様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９　（共通）

科学研究費助成事業　　研究成果報告書

令和　２ 年　 ６ 月 １８ 日現在

機関番号：３２６６７
研究種目：基盤研究(C)（一般）
研究期間：2016～2019
課題番号：１６Ｋ１１８７０

研究課題名（和文）新たな摂食嚥下機能プロトコールは早期加齢リスクのあるダウン症候群に有効か？

研究課題名（英文）Verification of a novel protocol of eating/swallowing functions for Down syndrome patients with risk of premature aging

研究代表者
水上　美樹（MIZUKAMI, MIKI）

日本歯科大学・生命歯学部・医療職員

研究者番号：６０７３５６９５

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費）　　3,700,000円

研究成果の概要（和文）：ダウン症候群は、染色体疾患を有する出生児の中で最も患者数が多い疾患である。さらに、ダウン症候群は誤嚥のリスクが高い。誤嚥や食事に関するリスクを高めている要因の１つが丸のみである。我々は、新たなダウン症候群に特化したプロトコールを作成するために咀嚼機能に関連する要因を検討した。対象は、日本歯科大学口腔リハビリテーション多摩クリニックの小児摂食外来に受診したダウン症候群児（12か月から36か月）75名である。
　その結果、咀嚼機能の獲得の有無と関連のあった項目は、年齢、低出生、偏食、粗大運動であり、これらの中でも最も関連の強かったものが粗大運動であった。

研究成果の学術的意義や社会的意義
染色体疾患の中で最も患者数の多いダウン症候群は、誤嚥のリスクが高い疾患である。誤嚥のリスクを高めている要因が、ダウン症候群の特徴でもある丸のみ（咀嚼機能不全）や早期退行現象の出現などがあげられる。我々は、誤嚥や食事に関するリスクを高めている要因の１つである丸のみに注目し、新たなダウン症候群に特化したプロトコールを作成するために咀嚼機能に関連する要因を検討した。
　その結果、12～36か月のダウン症候群では、咀嚼機能の獲得の有無と関連のあった項目は、年齢、低出生、偏食、粗大運動であり、これらの中でも最も関連の強かったものが粗大運動であった。

研究成果の概要（英文）：Down syndrome (DS) is has the highest prevalence syndrome in newborns with of any chromosomal abnormalitiesy identified in newborns. Moreover, DSDown syndrome children are also at has a high risk of aspiration., and sSwallowing food without chewing is considered to be a factor associated with increased risk of aspiration and eating problems. We investigated the factors related to masticatory function in DS children for development of a novel in order to create a new protocol specialized for DSDown syndrome. The subjects were 75 outpatient DS children, (age 12 to 36 month-old).
As a result, the revealed age, low birth weight, picky eating, and gross motor function were to be relevant factors. Among these factors, gross motor function had was found to be the factor the strongest most strongly relevance associated with acquisition of masticatory function.

研究分野：摂食嚥下機能

キーワード：ダウン症候群　摂食嚥下障害　咀嚼機能　粗大運動

※科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。

様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９（共通）

１．研究開始当初の背景

（１）ダウン症候群は哺乳や摂食機能に障害がおこりやすく、早期からの介入が必要とされる。過去には、20 歳まで生きられない病気と言われていたが、医療の進歩や生活環境の改善から平均寿命は 60 歳を超えた。また早期からみられる退行様症状は、認知症やうつ的状態に類似した症状が出現するものの明確な原因が確定されていない。

（２）ダウン症候群の摂食時の異常運動パターンとして、舌突出、開口が多く見られる。多くは経口摂取できるが、特に咀嚼力が弱く丸のみから早食いになりやすい特徴がある。しかし、一般的にダウン症候群を含む知的能力障害児が摂食機能に問題があるという認識は薄く、誤嚥のリスクの高いダウン症候群に対して、食事に関する問題への対応は急務であることがうかがえる。これらの事から、出生数と高齢化する患者数の増加が予想されるダウン症候群に特化した摂食に関するプロトコールの開発は喫緊の課題と考えた。

