them concluded that there was an interaction. The results are found in Tables 3 and 4. Three articles studied the effect of surgery on body posture, while the other assessed the changes in body balance. Sinko et al. found no effect of surgery on posture<sup>29</sup>,

while Kulczynski et al. demonstrated a significant posterior displacement of the trunk, providing realignment to an almost normal upright posture with correction of the cervical lordosis in skeletal class III patients<sup>33</sup>. Head inclination and scoliosis had improved significantly at 1 year after surgery in patients with severe jaw asymmetry. Regarding body balance, stability was improved after orthognathic surgery as measured by spectral power density and centre of pressure velocity<sup>35</sup>.

#### Discussion

The aim of this review was to systematically screen the available evidence and

level of evidence regarding the interaction between MMD and body posture and/or body balance in the available literature. Ten of the 13 articles included reported statistically significant correlations. Therefore, interactions between body posture and/or body sway and MMD are highly probable. Moreover, the improvement in body posture noted after orthognathic surgery in two of the studies also supports an interaction between body posture and/or body sway and MMD. However, a large heterogeneity within the studies was observed, regarding the population, body posture assessment methods, MMD evaluation methods, and body posture criteria.

Table 3. Interaction between body posture and maxillomandibular deformity.

Author	Number of patients	Type of MMD/ malocclusion	Number of patients in the control group	Nature of the control group	Postural evaluation method	Main finding
Iacob et al. <sup>23</sup>	10	Abnormal occlusion (class II or class III)	14	Angle class I	PostureScreen software	No significant difference between the two groups
Nakashima et al. <sup>27</sup>	45	Non-syndromic patients needing orthognathic surgery	45	Preoperative patients	Chest X-rays Photographs	In the vertebrae deviation group (over 10°), vertebrae deviation tended to decrease after surgery One patient with leftward mandibular deviation tended to incline the head in a cranially right and caudally left (counterclockwise) direction
Kulczynski et al. <sup>33</sup>	16	Class III patients who underwent orthognathic surgery	15	Class III patients not operated yet	Photogrammetry	Significant difference between preoperative and postoperative patients: correction of cervical lordosis Significant difference between preoperative and postoperative patients: greater pelvic anteversion in the control group
Kulczynski et al. <sup>34</sup>	40	Class III patients needing orthognathic surgery	NA	No control group, values compared to reference values	Photogrammetry	Decreased cervical lordosis Increased kyphosis Scapular horizontal asymmetry
Nakashima et al. <sup>28</sup>	79	Non-syndromic patients needing orthognathic surgery	NA	NA	Chest X-rays	Positive correlation between Cobb's angle and the degree of mandibular deviation in the group with an ANB angle <0
Zhou et al. <sup>26</sup>	35	Patients with skeletal mandibular deviation	10	Neutral occlusion, normal facial appearance	Full spine X-rays	Positive correlation between the degree of mandibular deviation and trunk balance Degree of scoliosis higher in the group with mandibular deviation
Lippold et al. <sup>30</sup>	53	Patients with class II and III malocclusion Cephalometric analysis	NA	NA	Rastereography	Pelvic torsion is correlated with some cephalometric parameters (the facial axis and the facial depth)
Lippold et al. <sup>32</sup>	84	Patients with class II and class III malocclusion	14	Normal overjet	Rastereography	No significant differences
Lippold et al. <sup>31</sup>	53	Patients with class II and III malocclusion Cephalometric analysis	NA	NA	Rastereography	Lordotic angle is correlated with some cephalometric parameters (facial axis, inner gonial angle, and mandibular plane angle) Pelvic inclination is correlated with some cephalometric parameters (facial axis, inner gonial angle, mandibular plane angle, and facial depth)
Sinko et al. <sup>29</sup>	29	Patients needing orthognathic surgery	12	Normal occlusion and no MMD	Rastereography	The apex of lumbar lordosis was more caudal in class II than in healthy controls The lumbar lordosis angle is more pronounced in class III patients compared to controls The tilt of the iliac crest in patients with class II and III differed minimally but significantly from that of healthy controls

ANB, A-point–nasion–B-point; MMD, maxillomandibular deformity; NA, not applicable.

Table 4. Interaction between body balance and maxillomandibular deformity.

Author	Number of patients	Type of MMD/malocclusion	Number of patients in the control group	Nature of the control group	Postural evaluation method	Main finding
Paya-Argoud et al. <sup>35</sup>	22	Orthognathic surgery was needed to treat dysmorphic jaws in sagittal deformity (class II ( $n = 10$ ), class III ( $n = 10$ )) or vertical deformity ( $n = 2$ )	22	Preoperative patients	Photographs  Force platform	Surgery significantly improved head orientation when patients were tested in eyes closed and in occlusion condition Surgery had a larger impact on the velocity of the centre of pressure in the resting position condition Spectral power density was significantly decreased after orthognathic surgery
Scharnweber et al. <sup>24</sup>	87	Male patients without medical history	NA	Comparison of subgroups according to angle class, overjet or crossbite	Force platform	No statistical difference
Nobili and Adversi <sup>25</sup>	50	Patients without medical history	NA	Comparison of subgroups according to Angle class	Force platform	Class II patients have a more anterior displaced posture, class III patients a more posterior displaced posture

MMD, maxillomandibular deformity; NA, not applicable.

#### Definition of maxillomandibular deformity

In the studies included in this review, there was a lack of consistency in the characterization of MMDs. Numerous classifications are available in the literature, based on various clinical criteria and/or cephalometric analyses and using different cut-offs (the cephalometric analysis of Delaire et al.<sup>36</sup>, the analysis of Tweed<sup>37</sup>, and the cephalometric analysis of Sassouni et al.<sup>38</sup>). Clinical studies evaluating patients with a class I occlusion, as well as studies assessing only the effect of various mandibular positions, were excluded from this review, because they are not representative of MMDs. Four studies included in the review characterized MMD based on dental occlusion only, and four did not specify the method that was used. Finally, only five studies had a high-quality description of the MMD, based on the position and description of the maxillomandibular complex using X-rays (either lateral or postero-anterior cephalograms).

MMD is a very common condition and not all patients presenting with a MMD will request medical attention. Moreover, a wide variety of parameters are used to describe MMDs. It can be challenging to set up control groups meeting the normality criteria for all facial parameters to

compare with an MMD cohort. Only seven studies compared patients with MMDs to a control group.

#### Definition of postural dysfunction

Postural dysfunction is defined as the inability to maintain, achieve, or restore a state of balance in any posture or during any activity. The neutral body posture is the posture the human body naturally assumes in microgravity<sup>39</sup>. The investigation of body posture implies the evaluation of the entire vertebral column and of the pelvis. Body balance is a dynamic process associated with maintenance of a specific posture, voluntary movement, and reaction to an external disturbance. It is related to the ability of the human not to fall<sup>4</sup>. Body posture and body balance are connected. To maintain body balance, the projection of the centre of gravity should stay within the base of support. If the body posture is altered, the position of the centre of gravity changes and body balance is modified.

Regarding the evaluation of MMDs, the methods used to assess body posture and/or balance in the current literature review were inconsistent. Six different evaluation methods were used in the 13 articles retrieved: five methods to assess body pos-

ture (photogrammetry, rastereography, chest X-ray, full spine X-ray, and PostureScreen app) and one to evaluate body balance (force platform). Rastereography was the most used evaluation method (four articles). However, the criteria differed in most studies (only two studies evaluated body posture using the same rastereography criteria).

Even though the results appear to support the interaction between body posture and/or body balance and MMD, method inconsistency limits the conclusions. Indeed, the studies included in this review characterized body posture through the assessment of various segments of the spine: two articles reported significant results regarding the cervical spine, three articles regarding the thoracic column, and four articles regarding the lumbar spine and pelvis. To summarize, even if an interaction is highly probable, there is not enough information in the international literature to connect one type of spine pattern with one specific MMD.

Two articles evaluated the interaction of MMD and body sway, with contradictory results: one concluded that there was an interaction<sup>25</sup>, while the other showed no difference<sup>24</sup>. In the literature, force platforms are mostly used to evaluate the impact of changing occlusal positions or

occlusal interferences on body balance<sup>40,41</sup>. Given this very small number of studies, it is impossible to draw any conclusions regarding the suspected impact of MMD on body sway.

#### Mechanisms of postural dysfunction associated with MMD

Most of the articles retrieved for this review support an interaction between postural dysfunction and MMD. However, nine of the 13 articles did not formulate any hypothesis to explain this interaction.

As suggested by Nakashima et al.<sup>27</sup> and Paya-Argoud et al.,<sup>35</sup> one hypothesis to explain this interaction is neurophysiological. The mandibular position is believed to be involved in antigravity muscle activity and posture control. Indeed, Wakano et al.<sup>42</sup> investigated the impact of mandibular deviation on dynamic body balance. They observed that horizontal mandible deviation interfered with upright posture stability on an unstable platform. This suggested that the stomatognathic system affects dynamic balance<sup>42</sup>. Kulczynski et al.<sup>33</sup> considered a neuromuscular hypothesis. The authors suggested that, in patients with skeletal class III, cervical muscles inserted on the mandible are stretched, resulting in increased cervical lordosis. Finally, for Sinko et al.<sup>29</sup>, subjects presented head forward postures related to mouth breathing, but the authors did not provide details on the mechanism involved.

In our opinion, mouth breathing also seems to play an important part in the interaction between body posture and MMDs. Indeed, numerous articles have demonstrated the impact of mouth breathing on cervical and head postures: mouth breathing is responsible for head forward posture and cervical extension<sup>43,44</sup>. Mouth breathing is frequent in children with MMD. It requires early orthodontic treatment<sup>44</sup>. If untreated, mouth breathing continues into adulthood<sup>45</sup>. Cervical hyperextension is an adaptive mechanism that increases upper airway volume<sup>18</sup> and facilitates ventilation<sup>19</sup>. Moreover, cervical flexion increases the risk of upper airway collapse, while cervical extension increases upper airway stability<sup>46</sup>. This altered posture is also found in patients with anatomical or physiological dysfunctions of the upper airway, such as obstructive sleep apnoea (OSA)<sup>47</sup>. In patients with OSA, the interaction between postural function and ventilation is under cortical control<sup>47</sup>.

If mouth breathing alters cervical and head posture, it also most likely impacts the entire spine. Indeed, the amount of energy required to maintain an upright posture (head aligned with the pelvis) should be as low as possible. Some compensating mechanisms may be activated to maintain the vertical head–pelvis alignment. Cervical hyperextension is compensated by a thoracic kyphosis increase in patients with OSA<sup>47</sup>. Patients with MMD also present altered cervical spine curvatures<sup>48</sup>. Some articles in the current review showed modifications in spine curvature that might amount to compensation mechanisms. Indeed, according to Lippold et al.<sup>31</sup>, pelvic inclination and lordotic angle were correlated with cephalometric parameters. The angle of lumbar lordosis in class III patients also differed significantly from that of class I patients in the study of Sinko et al.<sup>29</sup>. Moreover, abnormal thoracic curvature (increased thoracic kyphosis) was found in the clinical trial of Kulczynski et al.<sup>34</sup> All of these results support the existence of compensating mechanisms in patients with MMD in order to maintain the head–pelvis alignment.

MMDs and altered body posture might have a common origin: altered ventilation. Indeed, MMDs develop during growth as a consequence of several dysfunctions, particularly mouth breathing. MMDs and altered body posture appear to be the two ends of the spectrum of the same adaptive mechanism in response to mouth breathing.

#### Effect of surgery

Orthognathic surgery aims to correct MMD. In the literature, four articles evaluated the impact of surgery on body posture. The results of three studies showed a correction of postural dysfunction, while the remaining study found no postural adaptation after the surgery.

Orthognathic surgery not only restores facial balance, but also aims to correct such dysfunctions as temporomandibular dysfunction and mouth breathing. The seemingly favourable effect of the surgery on postural dysfunction is an additional argument in favour of the participation of mouth breathing in the development of a postural dysfunction.

In conclusion, despite a low level of evidence, the interaction between body posture and MMD is probable. The positive impact of orthognathic surgery on body posture is an additional argument. More clinical trials are required to conclude with certainty on this interaction and to understand the mechanisms involved.

#### Funding

Fédération Française d'Orthodontie.

#### Competing Interests

VA reports personal fees from ADEP Assistance, Resmed, SIRIUS-CUSTOMIZER, outside the submitted work. AK, DD, TS and PR report no conflict of interest.

#### Ethical Approval

Not relevant.

#### Patient Consent

Not relevant.

Author contribution form

#### Appendix A. Supplementary data

Supplementary material related to this article can be found, in the online version, at doi:<https://doi.org/10.1016/j.ijom.2021.05.003>.

#### References

1. D'Onofrio L. Oral dysfunction as a cause of malocclusion. *Orthod Craniofac Res* 2019;**22**(Suppl 1):43–8. <http://dx.doi.org/10.1111/ocr.12277>.
2. Burgersdijk R, Truin GJ, Frankenmolen F, Kalsbeek H, van't Hot M, Mulder J. Malocclusion and orthodontic treatment need of 15–74-year-old Dutch adults. *Community Dent Oral Epidemiol* 1991;**19**:64–7. <http://dx.doi.org/10.1111/j.1600-0528.1991.tb00111.x>.
3. Proffit WR, Fields HW, Moray LJ. Prevalence of malocclusion and orthodontic treatment need in the United States: estimates from the NHANES III survey. *Int J Adult Orthodon Orthognath Surg* 1998;**13**:97–106.
4. Pollock AS, Durward BR, Rowe PJ, Paul JP. What is balance? *Clin Rehabil* 2000;**14**:402–6. <http://dx.doi.org/10.1191/0269215500cr342oa>.
5. Manns RA, Haddaway MJ, McCall IW, Cassar Pullicino V, Davie MW. The relative contribution of disc and vertebral morphology to the angle of kyphosis in asymptomatic subjects. *Clin Radiol* 1996;**51**:258–62. [http://dx.doi.org/10.1016/s0009-9260\(96\)80342-4](http://dx.doi.org/10.1016/s0009-9260(96)80342-4).
6. Korovessis P, Stamatakis M, Baikousis A. Segmental roentgenographic analysis of vertebral inclination on sagittal plane in asymptomatic versus chronic low back pain patients. *J Spinal Disord* 1999;**12**:131–7.

