一卵性双生児の口唇裂症例における顎顔面形態 ——双生児の一方のみに口唇裂が認められた症例——

佐藤 文彦・山田 晃弘*・夏目 長門
新美 照幸・後藤 滋巳*・河合 幹

Oral and maxillofacial morphological investigation of cleft lip in twins ——Cleft lip in only one twin——

Fumihiko SATO・Akihiro YAMADA*・Nagato NATSUME
Teruyuki NIIMI・Shigemi GOTO*・Tsuyoshi KAWAI

Abstract: The development of cleft lip and palate is known to involve genetic and environmental factors. The study of twins with cleft lip is useful in the evaluation of both factors. We investigated two sets of twins, in whom only one twin had clefting, with respect to body weight, height, features, dental arch, and cephalometric analysis to compare the growth gradient.

In conclusion,

1. The facial-growth pattern of the patients with cleft lip was various.
2. There were no maxillofacial characteristics specific to patients with unilateral incomplete type cleft lip.

Key words: cleft lip (口唇裂), monozygotic twins (一卵性双生児), morphological investigation (形態学的調査)

緒 言

口唇、口蓋裂患者の顎顔面形態については過去にくつかの報告がある^{1~3)}。

また、一卵性双生児は同胞間で遺伝子型が同じであるため⁴⁾、身体各部の量的な大きさは高い類似性を示す⁵⁾。そのため、一方に口唇裂、口蓋裂の存する一卵性双生児の同胞間で顎顔面形態を比較することにより、口唇、口蓋裂の顎顔面発育に及ぼす影響を一般人との

比較よりも明確に知ることができる。

今回、卵性診断の結果、一卵性双生児と診断され、一方のみに片側性不完全口唇裂の認められた2組について、双生児間で顎顔面形態および咬合状態の比較を行い、臨床経過とあわせて報告する。

研 究 対 象

1970年から1995年までの25年間に当科を受診した口唇、口蓋裂患者のうち、リコールが可能であった双生児症例は9組であった。フィンガープリント法^{6, 7)}によって卵性診断を行った結果、6組が一卵性双生児と診断され、そのうちの2組は同胞の一方のみに不完全口唇裂を認めた。

症例第1組: 昭和■年■月■日出生の男児双生児。第1子は左側不完全口唇裂(写真1)、第2子は健常児であったが、両児とも他に重篤な全身疾患の合併を認めなかった。生下時、体重と身長は第1子が2,255g, 46.7cm, 第2子が2,048g, 47.5cmであった。第1子は

愛知学院大学歯学部口腔外科学第二講座

(主任: 河合 幹教授)

*愛知学院大学歯学部矯正学講座

(主任: 後藤滋巳教授)

The Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Aichi-Gakuin University (Chief: Prof. Tsuyoshi Kawai)

*Department of Orthodontics, School of Dentistry, Aichi-Gakuin University (Chief: Prof. Shigemi Goto)

受付日: 平成9年10月6日

写真1 症例第1組, 第1子の初診時顔貌

写真2 症例第2組, 第2子の初診時顔貌

表1 各年齢における体重および身長百分率偏差
(文献8より)

	体 重		身 長	
	男・男	女・女	男・男	女・女
7歳	2.28092	2.31576	0.52284	0.52508
11歳	2.39106	2.55153	0.51814	0.60622

表2 本症例における百分率偏差

	体 重	身 長
症例1 [redacted] (男・男)	1.44927	0.22173
症例2 [redacted] (女・女)	3.81679	0.38860

研 究 方 法

1. 体 格

双生児間の発育状態の類似度を調べるために、患児ならびに同胞健常児の体重、身長を測定し、大木ら⁸⁾の方法にしたがって患児と同胞健常児の百分率偏差を求めた。その結果を一般健常児の百分率偏差を参考に検討した。

