先端巨大症に伴う骨格性下顎前突症に対して 舌縮小術を併用した外科的矯正治療例

岩田直晃¹⁾ 野嶋邦彦²⁾ 西井康²⁾
村松恭太郎³⁾ 高野伸夫³⁾ 末石研二²⁾

A Case Report of Skeletal Mandibular Prognathism Associated with Acromegaly Treated by Orthognathic Surgery with a Glossectomy

NAOKI IWATA¹⁾, KUNIHICO NOJIMA²⁾, YASUSHI NISHII²⁾,
KYOTARO MURAMATSU³⁾, NOBUO TAKANO³⁾ and KENJI SUEISHI²⁾

Abstract

The patient was a 52 years, 11 month old male, who came to our hospital with a chief complaint of an occlusion anomaly on the left side. There was previous medical history of excess secretion of growth hormone due to a pituitary gland tumor that caused acromegaly. The patient was in follow up after a lumpectomy. Molar relationships were Angle Class III. Overjet was -4.0mm and an overbite was -2.0mm. Dental arches were spaced in association with macroglossia. Lateral cephalometric analysis showed skeletal mandibular protrusion and an open bite of the left side. Based on these findings the patient was diagnosed as having a skeletal mandibular protrusion with a left sided open bite

associated with acromegaly. Glossectomy, Le Fort I osteotomy and sagittal split ramus osteotomy (SSRO) were planned. Le Fort I osteotomy and SSRO were performed after the lower molar width was reduced with a semi-fixed constriction appliance. Postoperative orthodontic treatment and myofunctional therapy were performed for detailing. The treatment period was 2 years and 2 months. The results showed that the spaces caused by macroglossia were closed efficiently. Maxillary and mandibular dental arch widths were coordinated well and a good occlusion with molar relation of Angle Class I was acquired.

Key words: Acromegaly (先端巨大症), Orthognathic surgery (外科的矯正治療), Glossectomy (舌縮小術)

[Received Aug. 26, 2011]

緒 言

先端巨大症 (acromegaly) は 1886 年 Pierre Marie により初めて一つの疾患単位として報告された。下垂体からの成長ホルモン (growth hormone, 以下 GH) の産生、分泌が亢進して起こる内分泌疾患の一症状であり、その原因疾患としては下垂体前葉の GH 産生腺腫が最も多いとされている¹⁾。本腫瘍により GH が過剰に分泌されると、支持組織、筋組織、内臓諸器官などの異常発育を示す。骨端閉鎖以降の成人に発症した場合は、主な症候として手足の容

積の増大、先端巨大症様顔貌 (眉弓部の膨隆、鼻・口唇の肥大、下顎の突出など)、巨大舌とそれに伴い歯列不正や歯間離開などがみられる²⁻⁴⁾。原疾患である下垂体腫瘍に対する治療により、軟部組織の腫大は軽快するが、骨格に生じた変化は軽快しない。そのため、口腔顔面領域における機能のおよび形態の改善には外科的矯正治療が必要になるが、一般の顎変形症例の治療とは異なり、その病因と発症機構を考慮して治療方針を立てる必要がある⁵⁾。

先端巨大症における不正咬合の治療において特に考慮すべき問題は巨舌であり、その舌によって下顎の歯槽骨、も

¹⁾ 東京歯科大学口腔健康臨床科学講座歯科矯正学分野 (主任: 山下秀一郎教授)

²⁾ 東京歯科大学歯科矯正学講座 (主任: 末石研二教授)

³⁾ 東京歯科大学口腔外科学講座 (主任: 柴原孝彦教授)

¹⁾ *Division of Orthodontics, Department of Clinical Oral Health Science, Tokyo Dental College* (Chief: Prof. Shuichiro YAMASHITA)

²⁾ *Department of Orthodontics, Tokyo Dental College* (Chief: Prof. Kenji SUEISHI)

³⁾ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Tokyo Dental College* (Chief: Prof. Takahiko SHIBAHARA)

Fig. 1 Photographs at the pre-treatment
A: Facial photographs
B: Intraoral photographs