7. Kado DM, Huang MH, Nguyen CB, Barrett-Connor E, Greendale GA. Hyperkyphotic posture and risk of injurious falls in older persons: the Rancho Bernardo Study. *J Gerontol A Biol Sci Med Sci* 2007;**62**:652–7. <http://dx.doi.org/10.1093/gerona/62.6.652>.
8. Amabile C, Le Huec JC, Skalli W. Invariance of head–pelvis alignment and compensatory mechanisms for asymptomatic adults older than 49 years. *Eur Spine J* 2018;**27**:458–66. <http://dx.doi.org/10.1007/s00586-016-4830-8>.
9. Le Huec JC, Charosky S, Barrey C, Rigal J, Aunoble S. Sagittal imbalance cascade for simple degenerative spine and consequences: algorithm of decision for appropriate treatment. *Eur Spine J* 2011;**20**(Suppl 5):699–703. <http://dx.doi.org/10.1007/s00586-011-1938-8>.
10. Sinaki M, Brey RH, Hughes CA, Larson DR, Kaufman KR. Balance disorder and increased risk of falls in osteoporosis and kyphosis: significance of kyphotic posture and muscle strength. *Osteoporos Int* 2005;**16**:1004–10. <http://dx.doi.org/10.1007/s00198-004-1791-2>.
11. Mustapa A, Justine M, Mohd Mustafah N, Jamil N, Manaf H. Postural control and gait performance in the diabetic peripheral neuropathy: a systematic review. *Biomed Res Int* 2016;**2016**:9305025. <http://dx.doi.org/10.1155/2016/9305025>.
12. Schindlbeck KA, Naumann W, Maier A, Ehlen F, Marzinzik F, Klostermann F. Disturbance of verticality perception and postural dysfunction in Parkinson's disease. *Acta Neurol Scand* 2018;**137**:212–7. <http://dx.doi.org/10.1111/ane.12859>.
13. Verheyden G, Ruesen C, Gorissen M, Brumby V, Moran R, Burnett M, Ashburn A. Postural alignment is altered in people with chronic stroke and related to motor and functional performance. *J Neurol Phys Ther* 2014;**38**:239–45. <http://dx.doi.org/10.1097/NPT.0000000000000054>.
14. Saccucci M, Tettamanti L, Mummolo S, Polimeni A, Festa F, Tecco S. Scoliosis and dental occlusion: a review of the literature. *Scoliosis* 2011;**6**:15. <http://dx.doi.org/10.1186/1748-7161-6-15>.
15. D'Attilio M, Caputi S, Epifania E, Festa F, Tecco S. Evaluation of cervical posture of children in skeletal class I, II, and III. *Cranio* 2005;**23**:219–28. <http://dx.doi.org/10.1179/crn.2005.031>.
16. Smaillienė D, Intienė A, Dobradziejūtė I, Kuleika G. Effect of treatment with twin-block appliances on body posture in class II malocclusion subjects: a prospective clinical study. *Med Sci Monit* 2017;**23**:343–52. <http://dx.doi.org/10.12659/msm.899088>.
17. Solow B, Siersbaek-Nielsen S. Cervical and craniocervical posture as predictors of craniofacial growth. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1992;**101**:449–58. [http://dx.doi.org/10.1016/0889-5406\(92\)70119-U](http://dx.doi.org/10.1016/0889-5406(92)70119-U).
18. Solow B, Skov S, Ovesen J, Norup PW, Wildschjodtz G. Airway dimensions and head posture in obstructive sleep apnoea. *Eur J Orthod* 1996;**18**:571–9. <http://dx.doi.org/10.1093/ejo/18.6.571>.
19. Wei W, Huang SW, Chen LH, Qi Y, Qiu YM, Li ST. Airflow behavior changes in upper airway caused by different head and neck positions: comparison by computational fluid dynamics. *J Biomech* 2017;**52**:89–94. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jbiomech.2016.12.032>.
20. Hasegawa K, Okamoto M, Hatsushikano S, Shimoda H, Ono M, Homma T, Watanabe K. Standing sagittal alignment of the whole axial skeleton with reference to the gravity line in humans. *J Anat* 2017;**230**:619–30. <http://dx.doi.org/10.1111/joa.12586>.
21. Hutton B, Salanti G, Caldwell DM, Chaimani A, Schmid CH, Cameron C, Ioannidis JPA, Strauss S, Thorlund K, Jansen JP, Mulrow C, Catalá-López F, Gøtzsche PC, Dickersin K, Boutron I, Altman DG, Moher D. The PRISMA extension statement for reporting of systematic reviews incorporating network meta-analyses of health care interventions: checklist and explanations. *Ann Intern Med* 2015;**162**:777–84. <http://dx.doi.org/10.7326/M14-2385>.
22. Whiting PF, Rutjes AWS, Westwood ME, Mallett S, Deeks JJ, Reitsma JB, Leeflang MMG, Sterne JAC, Bossuyt PMM. QUADAS-2: a revised tool for the quality assessment of diagnostic accuracy studies. *Ann Intern Med* 2011;**155**:529–36. <http://dx.doi.org/10.7326/0003-4819-155-8-201110180-00009>.
23. Iacob SM, Chisnoiu AM, Lascu LM, Berar AM, Studnicska D, Fluerașu MI. Is PostureScreen Mobile app an accurate tool for dentists to evaluate the correlation between malocclusion and posture? *Cranio* 2020;**38**:233–9. <http://dx.doi.org/10.1080/08869634.2018.1512197>.
24. Scharnweber B, Adjami F, Schuster G, Kopp S, Natrup J, Erbe C, Ohlendorf D. Influence of dental occlusion on postural control and plantar pressure distribution. *Cranio* 2017;**35**:358–66. <http://dx.doi.org/10.1080/08869634.2016.1244971>.
25. Nobili A, Adversi R. Relationship between posture and occlusion: a clinical and experimental investigation. *Cranio* 1996;**14**:274–85. <http://dx.doi.org/10.1080/08869634.1996.11745978.j>.
26. Zhou S, Yan J, Da H, Yang Y, Wang N, Wang W, Ding Y, Sun S. A correlational study of scoliosis and trunk balance in adult patients with mandibular deviation. *PLoS One* 2013;**8**:e59929. <http://dx.doi.org/10.1371/journal.pone.0059929>.
27. Nakashima A, Yamada T, Nakano H, Sugiyama G, Sugi T, Kamata YU, Sumida T, Mori Y. Jaw asymmetry may cause bad posture of the head and the spine—a preliminary study. *J Oral Maxillofac Surg Med Pathol* 2018;**30**:242–6. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajoms.2018.01.001>.
28. Nakashima A, Nakano H, Yamada T, Inoue K, Sugiyama G, Kumamaru W, Nakajima Y, Sumida T, Yokoyama T, Mishima K, Mori Y. The relationship between lateral displacement of the mandible and scoliosis. *Oral Maxillofac Surg* 2016;**21**:59–63. <http://dx.doi.org/10.1007/s10006-016-0607-9>.
29. Sinko K, Grohs JG, Millesi-Schobel G, Watzinger F, Turhani D, Undt G, Baumann A. Dysgnathia, orthognathic surgery and spinal posture. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006;**35**:312–7. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijom.2005.09.009>.
30. Lippold C, Danesh G, Hoppe G, Drerup B, Hackenberg L. Trunk inclination, pelvic tilt and pelvic rotation in relation to the craniofacial morphology in adults. *Angle Orthod* 2007;**77**:29–35. <http://dx.doi.org/10.2319/121205-434R.1>.
31. Lippold C, Danesh G, Schilgen M, Drerup B, Hackenberg L. Relationship between thoracic, lordotic, and pelvic inclination and craniofacial morphology in adults. *Angle Orthod* 2006;**76**:779–85. [http://dx.doi.org/10.1043/0003-3219\(2006\)076<0779:RBTLAPJ2.0.CO;2](http://dx.doi.org/10.1043/0003-3219(2006)076<0779:RBTLAPJ2.0.CO;2).
32. Lippold C, Danesh G, Schilgen M, Drerup B, Hackenberg L. Sagittal jaw position in relation to body posture in adult humans—a rasterstereographic study. *BMC Musculoskeletal Disorders* 2006;**7**:8. <http://dx.doi.org/10.1186/1471-2474-7-8>.
33. Kulczynski FZ, de Oliveira Andriola F, Deon PH, da Silva Melo DA, Pagnoncelli RM. Postural assessment in class III patients before and after orthognathic surgery. *Oral Maxillofac Surg* 2018;**22**:143–50. <http://dx.doi.org/10.1007/s10006-018-0681-2>.
34. Kulczynski FZ, Andriola FO, Deon PH, DADS Melo, Pagnoncelli RM. Postural assessment in class III patients before orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 2018;**76**:426–35. <http://dx.doi.org/10.1016/j.joms.2017.07.157>.
35. Paya-Argoud M, Tardieu C, Cheynet F, Raskin A, Borel L. Impact of orthognathic surgery on the body posture. *Gait Posture* 2019;**67**:25–30. <http://dx.doi.org/10.1016/j.gaitpost.2018.09.019>.
36. Delaire J, Schendel SA, Tulasne JF. An architectural and structural craniofacial analysis: a new lateral cephalometric analysis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1981;**52**:226–38. [http://dx.doi.org/10.1016/0030-4220\(81\)90252-8](http://dx.doi.org/10.1016/0030-4220(81)90252-8).
37. Tweed CH. The Frankfort–mandibular plane angle in orthodontic diagnosis, classification, treatment planning, and prognosis. *Am J Orthod Oral Surg* 1946;**32**:175–230. [http://dx.doi.org/10.1016/0096-6347\(46\)90001-4](http://dx.doi.org/10.1016/0096-6347(46)90001-4).
38. Sassouni V. A roentgenographic cephalometric analysis of cephalo-facio-dental relationships. *Am J Orthod* 1955;**41**:735–64. [http://dx.doi.org/10.1016/0002-9416\(55\)90171-8](http://dx.doi.org/10.1016/0002-9416(55)90171-8).

39. Kilbom Å., Repetitive work of the upper extremity: Part II—the scientific basis (knowledge base) for the guide. Mital A, Kilbom Å, Kumar S, editors. *Elsevier Ergonomics Book Series*, Vol. 1. Elsevier; 2000. p. 151–78.
40. Ferrario VF, Sforza C, Schmitz JH, Taroni A. Occlusion and center of foot pressure variation: is there a relationship? *J Prosthet Dent* 1996;**76**:302–8. [http://dx.doi.org/10.1016/s0022-3913\(96\)90176-6](http://dx.doi.org/10.1016/s0022-3913(96)90176-6).
41. Marini I, Gatto MR, Bartolucci ML, Bortolotti F, Alessandri Bonetti G, Michelotti A. Effects of experimental occlusal interference on body posture: an optoelectronic stereophotogrammetric analysis. *J Oral Rehabil* 2013;**40**:509–18. <http://dx.doi.org/10.1111/joor.12064>.
42. Wakano S, Takeda T, Nakajima K, Kurokawa K, Ishigami K. Effect of experimental horizontal mandibular deviation on dynamic balance. *J Prosthodont Res* 2011;**55**:228–33. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpor.2011.03.001>.
43. Huggare JA, Laine-Alava MT. Nasorespiratory function and head posture. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 1997;**112**:507–11. [http://dx.doi.org/10.1016/s0889-5406\(97\)70078-7](http://dx.doi.org/10.1016/s0889-5406(97)70078-7).
44. Lee SY, Guilleminault C, Chiu HY, Sullivan SS. Mouth breathing, “nasal disuse,” and pediatric sleep-disordered breathing. *Sleep Breath* 2015;**19**:1257–64. <http://dx.doi.org/10.1007/s11325-015-1154-6>.
45. Milanesi JM, Borin G, Corrêa ECR, da Silva AMT, Bortoluzzi DC, Souza JA. Impact of the mouth breathing occurred during childhood in the adult age: biophotogrammetric postural analysis. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2011;**75**:999–1004. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ijporl.2011.04.018>.
46. Verin E, Sériès F, Locher C, Straus C, Zelter M, Derenne JP, Similowski T. Effects of neck flexion and mouth opening on inspiratory flow dynamics in awake humans. *J Appl Physiol* 2002;**92**:84–92. <http://dx.doi.org/10.1152/jappl.2002.92.1.84>.
47. Clavel L, Rémy-Neris S, Skalli W, Rouch P, Lespert Y, Similowski T, Sandoz B, Attali V. Cervical spine hyperextension and altered posturo-respiratory coupling in patients with obstructive sleep apnea syndrome. *Front Med (Lausanne)* 2020;**7**:30. <http://dx.doi.org/10.3389/fmed.2020.00030>.
48. Andriola FO, Kulczynski FZ, Deon PH, DADS Melo, Zanettini LMS, Pagnoncelli RM. Changes in cervical lordosis after orthognathic surgery in skeletal class III patients. *J Craniofac Surg* 2018;**29**:e598–603. <http://dx.doi.org/10.1097/scs.0000000000004644>.

## Article

# Biplanar Low-Dose Radiograph Is Suitable for Cephalometric Analysis in Patients Requiring 3D Evaluation of the Whole Skeleton

Adeline Kerbrat <sup>1,2,3,\*</sup>, Isabelle Rivals <sup>3,4</sup>, Pauline Dupuy <sup>1</sup>, Gauthier Dot <sup>2</sup>, Britt-Isabelle Berg <sup>5</sup>, Valérie Attali <sup>2,3,6</sup> and Thomas Schouman <sup>1,2</sup>

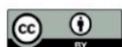
- <sup>1</sup> Service de Chirurgie Maxillo-Faciale, Hôpital Pitié-Salpêtrière, AP-HP Sorbonne Université, 75013 Paris, France; dupuy-paulinebdx@gmail.com (P.D.); thomas.schouman@aphp.fr (T.S.)
  - <sup>2</sup> Arts et Metiers ParisTech, LBM/Institut de Biomécanique Humaine Georges Charpak, 75013 Paris, France; gauthier.dot@ensam.eu (G.D.); valerie.attali@aphp.fr (V.A.)
  - <sup>3</sup> Sorbonne Université, Inserm, UMR51158 Neurophysiologie Respiratoire Expérimentale et Clinique, 75005 Paris, France; isabelle.rivals@espci.fr
  - <sup>4</sup> Equipe de Statistique Appliquée, ESPCI Paris, PSL Research University, 75231, Paris, France
  - <sup>5</sup> Department of Cranio-Maxillofacial Surgery, University Hospital Basel, CH-4031 Basel, Switzerland; isabelle.berg@usb.ch
  - <sup>6</sup> Service des Pathologies du Sommeil, Département R3S, Hôpital Pitié-Salpêtrière, AP-HP, Sorbonne Université, 75013 Paris, France
- \* Correspondence: adelinekerbrat@hotmail.com

**Citation:** Kerbrat, A.; Rivals, I.; Dupuy, P.; Dot, G.; Berg, B.-I.; Attali, V.; Schouman, T. Biplanar Low-Dose Radiograph Is Suitable for Cephalometric Analysis in Patients Requiring 3D Evaluation of the Whole Skeleton. *J. Clin. Med.* **2021**, *10*, 5477. <https://doi.org/10.3390/jcm10235477>

Academic Editors: Nikolaos Gkantidis and Carlalberta Verna

Received: 9 October 2021  
 Accepted: 22 November 2021  
 Published: 23 November 2021

**Publisher's Note:** MDPI stays neutral with regard to jurisdictional claims in published maps and institutional affiliations.



**Copyright:** © 2021 by the authors. Licensee MDPI, Basel, Switzerland. This article is an open access article distributed under the terms and conditions of the Creative Commons Attribution (CC BY) license (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

**Abstract:** Background: The biplanar 2D/3D X-ray technology (BPXR) is a 2D/3D imaging system allowing simultaneous stereo-corresponding posteroanterior (PA) and lateral 2D views of the whole body. The aim of our study was to assess the feasibility of cephalometric analysis based on the BPXR lateral skull view to accurately characterize facial morphology. Method: A total of 17 landmarks and 11 angles were placed and/or calculated on lateral BPXR and lateral cephalograms of 13 patients by three investigators. Five methods of angle identification were performed: the direct construction of straight lines on lateral cephalograms (LC-A) and on BPXR (BPXR-A), as well as the calculation of angles based on landmark identification on lateral cephalograms (LA-L) and on BPXR with the PA image (BPXR-LPA) or without (BPXR-L). Intra- and interoperator reliability of landmark identification and angle measurement of each method were calculated. To determine the most reliable method among the BPXR-based methods, their concordance with the reference method, LC-A, was evaluated. Results: Both imaging techniques had excellent intra- and interoperator reliability for landmark identification. On lateral BPXR, BPXR-A presented the best concordance with the reference method and a good intra- and interoperator reliability. Conclusion: BPXR provides a lateral view of the skull suitable for cephalometric analysis with good reliability.

