

原 著

くる病における歯科学的所見

関 重 道 土 田 秀 三 小守林 尚 之
関 山 三 郎

岩手医科大学歯学部 口腔外科学第2講座* (主任: 関山三郎教授)

似 内 晃

岩手医科大学歯学部 補綴学第1, 2講座* (主任: 沢木新前教授)

[受付: 1976年9月21日]

抄録: くる病は石灰新陳代謝障害によって起る疾患とされており、歯科的には、エナメル質減形成をはじめとし、種々の障害を伴ないやすい。私達は、15才女性のくる病における歯科的所見を観察するとともに、文献的考察を加え、従来と同様の所見を得た。

歯牙所見では上顎前歯、小白歯に高度のエナメル質減形成を認め、全体的には多発性の齲蝕を呈していた。上顎では歯列弓はV字型で、口蓋はやや深く、咬合状態は開咬を示していた。X線所見では3が埋伏、1は逆生理埋伏歯を示していた。歯根は弯曲し、Lamina duraは消失、根尖未完成歯などが認められた。顎骨においては石灰化不全が著明で、特に下顎骨では骨梁が淡く乱れており、歯槽骨は発育不全で、骨体は全体として細くなっていた。セファログラムの所見では、上顎の成長発育量が前方かつ垂直的に極めて劣っており7~10才程度と推定された。

臨床経過は、齲蝕高度なものは抜歯を施行したが、その他の歯牙はできるだけ保存に努め、最終的には満足すべき咬合回復を得ることができた。

近年、生活環境の改善、衛生及び栄養に関する知識の普及に伴ない、一般にビタミン欠乏症は減少傾向にある。くる病は、ビタミンDの欠乏症として知られる骨疾患であり、全身的あるいは局所的にも、種々の障害を伴ない治療上問題となることが多い。我々は、本学整形外科にてくる病と診断された本症について、歯科的所見を得るとともに、文献的考察を加えた。

本疾患についての一般的背景

くる病は、ビタミンD欠乏や、日光紫外線不足

による石灰新陳代謝障害によって起る疾患であり、1650年英国のGlison¹⁾によって報告され、英国に比較的多いことから“Englische Krankheit”とも呼ばれた。わが国では、1906年富山県に多くの発現をみたことがあきらかにされており²⁾、その原因は、栄養問題と地域環境の不良を強調している。すなわち、ビタミンD欠乏による石灰吸収の障害を主因とし、骨の石灰沈着障害から、骨の軟化、骨格の屈曲、変形などをきたし、臨床的には、跛行、低身長、O脚、X脚などを伴なう。血清化学的には、血清リンの低

Oral manifestations of rickets.

Shigemichi SEKI, Shuzo TSUCHIDA, Naoyuki KOMORIBAYASHI and Saburo SEKIYAMA (Department of Oral Surgery II, Iwate Medical University School of Dentistry, Morioka 020) Akira NITANAI (Department of Prosthodontics I, II, Iwate Medical University School of Dentistry, Morioka 020)

*岩手県盛岡市中央通1-3-27 (〒020)

Dent. J. Iwate Med. Univ. 1 : 143-149, 1976

下、血清フォスファターゼ値の上昇が特異的で、通常血清カルシウムは減少している。好発年齢は、生後2ヶ月位で、整形外科を受診するのは、2～3才位が最も多くみられる。治療法は、くる病の型によって異なるが、全身的には、日光浴、ビタミンDの投与など、四肢の変形に対しては整形外科的処置を必要とする。

病因論について

ビタミンDの作用機序は複雑で不明な点もあるが、最も重要な作用は、腸管よりのCa、Pおよびクエン酸の吸収を高め、骨の石灰化を促進することで古くから知られており、くる病においては、元来はビタミンDの欠乏による骨疾患を意味していた。しかしながら、その後遺伝性代謝異常や腎機能障害による多種の型のものが発見され、ビタミンDの生体内代謝機構の解明に伴ない治療法も確立しつつある。

くる病に関する歯科学的背景

くる病に関する歯科学的報告は比較的古いものが多く、Fleischmann³⁾ (1878) が、咬合異常の症例を報告して以来数多くみられる。Fleischmannによれば、下顎骨に関する特徴として

