ナビゲーションシステムを用いて形成術を施行した 上顎線維性異形成症の1例

杉山 聡美¹⁾・岩井 俊憲¹⁾・大橋 伸英¹⁾
矢島 康治²⁾・大澤 孝行³⁾・藤内 祝¹⁾

A case of maxillary fibrous dysplasia treated by surgery using a navigation system

SUGIYAMA Satomi¹⁾・IWAI Toshinori¹⁾・OHASHI Nobuhide¹⁾
YAJIMA Yasuharu²⁾・OSAWA Takayuki³⁾・TOHNAI Iwai¹⁾

Abstract: Fibrous dysplasia (FD) is a bone lesion characterized by replacement of the normal bone structure with fibro-osseous connective tissue. Maxillofacial FD causes facial asymmetry. However, reduction surgery via an intraoral approach is very challenging and can provide insufficient results. We report navigation-guided bone reduction surgery for maxillary FD and obtained favorable results. A 23-year-old man with FD of the maxilla underwent bone reduction surgery using a navigation system after preoperative planning including the mirroring method. The patient could obtain facial symmetry after surgery, and there was no facial asymmetry 9 years 3 months after surgery.

Key words: fibrous dysplasia (線維性異形成症), navigation system (ナビゲーションシステム), maxilla (上顎)

緒 言

Fibrous dysplasia (FD) は、未熟な骨組織と線維性結合組織によって正常な骨組織が置換される非腫瘍性骨病変である。小児や若年者に好発し、男性よりも女性に多く^{1,2)}、単骨性と多骨性に分類される^{1,3,4)}。好発部位は長管骨、頭蓋顎顔面骨、肋骨であり、顎顔面骨にFDが生じた場合、顔面非対称が生じるため骨削除術が行われる。しかし、口腔内アプローチは視野が限定され、術中に顔面の対称性を客観的に確認することが困難であるため、術後に良好な顔貌が得られないことが少なくない。しかし、近年、術中に操

作部位をリアルタイムに確認できるナビゲーションシステムがFDの骨削除術に応用され、その有用性が報告されている⁵⁻⁹⁾。今回われわれは、上顎に生じたFDに対し、ナビゲーションシステムを用いた形成術を行うことで良好な結果が得られたので報告する。

症 例

患 者: 23歳, 男性。

初 診: 2008年8月。

主 訴: 顔面非対称。

既往歴: 花粉症。

現病歴: 18歳時に通院していた耳鼻咽喉科にて右側鼻腔の狭小化と右上顎の膨隆を指摘されたため、某病院口腔外科を受診した。生検でFDと診断され、経過観察されていた。しかし、その後も徐々に上顎が膨隆し顔貌の非対称が強くなったため、手術が必要と判断された。通常の口腔内アプローチによる手術では視野が限定され、必要な骨削除量が得られない可能性が高いため、当院で行っているナビゲーションシステムを用いた形成術について説明を受け、2008年10月に当科紹介受診となった。

現 症:

全身所見: 特記すべき異常は認めなかった。

¹⁾ 横浜市立大学大学院医学研究科顎顔面口腔機能制御学
(主任: 藤内 祝教授)

²⁾ 藤枝市立総合病院歯科口腔外科
(主任: 渡貫 圭部長)

³⁾ 横浜市立市民病院歯科口腔外科
(主任: 大澤孝行部長)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine (Chief: Prof. TOHNAI Iwai)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Fujieda Municipal General Hospital (Chief: Dr. WATANUKI Kei)

³⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokohama Municipal Citizen's Hospital (Chief: Dr. OSAWA Takayuki)

