下顎骨延長術で閉塞性睡眠時無呼吸症候が改善した小下顎症の1例

石川 均・佐藤 豊・愛甲勝哉
新井直也・松原 望*・天笠光雄

A case of micrognathia with obstructive sleep apnea improved by mandibular distraction osteogenesis

ISHIKAWA Hitoshi · SATOU Yutaka · AIKO Katsuya
ARAI Naoya · MATSUBARA Nozomu* · AMAGASA Teruo

Abstract: Obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) is a life-threatening breathing disorder. We describe a patient with micrognathia and OSAS who underwent mandibular advancement by bilateral mandibular distraction osteogenesis. A 36-year-old man had micrognathia due to neonatal bilateral temporomandibular joint ankylosis. He also had severe OSAS. Conservative treatment for OSAS, such as continuous positive airway pressure, had been attempted at another hospital, but was not successful. Before mandibular distraction, sleep apnea was severe; the apnea hypopnea index (AHI) was 63, and the Epworth sleepiness scale (ESS) was 8. After distraction, AHI and ESS greatly improved to 8 and 1, respectively. Cephalometric analysis showed that the widths of the upper airways had increased. In conclusion, mandibular advancement by distraction osteogenesis was effective for correcting micrognathia associated with OSAS. There has been no relapse of malocclusion and no recurrence of OSAS for 2 years after the operation.

Key words: micrognathia (小下顎症), obstructive sleep apnea syndrome (閉塞性睡眠時無呼吸症候群), mandibular distraction osteogenesis (下顎骨延長術), polysomnography (睡眠ポリグラフ)

緒 言

閉塞性睡眠時無呼吸症候群 (obstructive sleep apnea syndrome, 以下, OSAS) は, 睡眠中に上気道の閉塞が生じ, 無呼吸が出現する疾患である。その原因はさまざまであるが, 小下顎症のような顎の形態異常はリスクファクターになる^{1~5)}。今回われわれは, OSAS を伴った小下顎症患者に遭遇し, 下顎骨延長術および術前術後の簡易睡眠ポリグ

ラフ (polysomnography, 以下, PSG) を行う機会を得たのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 39 歳, 男性。

初 診: 1972 年 2 月 ■。

主 訴: 下顎の劣成長とひどいいびき。

家族歴: 特記すべき事項なし。

既往歴: 生後 2 か月頃に肺炎に罹患した。2 歳頃より喘息に罹患し, 現在も内科で通院加療中である。

現病歴: 1966 年正常分娩にて出生した。生後 2 か月頃, 母親が開口障害に気づき某大学口腔外科受診し, 両側顎関節強直症と診断されるも年齢から経過観察となった。1972 年 2 月 ■, 開口障害を主訴に当科を受診した。両側顎関節強直症の診断にて, 6 歳および 8 歳時に両側顎関節授動術を施行した。数年の経過観察を行い, 経過良好のため治療を終了とした。2002 年 10 月, 喘息で通院中の内科にて, いびきについて相談した。睡眠時無呼吸症候群 (sleep apnea syndrome, 以下, SAS) の疑いで PSG 検査を行ったところ, 小下顎症による重症の OSAS と診断され, 経鼻式

東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科・顎顔面頸部機能再建学系・顎顔面機能修復学講座・顎顔面外科学分野

(主任: 天笠光雄教授)

* 東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科・口腔機能再構築学系・口腔機能発育学講座・咬合機能矯正学分野

(主任: 相馬邦道教授)

Maxillofacial Surgery, Department of Maxillofacial Reconstruction and Function, Division of Maxillofacial and Neck Reconstruction, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. AMAGASA Teruo)

* Orthodontic Science, Department of Orofacial Development and Function, Division of Oral Health Sciences, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University (Chief: Prof. SOMA Kunimichi)

受付日: 2005 年 9 月 9 日

採択日: 2006 年 3 月 27 日

写真 1 術前の側方頭部 X 線規格写真
下顎の発育不全と下顎前歯の著明な唇側傾斜を認める。

写真 2 骨延長後 1 か月の側方頭部 X 線規格写真
下顎が延長され、前歯部の開咬を認める。

表 1 術前・術後のセファロ分析の結果

項 目	骨延長前	骨延長後	装置除去後
SNA	74°	74°	74°
SNB	60°	63.5°	63°
ANB	14°	10.5°	11°
Facial Angle	65°	68°	69°
L1 to occlusal plane	46.5°	52.5°	32.7°

表 2 術前・術後の PSG の結果

項 目	術 前	術 後
AHI	63	8
AI	35	2
HI	28	6
ESS	8	1

AHI: Apnea-Hyponea Index AI: Apnea Index
HI: Hyponea Index ESS: Epworth Sleepiness Scale

