成長期に下顎骨延長と成長終了後に上下顎移動術を施行した

Hemifacial microsomia の 1 例

坂 本 輝 雄¹⁾ 石 井 武 展¹⁾ 加 藤 真 麻¹⁾
新 倉 陽 一 朗¹⁾ 有 泉 大¹⁾ 末 石 研 二¹⁾
藤 本 侑 子²⁾ 成 田 真 人²⁾ 高 野 伸 夫^{2,3)}

A Case of Hemifacial Microsomia Treated by Distraction Osteogenesis in the Growing Period and Two-Jaw Surgery in Adulthood

TERUO SAKAMOTO¹⁾, TAKENOBU ISHII¹⁾, MAASA KATOH¹⁾,
YOICHIRO NIKURA¹⁾, DAI ARIIZUMI¹⁾, KENJI SUEISHI¹⁾,
YUKO FUJIMOTO²⁾, MASATO NARITA²⁾ and NOBUO TAKANO^{2,3)}

Abstract

This case report describes the treatment and management of occlusion for a patient with hemifacial microsomia. A girl aged 4 years and 8 months was transferred to Tokyo Dental College, Department of Orthodontics for orthodontic diagnosis, preparation of distraction osteogenesis, and for management of occlusion during and after distraction osteogenesis. The patient was diagnosed with right hemifacial microsomia (Pruzancky grade II) with facial asymmetry and occlusal cant. In preparation for distraction osteogenesis, to enable traction from the upper-right deciduous molars to the lower-left deciduous molars, a trans-palatal arch and lingual arch were delivered to the maxillary and mandibular arch, respectively. At 6 years and 4 months, mandibular distraction osteogenesis was performed. A Zurich pediatric ramus distractor was used. Latency period was five days, and the rhythm of distraction was 0.5 mm twice a day. The direction of distraction was parallel to the mandibular ramus. The total amount of lengthening was 17 mm and the consolidation period was

seven months. To keep the occlusion from changing, traction by elastics was done from the upper-right (affected side) deciduous molars to the lower-left (normal side) deciduous molars. By distraction osteogenesis, facial symmetry was obtained without destruction of occlusion such as open bite or lateral cross bite. Afterwards, an activator as a functional appliance was delivered to keep an even cant of the occlusal plane and growth was observed. However, because of the different growth potential between the normal and affected condyle, facial asymmetry recurred. Therefore, at 18 years and 7 months, two-jaw surgery was performed at Tokyo Dental College Chiba Hospital, followed by post-operative orthodontic treatment. At 19 years and 8 months retention was initiated. In cases where distraction osteogenesis is performed in the growing period, it is essential to explain beforehand that there is a possibility of recurrence of facial asymmetry and secondary surgery.

Key words: hemifacial microsomia (第1第2鰓弓症候群), distraction osteogenesis (骨延長), two jaw surgery (上下顎移動術)

[Received Nov. 5, 2015]

¹⁾ 東京歯科大学歯科矯正学講座 (主任: 末石研二教授)

²⁾ 東京歯科大学口腔外科学講座 (主任: 柴原孝彦教授)

³⁾ 東京歯科大学口腔がんセンター (センター長: 高野伸夫教授)

¹⁾ Department of Orthodontics, Tokyo Dental College (Chief: Prof. Kenji SUEISHI)

²⁾ Department of Oral-maxillofacial Surgery, Tokyo Dental College (Chief: Prof. Takahiko SHIBAHARA)

³⁾ Oral Cancer Center, Tokyo Dental College (Chief: Prof. Nobuo TAKANO)

緒 言

Hemifacial microsomia は、第一・第二鰓弓由来の顎顔面骨格および軟組織の低形成を主徴とする先天性疾患であり¹⁾、顎顔面領域の先天異常としては口唇裂・口蓋裂について多い²⁾。顎顔面部の所見としては、下顎骨の片側性の発育不全による顔面非対称、巨口症、小耳症、顔面神経麻痺などがみられ³⁾、口腔内所見としては交叉咬合、叢生、咬合平面の傾斜、顔面に対する歯列の正中偏位などを呈する。従来は機能的矯正装置による矯正治療⁴⁻⁶⁾が行われていたが、McCarthy ら⁷⁾が Hemifacial microsomia や小顎症に対して初めて下顎骨延長の臨床応用を報告して以来、骨延長は Hemifacial microsomia に対して盛んに行われている。

