

〔臨床〕 松本歯学 22 : 186~193, 1996

key words : 部分的無歯症 — 多数歯欠如 — 永久歯

多数歯にわたる部分的無歯症の2症例

吉武陽子, 岩崎 浩, 林 于昉, 宮沢裕夫
松本歯科大学 小児歯科学講座 (主任 宮沢裕夫 教授)

Two Cases of Partial Anodontia Affecting Many Teeth

YOKO YOSHITAKE, HIROSHI IWASAKI, YU-FAANG LIN, HIROO MIYAZAWA

*Department of Pediatric Dentistry, Matsumoto Dental College
(Chief : Prof. H. Miyazawa)*

Summary

Two cases of partial anodontia affecting many permanent teeth are reported.

In the first case, an 18-year-6 month old male showed eight congenitally missing teeth :

$$\begin{array}{c} \frac{5}{7} \frac{5}{5} \frac{2}{2} \mid 1 \ 2 \ 5 \ 7 \end{array}$$

In the second case, a 15-year-old male showed ten congenitally missing teeth :

$$\begin{array}{c} \frac{5}{5} \frac{4}{4} \frac{3}{3} \mid \frac{3}{4} \frac{4}{4} \frac{5}{5} \end{array}$$

In the first case, partial anodontia had occurred exclusively in the male family members of three consecutive generations (the patient, his father, and his grandfather on the paternal side). Therefore, the disease is thought have been transmitted by dominant autosomal inheritance. In the second case, the patient's sister also suffers from congenital missing permanent teeth. Thus, it is thought that genetic factors play a role in the onset of the disease in both of these cases.

The patient in the first case is currently using a removable space maintainer. However, a permanent prosthesis will be used in the future. In the second case, deciduous teeth remain while permanent teeth are missing. Even though there are no interproximal distance spaces now, when the deciduous teeth fall out due to physiological resorption, it will be necessary to perform prosthetic treatment.

緒 言

先天的な歯牙欠損には、乳歯や永久歯が部分的に欠如している部分的無歯症、あるいは全く歯牙を認めない完全無歯症があり、先人により多数の報告がなされている¹⁻¹¹⁾。渡辺ら³⁾、落合ら⁴⁾は、完全無歯症について報告し、栗山ら⁷⁾、北村ら⁸⁾、森本ら⁹⁾は、多数歯にわたる部分的な無歯症についての報告がみられる。しかしながら永久歯の先天性欠如は、森本ら⁹⁾による統計的報告によれば2~8%といわれ、なかでも多数歯にわたる欠如は極めて稀であるとされている。

また、多数歯欠如を起しうる要因として、塩田ら¹⁰⁾は遺伝的要因、外胚葉形成不全症、退化現象、胎生期の母体の障害、後天的な全身疾患、後天的な局所疾患などを挙げているが、未だ不明な点が多いとされている。したがって歯科処置に対しては、全身の問題点の有無、年齢などを考慮し、成長、発育段階に応じて処置していく必要がある。しかし、現実問題としては、対症療法が主体であり、長期間の経過観察を要することが多い。

著者らは、多数歯の永久歯先天欠如を認めた部分的無歯症の2症例を経験したので報告する。

症 例

症例1

患者：18歳6カ月 男児

初診：1991年3月20日(13歳)

主訴：下顎左側臼歯部の疼痛

家族歴：父方祖父母、父親(45歳)、母親(44歳)、弟(14歳)、弟(13歳)の家族構成で、同胞、血縁者に重篤な疾患を有する者は認められないが、問診により父方祖父及び父に部分的無歯症を認めた。(詳細不明)

既往歴：母親は、患児を妊娠中、服用薬もなく外傷及び全身的疾患を経験せず、満期正常分娩にて出生。離乳完了12カ月まで混合乳で、発育はおおむね順調で、今日に至るまでに全身的疾患は認められない。

現 症

全身の所見：体重46.0 kg、身長157.0 cm。体格、栄養状態共に中等度。外胚葉系器官である顔面の皮膚、眼瞼粘膜、頭髮、爪などに異常は認められなかった。また、運動機能、身体的および精

