

症例報告

ナビゲーションシステムと二分割サージカルガイドを用いて
骨削除術を行った下顎骨線維性異形成症の1例

矢島 康治¹⁾, 岩井 俊憲¹⁾, 本田 康二¹⁾, 杉山 聡美¹⁾,
石川 聡一郎¹⁾, 出田 ゆか¹⁾, 矢谷 実英¹⁾, 南山 周平¹⁾,
馬場 隼一¹⁾, 大橋 伸英²⁾, 片岡 俊朗³⁾, 藤井 誠志⁴⁾,
光 藤 健 司¹⁾

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

²⁾札幌医科大学医学部 口腔外科学講座

³⁾横浜市立大学大学院医学研究科 病態病理学

⁴⁾横浜市立大学大学院医学研究科 分子病理学

要 旨：線維性異形成症 (Fibrous dysplasia : FD) は、幼若な骨形成を伴う線維組織の増殖性病変であり、骨膨隆を引き起こす。下顎骨に発症した場合、非対称な顔貌となり治療は骨削除術が行われるが、口腔内の手術は視野や器具の制限により術後に十分な顔面の対称性が得られないことが多い。そこで、われわれは下顎FDに対して骨削除量を定めるサージカルガイドを作製し、ナビゲーションシステムと併用した手術を行った。症例は28歳女性で、左側下顎部の腫脹を主訴に当科紹介初診となった。CT画像より3次元 (3D) 画像ソフトウェアにて下顎骨を3D構築し、正中矢状面に対し健側をミラーリングした下顎骨を基準に3mm余剰に骨削除を行う方針とした。下顎枝後縁と下顎下縁の切除するサージカルガイドをソフトウェア内で設計し、オトガイ神経を避けて口腔内に挿入できるように二分割した状態で3Dプリンターを用いて作製した。下顎骨外側の骨削除は、ナビゲーションシステムにて確認しながら骨削除を行った。下顎骨にサージカルガイドを装着し、下縁と後縁の切除を行った。術後撮影したCTと重ね合わせを行ったところ、ミラーリングした下顎骨より概ね3mm余剰に骨削除が行われており、下顎管の損傷はなかった。ナビゲーションシステムにサージカルガイドを併用することで、手術の簡便化が可能となり、骨削除のオーバーコレクションにより対称な顔貌形態を獲得できた。

Key words: 線維性異形成症 (Fibrous dysplasia), サージカルガイド (Surgical guide), 下顎 (Mandible), ナビゲーションシステム (Navigation system)

緒 言

線維性異形成症 (Fibrous dysplasia : FD) は、幼若な骨形成を伴う線維組織の増殖性病変であり、無痛性に骨が膨隆する¹⁻³⁾。頭蓋顎顔面骨と大腿骨が二大発症部位とされ³⁾、一般的に、幼少期から思春期にかけて発症し、骨格の発育が完了するとFDの進行も停止するとされてい

る²⁾。顎骨に発生したFDは、骨膨隆により顔面非対称が生じ、治療はFDの進行停止後に顔貌の改善目的に骨削除術が行われる⁴⁾。骨削除術は審美性の観点から口腔内アプローチが望ましいが、視野や器具の制限により術後に十分な顔面の対称性が得られないことが多いため、近年ナビゲーションシステムが用いられてきた⁵⁻⁸⁾。しかし、ナビゲーションシステムは点で位置を確認するため、何

