

〔症例報告〕

施設間連携により専門的口腔ケアを実施した外胚葉異形成症の1例

廣瀬 知二¹⁾, 須田 裕里佳²⁾

1) 医療法人伊東会 伊東歯科口腔病院

2) 医療法人博愛会 額田病院

A interfacility collaboration case study of professional oral health care in ectodermal dysplasia

Tomoji HIROSE, Yurika SUDA

1) Itoh Dento-Maxillofacial Hospital

2) Kaita Hospital

Key words : Interfacility collaboration, Ectodermal dysplasia, Metal allergy

Abstract

Disciplined oral care for a female patient (age in the fifties) suffering from ectodermal dysplasia involving metallic allergies and chronic eczema, undertaken with a combination of treatment at a hospital and a dental care facility led to early improvements of the oral environment.

In facilities/hospitals outside the dental department, cases where dental hygienists are specifically assigned are becoming increasingly more common. It is shown that it is desirable to coordinate more closely with dental care facilities.

緒 言

外胚葉異形成症は汗腺の欠如ないし低形成、歯の先天欠損や形成不全、乏毛を主症状とし、乾燥してなめらかで軟らかい皮膚と鞍鼻、アトピー性皮膚炎を伴う遺伝性疾患である。今回、金属アレルギーを有し慢性湿疹を伴う外胚葉異形成症患者に対して、施設間連携により口腔衛生管理を行った結果、口腔環境が改善した症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：50歳代女性

歯科初診：201X年10月

主訴：口腔内の精査

家族歴：聴取した範囲内では両親に血族結婚はなく、血族者の先天的異常は確認できなかった。

現病歴：出生時より発汗がなく、湿疹がでやすかった。また、詳細は不明であるが歯科疾患のため通院を繰り返していた。幼少期より両眼の視力が徐々に低下して

右眼の視力を失った。成人後関節リウマチと変形性膝関節症を併発し、しだいに歩行困難となり在宅での療養を続けていた。その間、某大学病院で無汗型外胚葉異形成症、シェーグレン症候群との診断を受けた。膝の痛みが強くなったため、201X年8月下旬A病院に入院。同年9月上旬にB病院に転院して左膝関節置換術施行。術前のパッチテストの結果、金属アレルギー（亜鉛、ニッケル、水銀、スズ、イリジウム）と診断された。そのため、関節置換術には該当金属を含有しないチタン合金製の人工関節が用いられた。術後経過良好であったため同年9月下旬、リハビリ目的で額田病院に転院となった。額田病院には歯科がないため同年10月、歯科修復物と金属アレルギーとの関連について精査を求めて（医）康和会アイ歯科医院の歯科訪問診療を受診した。

現 症

口腔外所見：皮膚は乾燥しており乏毛、鞍鼻（図1）、手掌部の幅が小さく、母指と小指は先端が肥大した特徴的な手指の形態を呈し（図2）、指紋の欠如が認められ

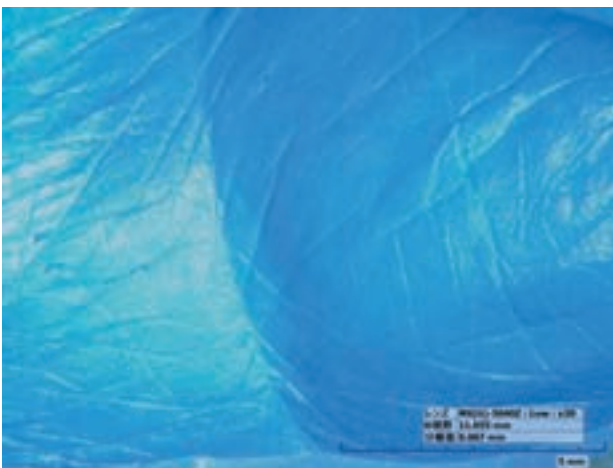


図1. 顔貌正面像
皮膚はなめらか、乏毛、鞍鼻を認める。



図2. 左手背像
特徴的な手指の形態を呈している

た(図3)。右眼は視力を失っており、左目は弱視であった。臀部、足底、肘に湿疹が見られた(図4)。食



(a)