神的発育状態などにも異常は認められず、諸検査においても異常所見は認められなかった。

口腔内所見：現在歯は、 $\frac{76}{6}$ $\frac{4321}{43C1}$ $\frac{1234567}{346}$ で咬合発育段階は、Dental Age IVAに相当する。咬合状態は前歯部 over-bite が2.1 mm、臼歯部で Angle-II級の咬合を呈していた。また、軟組織に異常所見は認められなかった。 $\underline{2}$ は矮小歯であったが、その他の歯牙の歯冠部に形態異常は認められなかった。 \overline{C} は $\overline{31}$ 間に残存しており、咬耗した状態で、動揺度2度であった。また、 \overline{C} は遠心に捻転し、 $\underline{5}$ は口蓋側に転位していた(図1)。

パノラマエックス線所見： $\frac{5}{752}$ $\frac{1257}{1257}$ の歯胚は認められず、 \overline{C} の歯根は吸収しており、歯冠部のみ残存している状態であった。しかし、その他の歯牙の歯根部に異常は認められなかった(図2)。

手根骨エックス線所見：手根骨エックス線像では、化骨状態に異常は認められなかった(図3)。

模型分析：歯列弓の形態は、上下顎ともに左右対称性U字型であり、上顎の歯間空隙は、矮小歯である $\underline{2}$ 両隣接部に1 mm ずつ認められ、 $\underline{2}$ $\underline{5}$ は、萌出余地不足のため、口蓋側に転位していた。欠如歯である $\underline{5}$ 部は萌出位置にも、空隙は認められなかった。下顎においては、欠如部である $\overline{5}$ 部に10.7 mm、 $\overline{12}$ 部に6.5 mm、 $\overline{5}$ 部に9.0 mm それぞれ歯間空隙が認められた。また、 $\overline{1}$ 遠心隅角と \overline{C} 切端に少量の咬耗が認められた。

歯冠の近遠心幅径は、 $\underline{2}$ は、-1 S.D. より小さな値を示し、 $\frac{13}{1}$ $\frac{5}{34}$ $\frac{6}{6}$ は+1 S.D. を越えて大きな値を示し、 $\underline{146}$ は、平均値内であった。歯冠幅径の総和は、上下顎ともに-1 S.D. より小さな値を示した。

歯列弓の計測値は、上顎では歯列弓長径と歯槽基底弓長径が+1 S.D. を越えて大きな値を示し、歯槽基底弓幅径は-1 S.D. より小さい値を示した。下顎では、歯列弓幅径、歯列弓長径、歯槽基底弓幅径、歯槽基底弓長径が+1 S.D. を越えて大きな値を示した(図4、表1)。

セファロ分析：線分析では Ptm'-G'、G-Me、Go-Me の項目で、正常値から-2 S.D. より小さい値を示した(表2、図5)。

現在までの処置および経過：現在までの処置歯は、初診時 \overline{E} \overline{E} は疼痛を訴え、エックス線より内部吸収を認めたため抜歯を行った。また $\underline{6}$ $\underline{6}$ にフィッシャーシーラント、 $\underline{2}$ $\overline{16}$ にレジン充填処置

現 症

全身的所見：体重 72 kg, 身長 179 cm. 体格, 栄養状態ともに中等度. 外胚葉系器官である顔面の皮膚, 眼瞼粘膜, 頭髪, 爪などに異常は認められず, 運動機能, 身体的および精神的発育状態などにも異常は認められなかった.

口腔内所見：現在歯は, $\frac{76EDC21112CDE67}{76E321123E67}$ で, 咬合発育段階では, Dental Age IVAに相当する. 咬合状態は, 両側臼歯部で Angle-I 級の咬合を呈していた. また, 軟組織に異常所見は認められなかった.

全歯牙にわたり, 歯冠に形態異常は認められなかったが, $\overline{3|3}$ は遠心転位していた (図6).

パノラマエックス線所見： $\frac{543|345}{54|45}$ の歯胚は, 認められなかった. $\frac{ED|DE}{E|E}$ の歯根は根分岐部近くまで吸収がみられ, $\underline{C|C}$ にも歯根の吸収が認められた. しかし, 永久歯の歯根部に異常は認められなかった (図7).

手根骨エックス線所見：手根骨エックス線写真像では, 化骨状態に異常は認められなかった (図8).