今回、われわれは成長期に下顎骨延長を行い、その後、機能的矯正装置であるアクチベーターを装着し成長の観察を行ったが、左右の下顎頭の成長ポテンシャルの違いにより、思春期性成長スパートとともに顔面非対称が再発し、顎骨の成長終了後に上下顎移動術を行い、良好な顔貌と咬合を獲得した症例を経験した。そこで本症例の骨延長における術中・術後の咬合管理、顎骨の成長変化および外科的矯正治療について報告する。

症 例

患者：2000 年初診，初診時年齢 4 歳 8 か月。

主訴：顎が曲がっている。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：生後，Hemifacial microsomia と診断され，千葉県こども病院形成外科で経過観察を受けていた。下顎骨延長を施行するにあたり，歯科矯正学的診断，下顎骨延長の術前準備および術中，術後の咬合管理のため東京歯科大学千葉病院矯正歯科に紹介され受診した。

現症：

全身所見：体格は中等度で栄養状態は良好であった。

顔貌所見：顔貌は左右非対称でオトガイは右方へ偏位し，口裂は右上がりに傾斜し，側貌はコンベックス型を呈していた。右側耳介の変形はみられなかったが，左側耳介と比較するとやや下方に位置し，小耳症，副耳，聴力障害，顔面神経麻痺は認められなかった (Fig. 1)。

口腔内所見：Hellman の歯齡 IIC で，第二乳臼歯部はメジアルステップタイプを呈し，オーバージェット + 2 mm，オーバーバイト + 2 mm で，咬合状態は上顎前突，反対咬合，開咬，交叉咬合などの不正咬合はみられなかったが，下顎歯列弓に叢生を認めた。また，上下顎の正中線は一致していたが，咬合平面は右上がりに傾斜していた (Fig. 1)。

X 線所見：

パノラマ X 線写真：後続永久歯の欠如は認められなかった。Co-Go 間距離は右側（患側）が 31mm，左側（健側）が 50mm と 19mm の下顎枝高の左右差がみられた。また，下顎頭の形態より Pruzansky 分類⁸⁾ Grade II であった (Fig. 2)。

側面頭部 X 線規格写真：正常咬合者の値⁹⁾と比較すると，下顎骨の後退および下顎下縁平面の急傾斜が認められた (Fig. 3, Table 1)。

正面頭部 X 線規格写真：咬合平面は 7° の傾斜，5 mm のオトガイの偏位が認められた。右側下顎頭は左側と比較すると小さく，右側の関節窩の位置は下方および内方に偏位していた。また，頬骨の形成異常は認められなかった (Fig. 4, Table 1)。

診断：右側 Hemifacial microsomia (Pruzansky 分類 Grade II) を伴う叢生。

治療方針および治療計画

1) 顔面非対称と咬合変面の傾斜を改善するために，エラスティックにより上顎右側（患側）乳臼歯と下顎左側（健側）乳臼歯間で牽引を行いながら下顎骨延長を行う。

2) 骨延長中に開咬や交叉咬合などが発現しないよう咬合の安定性を保持するために，エラスティックによる牽引を行う。

治療経過

1) 術前準備

上顎歯列にトランスパラタルアーチ，下顎歯列にリングアーチ，上顎右側第一乳臼歯および下顎左側第一乳臼歯にブラケットを装着した (Fig. 5)。

2) 骨延長

6 歳 4 か月時に，千葉県こども病院形成外科において下顎骨延長を施行した。延長器は Zurich Pediatric Ramus Distractor (Cloverleaf design, flexible rod, 延長量 20mm, KLS Martin 社, 独国) を使用し，待機期間 (Latency period) は 5 日間，延長は 0.5mm ずつ 1 日 2 回，延長期間と延長量は 17 日間で 17mm，延長方向は下顎枝と平行であった (Fig. 6)。延長中，咬合平面の傾斜の改善と咬合関係を維持するため 1/4inch のエラスティック (3M-Unitek 社) を 2 本繋いで，上顎右側（患側）乳臼歯と下顎左側（健側）乳臼歯とに装着し牽引した (Fig. 7)。若干のオトガイの偏位と咬合平面の傾斜は残存しているものの，開咬や交叉咬合などの咬合崩壊をおこすことなく良好な咬合関係を保ちながら骨延長を終了した (Fig. 8, Fig. 9)。なお，

Fig. 1 Facial and intraoral photographs before treatment
Facial photos show facial asymmetry and convex type of profile.
Intraoral photos reveal that there is no problems regarding occlusion, although there is slight crowding in the lower arch.

