

学位論文内容の要旨

愛知学院大学

論文提出者

秋山友樹

論文題目

第一第二鰓弓症候群の下顎骨分類に関する研究

I. 諸言

第一第二鰓弓症候群は胎生4～5週に第一第二鰓弓に生じた障害により顎顔面の形態異常を生じる稀な先天異常症候群で、1965年にGrabbが初めて第一第二鰓弓症候群と命名した。本症候群の発生頻度はおよそ5,000人に1人で、男女比は3：2と報告されている。本症候群では上顎骨、下顎骨、頬骨の低形成、耳介変形、横顔裂、顔面筋の低形成などが認められる。本症候群は片側性の症例が多く、下顎枝や関節突起の形成不全により顔面の非対称が著明となるため、機能面だけでなく審美的な面からも顎骨変形に対する治療が必要となる。治療を行うにあたっては診断や評価が必須となるが、これまで本症の下顎骨変形の評価に広く用いられてきたPruzansky分類やMurray分類は定性的なもので、評価者によって差が生じるという問題があった。そこで第一第二鰓弓症候群の下顎骨の診断を行うにあたり客観的な分類が必要であると考えた。

本研究では第一第二鰓弓症候群の下顎骨の変形を客観的に評価するために、Computed Tomography(以下CTとする)を用いた下顎骨、特に下顎枝の新たな計測方法を考案した。そのうえで第一第二鰓弓症候群患者と健常者の下顎骨を計測し、得られたデータをもとに下顎枝の形態を計測した。

II. 方法および対象

1) 3次元画像の作成

CTデータは愛知学院大学歯学部附属病院放射線・画像診断科で撮影され

た CT 画像から DICOM データを取得し、3D ビューワーAquarius Net (TeraRecon、San Francisco, USA) を用いて、軟組織を除外するため 200HU を閾値とし、また骨を抽出するため 2000HU を閾値に設定して 3 次元再構成を行った。

2) 計測方法

①距離計測

下顎孔を起点とし下顎頭までの距離(a)、筋突起までの距離(b)、下顎角までの距離(c)、オトガイ孔までの距離(d)、さらにオトガイ孔からオトガイ最突出部 (以下①とする) までの距離(e)を計測した。

②体積計測

オトガイの最下点を②、下顎角最突出部を③とした。その基準点をもとに下顎枝の外斜線、内斜線の起始を通過し直線：②-③に直角に交わる平面を作成し、その平面にて分割された後方を下顎枝全体 T と定義した。また下顎切痕を通過し、下顎切痕と下顎孔を通過する直線に垂直に交わる平面にて下顎枝を上下に分割し、下顎頭 H(head of mandible)、筋突起 C (coronoid process) とした。さらに下顎孔を通過し、②-③に平行な平面にて上下に分割し、上方を R (ramus of mandible)、下方を A (angle of mandible) とし、各パラメーターについて体積計測を行った。

3) 計測の精度検討

本研究における評価者間の距離計測、体積計測の誤差をなくすため、同一術者によって同一症例の各項目を日を変えて2回計測し、下記に示すDahlbergの公式を用いて計測誤差を求めた。

$$\text{Standard Error} = (\Sigma d^2 / 2n)^{1/2} \quad (d: 2回の計測値の差, n: 計測数)$$

4) 計測対象

1990年から2021年までの31年間に愛知学院大学歯学部附属病院口唇口蓋裂センターを受診し、臨床研究先でパノラマX線写真より片側性第一第二鰓弓症候群と診断された患者のうちCTデータが保管されている7名(男性4名、女性3名、年齢10歳~33歳、平均年齢 18.1 ± 6.9 歳)を対象(以下対象群とする)とした。パノラマX線所見にて7名のうち右側下顎骨低形成症例が1名、左側下顎骨低形成症例が6名であった。対照として、当センターで下顎前突症の診断のもと下顎枝矢状分割術で下顎骨の後方移動を施行した患者のうち、モデルサージュリーによる下顎の後方移動量の左右差が5mm以内であった7名(男性4名、女性3名、年齢17歳~29歳、平均年齢 22.5 ± 3.6 歳)の患者(以下コントロール群)の手術前のCTデータを用いた。Welchの検定にて両群の平均年齢に有意差はなかった。

5) 評価方法

今回対象とした症例は年齢、性別、罹患側にばらつきがあったため、評価を行うにあたり実測値ではなく百分率を用い、各部位の低形成の度合いを評価した。対象群では低形成を生じている方を患側とし、患側/健側×100(%)の値を用いて評価をおこなった。コントロール群では左側と右側の値を計測し左側/右側×100(%)の値を用いた。また、両群の計測値の有意差はマンホイットニーの U 検定を用い、 $p < 0.05$ を有意とした。