模型分析：歯列弓の形態は, 上下顎ともに左右対称性U字型であり, 上顎の歯間空隙は, $\overline{2|1}$ 間に0.6 mm, $\underline{1|1}$ 間に1.1 mm, $\overline{12}$ 間に0.6 mm認められた. 下顎においては, $\overline{32}$ 間に2.3 mm, $\overline{2|1}$ 間に1.0 mm, $\overline{1|1}$ 間に0.5 mm, $\overline{12}$ 間に0.4

mm, $\overline{23}$ 間に1.9 mm認められた.

歯冠の近遠心幅径は, $\frac{6}{6}$ は-1 S.D. より小さな値を示したが, それ以外は平均値内であった. 歯冠幅径の総和は, 上下顎ともに-1 S.D. より小さい値を示した.

歯列弓の計測値は, 上顎では, 歯列弓長径, 歯槽基底弓長径は+1 S.D. を越え大きな値を示し, 歯槽基底弓幅径は-1 S.D. より小さい値を示した. 下顎では, 歯列弓幅径, 歯列弓長径, 歯槽基底弓幅径および歯槽基底弓幅径で+1 S.D. を越えて大きい値を示した (図9, 表3).

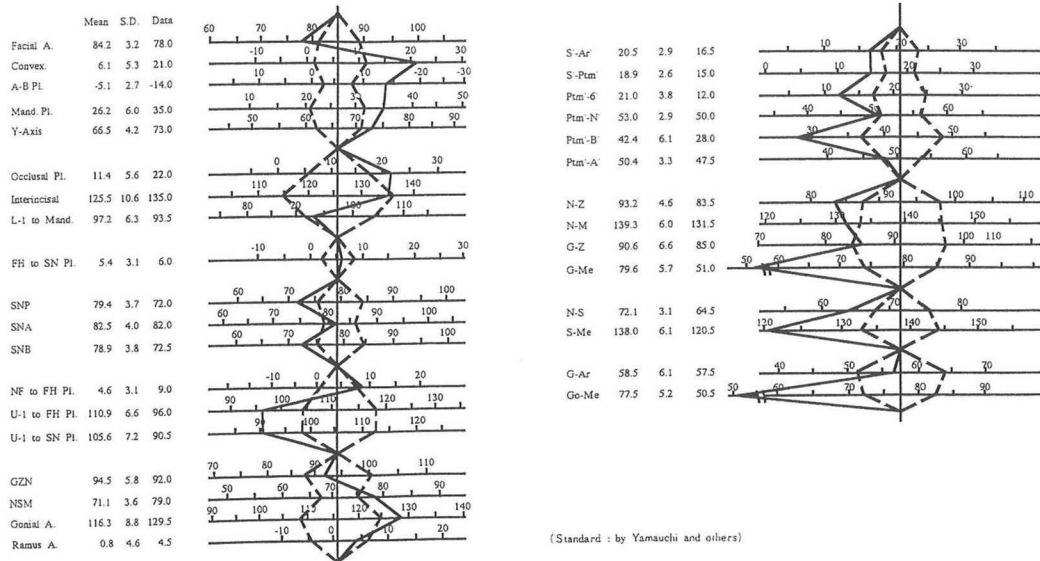
セファロ分析：セファロ分析からは, 特徴的な所見は認められなかった (表4, 図10).

現在までの処置歯及び経過： $\frac{6ED|DE}{6E|E}$ にいずれもレジン充填, $\overline{6}$ にフィッシャーシーラント処置を施し, $\underline{C|C}$ 遠心に齶蝕を認めるも, その他の歯牙に異常は認められなかった.

考 察

人の歯数の異常には歯数の過剰と歯数の不足があり, 歯数不足は進化的であり, 過剰歯は退化現象であるという説¹¹⁻¹³⁾が一般的であるが, 未だ定説はない. 部分的無歯症の中で, 多数歯に及ぶ歯牙欠如は比較的稀なものとしてされているが, この原因として, 塩田ら⁸⁾によると遺伝的要因, 外胚葉形

表2：セファロ分析



(Standard : by Yamaguchi and others)