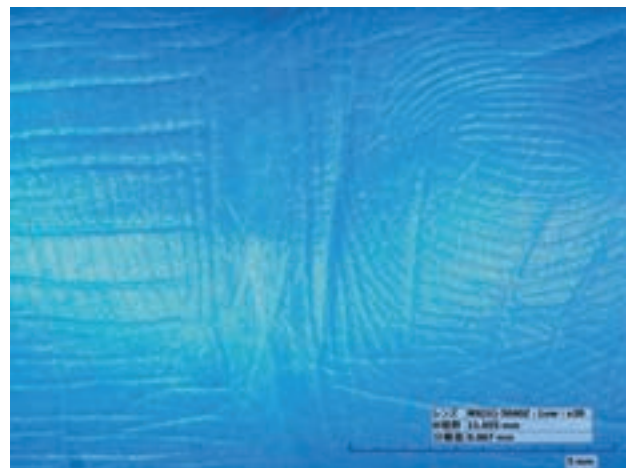
図3. 右示指印象面の実体顕微鏡像
(a) 患者：指紋の欠落を認める,
(b) 同年齢健常女性.



図4. 初診時臀部：紅斑，一部湿潤を呈した湿疹がみられる。

事は普通食の自力摂取が可能であった。

局所所見：口唇部の乾燥は認められたが、口唇周囲などに炎症所見は認められなかった。口腔内も乾燥傾向にあったが、金属アレルギーとの関連を疑う口腔扁平苔癬や粘膜の糜爛は認められず、口腔内違和感の訴えもなかった。上顎には $\overline{64|45}$ にマグネットアタッチメントを使用したオーバーデンチャータイプの総義歯が装着されていた。下顎は $\overline{87654321}$ と $\overline{43567}$ に金銀パラジウム合金と見られる銀白色の金属ブリッジによる欠損補綴がなされていた。口腔内のセルフケアは十分に行われておらず、残存歯、ブリッジのポンティック、義歯ともにブラーク沈着が認められ辺縁歯肉の発赤腫脹と義歯床下粘



(b)

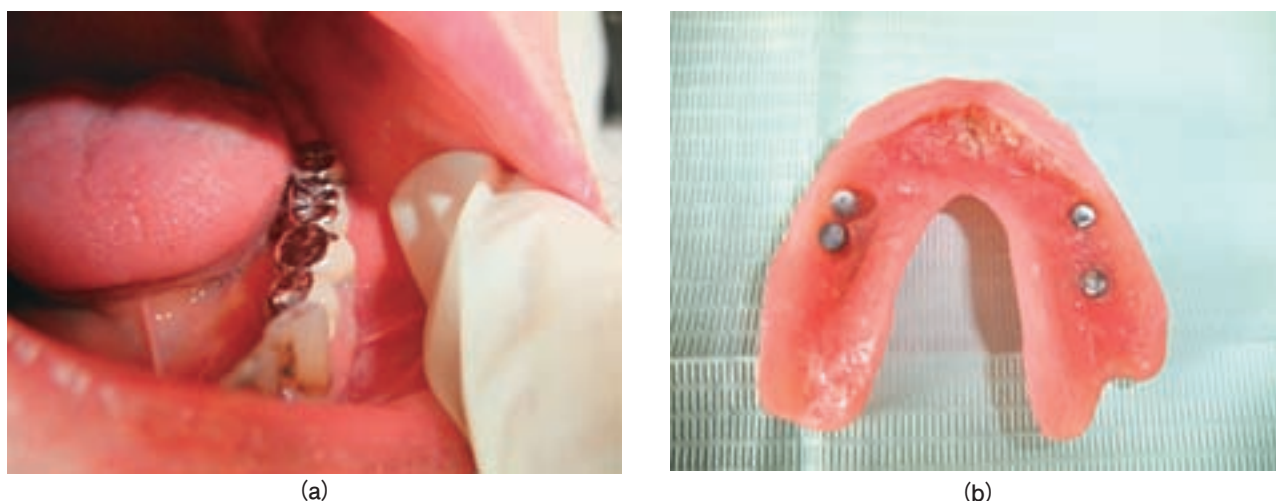


図5. 初診時 (a) 口腔内,
(b) 上顎義歯粘膜面: プラークコントロールは不十分で, 辺縁歯肉の発赤腫脹と義歯床下粘膜の発赤を認める.