持続陽圧呼吸法 (nasal continuous positive airway pressure, 以下, NCPAP) 治療が開始された。しかし患者は NCPAP の装着感になじまず、2002 年 10 月 ■■■ に小下顎症およびいびきを主訴に当科を再受診した。

現 症：

全身所見：やや痩身で、全身的に異常は認められなかった。

口腔外所見：下顎の著しい後退によりいわゆる鳥貌を呈していた。

口腔内所見：咬合状態はアングルのⅡ級を示しており、水平被蓋は 12.0mm、垂直被蓋は -2.5mm、最大開口量は 29mm であった。

画像所見：パノラマ X 線写真では両側下顎頭が欠損し、

側方頭部 X 線規格写真から下顎の発育不全と下顎前歯の唇側傾斜が認められた (写真 1)。セファロ分析では、SNB 角や facial angle が小さく、ANB 角は大きく、下顎が後退位にあることを示していた (表 1)。

臨床診断：小下顎症および OSAS。

処置ならびに経過：2003 年 3 月 ■■■

■■■, 当科入院下に術前の簡易 PSG, エプワース眠気評価尺度 (Epworth sleepiness scale, 以下, ESS)⁶⁾ 検査を施行した。簡易 PSG 検査には MAP 社製 Pol-MESAM for Windows2.00 を使用した⁷⁾。検査の結果、無呼吸低呼吸指数 (apnea-hyponea index, 以下, AHI) は 63, ESS は 8 であった (表 2)。3 月 ■■■ 全身麻

酔下に両側下顎角部骨切り術、口腔内埋没型骨延長装置 (チューリッヒディストラクターラマス型) 設置術および上下顎の前歯歯槽部に K1 スクリュー設置術を施行した。なお、骨切り線は、下顎第三大臼歯遠心から下顎角部にかけて設定した。5 日間の安静後、骨延長を開始し、14 日間で右側 9.1mm、左側 13.0mm の延長を行った (写真 2)。延長にともない前歯部の開咬が生じたため、これを抑制するために K1 スクリューを用いた顎間ゴム牽引を行った。4 月 ■■■, 術後の簡易 PSG 検査, ESS 検査を施行した。その結果, AHI は 8, ESS は 1 へと改善を認めた (表 2)。また、骨延長前後の側方頭部 X 線規格写真を用いて上気道の上部、中部、下部の前後径を計測したところ^{4, 8, 9)}、それらの距離は 2.3 から 3.0 倍に増加していた (図 1, 表 3)。骨延長終了後 1 か月目のセファロ分析では、SNB 角、ANB 角、Facial angle の改善が認められた (表 1)。前歯部の開咬は残存していたため、引き続きゴム牽引を行い、4 か月後に開咬は消失した。2003 年 12 月 ■■■, 患者自身の希望もあり骨延長装置除去術時にオトガイ形成術を合わせて施行した (写真 3)。延長後と装置除去後の間で SNB 角、ANB 角、Facial angle には大きな変化はなく、開咬の消失による L1 to occlusal plane の顕著な改善がみられた (表 1)。

術後 2 年が経過した現在、下顎の後戻りもなく、咬合は安定している。また、OSAS も認められない。

考 察

OSAS の原因は、肥満、アデノイド、巨舌症などさまざまであるが¹⁰⁾、小下顎症もその原因になりうる。Kerwin ら¹⁾ は、小下顎症での気道狭窄が舌根部で起こり、Moore ら³⁾ は、小下顎症を有する Treacher-Collins 症候群の約 4 分の 1 に OSAS が認められるとしている。

図1 上気道の計測部位を示す模式図

- ①: Go-B に平行な軟口蓋部の最短距離 (上気道上部の前後径) (単位: mm).
 ②: P を通り Go-B に平行な上気道中部の前後径 (単位: mm).
 ③: Go を通り Go-B に平行な上気道下部の前後径 (単位: mm).
 Go: (ゴニオン) 下顎枝後縁平面と下顎下縁平面との2等分線が下顎角骨縁と交わる点.
 B: (Point B) 下顎唇側歯槽骨縁上の最深点.
 P: (tip of soft palate) 軟口蓋の最下点.