Fig. 2 Panorama x-ray before treatment
Panoramic x-ray shows that the difference of ramus height between normal side (50mm) and affected side (31mm) is 19mm and Pruzansky Grade II.

骨硬化期間 (Consolidation period) は7 か月とした。

3) 術後管理

その後、機能的矯正装置であるアクチベーターを装着し、装置の上顎右侧 (患側) 臼歯部咬合面部のレジンを削合することによってクリアランスを設け、患側の臼歯を含む歯槽部の下方への垂直成長を促すことによって咬合平面が再び傾斜することを防ぎつつ、顎骨の成長変化の経過観察を行った。しかし思春期性の成長スパートとともにオトガイが次第に右方へ偏位していった。顎骨の成長がほぼ終了した16歳2か月時に再診断を行ったが、顔面非対称が再発し、口裂も右上がりの傾斜が認められ、Angle Class

II, オーバージェットは+9 mm と上顎前突を示した (Fig. 10)。側面頭部 X 線規格写真分析では, 下顎骨の後退と下顎前歯の唇側傾斜が認められた (Fig. 11, Table 1)。正面頭部 X 線規格写真分析では, 7 mm のオトガイの右方への偏位, 8° の咬合平面の傾斜が認められた (Fig. 12, Table 1)。患者も顔貌の改善を希望したため, 外科的矯正治療を行うこととした。

4) 術前矯正

術前矯正は, 上下顎移動術後の咬合の安定, そして上下

Fig. 3 Lateral cephalogram before treatment
Lateral cephalogram shows mandibular retrognathism and high-angle of mandibular plane.

顎前歯の唇側傾斜を改善するために上下顎左右第一小臼歯を抜去し, 0.022 インチのブリアジャステッドブラケットを装着し開始した。また, 上顎第一大臼歯の加強固定のためにナンスホールディングアーチを装着した (Fig. 13)。なお, 術前矯正には 1 年 9 か月を要した。

5) 上下顎移動術および術後矯正

18 歳 7 か月時に東京歯科大学千葉病院口腔外科において, 上顎骨は Le Fort I 型骨切り術, 下顎骨は下顎枝矢状分割術により上下顎移動術を施行した。術前の cephalometric prediction (セファログラムによる移動予測) によると, 側面頭部 X 線規格写真での移動量は, 上顎骨では ANS は上方へ 3 mm, PNS は下方へ 2 mm, 下顎骨では Pog は前方へ 8 mm, Me は上方へ 5 mm と予測された。また, 正面頭部 X 線規格写真では, Me は左方へ 7 mm, 右側上顎第一大臼歯は下方へ 3.5 mm, 左側上顎第一大臼歯は上方へ 1.5 mm の移動と予測された (Fig. 14)。なお, cephalometric prediction に基づきモデルオペレーションを行って移動方向および移動量を確認した後, 手術を施行した。上顎骨骨切りにおいては, 前後的には急峻で左右的には傾斜した咬合平面を予定通りに修正し, 咬合平面の改善を図った。また, 下顎骨骨切りにおいては, 非対称を改善するとともに下顎骨の前方移動を図ることに主眼をおいた。術中所見として, 小児期の骨延長後, 長期間経過しており, 形態的な異常は認められたが, 皮質骨, 骨髄などの骨構造は正常者と同様であった。従って通常通り下顎枝矢状分割術を行い, 下顎骨を約 8 mm 前方移動した。上下顎移動術により顎顔面骨格の非対称性が顕著に改善し, 咬合