**Keywords:** biplanar X-ray; cephalometric analysis; lateral cephalograms; reliability

## 1. Introduction

Cephalometric analysis based on lateral (and frontal) cephalograms is commonly used by orthodontists and maxillofacial surgeons to complete clinical diagnosis in patients with maxillomandibular deformities (MMDs) and to characterize upper airways in patients with obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) before maxillo-mandibular advancement osteotomy or treatment with mandibular advancement splint. Numerous analyses have been described [1,2] to characterize the jaw's deviation from its theoretical position. Lateral cephalograms are routinely used in the assessment of MMDs to establish a treatment plan and during follow-up. Traditional cephalometric analysis is based on

landmarks and lines drawn on acetate overlays or on digitalized X-ray images, and on further calculations of specific linear and angular indices between these landmarks [3].

The biplanar 2D/3D X-ray technology (BPXR) (EOS imaging®, Paris, France) based on a low-dose X-ray system allows simultaneous stereo-corresponding posteroanterior (PA) and lateral 2D images of the whole body, including the head, to be taken in a calibrated environment [4–6]. BPXR uses an ultrasensitive multiwire proportional chamber detector to detect X-rays, thus limiting the dose of X-rays absorbed by the patient. The EOS 2D/3D imaging system allows the 3D reconstruction of the whole skeleton based on two-dimensional X-rays acquired in an upright position. This system provides reliable 2D images of the spine and is validated for clinical practice in orthopedics [7,8]. For example, BPXR is used to follow up patients with idiopathic scoliosis treated with the in-brace method [9]. In patients with scoliosis, numerous X-ray images are taken to follow the patient's growth or the impact of the treatment on the spine alignment [10–12]. With low irradiation, BPXR provides a useful tool for the radiological follow-up of patients with spinal deformities, especially children.

Body posture and facial skeleton typology seem to be connected [13]. Scoliosis, for instance, is frequently associated with jaw asymmetry [14]. In this pathology, the body posture disorder most likely impacts the development of the facial skeleton through the muscular dysfunction of the trunk. Conversely, cervical spine hyperextension and subsequent postural disorder are observed in patients with MMDs causing mouth breathing, as in patients with OSAS, despite the absence of postural disorder history for most of these patients [15]. In both cases, the hyperextension of the neck results from an adaptation of the posture to fight increased upper airway resistance and/or instability [16,17]. BPXR represents a promising tool to investigate the interaction between posture and facial typology. Berg et al. demonstrated that BPXR imaging of the facial skeleton was sufficient for landmark assessment [18]. However, the lateral view of BPXR has never been used for cephalometric assessment. If cephalometric analysis could be obtained using BPXR lateral skull view, the facial morphology of patients using BPXR for scoliosis or another spinal condition could be evaluated without additional X-ray exposure.

The aim of our study was to assess the feasibility of cephalometric analysis based on BPXR lateral skull X-ray images to accurately characterize facial morphology.

## 2. Materials and Methods

### 2.1. Subjects

The imaging data of 22 patients who underwent both lateral cephalograms and BPXR as part of a clinical study investigating their posture were collected in the department of maxillofacial surgery of the Pitié-Salpêtrière Hospital. The study included 14 patients presenting with OSAS (ISRCTN70932171) and 8 patients with an MMD (NCT03532828). This study received approval from the relevant ethics committees (Comité de Protection des Personnes (CPP) Sud-Méditerranée 2018-A00362-53 and CPP Ile de France VI 2006-A00386-45). All patients provided written informed consent.

Eight patients were excluded because their lateral cephalograms were not digitalized and could not be imported in digital imaging and communication in medicine (DICOM) format. One patient was excluded because his head was incomplete on the EOS lateral view. We analyzed the data of the remaining 13 patients.

### 2.2. Image Acquisition

Two biplanar perpendicular radiographs were obtained simultaneously using the EOS imaging system in a standardized position, with the hands resting on the cheeks (the so-called Scoliosis Research Society modified free-standing position) and the feet positioned as described by Chaibi et al. [19]. BPXR provides two simultaneous orthogonal

views: a posteroanterior (PA) view and a lateral view. The lateral cephalometric radiographs were obtained using a digital cephalometric device (Planmeca Promax, Planmeca®, Helsinki, Finland). The cephalograms and the BPXR were achieved on two different days.

2.3. Comparison of BPXR and Lateral Cephalograms

To compare the two types of images, we used common cephalometric angles (see Table 1). DICOM images of the BPXR of the skull (Figure 1) and lateral cephalograms were imported in IdefX (v5.1.0, Paris, France). IdefX is a software developed to process BPXR images to generate 3D models from the two orthogonal biplanar X-rays. The landmarks used for the analysis are shown in Figure 2. The coordinates of the landmarks are obtained in two different geometrical frames. Indeed, the origin is different in the two radiographs. With BPXR, head-to-feet images were acquired while lateral cephalograms contained the skull and the cervical spine, each of them corresponding to a specific coordinate system. Therefore, we could not compare the coordinates of the landmarks obtained by the 2 methods. Angles obtained from landmark positioning were recorded. For BPXR, the angles were obtained in three different ways as follows:

- (1) Angles between pairs of lines constructed from the landmark coordinates on the BPXR lateral view (BPXR-L);
- (2) Angles between pairs of lines constructed from the landmark coordinates on the BPXR lateral view, as marked with the help of the corresponding PA view (a line indicates the corresponding height of the landmark on the PA view when the landmark is positioned on the lateral view in Idefix; BPXR-LPA);
- (3) Angles between pairs of lines drawn directly on the BPXR lateral view, without previous landmark identification (BPXR-A).

Table 1. Angles used in our cephalometric analysis.

Angle	Definition
SNA	Angle between S, N, and A points
SNB	Angle between S, N, and points
ANB	Angle between A, N, and B points
FMIA	Angle between Frankfort (Or-Po) plane and mandibular incisor axis (Bi-bi)
FMA	Angle between Frankfort plane and mandibular plane (Go-Me)
IMPA	Angle between mandibular incisor axis and mandibular plane
I/SN	Angle between maxillary incisor axis (Ia-ia) and S-N plane
I/i	Angle between maxillary incisor axis and mandibular incisor axis
SN/Pocc	Angle between S-N plane and occlusal plane (AoP-PoP)
Fr/Pocc	Angle between Frankfort plane and occlusal plane
Max/Mand	Angle between maxilla plane (ENA-ENP) and mandibular plane
Distance	Definition
S-N	Distance between S and N
ANS-PNS	Distance between ANS and PNS
Me-IB	Distance between Me and IB
N-ANS	Distance between N and ANS



Figure 1. Skull lateral BPXR view.

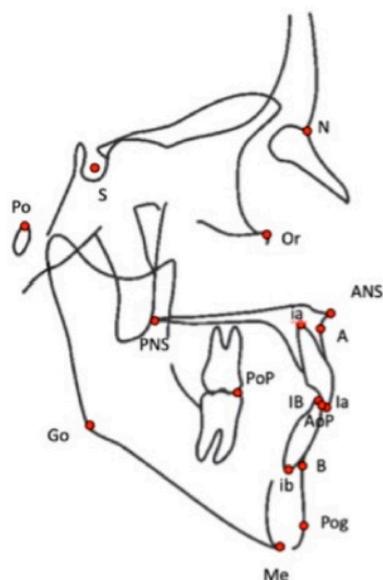


Figure 2. Landmarks used to perform the cephalometric analysis. S: center of the sella turcica, N: Nasion, ANS: anterior nasal spine, PNS: posterior nasal spine, A: most posterior point of the anterior contour of the upper alveolar process, B: most posterior point of the anterior contour of the lower alveolar process, Me: most inferior point of the chin, Po: porion, Or: orbital, Pg: most anterior point on the mandibular symphysis, Go: gonion (a bisecting point between the mandibular plane and the posterior edge of the ramus), AI: mid-point of the incisal edge of the most prominent upper central incisor, BI: mid-point of the incisal edge of the most prominent lower central incisor, ai: apex of the root of the upper central incisor, bi: apex of the root of the lower central incisor, AoP: anterior occlusal point, PoP: posterior occlusal point.

On lateral cephalograms, the cephalometric analysis and angle calculation were performed following two different methods: with the construction of straight lines (LC-A) and using landmarks (LC-L). The concordance of the three methods of BPXR with the

reference method (LC-A) was then evaluated in order to determine the most reliable BPXR method.

To assess possible differences in the distortion, we also compared the two types of images based on the measurement of two horizontal and two vertical distances between pairs of landmarks, as listed in Table 1.

For each method, in order to estimate intra- and interoperator reliability, the angle measurement was performed by the three operators, repeated three times for operators 1 and 2, and two times for operator 3, with a minimum 2-week interval. A training session was organized 2 weeks before taking the measurements. All measurements were performed using IdefX.

#### 2.4. Statistical Analysis

##### 2.4.1. Intraoperator Reliability

For each of the three operators, the intraoperator (i.e., test-retest) reliability was investigated (1) for the landmarks (for the three methods using landmarks, i.e., LC-L, BPXR-L, and BPXR-LPA) and (2) for the angles (for the five methods). This reliability was evaluated using an intraclass correlation coefficient ICC(A,1) according to the notation used by McGraw and Wong [20]. ICC(A,1) is the variance ratio quantifying the absolute agreement between the two or three measurements of an operator for each of the 13 patients (two-way ANOVA model). According to Koo and Li, ICC values less than 0.5, between 0.5 and 0.75, between 0.75 and 0.9, and greater than 0.9 are indicative of poor, moderate, good, and excellent reliability, respectively [21]. Confidence intervals were estimated as in McGraw and Wong [20]. To summarize the results, mean ICCs over operators were taken over the Fisher transform (i.e.,  $\ln((1+r)/(1-r))$ ) of the individual ICCs, and transformed back.

##### 2.4.2. Interoperator Reliability

The interoperator reliability was investigated (1) for the landmarks (for the three methods using landmarks, i.e., LC-L, BPXR-L, and BPXR-LPA) and (2) for the angles (for the five methods). This reliability was also evaluated using ICC(A,1). Here, the variance ratio quantified the absolute agreement between a single measurement of the three operators for each of the 13 patients. For each patient, a single measurement of each operator was randomly chosen from among the two or three they made. The means of ICCs for the angles or methods were taken using the Fisher transform.

##### 2.4.3. Concordance with the Reference Method

For each operator, the concordance with the reference method (LC-A) was investigated for each of the four other angle identification methods. This concordance was also evaluated using ICC(A,1); here, the variance ratio quantified the absolute agreement between an operator's measurement using the method of interest and that obtained with the reference method, for each of the 13 patients. To synthesize the ICCs of the three operators, means were taken using the Fisher transform.

##### 2.4.4. Linear Distances

The mean, standard deviation (SD) of the difference between the repeated measurements for each method and between the two methods were calculated. The reproducibility was calculated by paired measurement comparisons with a *t*-test. The level of statistical significance was set at  $p < 0.05$ .

The statistical analysis was performed with MATLAB (version 9.10.0.1684407 (R2021a) update 3).

### 3. Results

#### 3.1. Landmarks

We found excellent intraoperator reliability for most of the landmarks. All landmarks had an intrarater ICC > 0.9 regardless of the method. The results are displayed in Figure S1. The interoperator reliability was also excellent. The mean interrater ICC was above 0.9 for all landmarks except “x-Or” (0.88) and “x-PoP” (0.76) for the LC-L method. The results are displayed in Figure S2.

#### 3.2. Distances

Mean differences between the LC-method and the BPXR-method were 0.22 mm (+/- 1.41,  $p = 0.6$ ) for N-S, 1.24 mm (+/- 2.33,  $p = 0.20$ ) for N-ANS, 1.75 mm (+/- 2.0,  $p = 0.22$ ) for ANS-PNS and 1.00 mm (+/- 1.6,  $p = 0.18$ ) for Me-Ib. No significant differences were observed on linear distances. The results are displayed in Table S1.

#### 3.3. Angles

Intraoperator reliability was better for the LC-A method (mean ICC of 0.95 for the three operators and all angles) than for the LC-L method (ICC = 0.93). The results are displayed in Figure 3. On the BPXR lateral view, the angles measured between straight lines (BPXR-A) presented better results (mean ICC for all angles = 0.94) than those acquired based on landmark identification; the mean ICC was 0.92 for the BPXR-LPA method and 0.90 for the BPXR-L method.

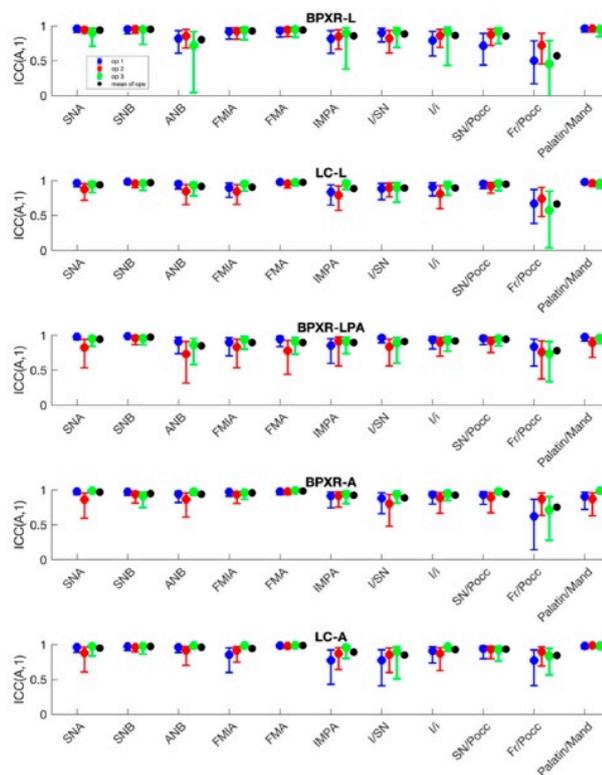


Figure 3. Intraoperator reliability of each angle according to the method.

The interoperator reliability was better for the LC-A method (mean ICC of 0.87 for the three operators) than for the LC-L method (mean ICC = 0.83). The results for each angle are displayed in Table 2 and Figure 4. For the lateral cephalogram, with the construction of straight lines to conduct the analysis, all angles showed good or excellent reliability except for the Fr/Pocc and I/SN angles. For the LC-A method, four angles presented poor or moderate reliability. For BPXR, the reliability was best with the construction of straight lines (BPXR-A). Only one angle presented poor or moderate reliability with this method (mean ICC of 0.42 for Fr/Pocc). The reliability was poor or moderate for five angles with the BPXR-LPA method and for four angles with the BPXR-L method.