- 1) 顎の短縮
- 2) 直線をえがく前歯群の配列
- 3) 歯槽突起が多少鈍角に側方傾斜
- 4) 歯槽頂が内方への圧迫のため臼歯群の集中
- 5) 犬歯が唇側転位し側方歯群と接して萌出
- 6) 犬歯は臼歯頰側咬頭と一直線をなす

又、上顎骨に対しては

- 1) 顎骨の拡大
- 2) 高い(深い)口蓋
- 3) 水平的圧縮
- 4) 鞍状型、V字型の歯列
- 5) 前歯部に著明な space の不足

などがみられ、一般的な歯列とは明らかに差があり、開咬を伴ないやすいとしており、このような不正咬合の要因の一つにくる病が関連するとした。また、Salzmann⁴⁾によれば、ビタミン

D欠乏症の歯科的特徴としては、

- 1) 歯牙の石灰化遅延、即ちエナメル質減形成、象牙質形成不全
- 2) 乳歯及び永久歯の萌出遅延
- 3) 齲蝕による乳歯の早期喪失
- 4) 下顎骨皮質の肥厚と歯牙配列異常(くる病においては常にみられる所見)
- 5) 上顎骨の中は狭く、高い口蓋、下顎骨の短少

などがみられるとし顔面頭蓋と頭蓋の不調和を生じた。このように、くる病における臨床的報告はその他数多くみられる。

症 例

患者：M. T. 15才 女性

初診：昭和47年4月28日

主訴：5.4|部の疼痛

現病歴：約3年前より5.4|部に時々疼痛と腫脹をくりかえしていた。今回、本学整形外科にくる病にて入院中、5.4|部の疼痛を生じたので歯科的精査をすすめられ、当科を紹介来院する。

既往歴：3才、くる病

6才、左下肢の手術。

口腔外所見：下肢O脚。顔貌はやや小さく正面は左右対称で、側面では下顎にやや突出感を認める。(図1)。

口腔内所見：開口度は正中切端部で54mmと大きく、咬合状態は開咬を示し、 $\frac{7}{7}$ のみで接触しており、他は全く無咬合であった。上顎歯列弓は狭窄し口蓋がやや深くV字型を示していた。歯牙所見では、全体に齲蝕歯が多く、口腔衛生状態は不良で、歯周組織は炎症性変化を伴っていた。上顎前歯および小臼歯の唇面歯頰部には、エナメル質減形成が高度に認められ、全体として多発性の齲蝕を示していた(図2)。

模型分析結果は歯列弓においては、上顎では歯列弓長径35.0、VAL27.5、歯列弓幅径36.4、VAW39.3であった。下顎では歯列弓長径28.0、VAL30.0、歯列弓幅径35.6、VAW41.7であった。歯牙自体の分析では特に異常は認められ