受付日: 2018年2月14日

採択日: 2018年7月31日

写真1 初診時顔貌写真
右側頬部の膨隆を認める。

写真2 CT写真
スリガラス状の高吸収域を伴う右側上顎の膨隆を認める。

写真3 3D-CT画像
右側上顎骨・頬骨の膨隆を認める(矢頭：チタンマーカー)。

口腔外所見；右側鼻翼から頬部にかけて膨隆を認めた(写真1)。右側眼窩下神経の知覚鈍麻や複視は認めなかった。

口腔内所見；右側上顎歯肉唇移行部から頬側にかけて骨様硬の膨隆を認めた。

画像所見；CTではスリガラス状の高吸収域を伴う右側上顎の膨隆を認めた(写真2)。その他の部位に病変はみられなかった。

臨床診断；右側上顎FD。

処置および経過；右側上顎の膨隆した骨を顔面の対称性が得られるように削除するために、ナビゲーションシステムを用いた形成術を計画した。入院前の外来で、チタンマーカーを固定したオクルーザルスプリントを上顎歯列に装着した状態でCT撮影を行った(写真3)。術前に撮影していたCTのDICOMデータをソフトウェアにインポートした後、健側をミラーリングし患側に重ね合わせることで、術前プランニングを行った。そのデータをメドトロニック

社製のナビゲーションシステム(ステルスステーション®)にインポートした。経口挿管後、リファレンスフレームをヘッドバンドで前額部に固定した。その後、オクルーザルスプリントを上顎歯列に装着し、プランニングしたCTデータと患者を一致させるために、6個のチタンマーカーを用いてポイントレジストレーションを行った。ナビゲーションの誤差は1mmと十分な精度であったため(写真4)、オクルーザルスプリントを外したうえで手術を開始した。2] 近心に縦切開を行い、7] まで歯肉縁切開を行った。その後、骨膜下を剥離し、膨隆した上顎骨を明示した。超音波骨切削器(SONOPET®)にリファレンスを装着した後、SONOPET®先端がナビゲーションされるようにキャリブレーションを行った。ナビゲーションガイド下にミラーリング像を指標にしながら、膨隆した骨にミラー像の深さま

写真4 レジストレーション画像

A: 6個のチタンマーカーの装着されたオクルーザルプレート。

B: レジストレーション中のナビゲーションシステムのモニター画像。

チタンマーカーを用いているポイントレジストレーションの誤差は1.0mmである。

写真5 術中写真

A・B・C・D: 右側上顎の膨隆した骨にミラーリング像の深さまで SONOPET® で複数のグループを入れ、ラウンドバーで平坦になるよう骨削除した (矢印: SONOPET® に装着したリファレンス 矢頭: 前額部に装着したリファレンス)。

でグループを入れた後に、グループをつなげるようにラウンドバーで骨の削除を行った (写真5)。術中、患者頭部に固定したリファレンスに助手が触れたことでナビゲシ

ョンの誤差が生じたため、オクルーザルスプリントを再度装着し、再レジストレーションを行った。ナビゲーションの誤差が1mm以内になった後、手術を再開した。その後、

写真6 ナビゲーション画像

プローブを口腔内から挿入し、健側をミラーリングした画像まで骨の削除が行えているか確認している。十字の中心はプローブ先端を示す。

写真8 術直後3D-CT画像

右側上顎の膨隆していた骨は良好に削除されている。

写真7 病理画像 (H-E 染色)

骨芽細胞を欠いた線維性結合組織の増生や不規則な形態の線維骨を認める。

写真9 術前計画にて健側をミラーリングした画像と術後のCT画像の重ね合わせ

多くの部分では2 mm未満の誤差で骨の削除が行えている。術野の展開の問題で辺縁に近づくほど誤差が大きくなっている。

プローブで骨削除断端部を触れることで、計画通りの骨削除が行えているかナビゲーションシステムのモニター上で確認しながら、十分な骨削除量が得られるまで手術を行った(写真6)。止血確認後、歯肉を縫合した。手術時間は4時間7分、出血量は50mLであった。

病理組織学的所見：骨芽細胞を欠いた線維性結合組織の

増生や、既存の周囲骨に癒着した不規則な形態の線維骨が認められた(写真7)。

病理組織学的診断：FD。

術後経過：術後に撮影したCTで膨隆していた上顎の骨は良好に削除されていた(写真8)。Materialise社製の3-matic®を用いてICP法(Iterative Closest Point)により、