Table 1 Cephalometric analysis

			6y3m	6y5m	16y2m	19y9m	Norm
			Before treatment	After distraction osteogenesis	Before two jaw surgery	After treatment	(飯塚ら ⁷⁾)
Lateral	SNA	degree	74.0	74.0	73.0	74.0	82.32 ± 3.45
	SNB	degree	66.0	68.0	64.0	68.0	78.90 ± 3.45
	ANB	degree	8.0	6.0	9.0	6.0	3.39 ± 1.77
	Facial angle	degree	76.0	81.0	79.0	81.0	84.83 ± 3.05
	FMA (Normal side)	degree	39.0	40.0	37.0	36.0	28.81 ± 5.23
	FMA (Affected side)	degree	54.0	54.0	51.0	50.0	28.81 ± 5.23
	U1-FH	degree	100.0 (UA-FH)	99.0 (UA-FH)	115.0	102.0	111.13 ± 5.54
	L1-FH	degree	43.0 (LA-FH)	54.0 (LA-FH)	38.0	50.0	54.63 ± 6.47
	L1-MP (Normal side)	degree	98.0 (LA-FH)	86.0 (LA-FH)	105.0	94.0	96.33 ± 5.55
	Interincisal angle	degree	122.0 (UA-LA)	134.0 (UA-LA)	104.0	129.0	124.09 ± 7.63
	Overjet	mm	2.0	1.0	9.0	3.5	
Frontal	Oberbite	mm	2.0	0.0	0.0	2.0	
	Occlusal plane cant	degree	7.0	2.0	8.0	2.0	
	Chin deviation	mm	5.0	1.0	7.0	0.0

Fig. 4 Frontal cephalogram before treatment
Frontal cephalogram shows mandibular deviation to the right (5 mm) and cant of occlusal plane (7 degree).

平面の平坦化, 適正な上下顎の臼歯関係, オーバージェットおよびオーバーバイトが得られた。また, 上下顎前歯の挺出を防ぐため, 歯科矯正用アンカースクリュー (Dual-Top Auto Screw, Jeil Medical Corporation, 韓国) を上下顎の側切歯と犬歯間に植立し顎間固定を行った (Fig. 15)。その後, 術後矯正を行い, 手術後1年経過時に骨接合用プレートを除く, 19歳8か月時に動的矯正治療を終了し, サークムフェレンシャルタイプのリテーナーを装着し保定を開始した。動的矯正治療期間は2年10か月であった。

治療結果

6歳3か月時に下顎骨延長を行い, 開咬や交叉咬合などの咬合の崩壊をおこさずにオトガイの偏位は5 mm から1 mm, 咬合平面の傾斜は7° から2° に改善した。その後,

Fig. 5 Preoperative preparation: Trans-palatal arch (Upper arch), Lingual arch (Lower arch)
For preparation of distraction osteogenesis, trans-palatal arch (upper arch) and lingual arch (lower arch) were delivered.

Fig. 6 Lateral and frontal cephalogram during distraction osteogenesis
Lateral and frontal cephalograms during distraction osteogenesis show that Zurich pediatric ramus distractor is set.

Fig. 7 Intraoral photographs during distraction osteogenesis
Intraoral photographs during distraction osteogenesis show traction by elastics.

Fig. 8 Facial and intraoral photographs just after distraction osteogenesis
Facial and intraoral photos show facial symmetry and proper occlusion without destruction.

Fig. 9 Frontal cephalogram just after distraction osteogenesis
Frontal cephalogram just after distraction osteogenesis shows facial symmetry and slight cant of plane (2 degree).

顎顔面の成長観察を行ったが、思春期性の成長スパートとともに、次第に下顎は再び右方に偏位し、顔面の非対称性が増し、オトガイの偏位は7 mm、咬合平面の傾斜は8°、ANB 9°、Angle Class II、オーバージェット+9 mmと顔面非対称を伴う骨格性上顎前突を呈した。また、L1-MP（健側）は105.0°と下顎前歯の唇側傾斜を認めた。これらのことを改善するために上下顎左右第一小臼歯の抜去を伴う上下顎移動術を行い、若干の咬合平面の傾斜（2°）はあるものの、良好な顔貌および適切な咬合関係が獲得された（Fig. 16, 17, 18, Table 1）。右側下顎第2大臼歯は矯正治療中にう触により歯冠崩壊をきたしたが、根管処置後に歯冠補綴を行った。また、患者の要望があれば将来オトガイ形成術を予定している。保定開始より6か月経過した時点では、術後の後戻りもなく咬合は安定している。

Fig. 10 Facial and intraoral photographs at pre-surgical orthodontics
Facial photos show asymmetry is recurred. Intraoral photos show maxillary protrusion with Angle class II and +9 mm overjet.