表3 術前・術後の上気道の前後径の変化

	術前	術後
上気道上部 (図1の①)	2.0mm	6.0mm
上気道中部 (図1の②)	4.0mm	9.2mm
上気道下部 (図1の③)	2.0mm	6.0mm

PSG 検査は SAS 診断のゴールドスタンダードであり, その検査項目は多岐にわたる. 今回使用した Poly-MESAM は, 簡易型 PSG 検査器であるため脳波, 眼電図などがなく, レム睡眠, ノンレム睡眠などの区別はできないが, 呼吸検査, 心電図, いびき, 胸腹部の動き, 体位などをモニターすることができる⁷⁾. OSAS を伴う小下顎症の治療に骨延長術が有用とされているが¹⁻⁵⁾, このような PSG を用いて外科矯正手術前後の OSAS の評価が行われることは少ない^{4, 5)}. PSG 検査から導きだされる SAS の指標には, 無呼吸指数 (apnea index, 以下, AI), 低呼吸指数 (hyponea index, 以下, HI) これらの和である AHI がある. AI は1時間あたりの無呼吸回数であり, HI は無呼吸には至らないが換気量が50%以下で SaO_2 が4%以上低下した低呼吸状態の1時間あたりの回数と定義されている. Guilleminault ら¹¹⁾ は, SAS の診断基準を $\text{AI} > 5$ としていたが, 最近では

写真3 オトガイ形成後1か月の側方頭部X線規格写真
オトガイ部の形態が改善し, 前歯部の開咬は消失している.

$\text{AHI} > 10$ を SAS の診断基準とすることが多い¹²⁾. SAS の重症度は, AHI が10から20を軽症, 20から40を中等度, 40以上を重症に分類するのが一般的である. 本症例は術前の AHI が63で重症に分類されたが, 術後は AHI が8と SAS に分類されない程度に改善した. 骨延長後の検査結果から, 本症例は下顎の著しい後退位による上気道の狭小化を主要因とする OSAS であったと考えられた.

ESS は, 日中の傾眠に関する8項目の質問に対

して, 自覚に応じて0点から3点までの4段階で各項目を点数化してもらい, その点数を加算したものである. 点数が高いほど傾眠傾向が強いとする評価法である⁶⁾. 本症例の延長前の ESS は8であったが, 延長後は1へと改善した. ただし, 患者自身の主観に依存するため必ずしも再現性のある評価法ではない. ただし NCPAP 治療がなされていたこともあり, 術前にも日中の傾眠傾向はほとんど認められなかった. また SAS 患者にしばしばみられる高血圧症や不整脈などの症状もなかった. 術後, SAS の改善にとともに, 内科での NCPAP 治療は中止となり, 喘息のための内服は継続しているものの発作はみられていない.

骨延長法の顎顔面外科領域での最初の臨床応用例は, 1992年の McCarthy ら¹³⁾ の hemifacial microsomia である. 本邦では, 1993年に高戸ら¹⁴⁾ が下顎骨の延長術を報告して以来さまざまな施設で臨床応用されてきた. 骨延長法が開発される以前は, 小顎症の外科矯正治療は下顎枝矢状分割術が一般的であった¹⁵⁾. しかし, この方法は, 周囲の軟組織に制限されて下顎の十分な移動量を得られにくく, 後戻りが起こりやすいという問題点もあった¹⁷⁾. また, 成長期にある小児には適さない. 骨延長法は, 骨の延長と同時に周囲の皮膚, 筋肉, 血管といった軟組織の拡大が得られるという2つの特徴を有する. このことから, 硬組織延長と軟組織の拡大が必要な小下顎症や hemifacial microsomia への応用が増加している^{16, 17)}. 本症例は, 新生児期の顎関節強直症に起因する著しい小顎症であった. そのため, 大きな移動量を得ることが可能で, 後戻りの懸念が少ない下顎骨延長の適応と考えられた.

顎顔面外科領域に骨延長法が応用された当初, 延長装置

は創外固定装置が主流であった。創外固定装置は、骨延長方向の調節が容易であるが、顔面皮膚の癒着形成や装置が他人から見られるという精神的な問題もあり、近年は口腔内組織埋入型骨延長装置が使用されることが多い^{17~19)}。ただし、口腔内からの操作になるため、下顎の形態によっては設置が困難な場合もある。本症例も下顎枝外斜線の張り出しが強く、装置の設置に苦勞した。また、口腔内延長装置では延長方向の調整が難しく、下顎の延長に伴う開咬の出現が避けられないことが多い。開咬の修正に顎間ゴムなどが使用されている。われわれは、予測される開咬の修正目的で、延長装置設置時に上下顎に K1 スクリューを埋入し、顎間ゴム牽引を行った。今回のように長期のゴム牽引が予測されるような下顎骨延長では、歯への負担を考慮し、スクリューを利用した牽引が望ましいと考えられた。

側方頭部 X 線規格写真を用いた^{4, 8, 9)} 上気道前後径の計測は、OSAS の評価に有効な手段である。本症例においても骨延長後、上気道の前後径の増加が認められ、舌房の拡大や舌骨の前方への移動により気道の拡大がえられたと考えられる²⁾。ただし、Isono ら²⁰⁾ は、覚醒時の検査で OSAS 患者の閉塞部位診断を行うと問題を見逃すことがあると警告している。口腔外科的な疾患と OSAS とは密接な関係にあり、今後評価する機会が増加する可能性がある。その際、頭部 X 線規格写真検査と PSG 検査を併せて行うことが重要であると考えられる。