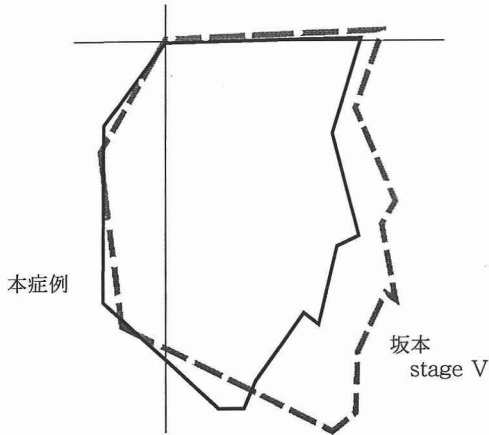


図5：PROFILOGRAM

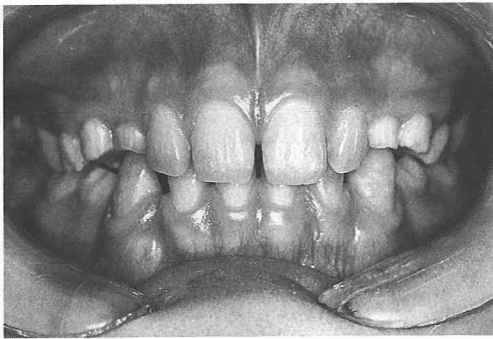


図6：口腔内写真 正方

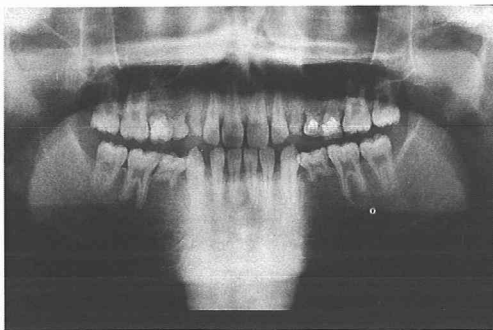


図7：パノラマX線写真

成不全症，退化現象，胎生期の母体の障害，後天的な全身疾患，後天的な局所疾患などを上げているが，未だ定説はない。本症例は，2症例ともに既往歴で述べたように先天的・後天的に直接原因となる要因が認められず，また，現症においても



図8：手根骨X線写真

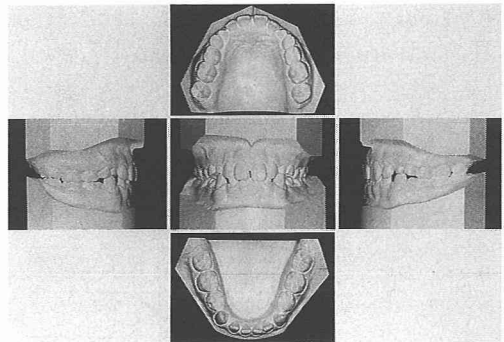


図9：口腔内模型写真

体格・栄養状態に異常はなく，臨床検査・エックス線診査においても特記事項は認められなかった。Thomaら¹³⁾は，外胚葉性異形成の臨床所見（表5）について報告しているが，本症例ではこれにあてはまる全身的な異常所見は全て認められなかった。また，遺伝的要因について，岡本ら¹⁴⁾，和田ら¹⁵⁾，による先天性歯牙欠如の遺伝的研究の報告や，中村ら¹⁶⁾，青木ら¹⁷⁾，守口ら¹⁸⁾の同一家系にわたって出現した先天性欠如症例など多数報告