膜の発赤を認めた (図5). また10歯にわたり根管治療が施されていることがエックス線写真により確認された (図6).

臨床診断: $\frac{64}{8542} + \frac{45}{57}$ 慢性辺縁性歯周炎, 義歯性口内炎
経過: 慢性湿疹に対しては, 皮膚科医により臀部には炎症性皮膚疾患治療剤アズノール軟膏®, 足底にはアズノール軟膏を主体として糜爛部にのみプロスタグランジンE₁製剤プロスタンディン軟膏®, 肘には副腎皮質ホルモン剤アンテベート軟膏®を用いた治療が行われた. また, 入院当初より2週間, アレルギー用薬アレジオン® (20mg) 1錠/日 (就寝前) が内服処方された. 歯科介入は, 入院期間中週1回歯科医師が訪問診療を行い, 残存歯のスケーリングを実施した. また歯科医師の指示に基づき病所属属歯科衛生士が週4回の専門的口腔ケアを実施した. その手順は, まず毎食後患者自身がブラッシ

ング, 義歯清掃を行い, 歯科衛生士は患者自身が昼食後ケアを行った後に介入, 歯ブラシの当て方等適宜指導した. その後, 歯科衛生士がワンタフトブラシ, 歯間ブラシで仕上げ磨きを行い, 義歯に汚れが残っている場合は義歯清掃も行った. 介入後, 口腔衛生状態は改善して歯肉の症状は緩解した (図7, 表1). また, リハビリテーションも順調に経過し湿疹も改善傾向が見られたため (図8), 同年12月下旬に退院した.

考 察

外胚葉異形成症 (Ectodermal dysplasia) は, 無汗症, 乏毛, 歯の先天欠如に加え, 全身の外胚葉系組織障害を呈する疾患として1838年にWidderbrumにより報告された (藤田ら, 1991). その後, Weechは外胚葉系組織障害を有すること, また遺伝的傾向があることから遺伝性

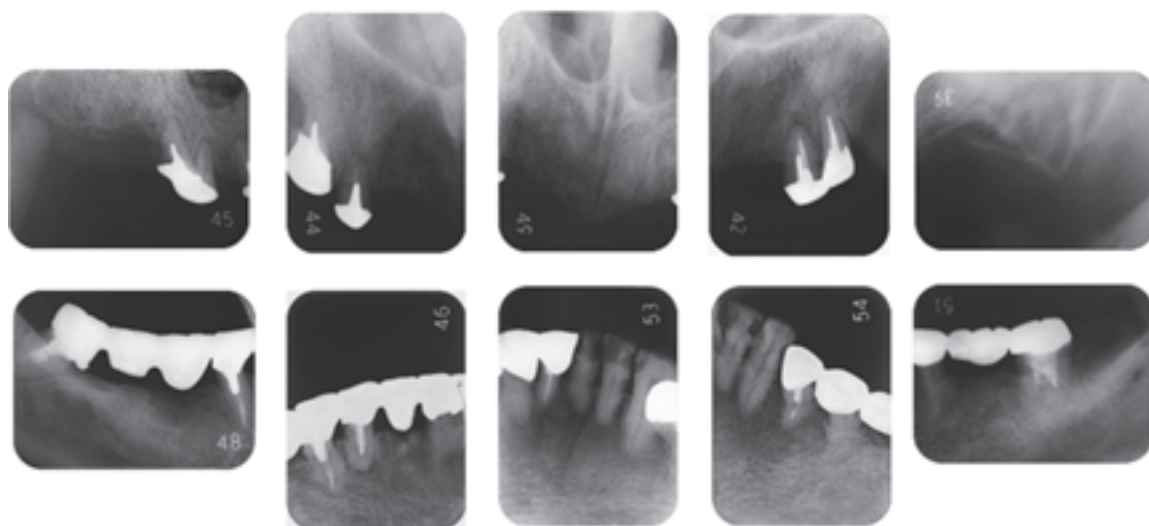


図6. 初診時のデンタルエックス線写真



図7. 専門的口腔ケア開始2週間後の口腔内

表1. 歯周検査表：歯周組織検査表：専門的口腔ケアの介入後に歯周ポケットの改善を認める。

初診時

上顎	動揺度			0	0							1	1				
	ポケットの深さ			4	4							4	4				
	BOP			-	-							-	-				
		8	7	6	5	4	3	2	1	1	2	3	4	5	6	7	8
下顎	ポケットの深さ	5			3	3		3	3	3	3	3	3			5	
	動揺度	0			0	0		0	0	0	0	0	0			0	
	BOP	-			-	-		-	-	-	-	-	-			-	