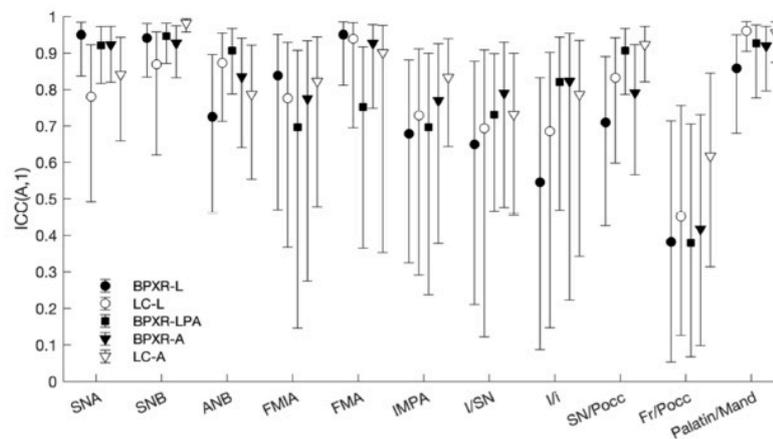


Figure 4. Interoperator reliability of each angle according to the method.

Table 2. Interoperator reliability for angle measurements evaluated with ICCs.

Angle	LC-A <sup>1</sup>	BPXR-A <sup>2</sup>	BPXR-LPA <sup>3</sup>	LC-L <sup>4</sup>	BPXR-L <sup>5</sup>	Mean
SNA	0.84	0.92	0.92	0.78	0.95	0.90
SNB	0.98	0.93	0.95	0.87	0.94	0.94
ANB	0.79	0.84	0.90	0.87	0.73	0.84
FMIA	0.82	0.78	0.70	0.78	0.84	0.79
FMA	0.90	0.93	0.75	0.94	0.95	0.91
IMPA	0.83	0.77	0.70	0.73	0.68	0.75
I/SN	0.73	0.80	0.73	0.69	0.65	0.72
I/i	0.79	0.82	0.82	0.69	0.55	0.75
SN/ Pocc	0.92	0.79	0.91	0.83	0.71	0.85
Fr/Pocc	0.62	0.42	0.38	0.45	0.38	0.45
Max/Mand	0.96	0.92	0.93	0.96	0.86	0.93
Mean	0.87	0.84	0.83	0.82	0.81	-

<sup>1</sup>LC-A: lateral cephalograms angles, obtained with straight line; <sup>2</sup>BPXR-: BPXR angles, obtained with straight line; <sup>3</sup>BPXR-PA: angles obtained from landmark acquisition, with the help of the PA; <sup>4</sup>LC-L: angles obtained from landmark acquisition on lateral cephalograms; <sup>5</sup>BPXR-L: angles obtained from landmark acquisition on BPXR lateral skull X-ray.

The concordance with the reference method was the best with the BPXR-A method, as presented in Figure 5 and Table 3. With the BPXR-A method, the mean ICC of the angles was 0.86, while it was 0.84 for the BPXR-LPA method and 0.82 for the BPXR-L method. The concordance with the reference method was good or excellent for most angles, except Fr/SN (mean ICC = 0.72).

Table 3. Concordance with the LC-A method (reference method) estimated through the mean ICC of the three operators.

Angle	BPXR-A <sup>1</sup>	BPXR-LPA <sup>2</sup>	BPXR-L <sup>3</sup>
SNA	0.72	0.80	0.75
SNB	0.87	0.88	0.83
ANB	0.83	0.76	0.71
FMIA	0.88	0.87	0.89
FMA	0.96	0.91	0.92
IMPA	0.80	0.76	0.70
I/SN	0.81	0.77	0.78
I/i	0.85	0.80	0.77
SN/Poccc	0.88	0.91	0.82
Fr/Poccc	0.72	0.66	0.73
Max/Mand	0.93	0.95	0.91
Mean	0.86	0.84	0.82

<sup>1</sup>BPXR-: BPXR angles, obtained with straight line; <sup>2</sup>BPXR-PA: angles obtained from landmark acquisition, with the help of the PA; <sup>3</sup>BPXR-L: angles obtained from landmark acquisition on BPXR lateral skull X-ray.

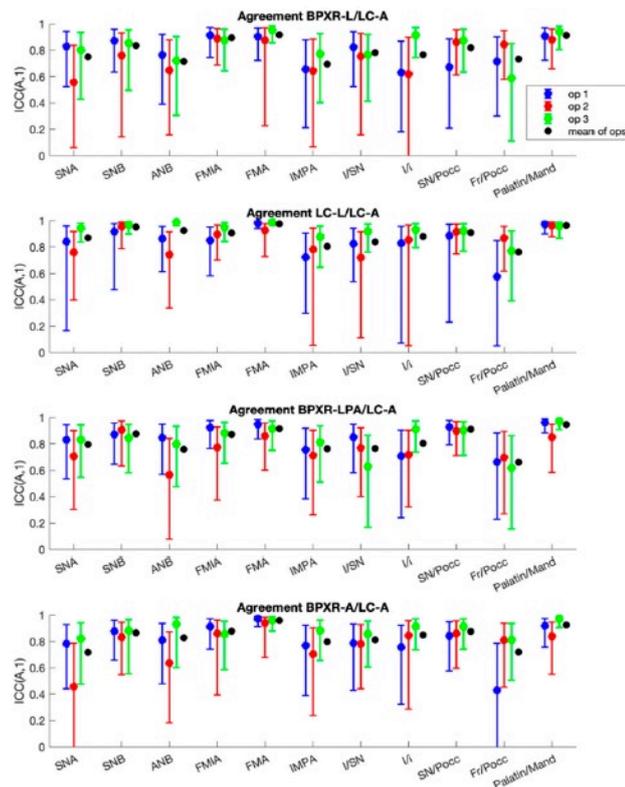


Figure 5. Concordance of each method with the LC-A method (reference method).

#### 4. Discussion

To our knowledge, this study is the first to assess the intra- and interobserver reliability of three methods for cephalometric analysis from the lateral radiography results obtained by BPXR. The best concordance with the reference method (based on a lateral cephalogram) was achieved by measuring angles of interest via the construction of straight lines on BPXR lateral views.

Methods to acquire BPXR and lateral cephalometric radiographs are inherently different. BPXR is mostly used to provide reliable images of the spine and the entire skeleton, while lateral cephalometric radiography is dedicated to cephalometric evaluation. BPXR is a new slot-scanning radiologic device that allows the acquisition of two X-ray images simultaneously. It is composed of two X-ray sources, shaped as fan beams through collimation slits [22]. The core of the BPXR imaging system is a multiwire proportional chamber with two independent X-ray tubes, each producing a 45 cm wide X-ray fan beam and X-ray detection plates [23]. The co-linked X-ray tube/detector pairs run from the top of the head to the feet concurrently in both planes (anterior–posterior and lateral), resulting in two acquisitions in one mechanical motion. Throughout the X-ray tube/detector pair, the X-ray beam is orthogonal to the object being radiographed; in this way, possible parallax deformations of the image are avoided [24]. A lateral cephalometric radiograph is a standardized, reproducible radiograph taken from a distance of 1.5 m with the head at a right angle to the X-ray beam. The X-ray detector is located 15 cm from the head. The cephalostat machine incorporates two posts that are placed in the external auditory meatus, while the patient's sagittal plane should be parallel to the X-ray film; the teeth are in centric occlusion, and the Frankfort plane is aligned horizontally. As the X-rays emanating from the source have a divergent pattern, the amount of magnification of the object will vary in the radiograph [25]. Manufacturers of scanning digital cephalometric units incorporate proprietary algorithms following image acquisition that correct for image distortion produced by potentially aberrant beam geometries [26]. Magnification can also have an impact on the measurement. On BPXR, magnification is close to zero, as demonstrated by Chiron et al. [27]. On lateral cephalogram, a scale is provided to ensure that the image is at a 1:1 scale. We also compared linear distances to investigate the possible impact of distortion or magnification on our results: no significant differences were observed. The head position during the image acquisition also differs between the two imaging techniques. For a lateral cephalogram, the head is positioned precisely horizontally using a cephalostat (a head-positioning device used in dentomaxillofacial radiology), maintaining the head strictly orthogonal to the X-ray beam to obtain a "true profile". With this acquisition technique, high reproducibility of the head positioning is expected. However, the reproducibility of the head and cervical postures is poor [24]. During the acquisition with BPXR, the patient stands in a standardized position, with the hands resting on the cheeks without any device to maintain the head. The patient is asked to look into the horizon and to stay still. Consequently, the position of the head is free in order to have the most natural body posture. Even though the patient is placed in alignment with the PA X-ray source and orthogonal to the lateral with the help of footprint stickers on the floor and reference lines on the walls of the cabin, the lateral image of the head may not be a perfect "true profile". These differences could have impacted our results. However, it seems that the impact on the concordance between the two imaging methods was small, even though acquisition variability assessment was not carried out in this study.

BPXR offers the advantage of allowing 3D reconstructions of the spine, including the cervical spine, with a higher reproducibility of sagittal balance than with 2D imaging [28]. In this setting, BPXR is used in routine practice for treatment decisions during scoliosis follow-up. Patients with scoliosis undergo numerous BPXRs to investigate the evolution of their spinal condition. The incidence of malocclusion in this population is higher than in scoliosis-free people [29]. In addition, postural dysfunction seems to be connected to diseases associated with cephalometric abnormality and mouth breathing such as MMDs [13] or upper airway instability such as OSAS [13,16]. Consequently, the use of BPXR

could provide a concurrent evaluation of postural and cephalometric abnormalities, which are often linked [13], while limiting X-ray exposure.

The EOS standardized position, as described by Chaibi et al., is a standing position with the hands resting on the cheeks [19]. It increases the superimposition of anatomical structures and thus the difficulty in landmark positioning, especially for dental landmarks. It is well known that the superimposition of elements is a source of error in cephalometric analysis and landmark positioning [30]. In our study, the intra- and interoperator reliability of angle measurement were better with the lateral cephalogram. However, BPXR lateral view analysis with the direct drawing of lines was also associated with good to excellent intra- and interoperator reliability. There was a negligible impact on the analysis of the superimposition of the hands resting on the mandible. This result is consistent with those of Berg et al., who found no significant difference in the accuracy of landmark positioning with or without hand superimposition on the facial skeleton [18].

In our study, the inter- and intraoperator reliability of landmark positioning were satisfactory for both imaging technics. In the literature, only one study conducted a similar evaluation on the facial skeleton. Berg et al. evaluated the feasibility of precisely assessing anatomical landmarks of the facial skeleton [18]. The landmarks were precisely detectable, even when patients had their hands in front of the face. However, in our study, the landmarks with both imaging techniques were obtained in two different geometrical frames. The lateral cephalogram view contains only the skull and the cervical spine, whereas BPXR includes the entire skeleton. The y-coordinate is therefore not consistent. For this reason, we compared the angles between the two imaging technics in order to evaluate the feasibility and accuracy of the cephalometric analysis.

The BPXR images presented another difficulty related to the low dose acquisition—the contrast in the BPXR images was less than in the lateral cephalograms. Some landmarks, especially dental landmarks, were difficult to identify on BPXR images. However, some dental landmarks (especially dental apices) are known to be more difficult to identify than skeletal landmarks. The location of the apices is frequently based on general knowledge of the expected rate of taper perceived from the crown and the visible portion of the root. This difficulty has been highlighted by several authors [31,32]. In our study, the less reliable angles were those involving dental landmarks: the I/SN and Fr/Poc angles. To assess facial morphology on BPXR, skeletal angles should be preferred.

Our study has some limitations. We focused on group mean assessments in order to evaluate the feasibility of performing a cephalometric analysis on BPXR, but we did not test differences in individual cases. Thus, the outcomes are only applicable in groups of patients (e.g., study groups) and not in individual patients.

## 5. Conclusions

BPXR provides a lateral view of the skull suitable for cephalometric analysis with good reliability compared with cephalometric analyses based on lateral cephalograms. In patients requiring repeated postural evaluation with BPXR imaging, such as scoliotic patients or those with OSAS or MMD and related postural dysfunction, concomitant cephalometric and postural analysis is feasible, thereby avoiding additional X-ray irradiation.

**Supplementary Materials:** The following are available online at [www.mdpi.com/article/10.3390/jcm10235477/s1](http://www.mdpi.com/article/10.3390/jcm10235477/s1), Figure S1: Intraoperator reliability for each landmark coordinate according to the method, Figure S2: Interoperator reliability of each landmark coordinate according to the method, Table S1: Results on distances.

**Author Contributions:** Conceptualization, A.K., T.S., and V.A.; data curation, A.K. and I.R.; formal analysis, I.R.; funding acquisition, A.K.; investigation, A.K., P.D., and G.D.; methodology, A.K., T.S., and V.A.; project administration, T.S. and V.A.; resources, A.K.; software, A.K. and I.R.; validation, T.S. and V.A.; visualization, B.-I.B.; writing—original draft preparation, A.K.; writing—review and editing, I.R., B.-I.B., T.S., and V.A. All authors have read and agreed to the published version of the manuscript.

**Funding:** This study was funded by the Fédération Française d'Orthodontie.

**Institutional Review Board Statement:** All procedures performed in studies involving human participants were in accordance with the ethical standards of the institutional and/or national research committee and with the 1964 Helsinki declaration and its later amendments or comparable ethical standard. This study received approval from the relevant ethics committees (Comité de Protection des Personnes (CPP) Sud-Méditerranée 2018-A00362-53 and CPP Ile de France VI 2006-A00386-45).

**Informed Consent Statement:** All patients provided written informed consent.

**Data Availability Statement:** The data underlying this article will be shared at reasonable request to the corresponding author.

**Conflicts of Interest:** A.K. declares that she has no conflict of interest. I.R. declares that she has no conflict of interest. P.D. declares that she has no conflict of interest. G.D. declares that he has no conflict of interest. B.I.B. declares that she has no conflict of interest. V.A. reports personal fees from ADEP Assistance, Resmed, SIRIUS-CUSTOMIZER, outside the submitted work. T.S. declares that he has no conflict of interest.

