

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業）
分担研究報告書

「上顎・下顎の異常を主徴とする奇形症候群に関する研究」

研究分担者 森山 啓司
東京医科歯科大学 大学院医歯学総合研究科 教授

研究要旨

鎖骨頭蓋異形成症 (cleidocranial dysplasia; CCD) は、CBFA1遺伝子を原因遺伝子とする常染色体優性遺伝疾患であり、鎖骨形成不全、頭蓋骨縫合骨化遅延等を特徴とする。口腔内の問題として、埋伏過剰歯や萌出遅延永久歯といった埋伏歯の存在が挙げられる。今までに、CCD患者の埋伏歯に対する、三次元画像を用いた詳細な評価を行なった報告はない。今回、我々は歯科用コーンビーム CT (CBCT) データから得られた三次元画像を用いて、埋伏歯の形態および位置に関して検討を行った結果、CCD患者における埋伏歯の形態および位置に関する特徴的な情報を得ることができた。

辻 美千子 東京医科歯科大学顎顔面矯正学分野・助教

A. 研究目的

鎖骨頭蓋異形成症 (cleidocranial dysplasia; CCD) は、CBFA1遺伝子を原因遺伝子とする常染色体優性遺伝疾患であり、鎖骨形成不全、頭蓋骨縫合骨化遅延等を特徴とする。口腔内の問題として、埋伏過剰歯や萌出遅延永久歯といった埋伏歯の存在が挙げられる。今までに、CCD患者の埋伏歯に対する、三次元画像を用いた詳細な評価を行なった報告はない。今回、我々は歯科用コーンビーム CT (CBCT) データから得られた三次元画像を用いて、埋伏歯の形態および位置に関して検討を行ない、新たな知見を得たので報告する。

B. 研究方法

乳歯や埋伏歯の抜歯などの永久歯の萌出誘導を行っていない CCD 患者 5 名 (男性 3 名、女性 2 名) の CBCT データ (撮影時年齢 15 歳 0 カ月～25 歳 5 カ月) から歯の三次元画像を作成した。画像をもとに、埋伏歯が複数存在する部位に関しては、歯根長が長い方をその部位の萌出遅延永久歯とし、さらに最も近接する埋伏歯をその歯種の埋伏過剰歯と定義した。その上で、埋伏歯の咬頭数、歯根数の観察、および歯冠近遠心径、歯冠頬舌径、歯冠長、歯根長の計測を行なった。また、咬合平面を設定し座標を決定した上で、埋伏過剰歯とその歯が最も近接する永久歯 (近接永久歯) との位置関係を評価した。2 群間において Wilcoxon の符号順位検定

(有意水準 $p < 0.05$) を用いて統計学的に比較検討した。

(倫理面への配慮)

本研究は東京医科歯科大学歯学部倫理委員会の承認を得て行われた(承認番号 D2014-002 号)。

C. 研究結果

埋伏過剰歯は近接永久歯に比較して、歯冠近遠心径、歯冠頬舌径、歯冠長、歯根長が統計学的に有意に小さい値となった。また、埋伏過剰歯において、前歯部では切縁、犬歯部では尖頭、小臼歯部では2咬頭の歯冠形態が観察された。さらに、埋伏過剰歯は近接永久歯に対して、水平的には舌側 (87.9%)、遠心 (69.7%)、垂直的には歯冠側 (60.6%) に位置するものが多かった。

D. 考察

埋伏過剰歯の歯冠形態に関して、前歯部では切縁、犬歯部では尖頭、小臼歯部では2咬頭の歯冠形態が観察され、存在部位との関連が示唆された。

E. 結論

CBCT による三次元情報から、パノラマ X 線画像による二次元情報では不明であった、CCD 患者における埋伏歯の形態および位置に関する情報を得ることが可能となった。

に関する検討第 78 回日本矯正歯科学会学術大会. 2019.11.20-22. 長崎

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Matsuno S., Tsuji M., Hikita R., Matsumoto T., Baba Y. and Moriyama K. Clinical study of dentocraniofacial characteristics in patients with Williams syndrome. *Congenit Anom (Kyoto)*.59(5):162-168.2019
- 2) Ogawa T., Cheng E. S., Muramoto K. and Moriyama K. Long-Term Management and Maxillofacial Growth in a Klippel-Trenaunay Syndrome Patient. *Cleft Palate Craniofac J*.57(6):782-790.2020
- 3) Tsuji M., Suzuki H., Suzuki S. and Moriyama K. Three-dimensional evaluation of morphology and position of impacted supernumerary teeth in cases of cleidocranial dysplasia. *Congenit Anom (Kyoto)*.2019

2. 学会発表

- 1) Minswe NM, Kobayashi Y, Kamimoto H, Moriyama K. Aberrant activation of Wnt/ β -catenin signaling in the coronal sutures of an Apert syndrome mouse model. 第 78 回日本矯正歯科学会学術大会. 2019.11.20-22. 長崎
- 2) 横内里帆、小倉健司、庄司あゆみ、中島すみか、辻美千子、松本力、森山啓司. トリーチャー・コリンズ症候群患者の頭蓋顎顔面形態と上気道形態に関する検討. 第 78 回日本矯正歯科学会学術大会. 2019.11.20-22. 長崎
- 3) 井上貴裕,庄司あゆみ,小倉健司,狩野桜子,佐川夕季,小林起穂,辻美千子,松本力,森山啓司. トリーチャー・コリンズ症候群患者の下顎骨における antegonial notch の形態

- 4) 平林恭子、辻美千子、森山啓司. 軟骨・毛髪低形成症と診断された 1 症例の顎顔面領域の臨床的特徴について. 第 78 回日本矯正歯科学会学術大会. 2019.11.20-22. 長崎
- 5) 辻美千子. 遺伝とつながる矯正歯科治療ささえるケア. 日本遺伝看護学会第 18 回学術大会. 2019.09.28-29. 東京
- 6) Tsuji M, Shoji A, Hirabayashi K, Kobayashi Y, Moriyama K. Analysis of dentocraniofacial morphology in patients with achondroplasia. 第 59 回日本先天異常学会・The 13th World Congress of International Cleft Lip and Palate oundation CLEFT 2019 ICPF 合同学術集会, 2019.07.26-29 愛知

G. 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
なし