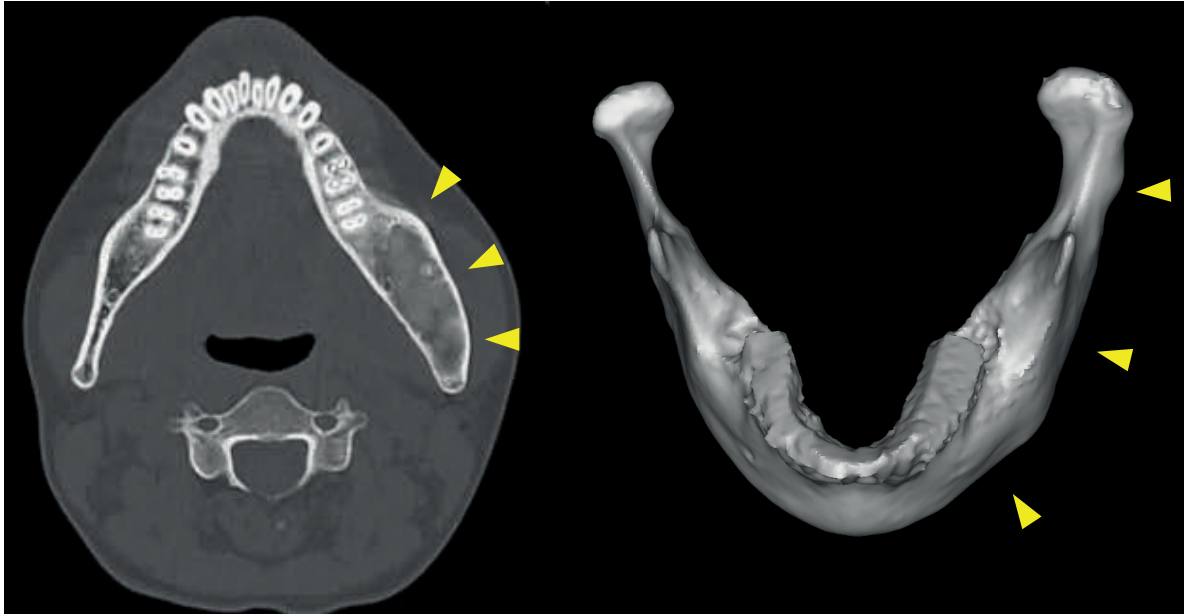


図1 初診時CT画像.
左側下顎骨に膨隆(矢頭)を認めた.

度も確認しながら手術を行う必要があり, 手術時間が延長する. そのため, われわれは下顎FDに対して下顎骨の削除量を決めるサージカルガイドを作製し, ナビゲーションシステムと併用することで手術の簡便化が可能となり, 左右対称な顔貌形態を獲得できたので報告する.

症 例

患 者: 28歳, 女性.

初 診: 2020年11月.

主 訴: 左側下顎部の腫脹.

既往歴: 右側前十字靭帯断裂.

現病歴: 思春期より左側下顎部の腫脹を自覚するようになった. 2020年6月に両側下顎智歯の抜歯目的に他院口腔外科を受診し, その際に左側下顎部の腫脹について相談したところ, FDが疑われた. 精査・加療目的に2020年11月に当科初診となった.

現 症:

全身所見: 特記すべき異常は認めなかった.

口腔外所見: 左側下顎角部を中心に左側下顎骨体部から頬部にかけて腫脹を認めた. 左側オトガイ神経の知覚鈍麻は認めなかった.

口腔内所見: 左側下顎歯肉頬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にて, すりガラス状の高吸収域を伴う左側下顎の膨隆を認めた(図1).

臨床診断: 左側下顎FD.

処置および経過: 顔面の左右対称性を得るために必要な

骨削除量を決めるため, シミュレーションを行った. 撮影したCTのDigital Imaging and Communications in Medicine (DICOM) データを3次元(3D)画像ソフトウェア(ProPlan CMF®, マテリアライズジャパン社)に取り込み, 頭蓋顎顔面骨と下顎骨の3D構築を行った. 正中矢状面に対し健側をミラーリングして対象となる下顎骨を作製した(図2a). 元の下顎骨とミラーリングした下顎骨を比較したところ, 左側下顎枝と下顎骨体部の外側だけでなく, 左側下顎後縁と下縁も骨削除する必要があった. 左側下顎枝と下顎骨体部の外側はナビゲーションシステムを使用し, 左側下顎後縁と下縁はサージカルガイドを使用して骨削除する方針とした. ミラーリングした下顎骨を基準にオーバーコレクションとして3mm余剰に骨削する方針とし, 下顎の後縁と下縁の切除面を設定した(図2b). 元の下顎骨の3D画像をStandard Triangulated Language (STL)形式で出力し, 3D画像編集フリーソフトウェア(Meshmixer®)に取り込み, オフセット機能を用いて切除面付近は3mm, それ以外の部位は1.5mm外側に拡大した下顎骨の3次元画像を作製し, STL形式で出力した. STLファイルをProPlan CMF®に取り込み, 外側へ拡大した下顎骨から元の下顎骨の3D画像を引き算し, 下顎の後縁と下縁に装着する外枠を作製した(図2c). 下顎の後縁と下縁に設定した切除面で外枠を切除し, サージカルガイドを二分割しオトガイ神経を避けて口腔内から挿入できるような設計でサージカルガイドをソフトウェア上で作製し, 3Dプリンターにて実物のサージカルガイドを作製した(図2d).