## References

1. Tweed, C.H. The Frankfort-mandibular plane angle in orthodontic diagnosis, classification, treatment planning, and prognosis. *Am. J. Orthod. Oral Surg.* **1946**, *32*, 175–230, doi:10.1016/0096-6347(46)90001-4.
2. Sassouni, V. A roentgenographic cephalometric analysis of cephalo-facio-dental relationships. *Am. J. Orthod.* **1955**, *41*, 735–764, doi:10.1016/0002-9416(55)90171-8.
3. Chen, S.-K.; Chen, Y.-J.; Yao, C.-C.J.; Chang, H.-F. Enhanced speed and precision of measurement in a computer-assisted digital cephalometric analysis system. *Angle Orthod.* **2004**, *74*, 501–507, doi:10.1043/0003-3219(2004)074<0501:ESAPOM>2.0.CO;2.
4. Melhem, E.; Assi, A.; El Rachkidi, R.; Ghanem, I. EOS® biplanar X-ray imaging: Concept, developments, benefits, and limitations. *J. Child. Orthop.* **2016**, *10*, 1–14, doi:10.1007/s11832-016-0713-0.
5. Schlatterer, B.; Suedhoff, I.; Bonnet, X.; Catonne, Y.; Maestro, M.; Skalli, W. Skeletal landmarks for TKR implantations: Evaluation of their accuracy using EOS imaging acquisition system. *Orthop. Traumatol. Surg. Res.* **2009**, *95*, 2–11, doi:10.1016/j.otsr.2008.05.001.
6. Dubousset, J.; Charpak, G.; Dorion, I.; Skalli, W.; Lavaste, F.; de Guise, J.A.; Kalifa, G.; Ferey, S. Le Système EOS. Nouvelle imagerie ostéo-articulaire basse dose en position debout. *e-Mém. Acad. Natl. Chir.* **2005**, *4*, 22–27, doi:10.14607/emem.2005.4.22.
7. Amabile, C.; Le Huec, J.-C.; Skalli, W. Invariance of head-pelvis alignment and compensatory mechanisms for asymptomatic adults older than 49 years. *Eur. Spine J.* **2018**, *27*, 458–466, doi:10.1007/s00586-016-4830-8.
8. Ilharreborde, B.; Dubousset, J.; Le Huec, J.-C. Use of EOS imaging for the assessment of scoliosis deformities: Application to postoperative 3D quantitative analysis of the trunk. *Eur. Spine J.* **2014**, *23*, S397–S405, doi:10.1007/s00586-014-3334-7.
9. Morel, B.; Moueddeb, S.; Blondiaux, E.; Richard, S.; Bachy, M.; Vialle, R.; Ducou Le Pointe, H. Dose, image quality and spine modeling assessment of biplanar EOS micro-dose radiographs for the follow-up of in-brace adolescent idiopathic scoliosis patients. *Eur. Spine J.* **2018**, *27*, 1082–1088, doi:10.1007/s00586-018-5464-9.
10. Pedersen, P.H.; Vergari, C.; Alzakri, A.; Vialle, R.; Skalli, W. A reduced micro-dose protocol for 3D reconstruction of the spine in children with scoliosis: Results of a phantom-based and clinically validated study using stereo-radiography. *Eur. Radiol.* **2019**, *29*, 1874–1881, doi:10.1007/s00330-018-5749-8.
11. Vergari, C.; Bocahut, N.; Hernandez, T.; Assi, A.; Skalli, W.; Ilharreborde, B. Trunk growth in early-onset idiopathic scoliosis measured with biplanar radiography. *Spine Deform.* **2019**, *7*, 962–970, doi:10.1016/j.jspd.2019.04.001.
12. Yeung, K.H.; Man, G.C.W.; Skalli, W.; Hu, Z.; Hung, V.W.Y.; Hung, A.L.H.; Lam, T.P.; Ng, B.K.W.; Cheng, J.C.Y.; Vergari, C.; et al. Global sagittal alignment after surgery of right thoracic idiopathic scoliosis in adolescents and adults with and without thoracic hypokyphosis. *Sci. Rep.* **2021**, *11*, 6294, doi:10.1038/s41598-021-85782-6.
13. Kerbrat, A.; Schouman, T.; Decressain, D.; Rouch, P.; Attali, V. Interaction between posture and maxillo-mandibular deformity: A systematic review. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg.* **2021**, S0901502721001703, doi:10.1016/j.ijom.2021.05.003.
14. Saccucci, M.; Tettamanti, L.; Mummolo, S.; Polimeni, A.; Festa, F.; Salini, V.; Tecco, S. Scoliosis and dental occlusion: A review of the literature. *Scoliosis* **2011**, *6*, 15, doi:10.1186/1748-7161-6-15.
15. Lee, S.-Y.; Guilleminault, C.; Chiu, H.-Y.; Sullivan, S.S. Mouth breathing, “nasal disuse,” and pediatric sleep-disordered breathing. *Sleep Breath* **2015**, *19*, 1257–1264, doi:10.1007/s11325-015-1154-6.
16. Clavel, L.; Rémy-Neris, S.; Skalli, W.; Rouch, P.; Lespert, Y.; Similowski, T.; Sandoz, B.; Attali, V. Cervical spine hyperextension and altered posturo-respiratory coupling in patients with obstructive sleep apnea syndrome. *Front. Med.* **2020**, *7*, 30, doi:10.3389/fmed.2020.00030.
17. Verin, E.; Sériès, F.; Locher, C.; Straus, C.; Zelter, M.; Derenne, J.-P.; Similowski, T. Effects of neck flexion and mouth opening on inspiratory flow dynamics in awake humans. *J. Appl. Physiol.* **2002**, *92*, 84–92, doi:10.1152/jap.2002.92.1.84.
18. Berg, B.-I.; Laville, A.; Courvoisier, D.S.; Rouch, P.; Schouman, T. Experiences with a new biplanar low-dose X-ray device for imaging the facial skeleton: A feasibility study. *PLoS ONE* **2020**, *15*, e0235032, doi:10.1371/journal.pone.0235032.

19. Chaibi, Y.; Cresson, T.; Aubert, B.; Hausselle, J.; Neyret, P.; Hauger, O.; de Guise, J.A.; Skalli, W. Fast 3D reconstruction of the lower limb using a parametric model and statistical inferences and clinical measurements calculation from biplanar X-rays. *Comput. Methods Biomech. Biomed. Eng.* **2012**, *15*, 457–466, doi:10.1080/10255842.2010.540758.
20. McGraw, K.O.; Wong, S.P. Forming inferences about some intraclass correlation coefficients. *Psychol. Methods* **1996**, *1*, 30–46, doi:10.1037/1082-989X.1.1.30.
21. Koo, T.K.; Li, M.Y. A guideline of selecting and reporting intraclass correlation coefficients for reliability research. *J. Chiropr. Med.* **2016**, *15*, 155–163, doi:10.1016/j.jcm.2016.02.012.
22. Deschênes, S.; Charron, G.; Beaudoin, G.; Labelle, H.; Dubois, J.; Miron, M.-C.; Parent, S. Diagnostic imaging of spinal deformities: Reducing patients radiation dose with a new slot-scanning X-ray imager. *Spine* **2010**, *35*, 989–994, doi:10.1097/BRS.0b013e3181bdcaa4.
23. Charpak, G. La détection des particules. *Recherche* **1981**, *12*, 1384–1396.
24. Wybier, M.; Bossard, P. Musculoskeletal imaging in progress: The EOS imaging system. *Jt. Bone Spine* **2013**, *80*, 238–243, doi:10.1016/j.jbspin.2012.09.018.
25. Rino Neto, J.; Paiva, J.B.D.; Queiroz, G.V.; Attizzani, M.F.; Miasiro, H., Jr. Evaluation of radiographic magnification in lateral cephalograms obtained with different X-ray devices: Experimental study in human dry skull. *Dent. Press J. Orthod.* **2013**, *18*, 17e1–17e7, doi:10.1590/S2176-94512013000200005.
26. Chadwick, J.W.; Prentice, R.N.; Major, P.W.; Lam, E.W.N. Image distortion and magnification of 3 digital CCD cephalometric systems. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod.* **2009**, *107*, 105–112, doi:10.1016/j.tripleo.2008.09.025.
27. Chiron P, Demoulin L, Wytrykowski K, Cavaignac E, Reina N, Murgier J. Radiation dose and magnification in pelvic X-ray: EOS™ imaging system versus plain radiographs. *Orthop Traumatol Surg Res.* **2017 Dec**;103(8):1155-1159. doi: 10.1016/j.otsr.2017.07.018
28. Okamoto, M.; Jabour, F.; Sakai, K.; Hatsushikano, S.; Le Huec, J.C.; Hasegawa, K. Sagittal balance measures are more reproducible when measured in 3D vs. in 2D using full-body EOS® images. *Eur. Radiol.* **2018**, *28*, 4570–4577, doi:10.1007/s00330-018-5485-0.
29. Laskowska, M.; Olczak-Kowalczyk, D.; Zadurska, M.; Czubak, J.; Czubak-Wrzosek, M.; Walerzak, M.; Tyrakowski, M. Evaluation of a relationship between malocclusion and idiopathic scoliosis in children and adolescents. *J. Child. Orthop.* **2019**, *13*, 600–606, doi:10.1302/1863-2548.13.190100.
30. Houston, W.J.B.; Maher, R.E.; McElroy, D.; Sherriff, M. Sources of error in measurements from cephalometric radiographs. *Eur. J. Orthod.* **1986**, *8*, 149–151, doi:10.1093/ejo/8.3.149.
31. Baumrind, S.; Frantz, R.C. The reliability of head film measurements. 1. Landmark identification. *Am. J. Orthod.* **1971**, *60*, 111–127, doi:10.1016/0002-9416(71)90028-5.
32. Tng, T.T.; Chan, T.C.; Hägg, U.; Cooke, M.S. Validity of cephalometric landmarks. An experimental study on human skulls. *Eur. J. Orthod.* **1994**, *16*, 110–120, doi:10.1093/ejo/16.2.110.

## ANNEXE 3 : ARTICLE 3 (SOUMIS MAIS NON PUBLIE)

### **ADAPTATION OF POSTURAL ALIGNMENT IN PATIENTS WITH MAXILLOMANDIBULAR DEFORMITIES**

A. Kerbrat (MD)<sup>a,b,c</sup>, I. Rivals<sup>c,d</sup>, P. Rouch (PhD)<sup>b</sup>, V. Attali (MD, PhD)<sup>b,c,e</sup>, T. Schouman (MD, PhD)<sup>a,b</sup>

- a- Sorbonne universite, APHP.Sorbonne Universite, Hopital Pitie-Salpetriere, Service de chirurgie maxillo-faciale, Paris, FRANCE ;*
- b- Arts et Metiers Sciences et Technologies, Institut de Biomecanique Humaine Georges Charpak, Paris, FRANCE ;*
- c- Sorbonne Universite, INSERM, UMRS1158 Neurophysiologie Respiratoire Experimentale et Clinique, F-75005 Paris, France*
- d- Equipe de Statistique Appliquée, ESPCI Paris, PSL Research University, 75231 Paris, France*
- e- AP-HP, Groupe Hospitalier Universitaire APHP-Sorbonne Universite, site Pitié-Salpetriere, Département R3S (Respiration, Réanimation, Réadaptation respiratoire, Sommeil) Service des Pathologies du Sommeil, F-75013 Paris, France*

#### **Abstract**

**Introduction:** Postural dysfunction in patients exhibiting maxillo-mandibular deformity (MMD) was previously reported, but the level of evidence is low and the mechanisms involved are unclear. The aim of our study was to compare the 3D postural alignment between patients with MMD and controls, using Biplanar Xray (BPIX).

**Method:** 30 patients with MMD (median age 32 [29 ; 37], 18 women) were compared to a control group of 20 subjects (30 [23 ; 36], 11 women). The postural alignment and the cephalometric analysis were assessed from the BPIX of the whole skeleton acquired in a standardized upright position, followed by a three-dimensional reconstruction (personalized model).

**Results:** Patients with MMD had a larger hyperkyphosis of the lower part of the cervical curvature (C3-C7 angle: 10.6° [3.9 ; 17.5] versus 3.2° [-6.4 ; 7.6],  $p < 0.01$ ), a more forward head posture (OD-C7 angle: 10.5° [8.5 ; 15.1] versus 6.2° [3.0 ; 8.4],  $p < 0.01$ ) and a more negative sagittal balance (sagittal vertical axis: -15.7 mm [-25.9 ; -5.2] versus -1.4 mm [-17.8 ; 7.0],  $p = 0.014$ ). Correlations were found between these three postural variables and the FMA angle a cephalometric variable which quantify the facial height and whose high values are associated with oral breathing. Two postural phenotypes were identified which differed on pelvic variables and lumbar lordosis.

**Conclusion:** Patients with MMD present a pathological spinal alignment, which is correlated to the facial length. This supports a potential adaptive mechanism secondary to oral breathing. Our results suggest in addition growth-related postural adaptations.

## **INTRODUCTION**

Maxillo-mandibular deformity (MMD) is an incorrect position of the jaws that causes malocclusion. In addition to malocclusion, associated symptoms include a variety of oral function disorders, such as masticatory disorder, oral breathing, temporomandibular joint disorders, facial asymmetry, and lingual dysfunction. The prevalence of MMD in general population is difficult to establish, varying from 15 to 40% depending on the study (Burgersdijk et al., 1991; Krooks et al., 2016). This difficulty is due to the heterogeneity of symptoms and/or complains of patients exhibiting MMD. The treatment of MMD includes the combination of orthodontic treatment and orthognathic surgery. The motivation of patients for orthognathic treatment includes functional, esthetic, and psychosocial improvement.

To enable standing in an upright position, the human spine comprises successive, opposing curves with the head aligned with the pelvis (Amabile et al., 2016). Severe spinal misalignment can lead to postural dysfunction defined as the inability to maintain, achieve or restore a state of balance in some posture or during some activity (A. S. Pollock et al., 2000).

There are several arguments in favor of a relationship between MMD and spinal misalignment (Kerbrat, Schouman, et al., 2021). Indeed, numerous studies revealed a postural pattern regarding head and cervical posture of MMD patients. They tend to exhibit a forward head posture and apparent cervical hyperextension (Kerbrat, Schouman, et al., 2021; Kulczynski & al, 2017; Solow & Tallgren, 1976). This could result from pathological upper airway mechanical properties, as was suggested by the relation between oral breathing and postural adaptation of the head (Huggare & Laine-Alava, 1997; Seo-Young Lee et al., 2015). This hypothesis is indirectly supported by observations in healthy subjects and in patients with obstructive sleep apnea syndrome (OSAS). In healthy subjects, the forward head posture is known to reduce the upper airway resistance and collapsibility (Verin et al., 2002). Consequently, patients with OSAS, which are known to have increased upper airways resistance even during wakefulness (Launois et al., 2015; Sériès et al., 2005), spontaneously adopt this posture while awake, possibly to facilitate ventilation. In patients with MMD, the global sagittal alignment has not been well described. The The Biplanar Xray technology (BPXR, EOS imaging®, Paris, France) relies on a low-dose X-ray system allowing concomitant stereo-corresponding posteroanterior (PA) and lateral 2D images of the whole body to be taken in a calibrated environment (Dubousset et al., 2005; Melhem et al., 2016; Schlatterer et al., 2009). BPXR allows the 3D reconstruction of the whole skeleton (excluding the facial skeleton) based on 2-dimensional X-rays acquired in an upright position. This system provides reliable 2D images of the spine and is validated for clinical practice in orthopedics (Amabile et al., 2018; Ilharreborde et al., 2014). For example, BPXR is used for the follow-up of patients with idiopathic scoliosis treated with in-brace (Morel et al., 2018). BPXR has been also validated and used to investigate the sagittal postural alignment of OSAS patients (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020) and to assess craniofacial morphology (Kerbrat, Rivals, et al., 2021). In this context, we hypothesize that patients with MMD present a comparable postural dysfunction as patients with OSAS.

## **METHODS**

### **MMD group**

Consecutive patients were recruited during a two-year period from a Maxillofacial surgery department of a University Hospital. Inclusion criteria were patients aged  $\geq 18$  years with a MMD and a planned orthognathic surgery. Exclusion criteria were patients exhibiting congenital malformation,

history of postural disorder, pregnancy or breastfeeding, and patients under legal guardianship. This study was approved by an independent Ethic Committee (Comité de Protection des Personnes (CCP) Sud Méditerranée on the number 2018-A00362-53). Among the 476 patients eligible during the study period, 40 agreed to take part in the study and were included. Patients were informed of the study objectives and procedures and provided written consent to participate. A radiological acquisition was planned one month before the orthognathic surgery using BPXR. In ten patients, this radiological acquisition was not done, due to withdrawal from the study for personal reasons (n=4), or to radiological acquisition cancelled before surgery because of the COVID pandemia or maintenance of the BPXR platform (n=6). Finally, 30 patients (18 women; median age: 32, interquartile interval [29; 37] years) constituted the MMD group.