2. 顔 貌

初診時には正面像のみ、学童期以降のリコール時にはイヤードットにより患者の顔面を固定し、正面像と側面像のボラロイド写真を撮影した。

3. 咬合状態

リコール時にアルジネート印象材にて印象採得を行った後、石膏模型を作成した。また、咬合状態の正面像をボラロイド写真にて撮影した。

4. セファログラム分析

側方頭部X線規格写真による分析を行い、患児と同胞健常児の間で比較した。なお、セファログラム分析の主な比較項目としては、上顎骨の位置、上顎骨の矢状方向の大きさ、上顎骨の垂直方向の大きさ、下顎骨の位置、下顎骨の骨長、下顎骨々体長、下顎枝長、Gonial angleを用いた。また、直交座標法による各計測点からの高さおよび深さの計測値を基にプロフィログラムを作成し、患児と同胞健常児の比較を行った。

生後[redacted]目に Millard 法にて口唇形成術を施行している。

[redacted]時の所見として、体重と身長は第1子が17.5kg、112.5cm、第2子が17.0kg、113.0cmであった。

症例第2組：昭和[redacted]年[redacted]月[redacted]日出生の女児双生児。第1子は健常児で、第2子に左側不完全口唇裂を認めたが(写真2)、両児とも他に重篤な全身疾患の合併はみられなかった。生下時の体重、身長は不明であった。第2子は[redacted]か月目に Millard 法にて口唇形成術を施行。[redacted]時より前歯部の反対咬合について矯正治療を勧められるが、都合により治療は行っていない。その後、[redacted]時および[redacted]時に口唇再形成術を施行。

[redacted]時の所見として、体重と身長は第1子が68.0kg、153.8cm、第2子が63.0kg、155.0cmであった。

なお、家族歴については2組とも両親は血族結婚ではなく、家系内に同様の疾患を認めなかった。

写真 3-a 症例第 1 組, 第 1 子
正面像 (■■■■時)

写真 3-c 症例第 1 組, 第 1 子
側面像 (■■■■時)

写真 3-b 症例第 1 組, 第 2 子
正面像 (■■■■時)

写真 3-d 症例第 1 組, 第 2 子
側面像 (■■■■時)

結 果

1. 体 格

今回の 2 組の一卵性双生児と一般健常児の各年齢層における体重および身長百分率偏差を比較すると(表 1), 症例第 1 組の体重, 身長はともに 1.44927,

0.22173 と低値であり, 高い類似度を示した(表 2). 症例第 2 組について, 大木ら⁸⁾の報告では 11 歳時までの類似度を比較しているため, 該当する比較値はないが, 体重では高値, 身長では低値を示すものと思われる.

2. 顔 貌

症例第 1 組では, 患児の上唇が同胞健常児と比較し

写真 3-e 症例第 2 組, 第 1 子
正面像 (■時)

写真 3-g 症例第 2 組, 第 1 子
側面像 (■時)

写真 3-f 症例第 2 組, 第 2 子
正面像 (■時)

写真 3-h 症例第 2 組, 第 2 子
側面像 (■時)

てわずかに後方に位置している以外は、特に違いを認めなかった。症例第 2 組では、両児ともに下顎前突の顔貌を表していた(写真 3)。

3. 咬合状態

症例第 1 組における咬合状態は、同胞健常児では Angle 分類 1 級、患児では Angle 分類 2 級だが、上顎

歯列弓の狭窄は認められず両児共に歯列弓形態は良好であった。症例第 2 組では同胞健常児の over jet, over bite はともに低値を示し、患児の下顎歯列弓の幅径は大きく、反対被蓋を呈していた。両児ともに咬合状態は Angle 分類 3 級であり、下顎前突傾向を示していた(写真 4)。

写真 4-a 症例第1組, 第1子
(咬合状態)

写真 4-c 症例第2組, 第1子
(咬合状態)

写真 4-b 症例第1組, 第2子
(咬合状態)

写真 4-d 症例第2組, 第2子
(咬合状態)

4. セファログラム所見

1) 骨格系

症例第1組の A'-Ptm' について患児と同胞健常児を比較すると、患児は43.2、同胞健常児は46.4と患児の値が小さく、同胞健常児に比べて上顎骨の劣成長を認めたが、下顎骨の発育に著明な差はみられなかった。症例第2組では、上顎骨の発育にはほとんど差は認められなかったが、下顎骨に関しては両児とも Gn-Cd が1S.D.を超えて大きかった。また、Pog'-Go は患児の方が大きく、結果として患児の下顎骨は同胞健常児に比べてやや過成長を示していた(図1, 2)。