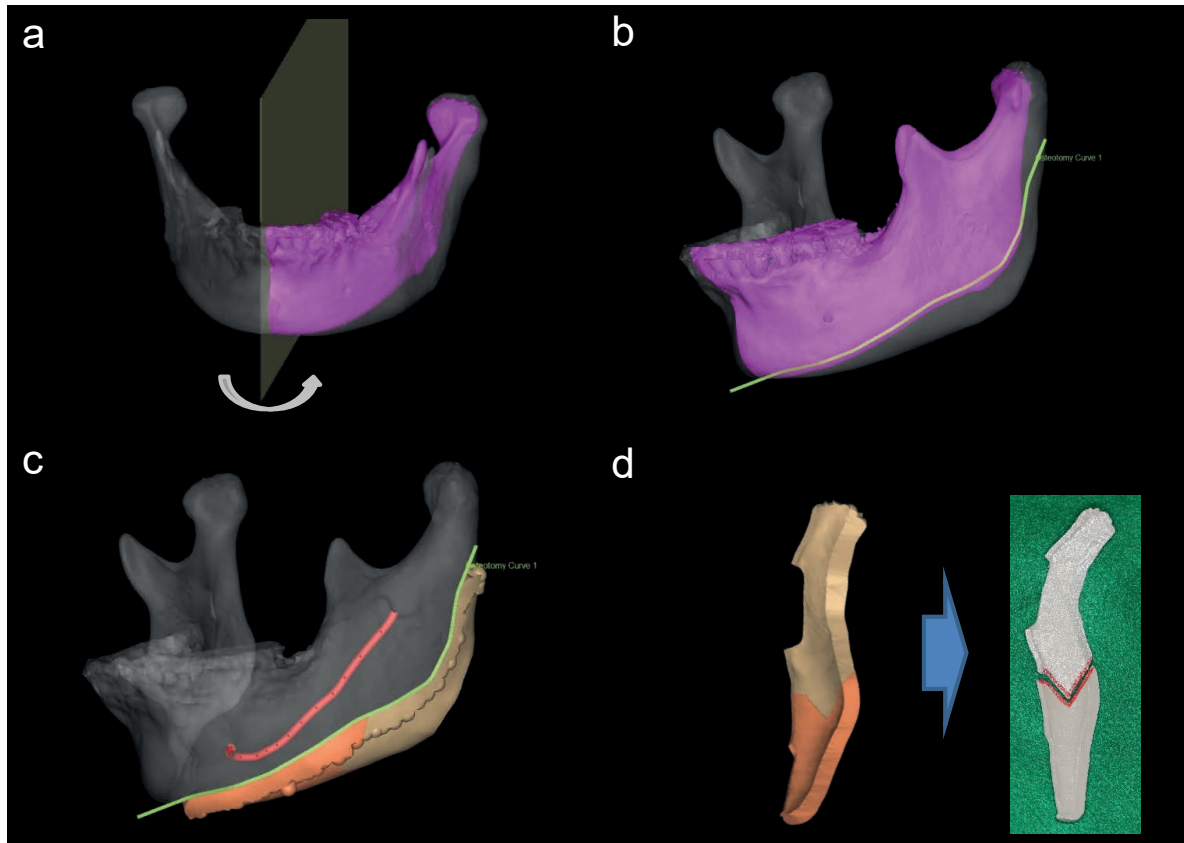


図2 サージカルガイドの作製手順.

a: ProPlan® 内で作製した下顎骨の健側を正中矢状面でミラーリングを行った。 b: ミラーリングした下顎骨を基準に下顎の後縁と下縁の切除面を設定した。 c: Meshmixer® の offset 機能を用いてガイドの外枠を作製し、切除面で骨削除が行えるようガイドを設計した。 d: ガイドはオトガイ孔を避けて装着する必要があるため、二分したものを3Dプリンターで作製した。

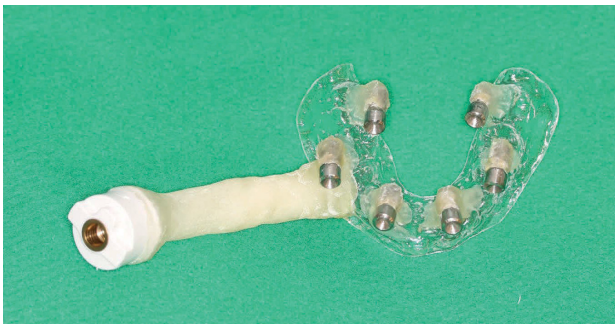


写真1

リファレンスアダプターと6つのチタンマーカ―を付与した下顎のスプリント。

2021年1月に全身麻酔下にて左側下顎骨の骨削除術を行った。ナビゲーションシステムは、本田ら⁷⁾が行った方法と同様に用いた。術前にナビゲーションシステムのセンサーが位置情報を取得するためのリファレンスアダプターとレジストレーションを行うポイントとして6つのチタンマーカ―をレジンで固定した下顎のスプリントを作製し(写真1)、術前日にそのスプリントを下顎に装着した状態でCTを撮影した。DICOMデータをシミュレー