しくは下顎の歯列に拡大する力が生じる。加えて、GH 過剰分泌により生じる骨格性下顎前突改善のために下顎を後方移動することから、舌房は狭くなり、相対的に舌は歯列に対して過大になる。そのため、術前矯正治療の効率化や治療後の安定性を考慮すると舌縮小術の施行を計画する必要がある。近年の報告では先端巨大症に限らず、舌縮小術を併用した外科的矯正治療の症例報告は多く、その有効性を述べている⁶⁻⁹⁾。舌縮小術の明確な適応症については、

舌全体がほぼ筋組織からなり、大きさの客観的計測が困難なため、現状では評価法が確立されていない。しかしながら発音・嚥下時に舌が歯列外に突出する場合、下顎臼歯部の頬側傾斜や下顎前歯部歯槽突起の唇側傾斜が強い場合、歯間空隙が存在する場合には舌が大きいと判断すべきであるとされており、積極的に舌縮小術を行うことが望ましいとされている^{10,11)}。これまで先端巨大症に対して外科的矯正治療を適用した症例の報告は散見されるものの、著しい

Fig. 2 Radiographs at the pre-treatment

A: Panoramic radiograph

B: Lateral cephalogram

C: Frontal cephalogram

上下顎歯列幅径の不調和を伴う症例の報告は少ない。

今回、先端巨大症に伴う骨格性下顎前突、臼歯部開咬および巨大舌による下顎歯列弓の過大が認められる症例に対して、舌縮小術と下顎歯列弓幅径縮小装置を併用した外科的矯正治療を行った。その結果、巨大舌により生じた下顎歯列の空隙を閉鎖し、調和のとれた上下顎歯列の幅径と大臼歯のアングルⅠ級関係による緊密な咬合を獲得することができたので報告する。なお、公表に対する患者の同意は得られている。

症 例

患者：初診時年齢 52 歳 11 か月 男性

初診：2008 年 10 月

主訴：左側の咬合異常

家族歴：特記事項なし

既往歴：2000 年 7 月某大学医学部附属病院にて下垂体腫瘍摘出手術の既往があり、下垂体腫瘍に伴う GH 過剰分泌による先端巨大症がある。来院時にはドパミン作動薬（カバサル錠®）を服用し、術後経過を観察中であった。

現病歴：2008 年 8 月左側で噛めないことを自覚し、近医歯科を受診した。下垂体腫瘍摘出手術を行った医学部附属病院の口腔外科で経過観察していたが、2008 年 10 月外科的矯正治療を希望して当科を受診した。

現症：正貌はほぼ対称であり、側貌は眉弓部の膨隆、外鼻の肥大、オトガイ部の前突を認めた（Fig. 1A）。Overjet -4.0mm , overbite -2.0mm , 大臼歯関係はアングルⅢ級であった。上顎左側中切歯、側切歯、下顎左側第二大臼歯が欠損であり、上顎右側側切歯は矮小であった。上顎は前歯部欠損、下顎は歯列弓過大による空隙歯列を認めた。上下顎歯列正中線は上顎歯列正中に対し下顎歯列正中が 3.0mm 左方偏位していた（Fig. 1B）。

パノラマ X 線写真では全顎的な軽度水平性歯槽骨吸収を認めた。頭部 X 線規格写真ではトルコ鞍の著明な二重底は認められなかった（Fig. 2）。側面頭部 X 線規格写真分析では、ANB -4.0° で 1S.D. を超えて小さく、著しい骨格性の下顎前突を認めた。U1 to FH 129.0° , L1 to FH 52.0° と上下顎前歯の唇側傾斜を認めた（Table 1）。正面頭部 X 線規格写真分析では顎顔面正中線に対し上顎前歯