### Control group

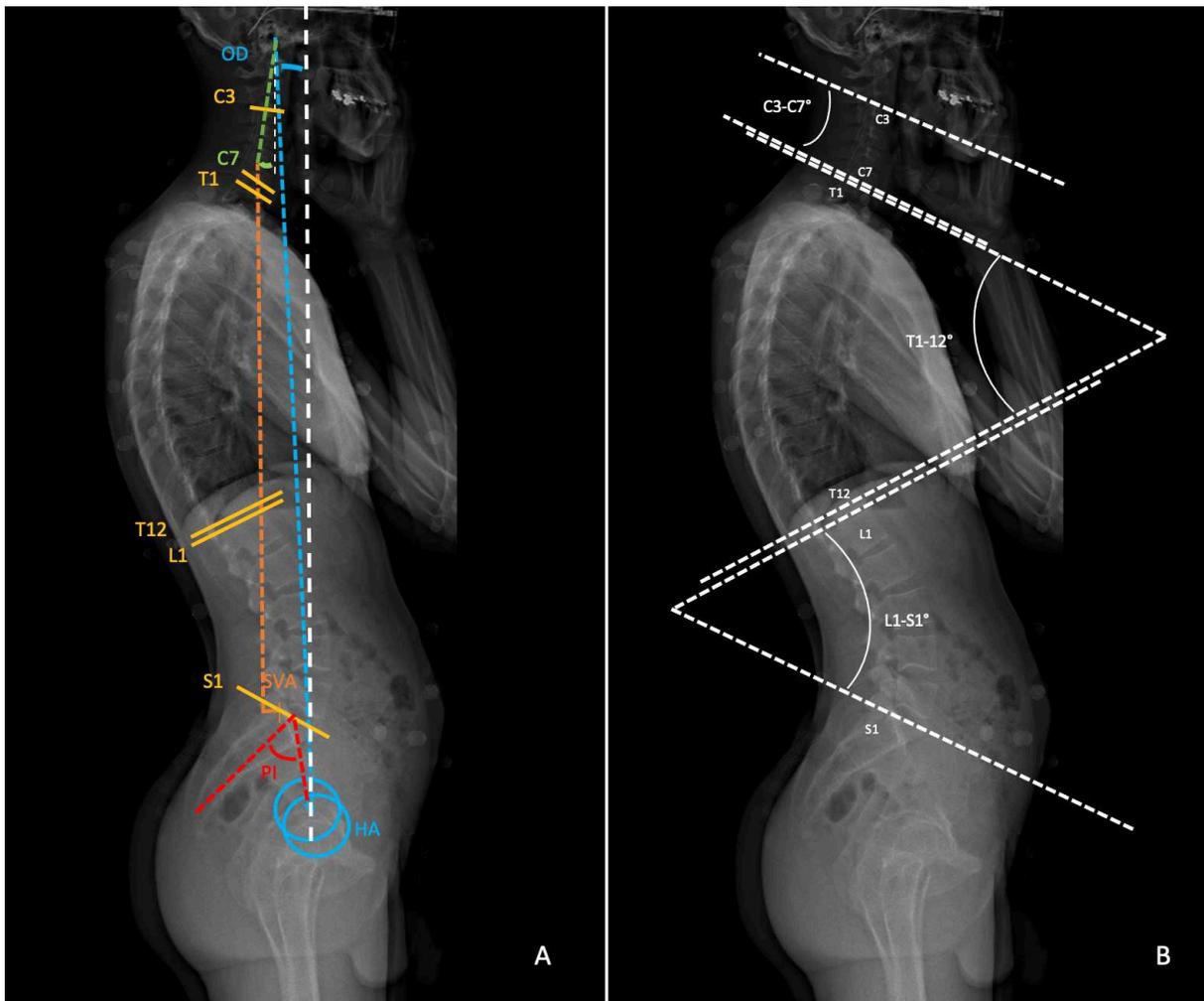
We used a database of 50 healthy participants (Institut de Biomécanique Humaine Georges Charpak, ENSAM, Paris, France). All were free of postural disorder and did not express any complaint suggestive of MMD. All subjects had a BPXR of the whole body in the context of another study (Clavel et al., 2020, CPP Ile de France V n°06036). A cephalometric evaluation was done on the BPXR (see below for procedure of cephalometric analysis using BPXR and for definition of cephalometric variables) and proved feasible for 42 of the participants. We selected 20 participants matching the MMD group in terms of age and sex, with at least three cephalometric variables within the norm ( $80^\circ < \text{SNA} < 84^\circ$ ,  $78^\circ < \text{SNB} < 82^\circ$ ,  $1^\circ < \text{ANB} < 4^\circ$ ,  $20^\circ < \text{FMA} < 28^\circ$ , Izard ratio  $> 0.47$ ) and none exceeding 2.5 standard deviation from the norm ( $\text{SNA} < 77^\circ$  or  $> 86^\circ$ ,  $\text{SNB} < 75^\circ$  or  $> 84^\circ$ ,  $\text{ANB} < -1^\circ$  or  $> 8^\circ$ ,  $\text{FMA} > 35^\circ$  or  $< 15^\circ$  and Izard ratio  $< 0.45$ , see the definition of the angles in the paragraph below).

### BPXR Image Processing for postural and cephalometric evaluations

The radiological acquisition was done in the upright position, to simultaneously acquire sagittal and frontal images of the entire skeleton including the head. During the acquisition, the patients were standing in a reference position with their hands on their cheeks (Chaibi et al., 2012). Participant-specific 3D reconstructions were obtained from the BPXR, including the OD point, defined as the uppermost point of the odontoid process of the second cervical vertebrae (C2), the spine of the third cervical vertebrae (C3) to the sacrum (S1), and the pelvis (cf. Figure 1), using validated methods (Amabile et al., 2018). The following variables were then calculated (cf. Figure 1): the cervical spine curvature between C3 and C7 vertebrae (C3–C7 angle), the thoracic spine curvature between T1 and T12 vertebrae (T1–T12 angle), the lumbar spine curvature between L1 and S1 vertebrae (L1–S1 angle), the pelvic incidence (represented by the angle between the line perpendicular to the sacral plate at its midpoint and the line connecting this point to the axis of the femoral heads), the sacral slope (represented by the angle between the sacral plateau and the horizontal), the pelvic tilt (represented by the angle between a vertical line passing through the femoral head and a line passing from the mid-sacral plateau and femoral head), the angle between the vertical and a line drawn from OD to the mid-point of a line intersecting the femoral heads (HA) (OH-HA angle), the angle between the vertical and a line drawn from OD and the uppermost point of C7 (OD-C7), and the sagittal vertical axis (SVA, corresponding to the horizontal distance between the C7 plumb line and the posterior–superior S1 corner).

The cephalometric evaluation was performed on both lateral and frontal images of the BPXR as previously validated (Kerbrat, Rivals, et al., 2021). The following angles were measured (cf. Figure 2): SNA (angle between the line passing through the Nasion and the center of the turcic sella and the line passing through the Nasion and A points (most posterior point of the anterior contour of the upper

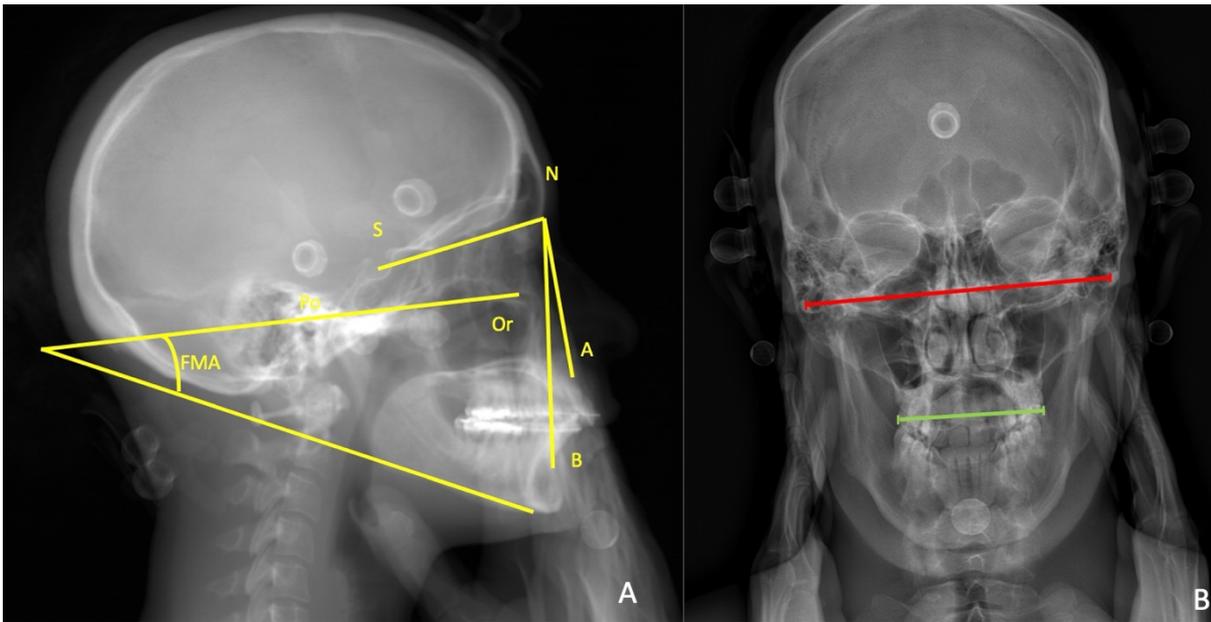
alveolar process), SNB (angle between the line passing through the Nasion and the center of the turcic sella and the line passing through the Nasion and B points (most posterior point of the anterior contour of the lower alveolar process), ANB (angle between the line passing through the Nasion and A points and the line passing through the Nasion and B points), FMA (angle between Frankfort plane and the mandibular plane), Izard ratio (the ratio of the distance between the maxillary molars and the distance between both zygomatic bones). We assessed skeletal class based on ANB angle value: class I ( $1^{\circ} \leq \text{ANB} \leq 4^{\circ}$ ), class II ( $\text{ANB} > 4^{\circ}$ ), class III ( $\text{ANB} < 1^{\circ}$ ); face length based on FMA angle value: short face ( $\text{FMA} < 20^{\circ}$ ), normal face ( $20^{\circ} \leq \text{FMA} \leq 30^{\circ}$ ), long face ( $\text{FMA} > 30^{\circ}$ ) and transversal dimensions based on the Izard ratio: insufficiency (Izard ratio  $< 0.47$ ), normal (Izard ratio  $\geq 0.47$ ).



A: Postural alignment variables measured using BPXR. OD: the uppermost point of the odontoid process of the second cervical vertebrae. Pelvic incidence PI: angle between the line perpendicular to the sacral plate at its midpoint and the line connecting this point to the axis of the femoral heads. OH-HA angle the angle between the vertical and a line drawn from OD to the mid-point of a line intersecting the femoral heads (HA). OD-C7: angle between the vertical and a line drawn from OD and the uppermost point of C7. SVA: horizontal distance between the C7 plumb line and the posterior-superior S1 corner.

B: Spinal curvatures variables measured using BPXR. C3-C7 angle: the cervical spine curvature between C3 and C7 vertebrae. T1-T12 angle: the thoracic spine curvature between T1 and T12 vertebrae. L1-S1 angle: the lumbar spine curvature between L1 and S1 vertebrae.

*Figure 1. Analysis of postural alignment using BPXR.*



A: Lateral view. N: Nasion, A: A point (most posterior point of the anterior contour of the upper alveolar process), S: center of the turcic sella, B: B point (most posterior point of the anterior contour of the lower alveolar process), Po: Porion, Or: Orbital. SNA: angle between the line passing through Na and S points and the line passing through Na and A points. SNB: angle between the line passing through Na and S points and the line passing through Na and B points, ANB: angle between the line passing through Na and A points and the line passing through Na and B points. FMA: angle between Frankfort plane and the mandibular plane.

B: Frontal view. Red line: distance between zygomatic arches, green line: distance between the maxillary molars. Izard ratio: the ratio of the distance between the maxillary molars and the distance between both zygomatic bones.

*Figure 2: cephalometric analysis using BPXR*

#### Upper airway volume evaluation in the MMD group

This evaluation was performed only in the MMD group on a preoperative CT scan which were available for all patients but one (CT scan was not available in the control group). The images were extracted as Digital Imaging and Communications in Medicine files and imported into ITK-SNAP software, an open-access image analysis algorithm funded by the US National Library of Medicine, validated for the segmentation and analysis of upper airway volume (Almuzian et al., 2018). The upper airway volume was calculated using the following limits: the upper limit was the plane parallel to the Frankfort plane passing through the posterior nasal spine, the anterior limit was the plane perpendicular to the Frankfort plane passing through the posterior nasal spine, the inferior limit was the plane parallel to the Frankfort plane passing through the highest point of the atlas, the lateral and posterior limits were the pharyngeal walls.

#### Statistical analyses

The distribution of most variables were non-normal, and all results are expressed in terms of median and interquartile interval.

To perform univariate comparisons of the postural variables between the two groups, Wilcoxon's non-parametric test was conducted for quantitative values and Fisher's test was performed for qualitative values. Multivariate comparisons were performed using logistic regression with age, sex and BMI as covariates. In order to compare the dispersion of the continuous variables, Ansari-Bradley's non-parametric test was performed.

Non-parametric Spearman partial (i.e. conditioned on age, sex and BMI) correlation coefficients between the postural variables were calculated in the two groups separately and on all patients. They were also calculated between postural and cephalometric variables. The correlations between the postural variables and the upper airway volume were evaluated in the same way. Multivariate linear regression with adjustment on age, sex and BMI was also performed. Hosmer-Lemeshow's Chi-square test (Hosmer et al., 1997) was used to check the goodness-of-fit of the final model. Principal Component Analyses (PCA) of controls and MMD patients were conducted on cephalometric and postural variables on their correlation matrix (i.e. with normalization). Unsupervised K-means clustering was performed to obtain two MMD groups. According to the silhouette criterion, K=2 is optimal. The variables were then compared between the corresponding two groups using Wilcoxon's test. The significance level was set to 0.05.

## **Results**

### *Comparison of the Baseline characteristics between the two groups*

There was no significant difference between groups in terms of age, sex ratio and BMI, although nearly significant for BMI ( $p=0.051$ ). In the MMD group, 14 patients presented class II malocclusion and 13 patients had a class III malocclusion; 2 patients presented short-face patterns and 12 had long-face patterns.

The characteristics of the two groups are presented in *table 1*.

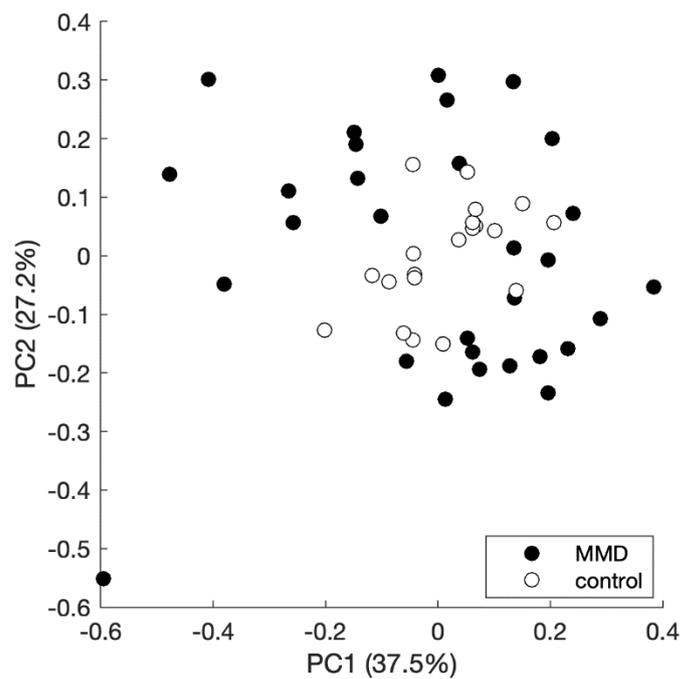
MMD patients' cephalometric measures deviated more significantly from the norm than those of the controls (*see figure 3 and table 1*).