図1 初診時側貌所見
下顎に軽度の突出感

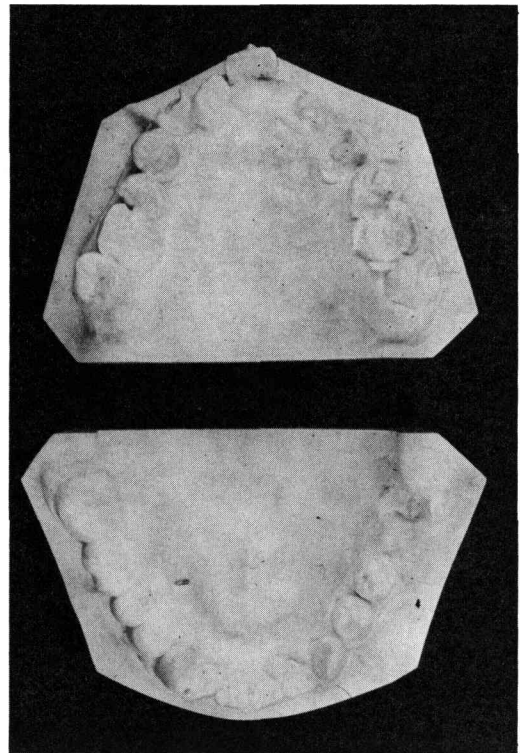


図3 初診時顎態模型
上顎V字型歯列弓と深い口蓋

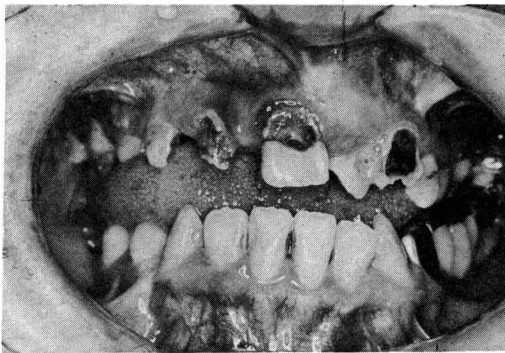


図2 初診時口腔内所見
上顎前歯、小臼歯のエナメル質減形成

図4 初診時検査所見

血液一般		血液化学検査	
赤血球	436 × 10 ⁶	残余窒素	19.5 mg/dl
HbA _{1c} 値	40 %	尿素窒素	9.1 mg/dl
血色素量	13.0 g/dl	総コレステロール	148 mg/dl
白血球数	5000	ナトリウム	134 meq/l
血小板数	210,000	カリウム	3.3 meq/l
出血時間	1 分	クロール	104.8 meq/l
凝固時間	4 分	カルシウム	4.0 meq/l
	12 分	アルカリ性Pase	52.0 KA単位
		酸性Pase	6.5 KA単位
血清学検査		GOT	2.0 単位
RA	—	GPT	1.2 単位
CRP	—	LDH	26.0 単位
ASLO	125 Todd単位	チルビ混濁試験	9.3 単位
RAHA	16 倍 X/F	硫酸亜鉛試験	6 単位
尿化学検査		クレアチン	0.05 mg/dl
尿素窒素	41.0 mg/dl	クレアチン	0.03 mg/dl
Na	207.5 mgEq/l	尿酸	3.6 mg/dl
K	28.0 mgEq/l	無機リン	2.3 mg/dl
Cl	226.3 mgEq/l	血清鉄	96 μg/dl
無機リン	61 mg/dl	尿素窒素	7.0 g/dl
尿一般検査	異常なし	A/G 比	1.27

なかった。(図3)。

血液検査所見：血液一般検査では、特に異常値は認められないが、電解質では、カルシウムは正常範囲で、無機リンは 2.3 mg/dl とやや低値を示した。特徴的なのは、アルカリフォスファターゼが、くる病における特有の高値を示したことで、その値は52.0 KA単位であった。(図

4)。

X線所見：パノラマ所見では、顎骨全体が石灰化不全を示しコントラストが悪く、骨梁も淡く、構造が不規則であった。下顎骨では歯槽突

起の発育不良で、そのため、下顎骨々体が全体として細くなり、下顎枝は、巾が狭く、薄く、発育不全が著明であった。歯数の不足は認められなかったが、3は埋伏、1は逆生埋伏を呈していた。(図5)。歯牙X線所見では、歯根が彎曲しているものが多く、各歯牙の lamina dura は消失しており、根尖未完成歯もみられた。

(図6)。顎関節X線所見では関節頭が小さく細く、関節窩は狭く、関節結節は棘状に突出していた。しかし、全体にコントラストが不良であるため、詳細な読影は困難であった。

頭部X線規格写真分析所見：Skeletal pattern においては、facial angle 89.5とやや大きく、下顎前突様の pattern を呈し、オトガイ部の前方突出が大であった。また、convexity は179.0で、A点すなわち、上顎歯槽基底部前方限界点の前方の発育が悪く凹形の顔貌を示した。Denture pattern においては、U-I to SN plane は122.5、U-I to FH plane は128.0といずれも大きく、上顎中切歯の唇側傾斜が著明で、L-I to mandibular plane は78.5と小さく、下顎中切歯の舌側傾斜が著明であった。また、上顎 (Is-Is') は23.0、下顎 (Ii-Ii') は38.0といずれも低い値を示した。下顎骨の形態的な所見としては、下顎枝の垂直的な成長発育量が少ないのみで、他に異常所見は認めなかった。これらのことより、特に頭蓋部を含め上顎 (中顔面部、上顔面部) の成長発育量は、前方かつ垂直的に極めて劣っており7~10才程度と推定された。(図7)。