結 語

今回われわれは、OSAS を伴った症例に対し、下顎骨延長術を施行し咬合改善を行うとともに OSAS の症状の改善を認めた 1 例を経験したので報告した。

本論文の要旨は、第 15 回日本顎変形症学会総会（2005 年 6 月、徳島市）にて発表した。

稿を終えるにあたり、歯科矯正治療および本論文作成に多大なご尽力を賜りました東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科咬合機能矯正学の相馬邦道教授、また検査機器をご提供いただいた小池メディカルの大竹 清氏に感謝いたします。

引 用 文 献

- 1) Kerwin, M.D., Deirder, D.M.D., et al.: Early decannulation with bilateral mandibular distraction for tracheostomy-dependent patients. *Plast Reconstr Surg* 103: 48-57 1999.
- 2) Cohen, S.R., Catherine, S., et al.: Mandibular distraction osteogenesis in the treatment of upper airway obstruction in children with craniofacial deformities. *Plast Reconstr Surg* 101: 312-318 1998.
- 3) Moore, M.H., Guzman-Stein, G., et al.: Mandibular lengthening by distraction for airway obstruction in Treacher-Collins syndrome. *J Craniofac Surg* 5: 22-25

- 1994.
- 4) 天願俊泉, 平塚博義, 他: 下顎骨延長術により治療を行った睡眠時無呼吸症候群の 1 例. *日顎変形誌* 12: 33-41 2002.
- 5) Wang, X., Wang, X.X., et al.: Distraction osteogenesis in correction of micrognathia accompanying obstructive sleep apnea syndrome. *Plast Reconstr Surg* 112: 1549-1557 2003.
- 6) Johns, M.W.: A new method for measuring daytime sleepiness: The Epworth Sleepiness Scale. *Sleep* 14: 540-545 1991.
- 7) 石川 均, 長谷川和樹, 他: 閉塞型睡眠時無呼吸症候群を生じた舌下型顎皮嚢胞の 1 例. *日口外誌* 51: 31-34 2005.
- 8) Pae, E.K., Low, A.A., et al.: A cephalometric and electromyographic study of upper airway structures in the upright and supine position. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 106: 52-59 1994.
- 9) Lowe, A.A., Ono, T., et al.: Cephalometric comparisons of craniofacial and upper airway structure by skeletal subtype and gender in patients with obstructive sleep apnea. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 110: 653-664 1996.
- 10) 榊原博樹: 睡眠時無呼吸症候群の治療. *呼と循* 49: 1069-1077 2001.
- 11) Guilleminault, C., Tilkian, A., et al.: The sleep apnea syndrome. *Annu Rev Med* 27: 465-484 1976.
- 12) Stradling, J.R.: Epidemiology of adult sleep apnea, *Handbook of Sleep-Related Breathing Disorders*. Edited by Stradling, J.R. Oxford, Oxford University Press, 1993, p158-171.
- 13) McCarthy, J.G., Schreiber, J., et al.: Lengthening the human mandible by gradual distraction. *Plast Reconstr Surg* 89: 1-8 1992.
- 14) 高戸 毅, 森 良之, 他: 顎顔面領域における骨延長術の応用. *Hosp Dent (Tokyo)* 10: 2-17 1998.
- 15) 堀内 薫, 久保直修, 他: 開咬を伴った小下顎症に対して口内法による下顎枝仮骨延長術を行った 1 症例. *日顎変形誌* 10: 60-67 2000.
- 16) Lake, S.L., McNeill, R.W., et al.: Surgical mandibular advancement: a cephalometric analysis of treatment response. *Am J Orth* 80: 376-394 1981.
- 17) 畠 賢一郎, 澤木佳弘, 他: 組織埋入型延長器を用いて治療した小下顎症の 1 例. *日口外誌* 45: 357-359 1999.
- 18) Martin, C., and Bryan, A.T.: Distraction osteogenesis in maxillofacial surgery using internal devices: review of five cases. *J Oral Maxillofac Surg* 54: 45-53 1996.
- 19) Diner, P.A., Kollar, E.M., et al.: Intraoral distraction for mandibular lengthening: a technical innovation. *J Cranio-Maxillofac Surg* 24: 92-95 1996.
- 20) Isono, S., Shimada, A., et al.: Efficacy of endoscopic static pressure area assessment of the passive pharynx in predicting uvulopalatopharyngoplasty outcomes. *Laryngoscope* 109: 769-774 1999.