	Control group (n=20)	MMD group (n = 30)	p
<b>General characteristics</b>			
Age (year)	30 [23 ; 36]	32 [ 29 ; 37]	0.4
men/women (N)	9/11	12/18	0.2
Body Mass Index (kg/m <sup>2</sup> )	22.12 [20.53 ; 23.76]	23.3 [21.7 ; 28.2]	0.051
<b>BPXR Postural variables</b>			
<i>Spinal Curvatures</i>			
C3-C7 angle (°)	3.17 [-6.3 ; 7.6]	10.6 [3.7 ; 17.5]	<b>&lt;0.01</b>
T1-T12 angle (°)	48.5 [40.0 ; 54.1]	45.7 [39.5 ; 50.7]	0.57
L1-S1 angle (°)	-59.1 [-73.0 ; -53.4]	-60.8 [-70.0 ; -53.6]	0.99
<i>Pelvic variables</i>			
Pelvic tilt (°)	14.0 [9.4 ; 17.3]	14.2 [10.1 ; 18.4]	0.85
Sacral slope (°)	-45.2 [-50.8 ; -34.3]	-41.6 [-46.2 ; -37.3]	0.74
Pelvic incidence (°)	57.8 [44.1 ; 64.7]	53.8 [46.2 ; 65.3]	0.81
<i>Alignment</i>			
OD-HA angle (°)	3.0 [2.0 ; 4.2]	3.12 [2.1 ; 4.3]	0.92
OD-C7 angle (°)	6.18 [3.0 ; 8.4]	10.5 [8.5 ; 15.1]	<b>&lt; 0.001</b>
SVA (mm)	-1.39 [-17.8 ; 7.0]	-15.71 [-25.9 ; -5.2]	<b>0.013</b>
<i>Scoliosis</i>			
N (%)	1 [5%]	6 [20%]	<b>0.2</b>
<b>BPXR Cephalometric variables</b>			
SNA angle (°)	80.9 [79.7 ; 84.3]	82 [79.4 ; 85.3]	0.13
SNB angle(°)	78.7 [77.1 ; 79.8]	76.4 [74.9 ; 82.3]	<b>&lt;0.001</b>
ANB angle (°)	3.6 [2.7 ; 4.4]	4.6 [1.0 ; 7.2]	<b>&lt;0.001</b>
<i>Skeletal class</i>			
class I (1° < ANB < 4°)	11 (55%)	6 (20%)	<b>0,02</b>
class II (ANB > 4°)	8 (40%)	16 (53%)	
class III (ANB < 1°)	1 (5%)	8 (27%)	
FMA angle(°)	21 [18.4 ; 24.5]	23.4 [18.4 ; 27.6]	0.14
<i>Face</i>			
short (FMA < 20°)	8 (40%)	7 (23%)	<b>0,049</b>
normal (20° ≤ FMA ≤ 30°)	12 (60%)	16 (53%)	
long (FMA > 30°)	0 (0%)	7 (23%)	
Izard ratio	0.48 [0.47 ; 0.49]	0.49 [0.46 ; 0.50]	0.0017
<i>Transversal length (Izard ratio)</i>			
maxillary deficiency (< 0,47)	2 (10%)	8 (27%)	0.28
normal (≥ 0,47)	18 (90%)	22 (73%)	
<b>Upper airway volume (CT scanner) (mm<sup>3</sup>)</b>			
	Not Done	12895 [11152 ; 15641]	
<b>Clinical dentofacial characteristics</b>			
<i>Dental Angle Class</i>			
Angle Class I	N/A	3 (10%)	
Angle Class II	N/A	14 (47%)	
Angle Class III	N/A	13 (43%)	

<i>Facial height pattern</i>			
Short face	N/A		2 (6.7%)
Normal	N/A		16 (53.3%)
Long face	N/A		12 (40%)

SNA: angle between S, N and A points. SNB : angle between S, N and B points. ANB: angle between A, N and B points. FMA : angle between the Frankfort plane and the mandibular plane. Izard ratio : ratio of the distance between the maxillary molars to the distance between the zygomatic bones. SVA: sagittal vertical axis. N/A: not available.

*Table 1: Comparison between MMD and control groups*

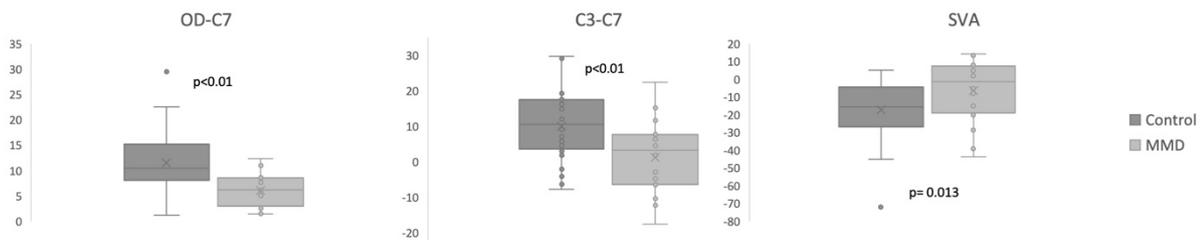


*Figure 3: PCA of control and MMD patients on all cephalometric variables.*

*Comparison of the postural variables between the two groups*

MMD patients had a significantly higher cervical spine kyphosis (higher C3-C7 angle), more forward head posture (higher OD-C7 angle) and more negative sagittal balance (more negative SVA), compared to controls. Results are presented in *Table 1* and *figure 4*. No difference between groups were found for others postural variables.

In multivariate logistic regression, C3-C7 angle ( $p=0.007$ ) and OD-C7 angle ( $p<0.001$ ), but not SVA ( $p=0.14$ ), remained pertinent to distinguish between the two groups.



SVA: sagittal vertical axis, OD-C7: angle between the vertical and a line drawn from OD (Odontoid) and the uppermost point of C7. C3-C3: cervical lordosis angle

Figure 4: comparison of the two groups according to three postural variables

#### Correlations between postural variables and between postural and cephalometric variables

The following partial (i.e. conditioned on age, sex and BMI) correlations between postural variables were observed in the control group only: T1-T12 angle with L1-S1 angle ( $r=-0.52$ ,  $p=0.03$ ) and OD-HA angle with OD-C7 angle.

Conversely, partial correlations between postural variables were observed exclusively in the MMD group: T1-T12 angle with C3-C7 ( $r=-0.46$ ,  $p=0.02$ ) and with OD-C7 ( $r=0.63$ ,  $p<0.001$ ), L1-S1 angle with pelvic tilt ( $r=-0.45$ ,  $p=0.02$ ), and pelvic tilt with sacral slope ( $r=0.39$ ,  $p=0.4$ ).

In both groups, the following cephalometric and postural variables were correlated: C3-C7 angle ( $\rho = 0.35$ ,  $p = 0.02$ ), OD-C7 angle ( $\rho = 0.3$ ,  $p = 0.04$ ) and SVA ( $\rho = -0.30$ ,  $p = 0.04$ ) were correlated with the FMA angle (figure 5). Analyses by groups revealed that C3-C7 and SVA remained significantly correlated to FMA in the MMD group only ( $\rho = 0.35$  and  $-0.48$ ,  $p = 0.04$  and  $0.02$  respectively). Although non-significant, the FMA/SVA correlation was in the opposite direction in the control group ( $\rho = 0.13$ ,  $p = 0.06$ ) (figure 5).

#### Upper airway volume in the MMD group and correlations with cephalometric and postural variables

In patients with MMD, the upper-airway volume was of 12895 [11152; 15641] mm<sup>3</sup>. Regarding cephalometric variables, SNB angle ( $r= 0.48$ ,  $p = 0.01$ ) and skeletal class III ( $r= 0.40$ ,  $p = 0.02$ ) were correlated to the upper-airway volume: an increase of SNB angle is associated with larger upper airway volumes. No other significant correlations were found between cephalometric angles and upper airway volume.

There was no significant correlation between airway volume and postural variables.

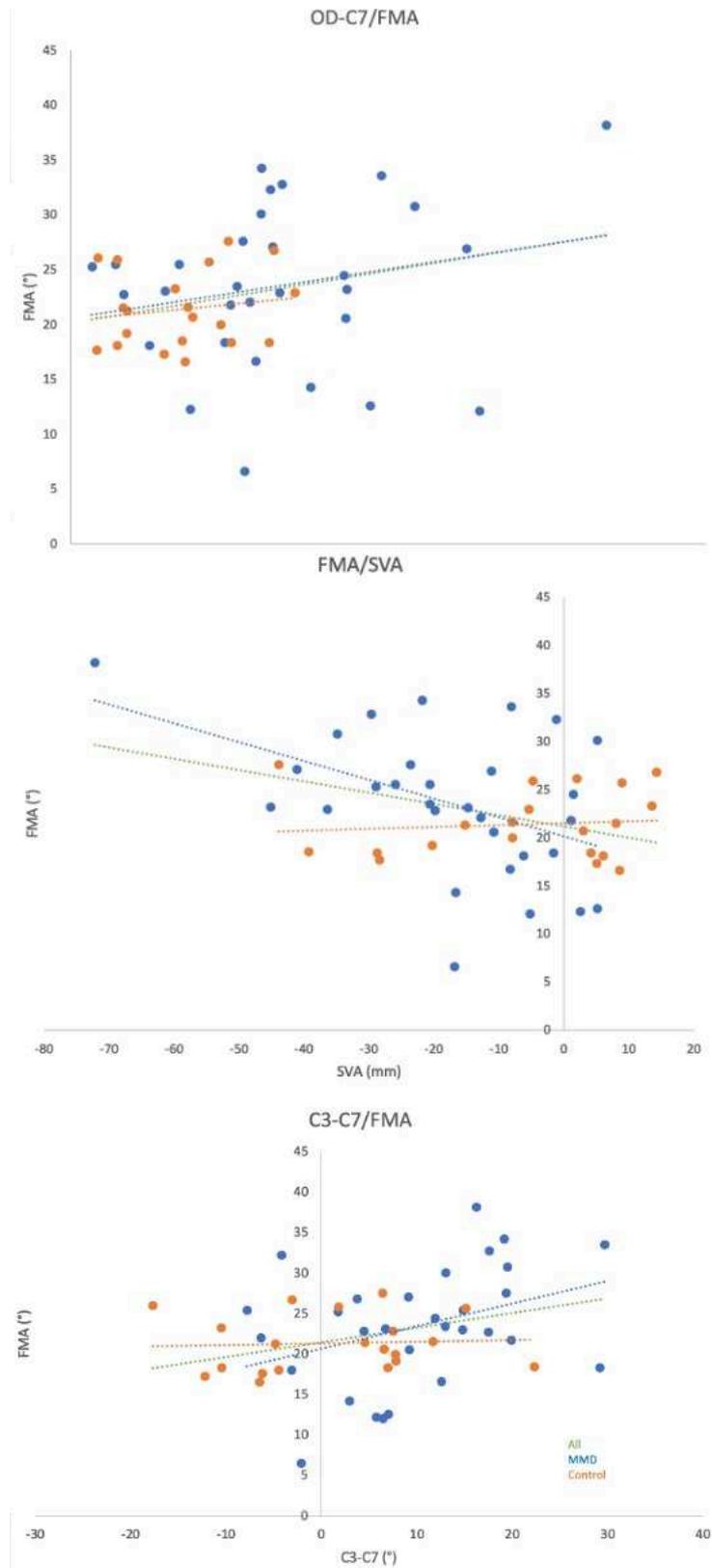


Figure 5: Non-parametric Spearman partial correlation between postural variables and FMA angle

Postural phenotypes in patients with MMD

Using K-means clustering on the postural variables, K=2 two postural phenotypes were defined. The PCA scores show that these two groups are also separated according to the first principal component. By systematically searching for differences between the two K-means groups, we found the following differences. One subgroup (MMD postural phenotype 1) had a low pelvic incidence 48.1° [44.9; 53.8], a normal lumbar lordosis - 55.4 [-73.0; -53.4] and a normal pelvic tilt 11.8 [7.32 ; 14.3] while the other subgroup(MMD postural phenotype 2) had a high pelvic incidence 69.6 [64.2; 74.2], a high lumbar lordosis -74.3 [-76.8 ; -68.6] and a pelvic retroversion 18.7 [17.4; 23.9]

The patients of the two postural phenotypes were not different regarding the cephalometric profile (not used for PCA and K-means clustering).

Results are shown in figure 6, 7 and table 2.

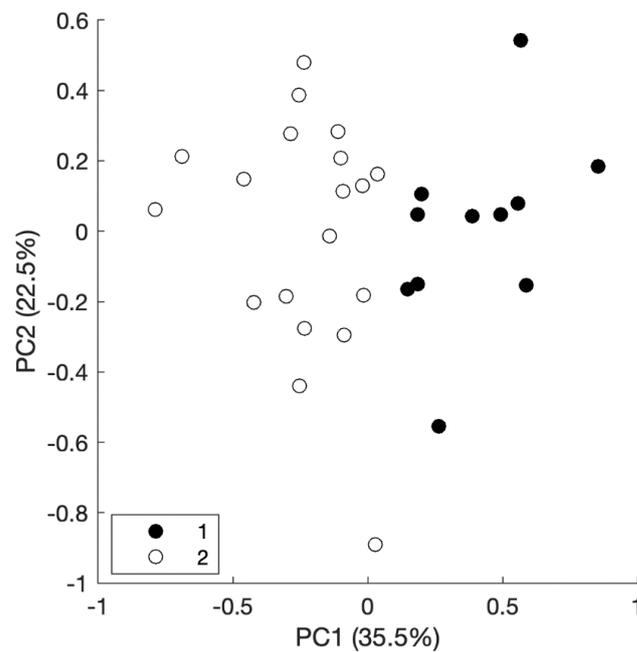


Figure 6 : K-means groups visualized with PCA

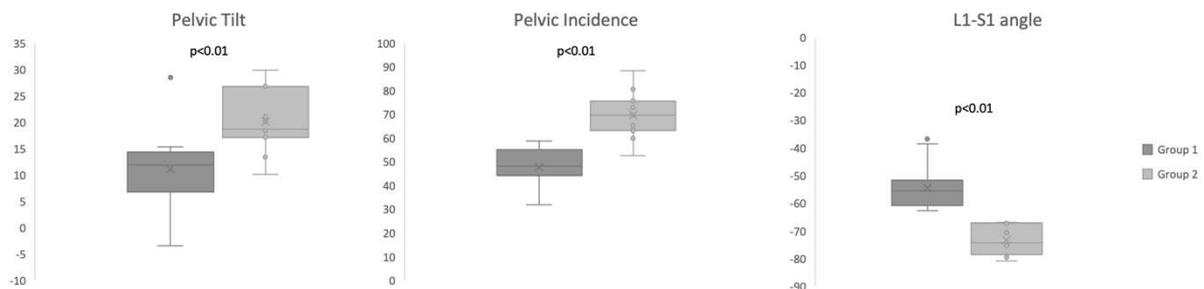


Figure 7: comparison of the postural variables between the 2 groups of MMD patients defined by K-means clustering.