処置および経過：初診時に血液一般、血液化学、尿一般、尿化学などの検査、X-P検査を施行した。歯牙に関しては齲蝕の高度なものには、抜歯を施行したが、その他の歯牙はできるだけ保存するように努めた。昭和47年には、5、4、7、6を抜歯、昭和48年には、1逆生埋伏歯、3埋伏歯を抜歯、昭和49年6月に、保存的処置と歯周組織の改善のため、本字歯周科へ依頼し、齲蝕の高度な3+6は根管処置、齲蝕の軽度な7はアマルガム充填、3+2はシリケート充填処置が施行された。同年10月には、咬



図5 初診時パノラマX線所見
歯槽骨の発育不全と淡い骨梁像

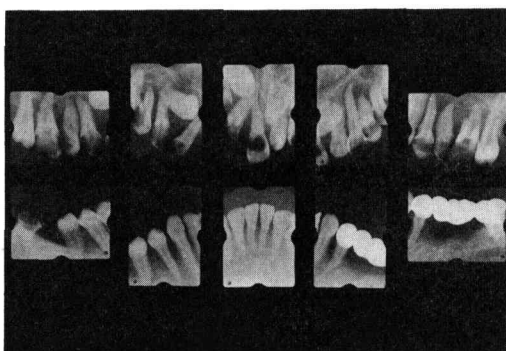


図6 初診時歯牙X線所見
lamina dura の消失と根尖未完成歯

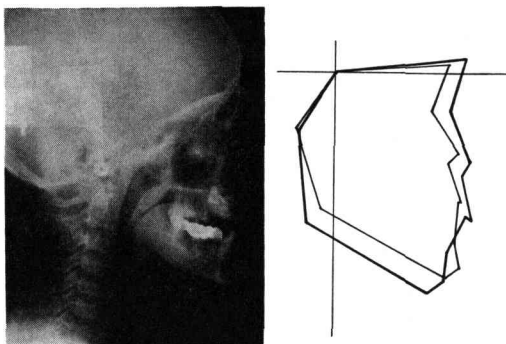


図7 頭部X線規格写真とプロフィールグラム
上顎の前方、垂直的劣成長

合状態改善のため本学補綴科へ依頼した。補綴科では、審美性、咬合平面変動の修正、咬合の確保などを目的とし、7部で咬合平面を改善したのち決定し、3+3部にメタルボンド、45にレジン金属冠、6部に全部鑄造冠を装着した。その間、たびたび前歯部に二次齲蝕や歯肉炎などを生じたが、その都度、刷掃指導し口腔

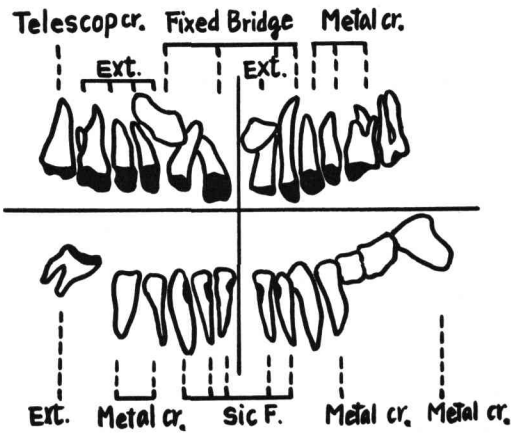


図8 処置内容模式図

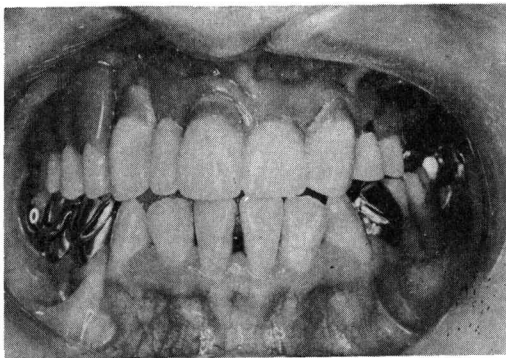


図9 補綴処置終了時口腔内所見

衛生状態に留意した。昭和50年3月、当科にて右頬小帯伸展術を施行したのち、欠損部に局部床義歯を装着し補綴的処置を終了した。これによって、当初の目的であった咬合回復は、一応満足すべき結果を得ることができた。(図8・9)。