Table 1 Cephalometric analysis

Measurements	Mean $\pm$ S.D.	Pre. Treat.	Post. Treat.
Facial angle (deg.)	86.1 $\pm$ 3.3	91	90
Convexity (deg.)	6.4 $\pm$ 3.0	-13	-9
A-B plane (deg.)	-5.2 $\pm$ 2.5	5	0
Mand. plane (deg.)	24.8 $\pm$ 5.9	26	24
Y-axis (deg.)	64.0 $\pm$ 3.1	59	60
Occlusal plane (deg.)	8.4 $\pm$ 4.2	0	-1.5
Interincisal (deg.)	131.6 $\pm$ 5.6	103	121
L-1 to Occulusal (deg.)	21.3 $\pm$ 5.3	37	28
L-1 to Mandibular (deg.)	97.1 $\pm$ 4.9	102	92
U-1 to A-P plane (mm)	7.8 $\pm$ 2.5	6	7
FH to SN plane (deg.)	5.4 $\pm$ 2.4	10	10
SNA (deg.)	83.4 $\pm$ 2.6	75	76
SNB (deg.)	80.0 $\pm$ 2.5	79	77
ANB (deg.)	3.4 $\pm$ 1.7	-4	-1
U-1 to FH plane (deg.)	110.8 $\pm$ 5.6	129	123
L-1 to FH plane (deg.)	61.6 $\pm$ 5.8	52	64
Gonial angle (deg.)	117.5 $\pm$ 8.1	138	132
Ramus angle (deg.)	88.5 $\pm$ 4.5	68	72

正中は一致，下顎前歯正中は3.0mm 左側へ偏位していた。

診断：先端巨大症に伴う骨格性下顎前突症

治療経過：治療方針は，下顎空隙歯列の原因と考えられる巨大舌と骨格性下顎前突および左側臼歯部開咬を改善するため舌縮小術と外科的矯正治療を計画した。舌縮小術は，下顎歯列における空隙の閉鎖効率と術後の舌の腫張に伴う気道狭窄回避の観点から顎矯正手術との併用は避け，術前矯正治療に先立って行うこととした。上顎骨は，眉弓部とオトガイ部の突出により相対的に後退している中顔面部を前方へ移動させるために Le Fort I 型骨切り術を選択した。下顎骨は前方ならびに右下方へ偏位している下顎歯列とオトガイ部を含めた骨格を後方および左上方へ同時に移動させるために下顎枝矢状分割術を選択した。なお，巨大舌により下顎歯列が拡大されており，術後の上下顎の臼歯間幅径を調和させるために，術前矯正治療において下顎臼歯間幅径の縮小を行う必要があった。

術前矯正治療に先立ち Egyedi-Obwegeser 法による舌縮小術を施行した (Fig. 3, 4, 5)。切除量は最大縦 75mm，横 15mm で舌幅径の約 3 分の 1 程度切除した (Fig. 4)。術後に舌の運動障害を防ぐため，筋機能訓練を開始しスポーツを意識する指導を行った。その後，半可撤式下顎歯列弓幅径縮小装置を装着し，ワイヤーを舌側へ活性化させることで臼歯間幅径の縮小を行った。縮小装置にはシースタイプのリングアーチを用い，下顎第一大臼歯遠心から

Fig. 3 Photograph at the pre-glossectomy

装着し，月 1 回の割合で上顎第一大臼歯間幅径に合わせてリングアーチを調整した。縮小量は，セットアップ模型からの予測により 9.0mm とし，期間は 1 年 1 か月であった (Fig. 6)。舌縮小術後，.022 インチスロットのブリアジャスティッドエッジワイズアプライアンスを使用し，マルチブラケット装置による術前矯正治療を開始した。上顎は審美性を考慮し，欠損部の左側中切歯部，側切歯部にブラケットを接着した人工歯を用いた。.021 $\times$ .025 インチのステンレススチールワイヤーまでレベリングを行い，エラスティックチェーンを用いて空隙の閉鎖を行った。下顎は

Fig. 4 Glossectomy (Egyedi-Obwegeser method)