MMD patients	Postural phenotype 1 (n=19)	Postural phenotype 2 (n=11)	p
<b>General characteristics</b>			
Age (year)	33 [29 ; 37]	31 [ 29,5 ; 42]	0.9
men/women (N)	10/9	2/9	0.12
Body Mass Index (kg/m2)	23 [21.9 ; 25.8]	28.6 [21.4 ; 31.8]	0.44
<b>BPXR Postural variables</b>			
<i>Spinal Curvatures</i>			
C3-C7 angle (°)	12.6 [4.1 ; 16.9]	9.2 [4.2 ; 15.3]	0.83
T1-T12 angle (°)	44.6 [38.7 ; 50]	48.1 [45.7 ; 50.3]	0.2
L1-S1 angle (°)	- 55.4 [-73.0 ; -53.4]	-74.3 [-76.8 ; -68.6]	<b>p&lt;0.001</b>
<i>Pelvic Variables</i>			
Pelvic tilt (°)	11.8 [7.3 ; 14.3]	18.7 [17.4 ; 23.9]	<b>0.001</b>
Sacral slope (°)	-37.5 [-41.6 ; -31.8]	-51.9 [-53.6 ; -44.4]	<b>p&lt;0.001</b>
Pelvic incidence (°)	48.1 [44.9 ; 53.8]	69.6 [64.2 ; 74.2]	<b>p&lt;0.001</b>
<i>Alignment</i>			
OD-HA angle (°)	2.7 [2.1 ; 3.7]	4.1 [2.8 ; 4.7]	0.19
OD-C7 angle (°)	10.2 [6.3 ; 12.3]	11.6 [9.5 ; 15.2]	0.37
SVA (mm)	-12.8 [-21.2 ; -5.7]	-20.6 [-29.3 ; -6]	0.55
<i>Scoliosis</i>			
N (%)	2 [10%]	4 [36%]	0.15
<b>BPXR Cephalometric variables</b>			
SNA angle (°)	82.2 [79.8 ; 84.7]	81.1 [78.4 ; 86]	0.73
SNB angle(°)	78.7[73.6 ; 82.3]	75.8 [75.6 ; 81.1]	0.89
ANB angle (°)	4.8 [1.1 ; 6.9]	4.4 [1.9 ; 7.9]	0.66
<i>Skeletal class</i>			
class I ( $1^{\circ} < ANB < 4^{\circ}$ )	5 (26%)	3 (27%)	0.7
class II ( $ANB > 4^{\circ}$ )	8 (52%)	7 (64%)	
Class III ( $ANB < 1^{\circ}$ )	4 (22%)	1 (9%)	
FMA angle(°)	22.9 [18.5 ; 27]	24.5 [21.9 ; 29.2]	0.66
<i>Face</i>			
short ( $FMA < 20^{\circ}$ )	6 (31%)	2 (18%)	0,78
normal ( $20^{\circ} < FMA < 30^{\circ}$ )	9 (47%)	6 (55%)	
long ( $FMA > 30^{\circ}$ )	4 (22%)	3 (27%)	
Izard ratio	0.48 [0.46 ; 0.48]	0.5 [0.475 ; 0.50]	0.49
<i>Transversal length (Izard ratio)</i>			
maxillary deficiency ( $< 0,47$ )	4 (22%)	3 (27%)	1
normal ( $> 0,47$ )	15 (78%)	8 (73%)	
<b>Clinical dentofacial characteristics</b>			
<i>Dental Angle Class</i>			
Angle Class I	3 (16%)	0 (0%)	0.2
Angle Class II	7 (37%)	7 (64%)	
Angle Class III	9 (47%)	4 (36%)	
<i>Facial height pattern</i>			
Short face	2 (11%)	0 (0%)	

Normal	8 (42%)	8 (73%)	0.28
Long face	9 (47%)	3 (27%)	

*Table 2: Comparison between the postural phenotypes MMD groups obtained with K-means clustering.*

## **DISCUSSION**

This study provides evidence of a specific postural misalignment in patients with MMD characterized by a forward head posture, an hyperkyphosis of the lower part of the cervical spine and a negative sagittal balance.

### **Postural alignment**

We found significant differences between the MMD and the control group, on cervical posture and head position. Patients with MMD presented an alteration of the cervical spine curvature characterized by an increased lordosis of its upper part and an increased kyphosis of its lower part, resulting in a forward head posture (increased OD-C7 angle).

This altered cervical posture was previously reported in patients with class III deformity prior to orthognathic surgery: (Kulczynski & al, 2017), and also in patients with Angle class II or III malocclusion compared to patients with Angle class I occlusion (Iacob et al., 2018). However, the main limitation of these studies lied in the lack of investigation of the global postural alignment, including the relationship between the spine and the pelvis

Our study is the first to show an alteration of the global posture in MMD patients, with a C7 plumbline posterior to the sacrum (lower SVA) in the MMD group compared to the control group. Normal posture requires vertical alignment of the head and the pelvis (Amabile et al., 2018). Interestingly, the head-to-pelvis vertical alignment was preserved in patients with MMD (normal OD-HA angle) despite the alteration of cervical posture. This suggests that the cervical misalignment triggers some compensatory mechanism at the thoracic level. This assumption is supported by the positive correlation between OD-C7 and the thoracic curvature (the higher the ODC7 is, the higher the thoracic kyphosis is) observed in the MMD group but not in the control group.

### **Upper airways and postural alignment**

Anatomically, the pharyngo-laryngeal apparatus is connected to the jaws and there is a close relation between facial morphology and upper airway mechanical properties. In childhood, oral breathing may impair maxillo-mandibular growth and promote MMD, especially hyperdivergent phenotype characterized by an increased FMA angle on the cephalometric analysis (D'Onofrio, 2019). Oral-breathing-induced facial deformity is characterized by a clockwise rotation of the mandible, with increased anterior lower facial height, decreased posterior facial height (Harari et al., 2010) and a narrow maxilla (Lione et al., 2014). An early orthodontic or surgical treatment is required to restore a normal growth pattern (Seo-Young Lee et al., 2015; Mattar et al., 2011).

Not all MMD patient's in our cohort are related with oral breathing during childhood. However, our results support the relation between oral breathing and the pathological adaptation of the cervical posture we showed. Indeed, we found correlations between FMA angle and C3-C7 angle on the one hand, and with OD-C7 angle on the other. More precisely, the higher FMA angle, the higher cervical

hyperlordosis and forward head projection. In addition, the anterior projection of the head and the cervical misalignment we found in MMD patients is similar to that previously reported in patients with OSAS a disease in which the upper airways are unstable (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020). Indeed, in patients with OSAS, it was reported a spinal misalignment characterized by a head forward position and a compensatory hyperkyphosis, resulting in an impaired balance and an impaired posturo-respiratory coupling (Clavel, Rémy-Neris, et al., 2020). This indirectly supports a similar upper airways-related postural adaptation in MMD.

The correlation found in our cohort between an increased upper-airway volume and a class III/high SNB angle exemplifies the consequences of a forward position of the mandible and, consequently, of the tongue and the tongue base on the upper airway. However, the normal size or shape of the upper airway and its relationship with oral breathing remain unclear (Seung Hoon Lee et al., 2007). Changing the upper-airway volume or shape with a surgery can affect its mechanical properties, namely stability. However, these measurements are merely easily available variables that indirectly connect with the stability changes, which may not reflect the intrinsic stability of the upper airway without any change, especially in unoperated patients. This could explain why failed to find any correlation between upper-airway volume and breathing function in our patients. To put it differently, a small mandible is associated with small upper airways, but not necessarily with instable, collapsible upper airways.

#### Postural phenotypes in patients with MMD

Two postural phenotypes were observed in patients with MMD, which differed only with respect to pelvic variables and lumbar lordosis, but surprisingly not with respect to cervical alignment. In particular, we observed a large difference between phenotypes in terms of pelvic incidence, which is known to increase during growth and eventually stabilize in adults. This constant morphologic angle then determines the spinal curvatures and the shape of the back. Consequently, the postural adaptation in patients with MMD might be due not only to upper airways mechanical alterations, but also to altered growth mechanisms. For instance, our cohort of MMD patients included a high rate of patients with scoliosis (20%), which is also related to an alteration of the growth mechanism (de Sèze & Cugy, 2012; Horne et al., 2014). This assumption is however putative and remains to be investigated.

#### Limitations

We selected a control group with normal facial balance and free of any MMD-related symptoms. However, there is no consensus on the definition of a normal facial balance. Even if normal values have been established for each angle separately, there are no clear guidelines regarding relevant set of angles that would define normal facial balance. We are confident that we used a conservative approach to select our control group.

In our study, we considered MMD as a global entity. However, MMD regroups a large spectrum of symptoms and malposition of the maxilla and/or of the mandible in the three dimensions (sagittal, transversal and vertical). Our cohort was too small to conduct subgroup analyses for each type of MMD.

#### **CONCLUSION**

Patients with MMD present an altered spinal alignment characterized by a forward head posture and a negative sagittal balance, compensated by an increased thoracic kyphosis. This spinal misalignment

seems to be an adaptative mechanism secondary to oral breathing, but may also be related to altered growth.

## Caractérisation des troubles ventilatoires nocturnes et de leur influence sur la synchronisation posturo-ventilatoire chez les patients dysmorphiques avant et après chirurgie correctrice

**Résumé :** Les dysmorphies maxillo-mandibulaire (DMM) sont définies par une position anormale de la mandibule et /ou du maxillaire. Ce travail de thèse aborde deux comorbidités potentielles de la DMM, la dysfonction posturale et le syndrome d'apnées obstructives du sommeil (SAOS), qui semblent partager une origine physiopathologique commune, l'altération des propriétés mécaniques des voies aériennes supérieures.

Certaines données de la littérature internationale soutiennent l'existence d'une dysfonction posturale chez les patients adultes avec une DMM. La plupart des articles disponibles se sont intéressés à la posture de la tête et du rachis cervical : une altération de la posture cervicale avec une projection antérieure de la tête responsable d'une hyperextension cervicale haute, s'aggravant au cours du temps ont été mis en évidence. Quelques études ont exploré les conséquences de la posture cervicale sur l'équilibre mais leurs résultats sont contradictoires. Sur le plan physiopathologique un lien entre hyperextension cervicale et ventilation orale a été suggéré dans la DMM. Cependant, ce lien n'a pour le moment pas été démontré.

Les patients avec un SAOS et les patients avec une DMM partagent certaines caractéristiques anatomiques au niveau des voies aériennes supérieures (VAS), qui peuvent conduire à proposer dans ces deux pathologies, un traitement par chirurgie orthognathique d'avancée maxillo-mandibulaire. Ces anomalies morphologiques des VAS sont responsables d'anomalies fonctionnelles susceptibles d'entraîner des adaptations ventilatoires diurnes comme une ventilation orale. Il existe également des adaptations posturales similaires dans ces deux populations (position de la tête et du cou), qui semblent être compensatrices d'anomalies ventilatoires (ventilation orale). Devant les similitudes entre ces deux pathologies, la prévalence de SAOS chez les patients dysmorphiques est théoriquement élevée. Cependant, celle-ci n'est pas réellement connue, en pré opératoire et plus généralement dans la population générale des patients dysmorphiques. En pratique, un dépistage du SAOS n'est pas proposé systématiquement en préopératoire pour des raisons de délais et d'accès à l'examen polysomnographique et il n'existe pas de recommandation permettant de cibler les patients les plus à risque de SAOS sévère.

Les hypothèses de ce travail de thèse s'appuient sur ces constatations et sur l'existence en physiologie d'un couplage entre la posture et la ventilation. Le premier objectif de ce travail de thèse était de les décrire. Dans ce contexte, une revue de littérature a été réalisée. Elle a été suivie d'une phase expérimentale comportant une analyse posturale par imagerie tridimensionnelle du squelette, une analyse de l'équilibre et une évaluation du couplage posturo-ventilatoire chez des patients qui ont été explorés avant la chirurgie orthognathique et dans les mois qui ont suivi celle-ci. Le second objectif de ce travail était d'évaluer la prévalence du SAOS dans la population des patients présentant une DMM et ayant reçu une indication opératoire. Cent patients ont bénéficié d'une polysomnographie préopératoire et une partie de ces patients a été à nouveau enregistrée en post-opératoire. Ces données ont permis d'analyser la qualité du sommeil et d'établir une prévalence de SAOS dans la population concernée, d'identifier des profils de patients à risque de SAOS chez lesquels un dépistage serait indispensable en préopératoire et d'évaluer les effets de la chirurgie sur la ventilation nocturne et le sommeil.

**Mots clés :** Dysmorphie, Syndrome d'apnée du sommeil, Posture, Chirurgie Orthognathique, Couplage posturo-ventilatoire

**Abstract:** Maxillo-mandibular deformities (MMD) are defined by an abnormal position of the mandible and/or maxilla. This thesis addresses two potential comorbidities of MMDs; postural dysfunction and obstructive sleep apnea syndrome (OSAS), which appear to share a common pathophysiological origin: altered mechanical properties of the upper airways.

International literature support the existence of postural dysfunction in adult patients with MMDs. Most of the available articles have focused on head and cervical spine posture, with evidence of altered cervical posture and anterior head projection responsible of a cervical hyperextension, worsening over time. A number of studies have investigated the impact of cervical posture on balance, but the results are contradictory. Pathophysiologically, a connection between cervical hyperextension and oral ventilation has been suggested in MMDs. However, this interaction has not yet been demonstrated.

Patients with OSAS and patients with MMD share anatomical abnormalities of the upper airway, which lead to the proposal of orthognathic maxillo-mandibular advancement surgery for both conditions. These morphological anomalies of the upper airways are responsible for functional abnormalities that can lead to diurnal ventilatory adaptations, such as oral ventilation. There are also similar postural adaptations in these two populations (head and neck position), which appear to compensate for ventilatory anomalies (oral ventilation). Given the similarities between these two pathologies, the prevalence of OSAS in MMD patients is theoretically high. However, this is not really known, either preoperatively or more generally in the general population of MMDs patients. In practice, screening for OSAS is not systematically offered preoperatively, for reasons of time and access to polysomnographic examination, and there are no recommendations for targeting patients most at risk of severe OSAS.

The hypotheses of this work are based on these findings and on the existence in physiology of a coupling between posture and ventilation. The first objective of this thesis is to describe them. In this context, a literature review has been carried out. This was then followed by an experimental phase involving postural analysis using three-dimensional skeletal imaging, balance analysis and assessment of posturo-ventilatory coupling in patients who were explored before and in the months following orthognathic surgery. The second objective of this study is to evaluate the prevalence of OSAS in the population of patients with MMD who had received an indication for surgery. One hundred patients underwent preoperative polysomnography, and a proportion were recorded again postoperatively. These data enabled us to analyze sleep quality and establish the prevalence of OSAS in the population concerned, to identify patient profiles at risk of OSAS in whom preoperative screening would be essential, and to assess the effects of surgery on nocturnal ventilation and sleep.

**Keywords :** Maxillo-mandibular deformities, Obstructive Sleep Apnea, Posture, Orthognathic Surgery, Posturo-ventilatory coupling