考 察

1. 歯牙について

くる病における歯牙については、エナメル質減形成について述べられたものが多数あり、古くは欧米において「くる病の歯」といわれたこともある^{5, 6)}。エナメル質減形成については、Gottlieb⁷⁾ がくる病の幼児期におけるエナメル器の経時的变化について研究し、エナメル質の巾、厚さが減少することを明らかにした。Eliot⁸⁾ は、重症のくる病の既往があるほど、エナ

メル質減形成が著明であり、左右対称性にみられ、早期にくる病の治療を施すとエナメル質減形成の発現が減少できるとし、齲蝕についても同様であるとしている。Sarnat and Schour^{9, 10)} によれば、本疾患の罹患時期と歯牙石灰化には密接な関係があり、病期が長期にわたる場合はエナメル質減不全層が広く、短期の場合は狭く、また層の多発は頻回な罹患を示すとしている。一色¹¹⁾ は、ビタミンD抵抗性クル病においてエナメル質減形成、癒着歯を認めた。

しかし一方では、ビタミンD、カルシウム、リンなどが食事に全く欠乏していても歯牙は良く形成され、エナメル質減形成はごく軽度であるとの報告がある¹²⁾。しかし、ひとたび齲蝕が発生すると多発性の齲蝕症を呈するといわれている¹³⁾。本例では、エナメル質減形成を認めるとともに、上顎前歯、小臼歯、唇面 $\frac{1}{2}$ から全面にわたる多発性の齲蝕症を認めた。

病理組織学的には、エナメル質減形成だけではなく象牙質も形成不全を生じ、Wolfe¹⁴⁾ は、ビタミン欠乏時期に一致してエナメル質減形成、象牙質形成不全を認め、またJump¹⁵⁾、Cawson¹⁶⁾、Tracy¹⁷⁾、Ghose¹⁸⁾、らは球間象牙質の拡大を認めている。

2. 歯牙萌出について

歯牙萌出時期については一般に遅延するとし、くる病患者のビタミンD摂取量と下顎前歯萌出時期の関係についてみると、その摂取量が多くとも少なくとも歯牙萌出は遅延し^{19, 21)}、Salzmann⁴⁾ によればビタミンD欠乏症では、乳歯はわずかな、永久歯では6~9ヶ月の萌出遅延をみた述べている。その他、Marks²¹⁾、一色¹¹⁾ も同様の報告をしているが、一方、Gigliotti²²⁾ は歯牙萌出に関しては正常であったとしている。本例では、歯牙萌出の状況について問診によっては明らかに出来なかったが、3と1が埋伏歯として認められた。

3. 歯牙X線所見について

歯牙X線所見では、一般に lamina dura の消失、歯髓腔、根管腔の拡大などを生じる。Marks²¹⁾、Gigliotti²²⁾ は lamina dura の消失を

報告し、Ghose¹⁶⁾はわずかに存在しているのみであったと述べている。上皮小体機能亢進症においては lamina dura の消失がみられるが、機能障害に対する治療が成功すれば lamina dura も回復するという。歯髄腔、根管腔については Archard²³⁾が、その拡大を、Gigliotti²²⁾は歯髄結石がみられた報告をしている。本例では lamina dura の一部消失を認め、歯根は彎曲しているものが多く根尖未完成歯もみられた点、これらの報告と一致するものがある。

4. 歯槽骨、顎骨X線所見について

歯槽骨、顎骨においては石灰化不全が著明でその結果、骨梁の不規則化、顎骨の發育不全を生じる。下顎骨は肥厚と短少を生じ、歯槽骨の吸収は著しく認められ、これはくる病において特有の症状であり⁴⁾、同様の意見を述べているものは多い^{18,21,22)}。本例では、顎骨全体に石灰化不全を認め、骨梁は淡く、構造が不規則であった。下顎骨では歯槽骨の著明な吸収がみられ、下顎骨体が全体として細くなり、下顎枝は巾が狭く薄かった。