ションソフトウェア (iPlan®, ブレインラボ社) にインポートし、健側の下顎骨をミラーリングし患側に重ね合わせ、スプリントに装着したチタンマーカ―それぞれにレジストレーションポイントを設定した。そのデータを光学式ナビゲーションシステム (Kick®, ブレインラボ社) にインポートした。経鼻挿管の後、リファレンス付きのスプリントを下顎歯列に装着した。その後、患者とCTデータを一致させるために、チタンマーカ―を指標としてレジストレーションを行った⁷⁾。ナビゲーションが正確に行えることをプローブで確認した後、手術を開始した。手術の妨げになるため、一度スプリントを外してから、左側下顎枝前縁から右側下顎犬歯まで歯頸部切開を行い、骨膜下で外側の歯肉と粘膜を剥離した。左側下顎下縁から後縁にはサージカルガイドを使用して骨切りを行うが、骨の膨隆により視野が不良であったため、まず左側下顎枝と下顎骨体部の外側の骨削除をある程度行った。次に、スプリントを再装着して、ナビゲーションの誤差がないことを確認した。切削するためのバーの先端をナビゲーションするためにキャリブレーション (器具先端とナビゲーションモニターの十字の中心を一致させる作業) を行った後、ナビゲーションガイド下にミラー

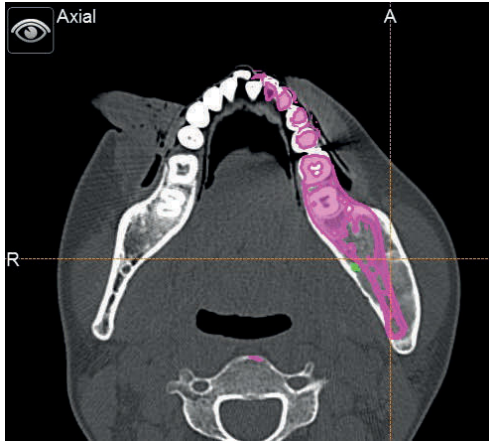


図3

ミラーリング像を指標にしながら骨削除を行った時のナビゲーション画像。

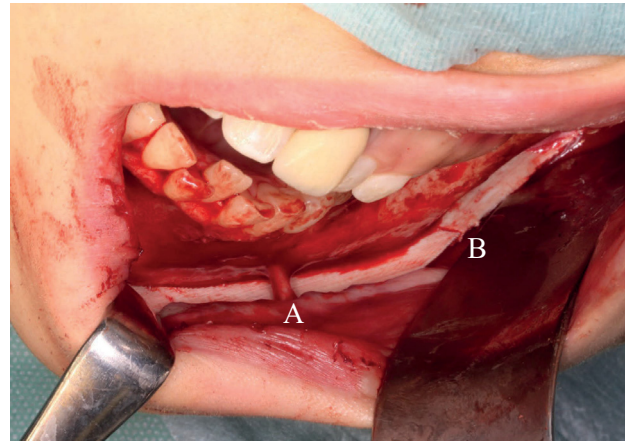


写真2 サージカルガイドの装着

オトガイ神経 (A) を避けて二分割 (B) したサージカルガイドを下顎に装着した。