写真 10 術後 9 年の顔貌写真
左右対称な顔貌が得られている。

写真 11 術後 9 年の CT 写真
右側上顎の骨削除部は時間経過に伴い
一部増大しているが軽度である。

術前計画と術後の CT の 3D モデルを重ね合わせたところ、多くの部分は 2 mm 未満の誤差であった (写真 9)。術後経過は良好であり、術後 9 年経過するも左右対称な顔貌が得られている (写真 10, 11)。

考 察

FD は未熟な骨組織と線維性結合組織によって骨組織が置換される病変であり、頭頸部領域に発症する FD は全体の 10～20%程度とされ、そのうち 70%を上顎骨が占める^{10, 11)}。骨格の成熟に伴って病態は安定するため、思春期成長を終えるまで経過観察したのちに、審美的な目的で減量術が行われることが多い¹²⁾。しかし、健側と比べながら術中に骨の削除量を決定するため、片側のみの展開では対称性が把握しにくく、とくに口腔内アプローチでは視野が限られるため、3D モデルを作製して術前シミュレーションを行ったとしても十分な削除が行えないことが多い。そのため、術中に対称性をリアルタイムに確認できる手術支援システムが求められる。

ナビゲーションシステムは、術前に撮影された画像をもとに、術中に操作部位を 3 次元的に確認することができる手術支援システムであり、近年、口腔顎顔面外科手術にも導入されている^{5-9, 13-16)}。FD に対してもナビゲーションシステムを用いた形成術は有用とされており^{5, 6, 8, 9, 16)}、健側をミラーリングして患側に重ね合わせることで、対称性を確認しながら術中に容易に骨の削除量を決定することができるため、術者の技量や経験に依存せず正確な手術が可能となる^{5, 6, 8, 9, 16)}。Wang ら⁶⁾は、頬骨や上顎骨などの 13 例の FD に対してナビゲーションシステムを用いた形成術を行い、術前のプランニング (ミラーリング) と術後の CT 画像の重ね合わせでは、2 mm 未満の誤差であったと報告している。また、Gui ら⁸⁾も 21 例の FD に対してナビゲーションシステムを用いた形成術を行い、術前プランニングと術後 CT 画像の誤差は 1 mm 未満であったと述べている。本症例でも、術前にミラーリングを行ったうえでナビゲーションシステムを用いた形成術を行ったため、左右対称になるように骨の削除を行うことができ、良好な顔貌を得ることができた。

ナビゲーションシステムを用いた形成術を行う場合、ナビゲーションの誤差を術中に適宜確認する必要がある。患者に装着したリファレンスが術者や助手に当たることによって誤差が大きくなり、誤差の確認を怠り手術を継続した場合には、骨削除の過不足が生じ良好な結果が得られなくなる。したがって、リファレンスに触れないように注意しながら手術を行う必要がある。通常、上顎の手術を行う場合には、ヘッドバンドでリファレンスを前額部に固定することが多く、助手が術中にリファレンスに触れた場合には誤差が大きくなるため、再レジストレーションが必要となる。皮膚を指標としたレジストレーションでは術中の軟組織の腫脹によりレジストレーションの誤差が大きくなり、ナビゲーションの継続が困難となる。そこで、本症例では術中に着脱可能なオクルーザルスプリントにリファレンスポイント

となるチタンマーカークを装着し、ナビゲーションシステムを用いた形成術を行った。リファレンスマーカークを装着したオクルーザルスプリントを用いる方法は、リファレンスのずれが生じた場合でも容易に再レジストレーションを可能とし、手術中に障害になる場合には外しておくこともできるため、有用な方法と考えられる。また、症例によっては歯列に装着するオクルーザルスプリントの健側にリファレンスを固定することで、ナビゲーションシステムを用いた形成術の妨げにならないような工夫も行っている¹⁷⁾。