表3：模型分析（歯列弓の計測値，歯冠近遠心幅径）

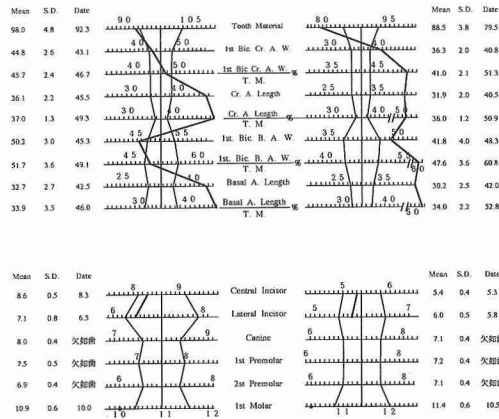
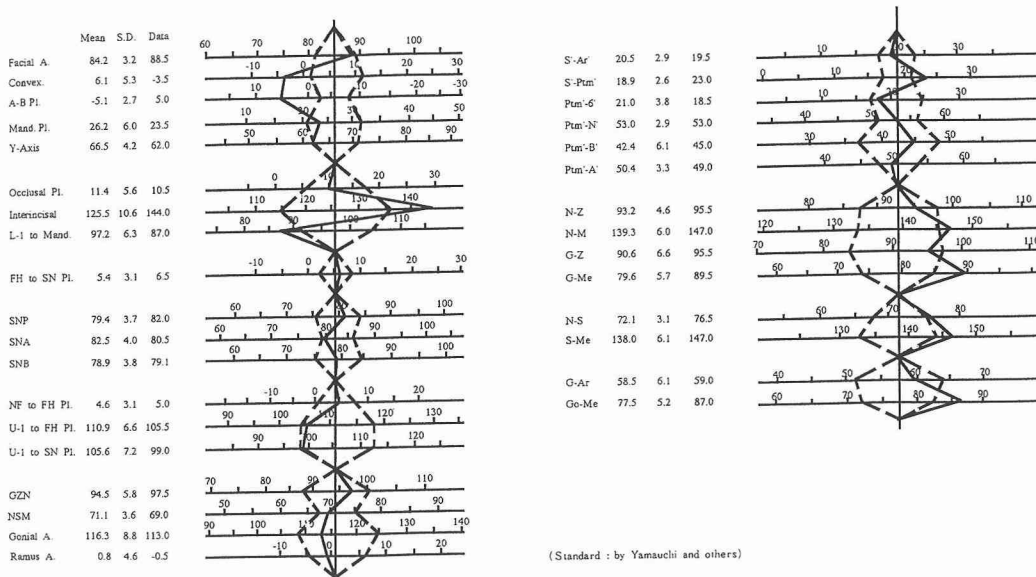


表4：セファロ分析



(Standard : by Yamsuchi and others)

されており、遺伝的要因の関与も示唆されている。しかし、遺伝的形式については優性遺伝とするもの¹⁹⁻²⁰⁾や、劣性遺伝とする報告^{13,15)}がみられ、内田²¹⁾は多数歯欠如は優性遺伝であり、少数歯欠如は劣性遺伝とするものなど、先人によっても定説をみない。本症例では、家族歴で述べた様に、症例1では父方祖父、父と本人の3世代にわたり系統的に男性にのみ部分的無歯症が認められており、その成因は常染色体優性遺伝と考えられる。さらに、父方祖父、父親にも先天性欠如が認められたことから、父親の方からの遺伝の関与が症状促進の一因子になったものと考えられた。また、

症例2では実姉に欠如がみられ、2症例ともに血縁者に永久歯先天性欠如（歯数など不明）を認めたことから、症例1同様に遺伝的要因が強く関与しているものと考えられた。

成長、発育期における本症例への対応として症例1では欠如部に可撤式保険装置を装着しているが、今後、永久的な補綴物に変更していく予定である。症例2では、永久歯欠如部に乳歯が残存しており、歯間空隙はないものの、今後生理的吸収により乳歯脱落が認められれば補綴処置の必要性があるものと考えられる。

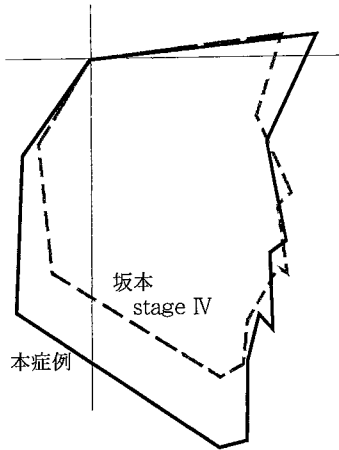


図10：PROFILOGRAM

表5：外胚葉性異形成の臨床所見 (Thomaら)

1. 汗腺の欠如・不足による無汗症，皮膚の乾燥
2. 皮脂分泌の欠乏による無皮脂症
3. 涙腺・咽頭腺・結膜腺・唾液腺の欠乏
4. 乳腺の減発育
5. 禿頭症，体毛の多毛または減毛
6. 虹彩の形成異常
7. 指爪の不完全
8. 口唇の外翻
9. 指節の欠如・不足
10. 鞍状鼻
11. 萎縮性鼻炎
12. 発声困難

