氏 名	木野 紘美
(ふりがな)	(きの ひろみ)
学位の種類	博士(医学)
学位授与番号	甲 第72号
学位審査年月日	令和5年7月19日
学位授与の要件	学位規則第4条第1項該当
学位論文題名	Useful Genioplasty for Repeated Recurrent Sleep Apnea of Congenital Anomalies and Its Evaluation (睡眠時無呼吸発作を繰り返す先天異常疾患に対するオトガイ水平骨切り術の有用性と術前後の評価について)
論文審査委員	(主) 教授 河田 了 教授 植野 高章 教授 根尾 昌志

学位論文内容の要旨

《目的》中顔面や下顔面の低形成をきたす先天異常疾患では、呼吸障害や睡眠時無呼吸発作を起こすことがある。睡眠時無呼吸発作は骨切り移動術や延長術によって改善できるが、数年の経過で再発することがある。そこで我々は咬合の変化なく気道狭窄を改善させることができるオトガイ水平骨切り術を施行している。睡眠時無呼吸発作を繰り返す先天異常疾患に対するオトガイ水平骨切り術の有用性や術後評価の報告は少ない。本研究では、顔面の低形成によって睡眠時無呼吸発作を繰り返す症例を対象に、オトガイ水平骨切り術の評価を行うことによって、睡眠時無呼吸発作の改善の機序を考察し、本術式の有用性を検討した。

《対象》対象は 1999 年から 2021 年の間に当院で睡眠時無呼吸発作を有する症候性頭蓋縫合早期癒合症 3 例、Treacher-Collins 症候群 2 例、Goldenhar 症候群による小顎症 1 例の計 6 例に対してオトガイ水平骨切り術を行った。すべての症例が過去に上下顎の骨切り術や延長術を行ったが睡眠時無呼吸発作を再発した症例もしくは歯科矯正治療が終了している症例であった。

《方法》

1) 睡眠時無呼吸検査

睡眠時無呼吸検査は簡易型ポリソムノグラフィーを用いて行った。術前後の無呼吸低呼吸指数（以下 AHI）、経皮的動脈血酸素飽和度（以下 SpO₂）の最低値、平均 SpO₂ を測定し比較した。

2) セファログラム

術前後でセファログラムを側方から撮影して、舌骨の移動を評価した。オトガイ水平骨切り術で変化がないとされる基準点（Point A、Point B）と基準面（Ramus plane）から舌骨までの最短距離を測定した。

3) CT 画像

術前後で CT を撮影し、気道面積を評価した。評価方法は画像解析ソフト Real INTAGE®を用いて、眼窩外耳孔線に平行な面を作成し、口蓋垂下端を通る面、喉頭蓋上端を通る面、C2 から Th1 までの各頸椎椎体前面の中央を通る面と各椎間板前面を通る面で、気道の面積を測定し比較した。

これらの検査は術後半年以上経過した時点で検査、測定を行った。

《結果》

1) 睡眠時無呼吸検査

AHI は 1 例のみ術後に悪化を認めたが、他の症例では改善を認め全体として有意差を認めた ($P < 0.05$)。最低 SpO₂、平均 SpO₂ はいずれの症例も改善傾向を認めたが、有意差はなかった。

2) セファログラム

術後すべての症例が舌骨—Point B の距離が短縮し、また舌骨—Ramus plane の距離が延長し、ともに有意差を認めた (いずれも $P < 0.05$)。舌骨—Point A の距離は 2 例で延長を認めたが、有意差はなかった。

3) CT 画像

術前後の気道面積の測定では症例によって拡大や縮小した部位が異なり、一定の傾向はみられなかった。またオトガイ部の移動量や延長量、頸椎の部位、舌骨位置との関連を検討したが、いずれも有意差を認めなかった。成長期の患者では術後数年経過すると、気道面積は概ね拡大していた。

《考察》

睡眠時無呼吸発作のある患者に対して行うオトガイ水平骨切り術は Riley らによって初めて報告された。我々もこれまで睡眠時無呼吸発作を伴う Treacher-Collins 症候群の患者に対してオトガイ水平骨切り術を施行することで睡眠時無呼吸発作が改善することを報告している。本研究では睡眠時無呼吸検査、セファログラム、CT 画像を評価方法に用いた。睡眠時無呼吸検査では AHI は有意な改善が得られ、セファログラムの評価では術後に舌骨が前方へ移動していることがわかった。これらの結果から舌骨が前方移動することで、気道周囲の筋群も同時に前方移動することによって、AHI の改善が得られたと考えられた。また、CT 画像の検討では睡眠時無呼吸検査やセファログラムの結果から、術後の舌骨前方移

動により気道面積が拡大すると考えたが、オトガイ部の移動・延長量に相関なく、一定した変化は認めなかった。これは検査時の舌の位置や頸部の角度などで気道形態が変化するためと考える。また二次元的な気道面積は有意な変化を認めなかったが、三次元的な気道形態は変化している可能性が考えられる。成長期の患者で長期的に経過観察することで改善している症例を認めており、成長とともに気道の拡大が得られている可能性が高いと考える。

《結論》オトガイ水平骨切り術は舌骨を前方に移動させることで AHI の改善が得られた。睡眠時無呼吸発作を伴う先天異常疾患に対するオトガイ水平骨切り術は、比較的侵襲が低く、また咬合を変化させることなく睡眠時無呼吸発作を改善することが可能であり有用な術式である。

(様式 甲6)

論文審査結果の要旨

中・下顔面の低形成をきたす顔面の先天異常疾患では、呼吸障害や睡眠時無呼吸発作を伴うことがある。睡眠時無呼吸発作は、骨切り術や骨延長術を施行することで改善するが、術後数年の経過で再発することがある。このような症例に対して再度骨切り術を行うことは侵襲が大きく、また歯科矯正治療が終了していることが多いため、手術による咬合の変化に対応できない。それに対してオトガイ水平骨切り術は咬合を変化させることなく、睡眠時無呼吸発作を伴う気道狭窄を改善させることができる。本研究では睡眠時無呼吸発作を繰り返す顔面の先天異常疾患を対象に施行したオトガイ水平骨切り術について、睡眠時無呼吸発作の改善機序を明らかにして、その有用性を検討した。術前後の評価検討項目として、睡眠時無呼吸検査、セファログラム、CT画像を用いた。

その結果、睡眠時無呼吸検査では無呼吸低呼吸指数（以下 AHI）が有意に改善された。セファログラムの測定では、舌骨が有意に前方移動していた。CT画像による気道面積の評価では、有意な結果は得られなかった。これらの結果からオトガイ水平骨切り術を施行することによって舌骨が前方に移動するため AHI が改善することがわかった。オトガイ水平骨切り術は顔面骨切り術の既往があり、歯科矯正治療の終了した睡眠時無呼吸発作を繰り返す顔面の先天異常疾患に有用であると考えられる。

以上により、本論文は本学大学院学則第 13 条第 1 項に定めるところの博士（医学）の学位を授与するに値するものと認める。

(主論文公表誌)

Plastic and Reconstructive Surgery Global Open
11(3): e4858, 2023 March