III. 結果

1) 精度

本方法を用いた際の計測誤差は、距離は a:0.23mm、b:0.23mm、c:0.23mm、d:0.31mm、e:0.3mm、体積は H:0.02 cm³、C:0.01 cm³、R:0.18 cm³、A:0.19 cm³、T:0.02 cm³であり、計測に用いることに問題はないと考えられた。

2) 計測

①距離

両群を比較したところ a、b、c、d、e の全てにおいて有意水準 5 % にて低形成を認めた。

②体積

両群の計測結果を比較したところ下顎枝全体 T、H(head of mandible)、

R (ramus of mandible)、A (angle of mandible) に有意水準 5 %にて低形成を認めた。筋突起 C (coronoid process) は対象群に過形成を認めた症例もあり有意差を認めなかった。

IV. 考察

本症の多くでみられる片側性症例では下顎枝の形成不全により顔面の非対称が著明となるため外科的治療を行う機会が多い。治療として、一般的に顎骨の変形が軽度な Pruzansky Grade I は顎矯正手術が適応とされ、顎骨の成長が完了した 15 歳以降に施行される。骨延長術は Pruzansky Grade II に対して行われ、主に学童期に下顎枝の延長が施行される。骨及び軟骨移植術は下顎枝の欠損が著しい Pruzansky Grade III に対して行われる。手術時期に関しては様々な意見があり、早期に手術を行うべきであるという意見がある一方、成長終了期まで待つべきであるという意見もある。本症候群の治療方法や時期について統一した見解はないが、治療に際しては顎骨の変形状態を正確に評価し、各症例ごとに効果的な治療計画を立案する事が必要となる。これまでの本症候群の評価には下顎頭の形成不全を定性的に分類する Pruzansky 分類、Murray 分類が広く用いられてきた。しかし、これらの分類は主観的なものであり評価者間で結果に差が生じるという問題があった。近年 CT を用いた骨の 3 次元計測が可能となっており、本研究では CT データを用いて下顎骨の各部位の距離や体積を数値化することで下顎骨の変形の重症度を客観的に評価できる新たな計測方法を考案した。

今回考案した方法を用いて対象群、コントロール群の距離計測を行ったところ、両群間で下顎孔～下顎頭、下顎孔～筋突起、下顎孔～下顎角、下顎孔～オトガイ孔、オトガイ孔～オトガイ最突出部の全項目で有意な差をもって低形成が認められ、これまでの分類では評価できていなかった変形がある事が示された。また両群の体積を計測した結果、下顎枝、下顎頭で有意な低形成を認め、筋突起は7症例中3症例で過形成が認められ、有意な差はなかった。下顎骨の各部位の値にて両群間で違いが生じた原因として下顎骨の発生に要因があると考えられる。第一鰓弓から発生したメッケル軟骨はオトガイ孔付近で初期発生が前後に生じ、左右で発生した骨が前方端にて癒合し、その後下顎頭と筋突起を形成する。これにより第一鰓弓に劣成長を及ぼす本症では、下顎枝及びオトガイ孔を中心とした部位にも低形成が認められたのではないかと考えられた。また筋突起に関しては本来下顎骨の成長過程において下顎頭が筋突起と並行して成長し均衡が保たれるが、下顎頭が欠損することにより筋突起の成長だけが生じ筋突起の過成長が生じるという報告があり、第一第二鰓弓症候群においては下顎頭の低形成や欠損が生じたことにより筋突起の過成長が生じた可能性が考えられた。このことから本症の評価方法では下顎骨の各部位の変形を明らかにする必要がある事が判明し、また本方法を用いる事で下顎骨の形成不全の様相を明らかにする事が可能であると判断した。

本研究では片側性第一第二鰓弓症候群患者を対象としたが、今回検討した症例は7例と少なく年齢も幅広いものであった。第一第二鰓弓症候群は稀な疾患であり単一の施設で多くの症例を分析することは困難であるため、今後は多施設共同で症例を蓄積して検討する必要があると考えられた。その際に今回考案した計測方法を使用することにより、新たな分類の基礎資料が得られると期待される。

V. 結論

1. 片側性第一第二鰓弓症候群の下顎骨の変形について客観的な分類方法を考案することを目的に、CT データを用いた下顎骨の新たな計測方法を考案した。
2. 本方法を用いた計測の結果、距離、体積の両面で下顎骨の変形を客観的に評価することが可能となり、片側性第一第二鰓弓症候群の下顎骨の新たな分類を考案するうえで有用な計測方法になりうると考えられた。
3. 今回考案した方法は片側性第一第二鰓弓症候群以外の下顎に変形を有する疾患に対しても応用可能と考えられた。