2) 歯牙系

症例第1組では著明な差はみられなかった。症例第2組については、患児の方が下顎骨が過成長を示し、なおかつ前方位にあるため、その補正として U-1 to FH plane が大きくなり、上顎前歯の唇側傾斜が著明であった(図1)。

考 察

今回の症例では、症例第1組の体重、身長において大木ら⁸⁾の報告による百分率偏差値よりも低値であり、高い類似性を示していた。また、身長、体重は年齢とともにその百分率偏差が高くなっていくことが推察されるため、そのことを考慮して比較してみると、症例第2組に関して身長は症例第1組と同様に低い百分率偏差であると思われる。一方、体重は高値を示した。この理由としては思春期以降で環境要因の影響を強く受けたためであることが考えられる。したがって、今回の2組は、それぞれ同様の発育状態であるものと思われる。

次に、各症例の顎顔面形態を比較すると⁹⁾、症例第1組では長顔型 (Dolico-facial pattern) であり、症例第2組では短顔型 (Brachyo-facial pattern) となっており、各組で異なった顎顔面形態を示していた。さらに詳細に比較すると、症例第1組では口唇形成術が

ROENTGEN CEPHALOMETRIC ANALYSIS
—Angular Analysis—
(ⅢA 7y 8m±1.2)
7y 11m

	Mean	S.D.	患 児	健常児	
1. Facial angle	83.7	3.3	78.1	79.6	
2. Convexity	163.5	5.3	168.2	164.9	
3. A-B plane	-6.7	2.4	-4.2	-7.4	
4. Mandibular plane	31.5	5.1	33.0	31.8	
5. Y-axis	63.8	3.6	65.7	64.5	
6. Occlusal plane	14.5	4.0	20.4	17.1	
7. Interincisal	133.9	12.1	122.1	120.9	
8. L-1 to Mandibular	89.5	6.5	97.8	94.9	
9. FH to SN	8.0	3.0	12.0	10.4	
10. SNP	75.9	5.5	66.1	69.1	
11. Y-axis (SN)	71.6	1.93	77.7	74.9	
12. SNA	81.4	3.3	71.9	76.4	
13. SNB	76.2	9	67.6	70.2	
14. U-1 to FH plane	104.8	9.0	107.2	112.6	
15. U-1 to SN plane	96.8	8.2	95.2	102.1	
16. Gonial angle	130.1	1.3	130.1	123.8	
17. Ramus inclination(SN)	89.4	5.3	95.1	98.5	
18. Ramus inclination(FH)	81.6	4.4	83.0	88.1	

(Standard by Iizuka)

ROENTGEN CEPHALOMETRIC ANALYSIS
—Dimensional Linear Analysis—
7y 8m (6y 2m~8y 11m)
7y 11m

	Mean	S.D.	患 児	健常児	
1. N-S	64.6	2.8	67.2	65.9	
2. N-Me	107.0	4.7	107.9	104.3	
3. N-Ans	47.8	2.7	48.8	48.6	
4. Ans-Me	62.4	3.3	61.0	58.4	
5. S'-Ptm'	17.9	2.3	17.1	17.7	
6. A'-Ptm'	44.5	2.1	43.2	46.4	
7. Ptm'-Ms	12.2	2.0	8.6	11.5	
8. A'-Ms	33.1	1.9	34.6	34.9	
9. Is-Is'	27.0	2.2	27.5	23.4	
10. Mo-Ms	17.8	1.9	14.3	14.1	
11. Is-Mo	35.9	2.0	38.8	37.5	
12. Gn-Cd	98.6	4.6	94.5	92.9	
13. Pog'-Go	65.1	4.3	63.1	64.4	
14. Cd-Go	48.7	3.8	43.4	43.9	
15. Ii-Ii'	39.2	1.4	36.5	37.5	
16. Mo-Mi	29.1	2.0	27.7	27.3	
17. Ii-Mo	32.2	1.9	34.7	34.3	
18. S-S'(FH)	18.4	2.1	13.2	13.2	

(Standard by Sakamoto-Miura-Iizuka)