Fig. 11 Lateral cephalogram at pre-surgical orthodontics
Lateral cephalogram shows mandibular retrognathism and labial inclination of lower incisors.

Fig. 12 Frontal cephalogram at pre-surgical orthodontics
Frontal cephalogram shows mandibular deviation to the right (7 mm) and cant of occlusal plane (8 degree).

Fig. 13 Intraoral photographs before surgery

Intraoral photos before surgery show extraction of four first premolars to improve labial inclination of incisors.

Fig. 14 Surgical prediction

Surgical prediction revealed that the amount of movement was estimated to be was 3 mm superior for ANS, 2 mm inferior for PNS, 8 mm anterior for Pog and 5 mm superior for Me from lateral cephalogram, while Me was 7 mm to the left, right first molar was 3.5mm inferior and left first molar was 1.5mm superior from frontal cephalogram.

考 察

従来、成長期の Hemifacial microsomia に対して、顎骨成長誘導を目的に機能的矯正装置による矯正治療⁴⁻⁶⁾や骨延長^{7, 10, 11, 13-15, 18-20, 22, 23, 25, 26, 29, 30, 34-36)}が行われてきた。機能的矯正装置を使用する目的に関して、筋と骨格の関係を変化させることで患側の骨添加を促し顔面の対称性を得る^{4, 6)}、正常な Functional matrix を獲得し下顎の成長を促

進する⁵⁾と報告されている。

本症例は Pruzansky 分類 Grade II であり、7° の咬合平面の傾斜、5 mm のオトガイ偏位が認められた。治療の目標は顔面非対称の改善と咬合平面の平坦化にあり、Kaban ら²⁴⁾によるパノラマ X 線写真の下顎枝高 (Ramus height : Co-Go 間距離) の差は 19mm と、Ramus height の差はあくまで延長量の目安であるが、改善に必要とされる量が大きいため骨延長を施行した。

Fig. 15 Intraoral photographs just after surgery

Intraoral photos after surgery show gain of proper overjet, overbite and molar's relationship. To prevent extrusion of teeth, orthodontic anchor screws were implanted.

本症例では下顎骨単独の骨延長を行ったが、問題点の一つに延長により生じる開咬や交叉咬合などの咬合崩壊があげられる^{10, 11)}。Hemifacial microsomia は顔面非対称が認められるものの咬合は比較的良好な場合が多い¹²⁾。本症例でも乳歯列ではあるが咬合関係は良好であった。下顎骨の下方への延長に伴い、患側に生じた上下顎臼歯間隙へ下顎臼歯部の咬み込みが起これ、下顎骨は傾斜した上顎咬合平面に沿って健側へ偏位し、健側は交叉咬合、患側は開咬となると報告されている¹¹⁾。また、患側下顎骨の下方への変化が急速なため、上顎骨や上顎臼歯の下方への垂直成長が追いつかず、患側臼歯部には間隙が生じ、下顎骨の反時計回りの移動により患側臼歯部は咬合するために、患側上顎臼歯部の下方への移動に必要なクリアランスが得られず、咬合平面の改善が得られにくい。Molina¹³⁾ は延長後にバイトブロックを使用し、低年齢では上顎の発育が旺盛なため急速な適応が起これとしているが、上顎の下方への必要とされる移動量が大きいと、機能的矯正装置では限界があると思われる。これらの問題点を解決する方法として、以下の方法が報告されている。第1に Grayson¹⁴⁾ は、下顎骨の延長を行う際に、下顎歯列に上顎患側臼歯部の下方への牽引の固定源としてのリンガルアーチを装着し、患側の上下臼歯部にエラスティックをかける。延長後はバイトプレート装着し、患側の上顎臼歯部咬合面部のレジンを削合し、必要に応じてエラスティックを使用し、患側の上顎臼歯部の挺出により、患側に生じた開咬を改善するとしているが^{14, 15)}、長期的な観察と患者の協力が不

