

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）  
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顎顔面矯正学分野・教授

**研究要旨**

Turner 症候群 (TS) 患者は、*SHOX* 遺伝子の欠失または突然変異により高口蓋を呈することが知られている。TS 患者の口蓋形態に関する過去の報告では、高口蓋は 18～100% の割合で認めるとされているが、計測点、計測方法の再現性が乏しい場合が多く、口蓋形態の三次元的な解析を行った報告は未だ存在しない。今回我々は、東京医科歯科大学病院矯正歯科外来に来院した TS 患者 19 名（平均年齢 7.8 歳）の上顎歯列模型の三次元データを取得し、口蓋形態、歯列弓形態を解析したので報告する。三次元形態計測の結果、日本人標準値と比較して、口蓋幅、口蓋断面積は有意に小さいものの、口蓋の高さでは有意差を認めなかった。以上より、TS 患者の口蓋形態は高口蓋ではなく狭口蓋であることが示唆され、TS 患者における臨床的診断及び歯科矯正学的治療法を選択する上で重要であると考えられた。

研究協力者

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**

Turner 症候群 (TS) は、2 本の X 染色体のうち、1 本の完全欠失あるいは、一部欠失または構造異型を認める女性の先天性疾患であり、低身長、性腺機能不全及び外反肘や翼状頸といった身体的特徴を有することが知られているが、口腔内の特徴について詳述した臨床研究は未だ少ない。今回我々は日本人 TS 患者の口蓋形態に関して検討を行ったので報告する。

**B. 研究方法**

東京医科歯科大学病院矯正歯科外来に来院した TS 患者 19 名（平均年齢 7.8 歳）の上顎歯列模型の三次元データを取得し、口蓋形態、歯列弓形態を解析した。左右中切歯および左右第一大臼歯の口蓋側歯頸最深点の 4 点を含む平面を水平基準面とし、水平基準面と垂直に交わる第一大臼歯口蓋側歯頸最深点の前頭断面を計測断面とした。計測断面上において 1) 口蓋の幅、2) 深さ、3) 断面積、4) 口蓋角度を計測した。また、左右第一大臼歯最遠心端を含み水平基準面に垂直な面、水平基準面および口蓋表面によって規定される 5) 口蓋容積、6) 口蓋表面積

を計測した。さらに、口蓋表面の定性的評価として口蓋表面の全症例の重ね合わせを行った。さらに定量的評価として、前頭断面矢状断面をそれぞれ 5 分割、6 分割し最長距離に対する各垂線の長さの比率を算出した。口蓋表面の定性的、定量的評価については狭口蓋を有する一般女兒と比較し、日本人標準値の存在するデータは standard score を、その他のデータに関しては実測値を求め、Wilcoxon の順位和検定を用いて統計学的に評価した。

(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**

三次元形態計測の結果、日本人標準値と比較して、口蓋幅、口蓋断面積は有意に小さいものの、口蓋の高さでは有意差を認めなかった。さらに、口蓋表面の定性的、定量的評価から TS 群において、前頭断面は、コントロール群と比較して正中口蓋縫線に向かって傾きが急であること、矢状断面は、コントロール群と比較して切歯乳頭からの傾きが急であることがわかった。

## D. 考察

TS患者の口蓋形態は高口蓋ではなく狭口蓋であることが示唆され、狭口蓋の要因として、口蓋の横方向の成長障害、口腔周囲筋の不均衡が考えられ、また高口蓋に見える理由として、狭口蓋を有すること、さらに狭口蓋を有する一般女兒と比較し口蓋の高さが高いこと、外側口蓋隆起が発達していることが考えられた。

## E. 結論

TS患者の口蓋形態は高口蓋ではなく狭口蓋であることが示唆され、TS患者における臨床的診断及び歯科矯正学的治療法を選択する上で重要であると考えられた。

## F. 研究発表

### 1. 論文発表

1. Sagawa Y, Ogawa T, Matsuyama Y, Nakagawa Kang J, Yoshizawa Araki M, Unnai Yasuda Y, Tumurkhuu T, Ganburged G, Bazar A, Tanaka T, Fujiwara T, Moriyama K. Association between Smoking during Pregnancy and Short Root Anomaly in Offspring. Int J Environ Res Public Health. 2021;18(21).
2. Takada K, Chiba T, Miyazaki T, Yagasaki L, Nakamichi R, Iwata T, Moriyama K, Harada H, Asahara H. Single Cell RNA Sequencing Reveals Critical Functions of Mxk in Periodontal Ligament Homeostasis. Front Cell Dev Biol. 2022;10:795441.
3. Thiha P, Higashihori N, Kano S, Moriyama K. Histone methyltransferase SET domain bifurcated 1 negatively regulates parathyroid hormone/parathyroid hormone-related peptide receptor to control chondrocyte proliferation in Meckel's cartilage. Arch Oral Biol. 2021;131:105251.

### 2. 学会発表

1. 横内里帆, 小川卓也, 森山啓司, 当科を受診した Ullrich 型先天性筋ジストロフィーの顎顔面形態の特徴について, 第 45 回日本口蓋裂学会総会・学術集会, オンライン, 2021.05.20-21, 国内
2. Y. Inagaki, T. Ogawa, T. Kawamoto, K. Moriyama, T. Tanaka, OPN3 mutations underlie non-syndromic oligodontia in Japanese, EOS 2021 Annual Virtual Conference, Web, 2021.07.02-03, 国際
3. 大河原愛奈, 辻美千子, 門田千穂, 小笠原毅, 森山啓司, Turner 症候群の口蓋形態の三次元的解析-Turner 症候群の口蓋形態は高口蓋ではなく狭口蓋である-, 第 61 回日本先天異常学会学術集会, オンライン, 2021.08.07-08, 国内

4. 森山啓司, 顎顔面領域の形態形成や機能発育の障害改善に向けた矯正歯科の取り組み, 第 24 回日本歯科医学会学術大会, オンライン, 2021.09.23-25, 国内
5. KM. Soe, T. Ogawa, K. Moriyama, BCOR mediated regulation of ZFPM2 via BCL6 involved in hyperactive root formation of OFCD syndrome, 第 69 回国際歯科研究学会日本部会 (JADR) 学術大会, 福岡(オンライン), 2021.10.24-25, 国内
6. 森山啓司, 口腔顎顔面の形態形成・成長発育異常の診断・治療から考える歯科矯正学の現在と未来—ヘルスサイエンスの起点としての歯科矯正学, 第 80 回日本矯正歯科学会学術大会 & 第 5 回国際会議, 神奈川(オンライン), 2021.11.03-05, 国内
7. 大森雄一郎, 上園将慶, 大岩真由, 高際友里, 舩橋健太, 吉澤英之, 辻美千子, 森山啓司, 成長期の BWS 患者に対する治療介入が顎顔面形態に及ぼす影響, 第 80 回日本矯正歯科学会学術大会 & 第 5 回国際会議, 神奈川(オンライン), 2021.11.03-05, 国内
8. K. Moriyama, 3D Evaluation of the Tongue and Oral Cavity before and after Orthognathic Surgery for Mandibular Prognathism, 28th Australian Orthodontic Virtual Congress, Web, 2022.03.11-12, 国際

## 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