— 患 者
---- 健常児

症例第1組
図1-a セファログラム

ROENTGEN CEPHALOMETRIC ANALYSIS
—Angular Analysis—
(Female Adults)
25y 0m

	Mean	S.D.	患 児	健常児	
1.Facial angle	84.8	3.1	91.4	89.0	
2.Convexity	7.6	5.0	-0.5	4.0	
3.A-B plane	-4.8	3.5	2.7	-1.7	
4.Mandibular plane	28.8	5.2	23.0	24.2	
5.Y-axis	65.4	5.6	60.2	62.0	
6.Occlusal plane	11.4	3.6	3.8	5.3	
7.Interincisal	124.1	7.6	108.7	67.0	
8.L-1 to Occlusal	23.8	5.3	27.9	26.1	
9.L-1 to Mandibular	96.3	5.8	98.6	97.3	
10.U-1 to A-P plane	8.9	1.9	10.2	9.9	
11.FH to SN plane	6.2	2.9	6.3	6.2	
12.SNA	82.3	3.5	84.8	84.9	
13.SNB	78.9	3.5	86.0	83.4	
14.SNA-SNB diff.	3.4	1.8	-1.2	1.5	
15.U-1 to N- P plane	11.7	2.7	10.0	11.3	
16.U-1 to FH plane	111.1	5.5	129.9	121.7	
17.U-1 to SN plane	104.5	5.6	123.5	115.6	
18.Gonial angle	122.2	4.6	122.2	122.8	
19.Ramus inclination(FH)	2.9	4.4	9.1	8.6	
20.SN-NF	8.3	2.5	6.1	10.1	

(Standard by Iizuka)

ROENTGEN CEPHALOMETRIC ANALYSIS
—Dimensional Linear Analysis—
19y 7 m (18y 5 m~27y 4 m)
25y 0 m

	Mean	S.D.	患 児	健常児	
1.N-S	68.4	2.4	68.3	68.5	
2.N-Me	125.4	4.6	126.4	125.2	
3.N-Ans	55.3	2.7	49.5	52.2	
4.Ans-Me	72.2	3.7	77.3	73.9	
5.S'-Ptm'	19.1	2.9	18.9	21.7	
6.A'-Ptm'	48.3	2.5	49.9	51.0	
7.Ptm'-Ms	19.2	2.8	22.5	24.4	
8.A'-Ms	26.9	2.5	27.4	26.6	
9.Is-Is'	31.9	2.0	31.9	29.0	
10.Mo-Ms	24.2	1.9	28.5	27.1	
11.Is-Mo	33.6	2.3	38.2	36.9	
12.Gn-Cd	119.3	4.4	126.6	125.3	
13.Pog'-Go	77.2	3.8	81.9	78.0	
14.Cd-Go	62.4	4.9	66.7	67.9	
15.Ii-Ii'	44.5	1.5	48.4	47.6	
16.Mo-Mi	33.8	2.2	36.8	37.2	
17.Ii-Mo	30.4	2.2	30.7	27.4	
18.S-S'(FH)	20.7	2.8	21.1	21.1	

(Standard by Sakamoto-Miura-Iizuka)

— 患 者
---- 健常児

症例第2組

図1-b セファログラム

図2 プロフィログラム

原因と思われる上顎骨の成長に対する影響は存在するものの、他の顔面骨の成長発育に影響を及ぼしているような所見は認められなかった。しかし症例第2組では患児の上顎骨に劣成長は認められず、同胞健常児とともに下顎の過成長を呈していた。

片側性不完全口唇裂症例における口唇形成術の顎発育への影響については、完全口唇裂、口唇口蓋裂に比べると弱いながらも、術後瘢痕や口唇圧が上顎に慢性的な発育抑制が加わる可能性があることをわれわれはこれまでに報告してきた¹⁰⁻¹²⁾。また、手術法によっても発育抑制の程度が異なり、われわれのこれまでの研究¹¹⁾で報告したごとく、三角弁法よりも rotation-advancement flap operation (Millard 法)の方が術後の口唇圧が増大する傾向が示されたことから、Millard 法を用いた症例第1組では披裂の程度が軽度であるにも関わらず、口唇形成術による上顎の発育抑制が認められたことが類推できる。しかし、同一方法にて施行された症例第2組では上顎骨の劣成長を認めなかった。この理由としては組織量が豊富であり、術後の口唇圧があまり高くならなかったことや、術後の瘢痕形成が僅かであったことなどが考えられる。したがって症例第1組と第2組を比較すると、顎顔面形態が全く異なるにも関わらず、どちらも同胞間では同様の顎顔面形態を示しており、健常児がさまざまな顎顔