5. 顎関節について

顎関節についてのX線所見では、Derka²⁴⁾は関節頭、および顎部は小さく細くなりその運動時には脱臼を示したが、関節窩および関節腔には異常所見をみなかった。本例では、関節頭が小さく細く、関節窩は狭く、関節結節は棘状に突出していた。開口域は54mmと大きくX線所見でも hypermobility を示した。

6. 頭部X線規格写真について

頭部X線規格写真の分析では、一般に上顎顔面部の劣成長をきたし、一色ら¹¹⁾は高さに関する計測では異常はみられないのに反し、深さに関する計測で上顎骨、鼻骨にいたる上顎顔面部の前方發育は劣っており、下顎骨においては、下顎角の開大がみられた。上顎顔面部の劣成長は石灰化不全によるものとしている^{17,22)}。本例の分析でも同様の結果であり7~10才程度と推定された。

7. 模型分析について

本例の模型分析結果ではほぼ正常であるが、

下顎では歯列弓長径がやや短縮していた。また上顎においては、高い口蓋とV字型歯列弓³⁾を有していた。しかし、歯列弓の狭窄によって口蓋が深くみられるが、異常の範囲には入らないという報告もある¹¹⁾。

8. 処置について

くる病においては、一般に開咬を伴うことが多く、Derka²⁴⁾は、開咬を伴う両側性顎関節脱臼を報告し外科的手術により機能回復を図った。本例では補綴的に咬合平面の改善を行なった。

歯牙においては、口腔内で容易に感染を生じ膿瘍、瘻孔などの発生をみるものが多く報告されている^{21,23)}。本例でも瘻孔を生じ原因歯は抜歯をしたが、歯牙はできるだけ保存につとめ、あわせて口腔衛生状態に留意した。

結 論

1. エナメル質減形成の歯牙が上顎前歯部、小臼歯部にみられ、全体として多発性齲蝕を示し、3]、1]は埋伏していた。
2. 歯牙X線所見では lamina dura の一部消失、根尖未完成歯、歯根の彎曲を示した。
3. パノラマX線所見では、顎骨全体が石灰化不全を示し、骨梁は淡く不規則だった。下顎骨では歯槽骨の著明な吸収象を示し、骨体が細く、下顎枝は巾が狭く薄かった。
4. 顎関節においては関節頭は小さく、細く、関節窩は狭く、関節結節は棘状に突出し、hypermobility を示した。
5. 頭部X線規格写真では頭蓋部を含め、上顎の成長發育量は、前方かつ垂直的に劣っており7~10才程度と推定された。
6. 模型分析では、口蓋はやや深くV字型を示した。
7. 処置は、歯牙はできるだけ保存につとめ、開咬に対しては、補綴的処置により、機能的審美的に良好に改善された。

(本論文の要旨は昭和51年2月14日、第1回岩手医大歯学会例会にて発表した。)

Abstract : Deficiency of vitamin D produces rickets in growing children. This disease is characterized by a failure of calcification of cartilage and bone. Children with rickets show severe disturbances in the teeth and jaws. We made reference to literatures and got some oral findings.

A 15-year-old girl was referred by the physician to our Clinic for evaluation of recurrent 5 4 gingival abscess of one months' duration. She had been admitted for treatment of rickets at the Clinic of Orthopedic Surgery of Iwate Medical University.

Oral examination revealed open-bite, high arched palate, V-shaped maxillary arch, retardation of the teeth eruption, malpositioning of the teeth, gingival abscess, and severe enamel hypoplasia of both the maxillary and mandibular teeth. Dental caries were also found in these defected teeth.

Radiographic examinations revealed disappearance of lamina dura, somewhat enlarged pulp chamber and root canal, retardation of alveolar process, and reduced radiopacity. Cephalometric roentgenograms showed retardation of the vertical and horizontal growth of the maxillary bone.

We tried to conserve as many teeth as possible, and consequently the patient attained good dentition and sufficient occlusal recovery.