可欠となる。第2に上下顎を同時に延長^{11, 16-21)}する方法である。Monasterio¹⁶⁾ は、下顎骨の延長によって生じた患側臼歯部の間隙に関し、小児期では上顎骨の下方への成長が旺盛で、その間隙は短期間で閉じるので問題はないが、成人症例では延長後の咬合の悪化、特に開咬が問題になり、延長後の矯正治療が長期に及ぶので、顎間固定をしながら上下顎同時延長が良いと述べている。また、奥本¹¹⁾も同様の理由で小児期での上下顎同時延長を報告している。しかしながら延長期間が3-4週に及び、その間には顎間固定が必要となるので、小児にとっては負担が大きいと思われる。また、小児期においては上顎の永久歯歯胚を傷つけないといった配慮が必要となる。そこでわれわれはHanson^{22, 23)}の方法を採用した。すなわち上顎歯列にトランスパラルアーチ、下顎歯列にリンガルアーチを装着し、上顎右側（患側）乳臼歯と下顎左側（健側）乳臼歯間にエラスティック（tongue cross elastics）を装着し、患側上顎臼歯の挺出による咬合平面の平坦化、オトガイが過剰に健側に移動することによる健側臼歯部の交叉咬合の防止、さらには平坦な患側顎角部を改善し左右対称な顎角にすることを目的としている。本症例においても、下顎骨単独の17mmという延長量にもかかわらず、術前の良好な咬合関係を崩すことなく、咬合平面の平坦化と顔面の非対称性が著しく改善した。エラスティックの使用に関しては、入院中ということもあり問題なく終日の使用が可能であった。

今回われわれは小児に対して骨延長を行ったが、本症例

Fig. 16 Facial and intraoral photographs after treatment
Facial photos show facial symmetry was obtained.
Intraoral photos show proper occlusion was gained.

Fig. 17 Lateral cephalogram after treatment
Lateral cephalogram shows that good profile was obtained
and bi-labial protrusion was improved.

Fig. 18 Frontal cephalogram after treatment
Frontal cephalogram shows facial symmetry was obtained,
although slight occlusal cant remained (2 degree).

が当科を受診した当時、形成外科領域で世界的に成長期での下顎骨延長が盛んに行われており、また就学前に顔面非対称を改善したいという患者からの要望があったためである。成長期の Hemifacial microsomia に対する骨延長の目的は、早期に審美性を回復することにより患者の心理的な障害を取り除くこととともに、Kaban ら^{24, 25)}、Klein ら²⁶⁾ は成長に伴う下顎骨の非対称性の増悪によって二次的に起こる上顎骨の変形を防ぐことと述べている。しかしながら骨延長の時期については議論的となっており、小児期に施行するという意見^{24-31, 35)}と成長期の骨延長に否定的な意見^{16, 32-34, 36, 37, 39)}とがある。早期に骨延長を施行するのは、未治療の患者は成長とともに顔面非対称が増悪するという考えに基づいている。一方、Rune ら³²⁾は、未手術の 11 人の Hemifacial microsomia 症例の成長変化を評価し、成長による変化は顔面変形の程度とは関連せず、成長とともに変形は増悪しないと、Polly ら³³⁾は未手術の 26 人の Hemifacial microsomia 症例を評価し、健側と患側は同様に成長し顔面非対称は進行的ではなく、むしろ骨延長による侵襲により本来の成長能にマイナスの影響をあたえるので、小児期における骨延長は正当化されないと述べている。さらに Posnic³⁴⁾は小児期に骨延長を行っても成長終了後に再度の手術が必要になるので、成長終了まで骨延長を待つべきであると述べている。

骨延長後の成長変化に関して、Shetye ら³⁵⁾は、骨延長後 10 年間の成長を追跡調査したところ、Co-Go の成長は健側が 1.15mm/y、患側が 0.87mm/y と外科的に伸長した下顎枝は対称性発育を成し、骨延長は成長に悪影響を及ぼさないで早期骨延長を推奨している。一方、Huisinga ら³⁶⁾は小児期に骨延長を行った 8 人に対して CT を用いて延長後の変化を評価したところ、50% の症例で 1 年後に Relapse し、15 週後と比較すると 3 年後には増悪しており、これは健側と患側の成長能の違いであるとしている。また Meazzini ら³⁷⁾は、平均 5.6 歳で骨延長を行った 8 症例を正面頭部 X 線規格写真にて 5.8 年間経過を追跡したところ、咬合平面の傾斜は改善せず、下顎骨の偏位も次第に増悪したことから、大人まで手術を待つべきと述べている。Iseri ら³⁸⁾は、12 歳の女子に骨延長を行い、メタルインプラントを用い 10 年後の成長変化を観察した。骨延長によって下顎枝の健側 / 患側比は劇的に改善したが、10 年後には最初の比率に戻っていたと報告している。さらに Nagy ら³⁹⁾は 2002 年から 2008 年までに発表された 13 論文をレビューし延長後の長期安定性について調査したところ、早期延長を支持する科学的根拠に乏しく、患者に成長終了後に 2 回目の手術の可能性があると伝える必要があると述べている。本症例においても成長期に下顎骨延長を行ったが、思春期性成長スパートとともに顔面非対称が再発し、成長終了後に上下顎移動術を行った。Shetye ら³⁵⁾