Fig. 5 Photograph at the post-glossectomy

Fig. 6 Semi-fixed constriction appliance

舌側に縮小装置を併用しながら、レベリングを行い、ループ付き .019×.025 インチのステンレススチールワイヤーとエラスティックチェーンを併用して空隙の閉鎖を行った。半調節性咬合器にマウントした模型によるモデルサージェリーで最終的な上下顎の位置決めを行った。上顎骨は前方に 4 mm, 左下方に 1 mm, 下顎骨は後方に 3 mm, 左上方に 1 mm, 正中を右方に 2 mm の移動を計画した。術前矯正治療開始から 1 年 8 か月後に顎矯正手術を行った。上顎は Le Fort I 型骨切り術により、前方および左側を下方へ移動した。下顎は下顎枝矢状分割術により、後方および左側を上方へ移動した。移動後、サージカルプリントを用いて顎間固定を行った。術後矯正治療は、顎間ゴムを併用したディテリングと舌挙上などの筋機能訓練を行い、動的治療を終了して保定へと移行した。上顎は前歯部欠損による審美性、下顎左側第二大臼歯欠損による上顎左側第二大臼歯の挺出を考慮し、人工歯と大白歯咬合面レスト付

きラップアラウンドリテーナーを装着した。下顎には初診時の空隙歯列を考慮し、第一小臼歯間のボンディッドリテーナーとラップアラウンドリテーナーを併用した。動的治療期間は 2 年 2 か月であった。現在保定観察中である。

治療結果：上下唇およびオトガイ部の後退により自然な口唇閉鎖が可能となった (Fig. 7A)。上下顎歯列正中はほぼ一致し、overjet は 2.0 mm, overbite は 2.0 mm を獲得した。咬合関係はアングル I 級が得られた (Fig. 7B)。舌は上下顎歯列内に収まり、運動障害も認められなかった。

パノラマ X 線写真所見では前歯部の歯根吸収と歯槽骨の水平性骨吸収の進行は認められなかった (Fig. 8)。側面頭部 X 線規格写真分析では、初診時と比較して、ANB は -4.0° から -1.0° へ増加し、上下顎骨の骨格性不調和の改善が認められた。また、U1 to FH は 129.0° から 123° へ減少し、L1 to FH は 52.0° から 64.0° へ増加し、上下顎前歯の歯軸が改善した。正面頭部 X 線規格写真分析では顎顔

Fig. 7 Photographs at the post-treatment

A: Facial photographs

B: Intraoral photographs

面の正中に対し上下顎骨の正中はほぼ一致した。

模型分析結果では、初診時と動的治療終了時を比較して、下顎犬歯間幅径は 4.4mm 縮小し、下顎第一大臼歯間幅径は 9.2mm 縮小した (Fig. 9)。

考 察

本症例は先端巨大症による下顎前突および側方開咬の骨格的な改善と巨大舌によって生じた下顎歯列の空隙を閉鎖

する目的で外科的矯正治療と舌縮小術を施行した。先端巨大症は慢性の変形性疾患であり、成人すなわち骨端閉鎖以降に下垂体腺腫による GH の過剰分泌により起こる。下垂体腺腫は臨床的にホルモン分泌のない非機能性腺腫と様々なホルモンを分泌する機能性腺腫に分けられるが GH 産生下垂体腺腫は後者に分類され、GH の過剰分泌が骨端閉鎖前の成長期に生じると下垂体性巨人症に、骨端閉鎖後の成人に生じると先端巨大症となる。骨組織に対する GH の作

用は直接的ではなく、肝臓で産生される第2の成長因子であるソマトメジンc（インシュリン様成長因子：IGF-1）を介して発現することが報告されている¹²⁾。IGF-1は軟骨への硫酸塩の取り込みを促進し、骨を発育させるが、先端巨大症では骨端が閉鎖しているため、内軟骨性および骨膜性に横軸方向に肥大する。この作用は感受性の高い顎骨、頭蓋骨に影響を与えやすく、特に下顎骨体の前下方への伸長と下顎枝の延長をもたらす。上顎については歯と歯槽骨の垂直的高さの増大は認めるものの位置的变化は起こさず、結果的に骨格性下顎前突の症状を呈する。また、本症の発生頻度は30～50歳の青壮年に多く、男女比はほぼ同率で認められる。診断基準は、臨床所見として、手足容積の増大、先端巨大症様顔貌、巨大舌のいずれかの主症状を認め、検査所見としてGHの分泌過剰、ソマトメジンcの高値、Computed tomography (CT)、Magnetic resonance imaging (MRI) で下垂体腺腫の所見を認めることが条件とされている¹³⁾。本症例においてもそれらの特徴的な臨床症状は認めたが、術後経過観察中のため、初診時の血中GH値は0.23ng/ml（基準値0.42ng/ml以下）、IGF-1値は315ng/ml（基準値59～215ng/ml）であった。IGF-1値が基準値よりやや高値を示していたため、ドパミン作動薬を服用していた。