結 論

外胚葉異常形成を伴わず出現した部分的無歯症の2症例を経験し，その概要について次のような結論を得た。

1. 症例1は，永久歯8歯，症例2は，永久歯10歯の先天性欠如が認められた。
2. 2症例ともに，皮膚，毛髪，眼瞼粘膜，爪などに異常は認められず，外胚葉異形成症は伴っていないかった。
3. 出生時，全身的ならびに局所的にも要因を明らかにする事は出来なかったが，2症例とも同胞血縁者に先天性欠如が認められたことから，遺伝的要因が関与しているものと考えられた。
4. 臨床的には多数歯の先天性欠如の場合には，咀嚼機能の改善をはかる必要があり，症例1

では下顎に保隙装置を装着しているが，症例2では，先天性欠如部に乳歯が残存しており，保隙の必要がないため経過観察中である。

文 献

- 1) Guilford, S. H. (1883) A dental anomaly. Dent. Cosmos, 25: 113.
- 2) Schultz, L. W. (1938) Anodontia, A Case Report. Dent. Dig. 44: 212.
- 3) 渡辺義男, 西嶋克巳, 植田寛治, 池田 剛, 大橋茂, 横山里江(1966)永久歯の全部性無歯症を伴った無汗型外胚葉性異形成の1例. 口科誌, 15: 33-45.
- 4) 落合靖一, 檜垣旺夫(1958)外胚葉性異形成を伴った無歯症の1例. 口病誌, 25: 230-236.
- 5) 長縄弘康, 若林幸枝, 杉浦恭子, 長坂信夫(1970)完全無歯症の1例. 小児歯誌, 8: 105-110.
- 6) Anthonylppolito (1959) Ectodermal Dysplasia. J. A. D. A. 58: 92.
- 7) 栗山純雄, 柏木 勝, 長尾孜未子(1966)先天性乳歯および永久歯多数欠如の1症例. 小児歯誌, 4: 102-105.
- 8) 北村博則, 北村中也, 坪田不二雄(1960)先天性歯牙欠如の4例. 口病誌, 27: 177-182.
- 9) 森本彰子, 太田和子, 高江洲旭, 赤嶺秀紀, 古沢ゆかり, 木村光孝(1994)母子に発現した部分的無歯症の2例. 小児歯誌, 32: 934-941.
- 10) 塩田研次, 志築照和, 山内孝行(1962)多数歯を欠如した部分的無歯症の2例. 阪大歯誌, 7: 115-124.
- 11) Berkhus, P. J., Oliver, C. P. and Montelius, G. (1944) A study of the pattern and combinations of congenitally missing teeth in man. J. Dent. Res. 23: 117-131.
- 12) 馬 朝茂(1949)日本人の歯における形態的及び数的異常の統計的観察. 歯科学雑誌, 6: 248-256.
- 13) Thoma, K. H. and Goldman, H. M. (1960) Oral pathology, 27. C. V. Mosby, St. Louis.
- 14) 岡本 治, 森 納, 森本松次郎, 中尾徳明, 宮川英子(1951)先天性歯牙欠如に関する統計学的遺伝学的研究. 歯科学報, 51: 8-10, 39-46, 71-75.
- 15) 和田直樹(1938)歯科領域に於ける遺伝の研究(其一)先天性歯牙欠如の遺伝的研究(其一). 歯科学報, 43: 347-360.
- 16) 中村正義(1957)部分的無歯症並びに生歯異常の一家系について. 口病誌, 24: 158-171.
- 17) 青木貞亮(1929)遺伝的歯牙欠如並びに歯列不正の実験例に就て. 日歯学会誌, 22: 199-213.
- 18) 守口 修, 野坂久美子, 甘利英一(1982)家族的

- に現れた部分的無歯症について. 小児歯誌, 20 : 584.
- 19) 太田俊介, 延原通夫, 田村信二 (1955) 同胞に多発した先天性歯牙欠如症. 歯界展望, 12 : 335—338.
- 20) Stones, H. H. (1951) Oral and Dental Diseases. 2nd ed. 133. E. & S. Livingstone, Edinburgh.
- 21) 内田靖夫 (1956) 同胞の多数に現れた先天性歯牙欠如症. 口科誌, 5 : 345.