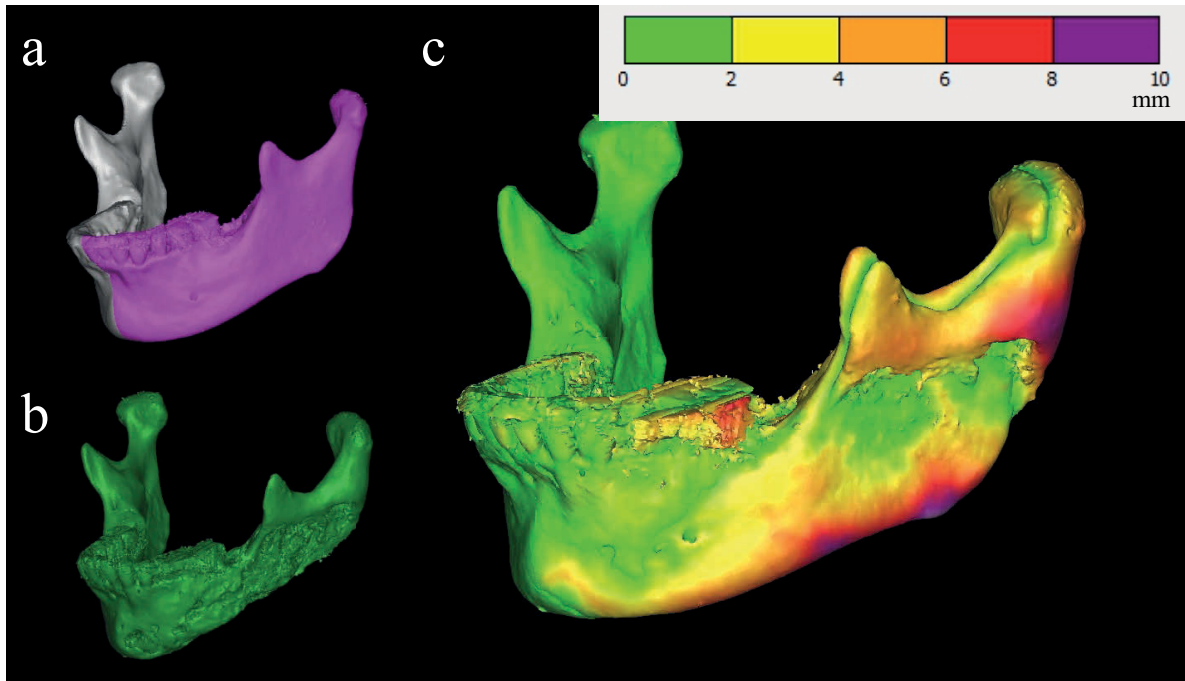


図4 ミラーリングした下顎骨と術後の下顎骨の重ね合わせによる形状変化..

a: 健側を正中矢状面でミラーリングした下顎骨. b: 術後の下顎骨. c: aとbの重ね合わせ画像. オーバーコレクション3mmで概ね骨削除できた.

リング像を指標にしながら (図3) 膨隆した骨の削除を行った. その後, 左側下顎の後縁と下縁に二分割サージカル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ガイドをそれぞれ挿入し, 適合は良好であった (写真2). 超音波骨メス (PIEZOSURGERY®, インプラテックス社) のチップをサージカルガイドに沿わせながら, 下顎下縁と後縁の切除を行った. 筋突起と関節突起基底部分は骨が元々薄く, ミラーリング通りに骨を削除すると骨折するリスクが高かったため, その部位の骨削除は行わなかった. バーで下顎骨の辺縁を削合し, ナビゲ-

ーションシステムを用いてミラーリングした下顎骨を基準に想定した骨削除量が十分に得られていることを確認した後, 持続的吸引ドレーンを留置し閉創した. ドレーンは術後1日目の昼に抜去し, 夕食から経口摂取を開始し, 術後4日目で退院となった.

ソフトウェア上でミラーリングした下顎骨と術後1か月時に撮影したCTから作製した下顎骨を骨削除していない部位を基準に重ね合わせを行った (図4). 骨折リスクのため骨削除を行わなかった筋突起と関節突起基底部分以外には概ね計画通りに骨が削除され, 下顎枝と下顎骨

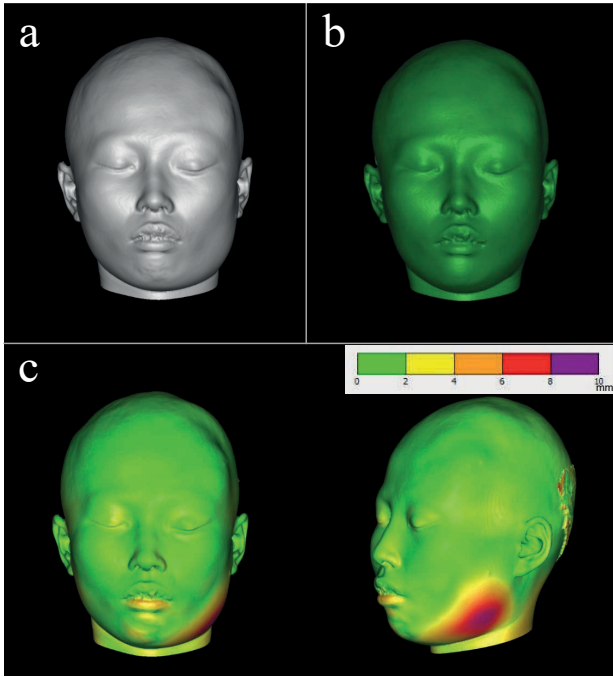


図5 術前後の顔貌形態の比較.