Fig. 8 Radiograph at the post-treatment

先端巨大症患者においては下顎枝長、下顎骨体長の著明な増大のため、下顎骨の後方移動量が大きくなる。先端巨大症患者の手術術式については、川原ら¹⁴⁾がLe Fort I型骨切り術と下顎枝矢状分割術を併用する上下顎移動術を報告しており、服部ら¹⁵⁾は15mm以上の下顎骨の後方移動を必要とする場合には下顎枝矢状分割術を適応すると移動後の十分な骨接触面積が得られないことや、下顎枝後方周囲の軟組織に緊張が生じ、術後の後戻りが生じやすいことからObwegeser II法が望ましいと報告している。また、顎矯正手術の時期については、Weinmannら¹⁶⁾は血中GH値が正常範囲（5 ng/ml以下）となり、各種負荷試験においても本症に特異なGH値の変化を示さない状態で施

Fig. 10 Changes in growth hormone (GH) and insulin like growth factor 1 (IGF-1) level

Fig. 9 The comparison of width of the lower dental arch
A: Pre-treatment B: Post-treatment
- - -: Anterior width —: Posterior width

Fig. 11 Superimposition of the lateral cephalograms
 —: Pre-treatment - - -: Post-treatment

行することが望ましいと報告しており、上木ら¹⁷⁾は血中 GH 値が高くても活動性の示さない 10ng/ml 以下（正常値 5 ng/ml 以下）で変動のない時期が望ましいと報告している。本症例では、術前の血液検査で、血中 GH 値 0.36ng/ml、IGF-1 値 239ng/ml であった。IGF-1 値はやや高値であったが腫瘍摘出術後の値は安定しており、変動が少なかったため顎矯正手術時期として適当であると判断した (Fig. 10)。術式は側面頭部 X 線規格写真分析において下顎枝長、下顎骨体長の増大を認めたが、下顎骨の後方移動量は少なかったため、下顎枝矢状分割術を選択した。また、突出した前頭部に対して、後方位を示している上顎骨を前方に、左側開咬部において上下顎骨を上下方向に移動させる必要があったため、Le Fort I 型骨切り術を併用する上下顎移動術を選択し、良好な結果が得られた。移動量は側面頭部 X 線規格写真における治療後の重ね合わせより上顎骨は 1.0mm 前方移動し、下顎骨は 3.0mm 後方移動した。上下顎移動術での移動量としては少ないが、軟組織側貌のバランスと口腔内容積の減少を考慮し、前後的な移動量は最小限に抑えた (Fig. 11)。

先端巨大症の巨大舌について、確立された評価基準はないが、Egyedi ら¹⁸⁾は、真性巨舌、歯の圧痕を有する比較的巨舌、嚥下悪習癖を有する機能的巨舌の 3 つを挙げており、高橋ら¹⁹⁾は、舌縁にみられる歯の圧痕、舌尖または舌縁の下顎歯列上存在、発音または嚥下時における舌の歯列外突出、歯間空隙の存在、開咬を伴う下顎前突症が認められる場合には舌縮小術を行うべきだとしている。本症例では、初診時において舌縁に圧痕は認めなかったものの、

その他の症状は全て認めた。さらに、過大である下顎歯列の縮小と後方移動により治療後の舌房は狭くなるため、舌縮小術の施行は適当であったと考えられる。術後障害については、下顎後退量も少なく、術後直ちに筋機能訓練を開始したことで舌の運動障害は認めず、発音、味覚および嚥下機能障害も認めなかった。しかし、術式や切除量によっては舌強直症などの症状がみられることがあるため⁷⁾、下顎骨移動後の運動および機能障害、術後の気道狭窄などを考慮して、術式、必要性、切除量を慎重に検討すべきである。

