

厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業(難治性疾患政策研究事業)
 分担研究報告書

脊柱靱帯骨化症に関する調査研究
 (進行性骨化性線維異形成症例における開口障害に関する研究)

研究分担者 中島 康晴 九州大学整形外科 教授

研究要旨 進行性骨化性線維異形成症 (FOP) における開口障害の発生は生命予後を左右する重要な症状である。自験例 5 例の経過について検討した。発症年齢は 15 歳～34 歳、平均年齢 19.5 歳である。いずれも明らかな誘因なく、開口障害を発症した。発症時の上下歯間距離は 3～15mm 程度であり、大きめの固形物の摂取障害を認めた。全例経過中に症状は軽減したものの、平均 20mm 程度の障害が遺残した。1 例は 3 年の経過で 7-8mm 程度の回復である。

A . 研究目的

進行性骨化性線維異形成症 (FOP) における開口障害の発生は生命予後を左右する重要な症状である。本研究の目的は開口障害を発症した自験例 5 例の経過を検討することである。

B . 研究方法

開口障害を発症した例において、その発症年齢、誘因、口腔～顎関節周囲の臨床所見、画像所見について検討した。
 (倫理面への配慮も記入)
 すべての個人情報には匿名化した。

C . 研究結果

男性 2 例、女性 3 例であり、それぞれの開口障害発症年齢は 15 歳～34 歳であり、平均 19.5 歳であった。いずれも外傷など明らかな誘因なく、「突然、口の開きが悪くなった」との症状である。最大に開口した場合の上下歯間距離は 3～15mm であり、大きめの固形物の摂取に障害を認めた。顎関節周囲には軽度の疼痛はあるものの、表面か

ら確認できる腫脹や骨化は明らかではなかった。CT でも骨化は明らかではなかった。全例経過中に症状は軽減したものの、平均 20mm 程度の障害が遺残した。1 例(15 歳 女児)は 3 年の経過で 7-8mm 程度のみでの回復である。

D . 考察、E . 結論

FOP における開口障害は、顎関節やその周囲の変形、咀嚼筋の異所性骨化の結果発生すると考えられており、重症例では摂食障害や齲歯の原因となり、生命予後を左右する重要な症状である。全例で症状の軽減はみられたものの、1 例は 3 年の経過でわずかに改善したのみであり、今後の慎重な経過観察を要する。

F . 健康危険情報
 特記事項なし

G . 研究発表

1. 論文発表
なし
2. 学会発表
なし

H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む)

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他