面形態をとることと同様、片側性不完全口唇裂が存在している患児もそれぞれ異なった顎顔面形態をとることが示唆された。

菅又ら¹³⁾は一卵性双生児の双方に生じた不完全口唇裂の症例を報告しており、そのなかで不完全口唇裂の発現に遺伝的要因が優位に作用している可能性を示している。ところが症例第1組の患児のみに上顎骨の劣成長を認めたことにより、片側性不完全口唇裂症例では遺伝的要因の影響を受けた特有の顎顔面形態が存在することはなく、上顎の劣成長は口唇形成術による影響が主要因であることが示唆された。

本報告では症例数が2例であるため、断定的なことを述べることはできないが、一卵性双生児を用いた口唇、口蓋裂患者の顎顔面形態を分析した報告では、一方のみに不完全口唇裂が認められた症例を扱ったものは認められず、今後さらに症例数を増やして検討する必要がある。

また、一卵性双生児の一方のみに口唇、口蓋裂が発現した理由として、吉増¹⁴⁾、高田ら¹⁵⁾、菅又ら¹³⁾は一卵性双生児の同胞間での披裂の不一致例を報告しており、菅又らは子宮内での胎児の位置や、胎盤からの血行などの局所的な要因が環境因子として働いたことが推測されるとしている。

ま と め

今回、われわれは一方のみに片側性不完全口唇裂の認められた2組の一卵性双生児における患児と同胞健常児の体重、身長、顔貌写真、上下歯列弓模型および側方頭部X線規格写真によるセファロ分析の比較を行った。その結果、片側性不完全口唇裂が存在している患児も健常児と同様に、顎顔面形態は多様性を示し、口唇裂特有の顎顔面形態は認められなかった。

引用文献

- 1) 長谷田泰男：口蓋裂初回手術前・後の顎顔面発育—頭部X線規格写真による分析。日形会誌 8: 1329-1343 1988.
- 2) 田代英雄：初回手術前後の口唇裂口蓋裂児の顎発育。日口蓋誌 19: 216-221 1994.
- 3) 須佐美隆三：矯正歯科臨床における口唇裂口蓋裂—顎顔面成長の視点から—。日口蓋誌 17: 285-293 1992.
- 4) 田中克己：基礎人類遺伝学。裳華房（東京），1976, 95-98, 154-163.
- 5) Clark, P.J.: The heritability of certain anthropologic characters as ascertained from measurements of twins. Am J Human Genet 8: 49 1959.
- 6) Jeffreys, A.J.: Hypervariable minisatellite regions in human DNA. Nature 317: 818-819 1985.
- 7) 浅香昭雄, 大木秀一：DNA フィンガープリントによる卵性診断。周産期医学 19: 1681-1684 1989.
- 8) 大木秀一, 浅香昭雄：双生児の出生時から11歳時までの体重・身長の類似度の変化。小児保健研究 52: 447-456 1993.
- 9) 根津 浩, 永田賢司, 他：バイオプログレッシブ診断学。ロッキーマウンテンモリタ（東京）：1989, 40-47.
- 10) 阿部本晴：口唇形成術後における上顎歯弓の経時的変化に関する研究。日口外誌 20: 248-267 1974.
- 11) 北島 正：口唇形成手術による口唇圧の変化に関する研究。日口蓋誌 2: 1-12 1977.
- 12) 橋本 治：口唇縫合創の治療に関する実験的研究—瘢痕の引張り強さ、ハイドロキシプロリン定量、組織所見について—。日口外誌 31: 21-35 1985.
- 13) 菅又 章, 渡辺信介, 他：一卵性双生児に生じた唇裂・口蓋裂の2症例。日形会誌 5: 272-279 1985.
- 14) 吉増秀實：唇顎口蓋裂患者の顎顔面形態に関する研究。口病誌 45: 408-441 1978.
- 15) 高田保之, 大村由美子, 他：口蓋裂不一致症例の一卵性双生児二組における頭蓋顔面形態。日矯歯誌 42: 499-500 1983.