a: 術前顔貌. b: 術後顔貌. c: 術前後の顔貌の重ね合わせによる形態変化. 骨削除により膨隆していた軟組織は左側下顎角部で8 mm 超減少した.

体部の外側は想定通り約3 mmのオーバーコレクションを伴った骨削除が行っていた。また、顔貌形態に影響する下顎下縁とその外側については、確実に余剰な骨削除が行え、下顎管の損傷も避けることができていた。術前のCTと術後1か月のCTを用いて顔貌の形態をソフトウェア上で比較したところ、骨削除により膨隆していた軟組織は左側下顎角部で8 mm超減少しており、良好な顔貌の対称性を獲得することができていた(図5)。

病理組織学的所見：線維骨や一部層板骨からなる骨梁が見られ、周囲に線維芽細胞と膠原線維を認めた(写真3)。

病理組織学的診断：下顎FD

考 察

FDは幼若な線維骨梁形成の伴う線維組織の増殖性病変であり、原因はヒト染色体20q13遺伝子座にあるGNAS遺伝子領域のGTP結合タンパクのサブユニット(Gsa)をコードする遺伝子のミスセンス変異とされる¹⁾。多発性に長管骨、頭蓋骨、肋骨、脊椎等に発生する多発型と1つの骨に限局性に発生する単発型に分類される。多発型の定型例ではFDは片側性に生じ²⁾、同側皮膚の色素沈着によるカフェオレ斑と内分泌障害を伴うものはAlbright症候群と呼ばれる。上下顎骨を含む顔面骨のみに多発的に生じる場合は単発型と扱われ²⁾、顎骨に生じるFDの頻度は、単発型が70~85%であり多発型より多い¹⁾。顎骨

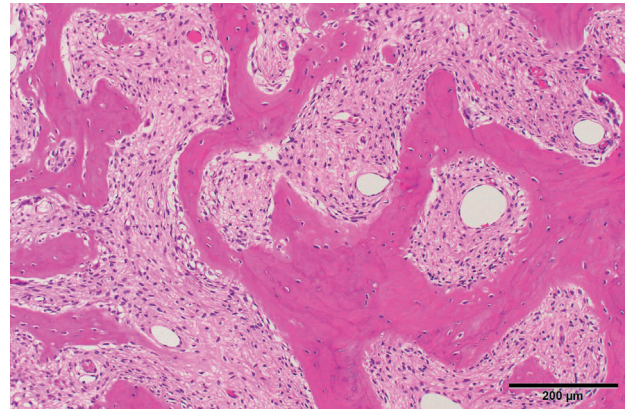


写真3

削除した骨の病理組織像 (HE 染色).

での好発部位は上顎の臼歯部骨体部であり、無痛性に骨が膨隆し、顔面の変形を引き起こす。骨の膨隆は幼少期に始まり思春期成長の後に病変の増大が停止することが多く²⁾、治療は主に骨削除術が行われているが、顔面変形が強い場合は、顎変形症として外科矯正治療も行われている^{7, 8)}。本症例は単発型であり、歯列不正を伴わなかったことから、骨削除術のみを行った。

顎骨に発生したFD患者で多い主訴は顔面の腫脹と非対称であり、骨削除術でこれらを改善することが治療目標となる。しかし、骨削除の程度については健側と比較しながら決める必要があり、術中に対称性を確認することは困難である。そのため、術中に対称性を確認できるナビゲーションシステムが近年用いられるようになった^{4, 6-8)}。ナビゲーションシステムは、術前に撮影されたCTなどの画像上に術中の操作部位を投影する手術支援システムであり、正中矢状面でミラーリングした画像を登録しておけば、対称性を確認しながら骨削除術を行うことが可能となる。ナビゲーションシステムを用いた骨削除術の正確度は高く、Guiら⁸⁾は21例のFDに対してナビゲーションシステムを用いた骨削除術を行い、術前プランニングと術後CT画像の誤差は1 mm未満であったと報告している。しかし、ナビゲーションシステムは点で位置を確認するため、何度も確認しながら手術を行う必要があり、手術時間が延長する。また、下顎骨下縁や後縁は口腔内からの視野が不良となるため骨削除が特に困難となる。今回われわれはサージカルガイドを用いることで、下歯槽神経が内部を走行する下顎管を損傷することなく、下顎骨下縁・後縁の切除を短時間に簡便に行うことができた。大きなサージカルガイドでは、オトガイ神経を損傷せずにガイド装着するのは困難であるため、本症例ではサージカルガイド作製時に二分割し、術中にそれらを組み合わせることでガイドの装着を容易にすることができた。