専門的口腔ケア開始 2週間後

上顎	動揺度			0	0							0	0				
	ポケットの深さ			3	3							3	3				
	BOP			-	-							-	-				
		8	7	6	5	4	3	2	1	1	2	3	4	5	6	7	8
下顎	ポケットの深さ	4			3	2		2	2	2	2	3	3			4	
	動揺度	0			0	0		0	0	0	0	0	0			0	
	BOP	-			-	-		-	-	-	-	-	-			-	



図8. 専門的口腔ケア開始2週間後の唇部：紅斑，湿潤の改善がみられる。

外胚葉異形成症（Hereditary ectodermal dysplasia）と命名した（Weech, 1929）。遺伝様式や形質から，便宜的に外胚葉異形成症は無汗型，減汗型，有汗型の3つに分類されており，それぞれの原因遺伝子が異なることが明らかにされている（田畑，2004）。いずれも歯の欠損や形態異常が生じるため歯科領域での報告が多くみられる（渡辺ら，1976；野中ら，1996；大澤ら，1998）。その中で無汗型外胚葉異形成症（Ectodermal dysplasia anhidrotic：EDA）は，外胚葉異形成症のなかで最も症例の多い疾患である。歯の欠如は，数歯より全歯まで程度に差があり，歯があっても形やサイズの異常を伴うことが多い。自験例は患者が50歳代であることから，歯の欠損が先天的なものであるか，後天的であるのかは明らかにできなかったが，幼児期より頻回に歯科疾患のため通院していたことから何らかの先天的異常があったことが推測できる。歯周組織の衛生状態が不良であったことは，直接外胚葉異形成症に起因するものではない。歯の先天的異常の結果として施された補綴物周囲のセルフケアが，視力障害もあって困難なため口腔清掃状態の不良につながったものと考えられる。

また，本疾患はX連鎖性劣性遺伝を示し（野中ら，1996；大澤ら，1998），原因遺伝子がXq12.2-q13.1であることが明らかにされている（Thomas et al., 1993）。X染色体の異常により発症することから男性に比べ，女性の発症率は極めて低いはずであるが，過去の報告例では発生の男女比が27：10（渡辺ら，1976），3：1（大澤ら，1998）のように，圧倒的少数ではない。この理由として，無汗型と減汗型を区別せずに論じているケースが多いことが挙げられる。また女性の保因者がヘテロ個体でも汗腺の低形成部と正常部がモザイク状にあらわれるキメラ現象により部分症状を呈することがあり（田畑，2004），そのケースを含む場合や，無汗型に似た症状を呈する常染色体優性遺伝の症例が含まれている可能性がある。本症例の場合は血縁者に同様の症状を有する者はなく，遺伝形成については明らかではなかった。

外胚葉異形成症患者の金属アレルギー発症については，合併の頻度，病態等の調査報告は，著者らが収集した文献には見あたらなかった。その一方，アトピー性皮膚炎，鼻炎，喘息，食物アレルギーについては，経験的及びアンケート調査により合併しやすいことが知られており（加藤ら，2014），とくにアトピー性皮膚炎については必発と言われている（今山ら，1994）。その理由として，汗腺，脂腺，表皮の形成不全によるバリアー機能の低下，IgA機能の分泌低下が考えられている（加藤ら，2014）。IgAのなかでs-IgAはプラズマ細胞（形質細胞）