結 語

今回われわれは、先端巨大症による側方開咬を伴う骨格性下顎前突症に対して、舌縮小術と下顎側方縮小装置を併用した外科的矯正治療症例を報告した。治療結果は、上下顎移動術による骨格的な改善により、下唇およびオトガイ部の後退がなされ自然な口唇閉鎖が可能となった。口腔内では、適切な前歯部被蓋によるアンテリオールガイダンスの確立、舌縮小術と下顎縮小装置による上下顎歯列弓幅径の調和と緊密な咬合を獲得することができた。そして、主訴の改善により患者の満足も十分に得ることができた。今後は上顎前歯欠損部に補綴処置を行い、筋機能訓練と保定装置の使用を継続しながら、咬合の安定性や GH、IGF-1 の値について注意深く観察していく予定である。

文 献

- 1) Melmed, S., et al.: Pathophysiology of acromegaly, *Endocr Rev*, 4 : 271-290, 1983.
- 2) Melmed, S.: Acromegaly, *N Engl J Med*, 322 : 966-

- 977, 1990.
- 3) 福井次矢, 他監修: ハリソン内科学, 第2版, メディカル・サイエンス・インターナショナル, 東京, 2006, 2145-2147.
  - 4) Vitral, R.W., et al.: Acromegaly in an orthodontic patient, *Am J Orthod Dentofacial Orthop*, 130 : 388-390, 2006.
  - 5) 嵐山貴徳, 他: 先端巨大症に伴う下顎前突症に対して顎矯正手術を施行した1例—骨格・咬合・鼻形態の変化—, *日顎変形誌*, 21 : 18-29, 2011.
  - 6) Arat, Z.M., et al.: A new approach in the treatment of skeletal open bite: vertically activated bite block, *World J Orthod*, 7 : 345-356, 2006.
  - 7) Johal, A., et al.: Sleep nasendoscopy: a diagnostic tool for predicting treatment success with mandibular advancement splints in obstructive sleep apnoea, *Eur J Orthod*, 27 : 607-614, 2005.
  - 8) Iino, M., et al.: Two-stage orthognathic treatment of severe Class III malocclusion: report of a case, *Br J Oral Maxillofac Surg*, 42 : 170-172, 2004.
  - 9) Miyawaki, S., et al.: Long-term changes in dentoskeletal pattern in a case with Beckwith-Wiedemann syndrome following tongue reduction and orthodontic treatment, *Angle Orthod*, 70 : 326-331, 2000.
  - 10) 大谷隆俊, 他編: 図説口腔外科手術学下巻, 医歯薬出版, 東京, 1990, 739-746.
  - 11) 高橋庄二郎, 他編: 顎変形症治療アトラス, 医歯薬出版, 東京, 1990, 271-272.
  - 12) 田中敏章: 視床下部・下垂体 下垂体機能亢進症 下垂体巨人症, *日本臨床*, 別冊内分泌症候群, 139-142, 2006.
  - 13) 間脳下垂体機能障害に関する調査研究班: 厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業, 先端巨大症および下垂体性巨人症の診断と治療の手引き(平成21年度改訂) 平成21年度総括・分担研究報告書, 2010.
  - 14) 川原麻織, 他: 顎矯正手術を施行した下垂体性巨人症の1例, *日顎変形誌*, 13 : 52-58, 2003.
  - 15) 服部幸男, 他: Obwegeser II法を適応した著しい下顎前突症の一例, *日顎変形誌*, 9 : 184-188, 1999.
  - 16) Weinmann, J.P., et al.: Bone and bones, *Fundamentals of bone biology*, 2nd, Mosby Co., St Louis, 1995, p212-228.
  - 17) 上木耕一郎, 他: 下顎頭切除術と下顎枝矢状分割術を併用した末端肥大症の1例, *日顎変形誌*, 6 : 170-175, 1996.
  - 18) Von P, Egyedi, et al.: Zur Operativen Zungenverkleinerung, *Deutsche Zahn-, Mund-und Kieferheilkunde*, Bd 41 : 16-25, 1964.
  - 19) 高橋庄二郎, 他: 顎発育異常の外科的治療に関連する舌縮小術について, *口外誌*, 27 : 334-342, 1978.