文 献

- 1) 友田正信, 三宅博, 天児民和 : 外科学総論, 第4版, 南山堂, 東京, 382-386ページ, 1965.
- 2) 豊田文一 : 日本における「くる病」の発見, 日本農村医学雑誌 22 : 708-709, 1973-1974.
- 3) Fleischmann, L. : Kiefer-rhachitis, *Dtsch. Vjschr. Zahnheilk.* 18 : 180-185, 1878.
- 4) Salzman, J. A. : Practice of orthodontics, vol. One, J. B. Lippincott Co., Philadelphia, pp 385, 1966.
- 5) 岡本清櫻 : 新口腔衛生学—個人口腔衛生—, 医歯薬出版, 東京, 74-76ページ, 1968.
- 6) 佐々木哲, 須田立雄, 吉本周作 : 歯の形成異常—とくにカルシウム代謝を中心に—, 日歯会誌 27 : 135-140, 1970.
- 7) Gottlieb, B. : Rachitis and enamel hypoplasia. *Dent. Cosmos* 62 : 1209-1221, 1920.
- 8) Eliot, M. M., Souther, S. P., Anderson, B. G. and Arnim, S. S. : A study of the teeth of a group of school previously examined for rickets. *Am. J. Dis. Child.* 48 : 713-729, 1934.
- 9) Sarnat, B. and Schour, I. : Enamel hypoplasia. (chronologic enamel aplasia) in relation to systemic disease : A chronologic, morphologic and etiologic classification. *JADA* 28 : 1989-2000, 1941.
- 10) Sarnat, B. and Schour, I. : Enamel hypoplasia. (chronologic enamel aplasia) in relation to systemic disease : A chronologic, morphologic and etiologic classification. *JADA* 29 : 67-75, 1942.
- 11) 一色泰成, 高橋勇, 丸山博 : ビタミンD抵抗性クル病 (Vitamin D resistant rickets) の3症例について, 日矯歯誌 26 : 70-82, 1967.
- 12) Farmer, E. D. and Lawton, F. E. : Stones' oral and dental diseases, 5th ed., E. and S. Livingstone Ltd, Edinburgh, pp 83-85, 1973.
- 13) Gorlin, R. J. and Goldman, H. M. : Thoma's oral pathology, vol. Two, 6th ed., C. V. Mosby Co., St Lous, pp 616-618, 1970.
- 14) Wolfe, J. J. : Teeth and fetal rickets. *Am. J. Dis. Child.* 49 : 905-911, 1935.
- 15) Jump, E. B. : Changes within the mandible and teeth in a case of rickets. *Am. J. Orthodont. oral Surg.* 25 : 484-490, 1939.
- 16) Cawson, R. A. : Defects of enamel structure in case of renal osteodystrophy. *Brit. d. J.* 177 : 141-144, 1964.
- 17) Tracy, W. E. and Campbell, R. A. : Dental development in children with vitamin D-resistant rickets. *JADA* 76 : 1026-1031, 1967.
- 18) Ghose, L. J. : Alveolar bone resorption in a child with healing rickets : Report of case. *J. dent. Child.* 40 : 427-474, 1973.
- 19) Speidel, T. D. and Stearns, G. : The relation of vitamin D intake to the age of the infant at the time of eruption of first deciduous incisor. *J. Pediat.* 17 : 506-511, 1940.
- 20) Speidel, T. D. : Effect of vitamin D on the eruption of deciduous incisors. *J. dent. Res.* 19 : 287-288, 1940.
- 21) Marks, S. C., Lindahl, R. L. and Bawden, J. W. : Dental and cephalometric findings in vitamin D resistant rickets. *J. dent. Child.* 32 : 259-265, 1965.
- 22) Gigliotti, R., Harrison, H., Reveley, R. A. and Drabkowski, A. J. : Familial vitamin D-refractory rickets. *JADA* 82 : 383-387, 1971.
- 23) Archard, H. O. : The dental defects of vitamin D-resistant rickets. *Brith Defects Original Article Series* 52 : 196-199, 1971.
- 24) Derka, F. : Ein Beitrag zur Chirurgischen Spätbehandlung der Gesichtsschädelrachitis. *Zahnärztl. Welt* 68 : 284-292, 1967.