一方で、ナビゲーションシステムを応用した骨削除術を行う場合には、システムの導入にコストがかかる点、マーカークを装着した術前画像が必要である点、術中に行うレジストレーションに時間がかかる点などの課題がある。レジストレーションやキャリブレーションなどに要する時間は、ナビゲーションシステムの操作法に熟練することや、システムの改良により短縮を図ることが可能と考えられる。また、オクルーザルスプリントの場合には、スプリントの固定源となりうる歯列が必要であるため、無歯顎の患者や残存歯に著しい動揺がある患者では、着脱を繰り返すオクルーザルスプリントは適用できない。その場合には、スクリューを顎堤に埋入するか、解剖学的ランドマークや皮膚上のマーカークを指標としたレジストレーション法を検討する必要がある。

結 語

今回われわれは、上顎に生じたFDに対し、ナビゲーションシステムを用いた形成術を行った。術後画像の重ね合わせでは、上顎の膨隆部は術前計画通り削除でき、左右対称な形態を得ることができたため、本方法の有用性が示された。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

引 用 文 献

- 1) Jundt G : Fibrous dysplasia. *In* Barnes L, Eveson JW, eds ; Pathology and Genetics of Head and Neck Tumors. IARC Press, Lyon, 2005, p321-322.
- 2) Schonder A : Fibrous dysplasia of bone with proptosis. *Am J Dis Child* 131: 678-679, 1977.
- 3) Viljoen DL, Versfeld GA, et al : Polyostotic fibrous dysplasia with cranial hyperostosis: new entity or most severe form of polyostotic fibrous dysplasia. *Am J Med Genet* 29: 661-667, 1988.
- 4) Yavuzer R, Khilnani R, et al : A case of atypical McCune-Albright syndrome requiring optic nerve decompression. *Ann Plast Surg* 43: 430-435, 1999.
- 5) Nowinski D, Messo E, et al : Computer-navigated contouring of craniofacial fibrous dysplasia involving the orbit. *J Craniofac Surg* 22: 469-472, 2011.
- 6) Wang X, Lin Y, et al : Image-guided navigation in optimizing surgical management of craniomaxillofacial fibrous dysplasia. *J Craniofac Surg* 22: 1552-1556, 2011.
- 7) Yu H, Shen SG, et al : The indication and application of computer-assisted navigation in oral and maxillofacial surgery -Shanghai's experience based on 104 cases. *J Craniomaxillofac Surg* 41: 770-774, 2013.
- 8) Gui H, Zhang S, et al : Real-time image-guided recontouring in the management of craniofacial fibrous dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 116: 680-685, 2013.
- 9) Wang Y, Sun G, et al : Surgical management of maxillofacial fibrous dysplasia under navigational guidance. *Br J Oral Maxillofac Surg* 53: 336-341, 2015.
- 10) 林 輝嘉, 赤松栄之, 他 : 68歳女性で下顎骨線維性骨異形成症と診断された1例. *日口診誌* 23: 79-84, 2010.
- 11) Barnes L, Verbin R, et al : Disease of the bones and joints. *In* Barnes L, ed ; Surgical pathology of head and neck. Marcel Dekker Inc, New York, 1985, p920-926.
- 12) Lee JS, FitzGibbon EJ, et al : Clinical guidelines for the management of craniofacial fibrous dysplasia. *Orphanet J Rare Dis* 7: 1-19, 2012.
- 13) 岩井俊憲, 松井義郎, 他 : 咀嚼筋隙に生じた静脈奇形に対する内視鏡を併用したナビゲーション支援手術. *日口診誌* 21: 63-68, 2008.
- 14) 岩井俊憲, 松井義郎, 他 : 顔面骨骨折に対するナビゲーション支援手術の経験. *形成外科* 50: 1033-1039, 2007.
- 15) 岩井俊憲, 松井義郎, 他 : 上顎洞内迷入歯摘出術に対するナビゲーションシステムの使用経験. *日口診誌* 20: 142-146, 2007.
- 16) Matsuo A, Kono M, et al : Navigation surgery for Le Fort 1 osteotomy in a fibrous dysplasia patient. *Odontology* 98: 181-184, 2010.
- 17) Iwai T, Mikami T, et al : Use of occlusal splint for noninvasive fixation of a reference frame in orbital navigation surgery. *J Maxillofac Oral Surg* 15: 410-412, 2016.