が報告しているように、患側と健側の潜在的な下顎骨の成長能が異なり (Co-Go の成長は健側が 1.15mm/y、患側が 0.87mm/y)、成長とともに下顎骨が偏位したものと思われる。小児期に下顎骨の延長を行う場合には、患者側からの要望も重要ではあるが、顎骨の成長とともに顔面非対称の再発の可能性と手術の必要性が生じることを予め患者に伝えておくことが重要と考えられた。

結 語

成長期の Hemifacial microsomia 症例に下顎骨延長を行い、その後アクチベーターを装着し咬合を管理したが、思春期性の成長スパートとともに顔面非対称が再発し、顎骨の成長終了後に上下顎移動術を行い、良好な顔貌と咬合を獲得した症例を経験したので報告した。

謝辞

本報告に関して、骨延長を施行していただきました千葉県こども病院形成外科 鈴木啓之先生に感謝致します。

著者全員、東京歯科大学歯科矯正学講座、口腔外科学講座および口腔がんセンターに本報告に関し開示すべき利益相反 (COI) はない。

文 献

- 1) Grabb, W.C.: The first and second branchial arch syndrome. *Plast Reconstr Surg*, 36 : 485-508, 1965.
- 2) Murray, J.E., et al.: Analysis and treatment of hemifacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 74 : 186-199, 1988.
- 3) 梶井 正, 他: 鰓弓症候群 Branchial arch syndrome. 新先天奇形症候群アトラス, 第 1 版. 南江堂, 東京, 1998, p370-371.
- 4) Melsen, B., et al.: The effect of treatment with functional appliance on a pathological growth pattern of the condyle. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*, 90 : 503-512, 1986.
- 5) Kaplan, R.G.: Induces condylar growth in a patient with hemifacial microsomia. *Angle Orthod*, 59 : 85-90, 1989.
- 6) 佐野良太, 他: 機能的矯正装置を用いた成長期 hemifacial microsomia 症例の 1 治験例. *日顎変形誌*, 21 : 195-204, 2011.
- 7) McCarthy, J.G., et al.: Lengthening the human mandible by gradual distraction. *Plast Reconstr Surg*, 89 : 1-10, 1992.
- 8) Pruzansky, S.: Not all dwarfed mandibles are alike. *Birth Defects; Original Articles Series*, 5 : 120-129, 1969.
- 9) 飯塚哲夫, 他: 頭部 X 線規格写真による症例分析法の基準値について—日本人成人男女正常咬合群—. *日矯正誌*, 16 : 4-12, 1957.
- 10) 小宮徳春, 他: 下顎骨仮延長症例の中期変化—延長後