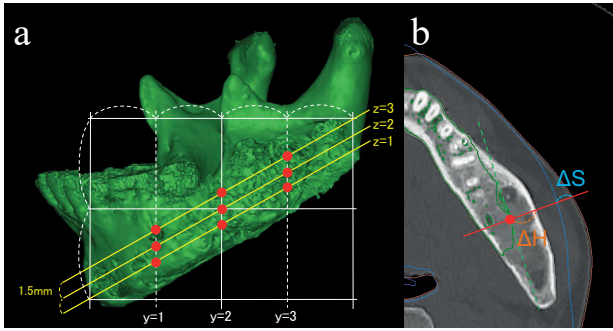


図6 軟組織/硬組織の変位量比の計測.

a: 計測点の位置. b: 各計測点における硬組織および軟組織の変位量を計測.

骨削除による骨の変位量とそれに伴う軟組織の変位量は一致せず、実際には軟組織の変位量の方が硬組織の変位量より小さくなる。そのため、良好な顔貌の対称性を得るには、骨削除を余分に行うオーバーコレクションを設定することが望ましいが、その程度については明確な基準はない。軟組織/硬組織の変位量比は部位によって異なるとされ、今回骨削除を行った部位について軟組織/硬組織の変位量比を算出した。Jieら⁹⁾の方法に準じ、骨削除範囲を縦方向と横方向に二分割して中線を引き、その交点を中心点 ($y=2$, $z=2$) とした。長軸方向に1/4のところでそれぞれ2か所計測点 ($y=1$ および $y=3$) を設定した。さらに上下それぞれ1.5mm 移動したところ ($z=1$ および $z=3$) にも同様に各3か所の計測点を取り、合計9か所の計測点を設定した (図6 a)。各計測点において切断面に対し法線を設置し、法線上で硬組織の変位量と軟組織の変位量を計測した (図6 b)。軟組織/硬組織の変位量比は表1に結果を示す。骨削除面の中心部では軟組織/硬組織の変位量比が小さく、周辺部では大きい傾向にあった。また、9点の軟組織/硬組織の平均変位量比は、本症例において0.50であった。Jieら⁹⁾の報告によると平均変位量比は上顎骨部で0.52、頬骨部で0.815であった。下顎骨体部は軟組織が比較的厚いため、頬骨部よりも上顎骨部に近い軟組織/硬組織の変位量比になったと考えられた。今後、下顎FDの手術症例を蓄積することで、軟組織/硬組織の平均変位量比を示すことができれば、オーバーコレクションすべき骨削除量が術前に予測できるようになるとと思われる。

FDには成長期終了後も病変が増大するタイプがあり⁵⁾、長期経過後に再度骨削除術を行った症例も報告されている¹⁰⁾。また、悪性転化する確率は1%未満であるが、報告されている⁵⁾。本症例は術後1年が経過し、病変の増大や悪性転化を疑う所見は認めていないが、今後の経過観察は重要であると考えられた。

| 座標 | y = 1 | y = 2 | y = 3 |
|-------|-------|-------|-------|
| z = 1 | 0.50 | 0.38 | 0.58 |
| z = 2 | 0.56 | 0.35 | 0.59 |
| z = 3 | 0.50 | 0.42 | 0.57 |
| 9か所平均 | 0.50 | | |

表1 各計測点における軟組織/硬組織の変位量比.