胞)から分泌される免疫グロブリンで、粘膜免疫の主役であり、消化管や呼吸器における免疫機構の最前線として機能している。アトピー性皮膚炎患者では健常人に比較してs-IgAの分泌が著明に低下していることが報告されている(今山ら, 1994)。また、Veienらは(Veien et al., 1983)、「金属アレルギーの一部の患者では口腔粘膜や消化管から体内に吸収される微量歯科金属により、さまざまな発疹が惹起される」と報告している。以上のことより、歯科用金属が、粘液中のs-IgAの分泌が低下した口腔粘膜や消化管粘膜から吸収され、血行性に全身に運ばれ、到達した部位で皮膚炎を惹起するものと考えられる(高, 2011)。

健康保険適応の金銀パラジウム合金は、ほとんどの製品が12Au-20Pd-10~20Cu-45~55Ag (mass%)他であり、銀を主成分として、パラジウム、銅、金を含み、鋳造時の脱酸材として亜鉛、結晶粒微細化を目的にイリジウムが添加された合金である(小田, 2002)。歯科金属アレルギーは口腔内の金属が原因であるにもかかわらず、症状は口腔内にほとんど発症せず、口腔内から遠隔の皮膚に発症することがきわめて多いと報告されている(高, 2011)。本症例においても口腔内に金属アレルギーの関与を示す症状はみられないものの、金銀パラジウム合金にアレルゲンである亜鉛、イリジウムが含まれることから湿疹の原因としての関与が疑われた。また根管充填に使用される薬剤は亜鉛を含むものが多いため、その関与も疑われた(野村ら, 2004)。しかしながら、これらの歯科材料を全て取り除くには大きな時間的、経済的負担となること、除去後に症状が悪化するフレアアップが予想されることから、保存的治療を行った。金属アレルギーはイオン化した金属がハプテンとなり、蛋白と結合して完全抗原となる。その結果、体内で抗原・抗体反応が起こり、抗体を獲得すると再度、抗原と接触することにより、アレルギー症状を現すことになると考えられている(服部, 2015)。本症例では、湿疹に対して皮膚科医師による治療が奏功した。それに加えて、当初金属とプラークが接触していたため、pHが低い環境下で金属のイオン化が進行して抗原が生産されやすい状態にあったが、口腔衛生管理によりイオン化する金属量が減少した結果、抗原量も減少してアレルギー症状の改善につながった可能性も考えられる。

今回、歯科がない病院に入院中の患者に対して、歯科医療機関と病院所属の歯科衛生士との連携により、病院と歯科医療機関との連携により専門的口腔ケアを実施した。2014年の統計によれば、国内の一般病院総数は7426、うち1106の病院が歯科を標榜している。その割合

は近年、横ばい傾向にある(厚生労働省, 2015a)。歯科がない病院や老人保健施設には近隣の歯科医療機関から、歯科医師や歯科衛生士が訪問により口腔機能管理を担っているケースが多い(岡江, 2014; 廣瀬, 2014)。一方、病院に勤務する衛生士は増加傾向にあり(厚生労働省, 2015b)、歯科がない病院に歯科衛生士が配置されるケースが増加していることがうかがえる。歯科がない病院での歯科衛生士は、訪問診療のために来院した歯科医師が院内で活動しやすいように連携窓口となり、医科歯科連携の体制を整備すること、また、医科の情報を歯科医師に、歯科の情報を院内に伝えるといった橋渡しの役割を担うことになる(赤坂ら, 2015)。一方、現行法体系下において、日常的な口腔ケアについての保健指導ではなく、歯科医療として歯科衛生士が行う口腔ケアは歯科診療の補助業務に相当するため歯科医師の指示が必要となる。また、歯科衛生士の業務は「診療の補助」ではなく、「歯科診療の補助」に限定されているため(厚生労働省, 2011)、医師の診療の補助は業務外となる。今後、歯科医療機関との連携をさらに密にすることにより、より患者の状況の応じた口腔衛生管理の提供が、歯科がない病院に勤務する歯科衛生士に求められると考える。

結 語

歯科がない病院に入院した、金属アレルギーの関与が疑われる湿疹を伴う外胚葉異形成症患者に対して、歯科医療機関所属の歯科医師と病院所属の歯科衛生士が施設間連携により専門的口腔ケアを実施した。その結果、金属アレルギーの関与は明らかでなかったが、患者の口腔環境が早期に改善した。歯科がない病院や介護施設に歯科衛生士が配属されるケースが増えつつあり、今後歯科医療機関とのより密接な連携が望まれる。