- 5 年以上経過して一. 日顎変形誌, 9 : 12-22, 1999.
- 11) 奥本隆行, 他 : Hemifacial microsomia に対する上下顎同時仮骨延長術. 日形会誌, 18 : 528-535, 1998.
 - 12) 須佐美隆史, 他 : Hemifacial microsomia の顎態, 咬合様式の検討. 日矯歯誌, 50 : 87-99, 1991.
 - 13) Molina, F., et al.: Mandibular elongation and remodeling by distraction: A farewell to major osteotomies. *Plast Reconstr Surg*, 96 : 825-840, 1995.
 - 14) Grayson, B.H., et al.: Treatment planning and biomechanics of distraction osteogenesis from an orthodontic perspective. *Semin Orthod*, 5 : 9-24, 1999.
 - 15) Santiago, P.E., et al.: Role of the craniofacial orthodontist on the craniofacial and cleft lip and palate team. *Semin Orthod*, 15 : 225-243, 2009.
 - 16) Monasterio, F.O., et al.: Simultaneous mandibular and maxillary distraction in hemifacial microsomia in adults: Avoiding occlusal disasters. *Plast Reconstr Surg*, 100 : 852-861, 1997.
 - 17) Molina, F.: Combined maxillary mandibular distraction osteogenesis. *Semin Orthod*, 5 : 41-45, 1999.
 - 18) Padwa, B.L., et al.: Simultaneous maxillary and mandibular distraction osteogenesis with a semi-buried device. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 28 : 2-8, 1999.
 - 19) Vu, H.L., et al.: Combined simultaneous distraction osteogenesis of the maxilla and mandible using a single distraction device in hemifacial microsomia. *J Craniofac Surg*, 12 : 253-258, 2001.
 - 20) Satoh, K., et al.: Maxillo-mandibular distraction osteogenesis for hemifacial microsomia in children. *Ann Plast Surg*, 49 : 572-579, 2002.
 - 21) Nakajima, H., et al.: Maxillary-driven simultaneous maxillo-mandibular distraction for hemifacial microsomia. *J Craniomaxillofac Surg*, 30 : 1-5, 2010.
 - 22) Hanson, P.R., et al.: Orthodontic management of the patient undergoing mandibular distraction. *Semin Orthod*, 5 : 25-34, 1999.
 - 23) Hanson, P.R., et al.: Surgical/orthodontic treatment of mandibular asymmetries. *Semin Orthod*, 15 : 268-278, 2009.
 - 24) Kaban, L.B., et al.: Three-Dimensional approach to analysis and treatment of hemifacial microsomia. *Cleft Palate J*, 18 : 90-99, 1981.
 - 25) Kaban, L.B., et al.: Surgical correction of hemifacial microsomia in the growing child. *Plast Reconstr Surg*, 82 : 9-19, 1988.
 - 26) Klein, C., et al.: Lengthening of the hypoplastic mandible by gradual distraction in childhood — a preliminary report. *J Craniomaxillofac Surg*, 23 : 68-75, 1995.
 - 27) Swanson, L.T., et al.: Asymmetries of the lower part of the face, In symposium on reconstruction of jaw deformity, Whitaker JA and Randall P, St. Louis: The C.V. Mosby Co., 16 : 171-196, 1978.
 - 28) Murray, J.E., et al.: Analysis and treatment of hemifacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 74 : 186-199, 1988.
 - 29) Carls, F.R., et al.: Seven years clinical experience with mandibular distraction in children. *J Craniomaxillofac Surg*, 26 : 197-208, 1998.
 - 30) Kusnoto, B., et al.: A longitudinal three-dimensional evaluation of the growth pattern in hemifacial microsomia treated by mandibular distraction osteogenesis: a preliminary report. *J Craniofac Surg*, 10 : 480-486, 1999.
 - 31) Kearns, G.J., et al.: Progression of facial asymmetry in hemifacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 105 : 492-498, 2000.
 - 32) Rune, B., et al.: Growth in hemifacial microsomia studied with the aid of roentgen stereophotogrammetry and metallic implants. *Cleft Palate J*, 18 : 128-146, 1981.
 - 33) Polley, J.W., et al.: Longitudinal analysis of mandibular asymmetry in hemifacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 99 : 328-339, 1997.
 - 34) Posnic, J.C.: Surgical correction of mandibular hypoplasia in hemifacial microsomia: a personal perspective. *J Oral Maxillofac Surg*, 56 : 639-650, 1998.
 - 35) Shetye, P.R., et al.: Long-term stability and growth following unilateral mandibular distraction in growing children with craniofacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 118 : 985-995, 2006.
 - 36) Huisinga-Fischer, C.E., et al.: Longitudinal results of mandibular distraction osteogenesis in hemifacial microsomia. *J Craniofac Surg*, 14 : 924-933, 2003.
 - 37) Meazzini, M.C., et al.: Mandibular distraction osteogenesis in hemifacial microsomia: Long-term follow-up. *J Craniomaxillofac Surg*, 33 : 370-376, 2005.
 - 38) Iseri, H., et al.: Ten-year follow-up of a patient with hemifacial microsomia treated with distraction osteogenesis and orthodontics: an implant analysis. *Am J Orthod Dentofacial Orthop*, 134 : 296-304, 2008.
 - 39) Nagy, K., et al.: No evidence for long-term effectiveness of early osteodistraction in hemifacial microsomia. *Plast Reconstr Surg*, 124 : 2061-2071, 2009.