結 語

今回われわれは、下顎FD患者にナビゲーションシステムと二分割サージカルガイドを併用した骨削除術を施行することで、オトガイ神経や下顎管を損傷することなく手術の簡便化ができ、左右対称な顔貌形態を獲得することができた。

文 献

- 1) 菊池健太郎, 佐藤 淳, 高木 實, 山口 朗: 口腔病理アトラス第3版. 顎骨および顎関節の病変. 高木 實 (監), 豊澤 悟, 高田 隆 (編), 158, 文光堂, 2018.
- 2) 武田泰典, 福田容子: 歯原性腫瘍ならびに関連病変の病理 顎骨の非腫瘍性病変. 病理と臨床, **21**(5): 523-530, 2003.
- 3) Segal GP, Bloem JL, Cates JMM, Hameed M: Soft Tissue and Bone Tumours, WHO Classification of Tumours, 5th Edition, Volume 3. Fibrous dysplasia, WHO Classification of Tumours Editorial Board, 472-474, World Health Organization, Lyon, 2020.
- 4) Wang Y, Sun G, Lu M, Hu Q: Surgical management of maxillofacial fibrous dysplasia under navigational guidance. Br J Oral Maxillofac Surg, **53**(4): 336-341, 2015.
- 5) Lee JS, FitzGibbon EJ, Chen YR, et al: Clinical guidelines for the management of craniofacial fibrous dysplasia. Orphanet J Rare Dis, **7**(Suppl 1): S2, 2012.
- 6) 杉山聡美, 岩井俊憲, 大橋伸英, 矢島康治, 大澤孝行, 藤内 祝: 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. 日口外誌, **64** (10): 618-623, 2018.
- 7) 本田康二, 岩井俊憲, 藤田紘一, 他: 顔面非対称に対するナビゲーション手術と二次的顎矯正手術を行った下顎線維性異形成症の1例. 日顎変形誌, **28** (4): 276-285, 2018.

- 8) Gui H, Zhang S, Shen SG, Wang X, Bautista JS, Voss PJ: 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) Jie B, Yao B, An J, Zhang Y, He Y: Correlation Between Soft and Hard Tissue Changes in the Zygomaticomaxillary Region After Bone Contouring Surgery for Fibrous Dysplasia-A Preliminary Study. *J Oral Maxillofac Surg*, **77**(9): 1904.e1-1904.e11, 2019.
- 10) 伊藤元貴, 児玉泰光, 大貫尚志, 他: 17年を経過して再減量手術を行った上顎骨線維性異形成症の1例. *新潟歯学会誌*, **50** (2): 79-85, 2020.

Abstract

MANDIBULAR FIBROUS DYSPLASIA TREATED WITH REDUCTION SURGERY USING A NAVIGATION SYSTEM AND SURGICAL GUIDES: A CASE REPORT

Yasuharu YAJIMA¹⁾, Toshinori IWAI¹⁾, Koji HONDA¹⁾, Satomi SUGIYAMA¹⁾,
Soichiro ISHIKAWA¹⁾, Yuka IDETA¹⁾, Norihide YATANI¹⁾,
Shuhei MINAMIYAMA¹⁾, Junichi BABA¹⁾, Nobuhide OHASHI²⁾,
Toshiaki KATAOKA³⁾, Satoshi FUJII⁴⁾, Kenji MITSUDO¹⁾

¹⁾ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Yokohama City University Graduate School of Medicine*

²⁾ *Department of Oral Surgery, Sapporo Medical University*

³⁾ *Department of Pathology, Yokohama City University Graduate School of Medicine*

⁴⁾ *Department of Molecular Pathology, Yokohama City University Graduate School of Medicine*

Fibrous dysplasia (FD) is a fibro-osseous neoplasm characterized by poorly organized bone and intervening fibrous tissue resulting in bone expansion. Mandibular FD causes facial asymmetry and requires bone reduction surgery. However, an intraoral approach often fails to achieve adequate facial symmetry because of limitations on instrument use and poor visualization. Therefore, we manufactured surgical guides for mandibular FD and performed bone reduction surgery using a navigation system and surgical guides. A 28-year-old woman was referred to our department with a complaint of swelling in the left side of the mandible. The mandible was reconstructed using three-dimensional (3D) imaging software from computed tomography images, and the decision was made to remove bone with 3 mm overcorrection based on the mandible mirrored on the healthy side in the midsagittal plane. The surgical guide for resection of the posterior and inferior borders of the mandible was designed with the software and fabricated using a 3D printer in two parts so that it could be inserted in the mouth avoiding the mental nerve. The lateral mandibular bone removal was performed under navigation guidance. The surgical guides were attached to the mandible, and the inferior and posterior borders were resected. The postoperative computed tomography images were superimposed and showed the removal of 3 mm more than the mirrored mandible, and the mandibular canal was not injured. By using surgical guides in combination with the navigation system, the surgery was simplified, and facial symmetry was obtained by overcorrection of the bone removal.