謝 辞

(医) 康和会在職中ご指導を賜りました柴田康会長に心から感謝申し上げます。

文 献

- 赤坂幾子, 畠山良彦, 高橋良明, 曾根克明, 星野彰, 北村道彦, 遠藤秀彦. 医科歯科連携・チームで取り組む口腔ケア推進活動. 日クリニカルパス会誌 17: 334-337, 2015.
- 藤田幸雄, 横田光正: 外胚葉異形成症. 顎口腔外科診断治療体系, 講談社: 1991, 500-501.
- 服部正巳. 口腔内金属アレルギー研究. Dental Maga-

- zine 107 : 56-63, 2015.
- 廣瀬知二. 介護老人保健施設での歯科と多職種連携. 歯科医療 28 (2) : 19-25, 2014.
- 今山修平, 行徳隆裕. 無汗性外胚葉形成不全症とアトピー性皮膚炎. 皮膚病診療 16 : 691-694, 1994.
- 加藤恒平, 西澤綾, 佐藤貴浩, 横関博雄. 無汗性外胚葉形成不全症患者に対するアンケート調査-アトピー性皮膚炎の合併との関連について-. 発汗学 21 : 23-27, 2014.
- 高永和. 歯科金属アレルギー治療を考える. Quintessence 30 : 2531-2543, 2011.
- 厚生労働省. チーム医療推進のための基本的な考え方と実践的事例集. 2011.
- 厚生労働省. 平成26年医療施設(静態・動態)調査・病院報告の結果. 2015a.
- 厚生労働省. 平成26年衛生行政報告例(就業医療関係者)の結果. 2015b.
- 野村修一, 橋本明彦. 歯科用金属アレルギーの臨床. Niigata Dent. J 4 : 1-10, 2004.
- 野中和明, 西嶋憲博, 石井光治, 山崎要一, 佐々木康成, 中田稔. 無汗型外胚葉異形成症の患児の歯科治療と咀嚼運動検査. 小児歯誌 34 : 698-706, 1996.
- 小田豊. 代用合金開発の可能性. 補綴誌 46 : 639-643, 2002.
- 岡江晃児. がん患者における医科歯科連携-医療ソーシャルワーカーの立場から-. 歯科医療 28 (2) : 12-18, 2014.
- 大澤雅輝, 野村城二, 松村佳彦, 中川俊幸, 乾真登可, 田川俊郎. 低汗型外胚葉異形成症の一例および本邦での20年間における文献的考察. 日口診誌 11 : 92-97, 1998.
- 田畑純. 外胚葉異形成症の原因遺伝子群-歯の発生におけるその役割と最近のトピックス-. 鹿児島大学歯学部紀要 24 : 53-61, 2004.
- Thomas NS, Chelly J, Zonana J, Davies KJ, Morgan S, Gault J, Rack KA, Buckle VJ, Brockdorff N, Clarke A & Monaco A. Characterisation of molecular DNA rearrangements within the Xq12-q13.1 region, in three patients with X-linked hypohidrotic ectodermal dysplasia (EDA). Hum Mol Genet 2 : 1679-1685, 1993.
- Veien NK, Hattlie T, Justesen O & Nørholm A. Oral challenge with metal Salts(I) Vesicular patch-test-negative hand eczema. Contact Dermatitis 9 : 402-406, 1983.
- 渡辺義男, 西嶋克巳, 植田寛治, 池田剛, 大橋茂, 横山里江. 永久歯の全部性無歯症を伴った無汗型外胚葉異形成の1例. 口科誌 15 : 33-45, 1976.
- Weech AA. Hereditary ectodermal dysplasia (congenital ectodermal defect). Am J Dis Child 37 : 766-790, 1929.



廣瀬 知二
伊東歯科口腔病院

1960年生まれ, 大分県出身
1985年 東日本学園大学歯学部卒業
1989年 広島大学大学院歯学研究科
(歯科理工学専攻) 修了
1994年~2015年3月(医) 康和会勤務
2015年4月~ 伊東歯科口腔病院訪問診療部長
現在に至る