２．研究の目的

（１）ダウン症候群は、舌突出や丸のみを呈しやすく、これらの症状を含む摂食嚥下機能障害は、窒息や誤嚥の危険性を高める疾患である。しかし、現在ダウン症候群の摂食嚥下機能を改善するための最適期や指導内容は確立されていないのが現状である。そこで、本研究では、ダウン症候群児における咀嚼機能獲得を目指した指導内容を確立し、新たなプロトコールの開発を行うこと目的とした。

（２）ダウン症候群の摂食機能障害の程度や頻度には個人差が大きい。現在、発達期における摂食嚥下リハビリテーションは一般に定型発達児の摂食嚥下機能発達過程を踏襲する方法が一般的であるが、ダウン症候群に特徴的な症状である舌突出や咀嚼困難に注目した新たなプロトコール開発が必要と考えた。

３．研究の方法

（１）2012 年 10 月～2016 年 12 月に研究者らが勤務する口腔リハビリテーションを専門とする摂食外来を受診した初診時年齢 10 か月～36 か月の食事を全介助で受けているダウン症候群児 89 人（平均年齢 1.1±0.9 歳）を対象とした。これらに対して、初回摂食指導時の摂食機能評価の中から、嚥下と咀嚼に関連した項目を抽出し新たな摂食機能レベルとして、誤嚥の危険性が高い順に Lev１を咀嚼未獲得、嚥下不良、Lev２を咀嚼獲得、嚥下不良、Lev３を咀嚼未獲得、嚥下良好、Lev4 を咀嚼獲得、嚥下良好の 4 分類とした。さらに、現在用いられている向井の摂食嚥下機能段階（機能段階）と新たな摂食機能レベル（新摂食レベル）との比較を行った。

（２）前述の結果をふまえ、さらに 2012 年 10 月から 2017 年 10 月の間に、小児摂食外来を受診した 674 名のダウン症候群のうち初診時、咀嚼機能未獲得、全介助、1 年間に 5 回以上受診のあった 75 名（20.9±7.4 か月）を対象として、1 年間摂食指導の介入を行った。受診 1 年後の咀嚼機能の獲得と未獲得群に分類し、咀嚼機能の獲得を阻害している因子を検討した。

４．研究成果

（１）対象児の摂食機能は、機能段階では、咀嚼機能を獲得している段階にある者が 2 人(0.2%)であったが、新摂食レベルで分類すると咀嚼機能獲得が 34 名（38.2%）と機能獲得の評価に乖離がみられた（図１－１，１－２）。

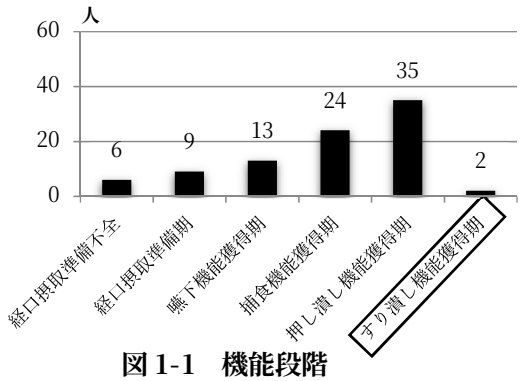

図 1-1　機能段階

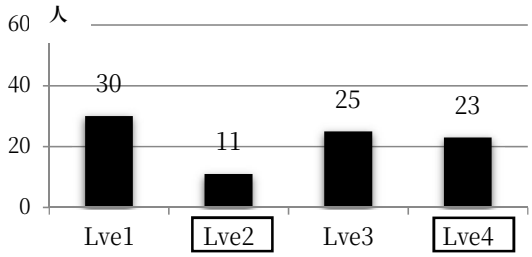

図 1-2 新摂食レベル

（２）機能段階と新摂食レベルとの人数分布においては、咀嚼、嚥下ともに良好の Lev.4 の 24 人は機能段階では、嚥下機能獲得期からすり潰し機能獲得期まで幅広く分布していた。（図２）。

これは、ダウン症候群の特徴として、捕食機能や押しつぶし機能が未獲得な状態であっても、咀嚼機能が先行して獲得されることがあるためと考えられる。また、機能段階では咀嚼機能が獲得されていても、前の段階が未獲得の場合には、咀嚼機能の獲得は評価されないことが原因である。

これらの事からダウン症候群の咀嚼と嚥下に注目した新摂食レベルは、プロトコールの開発に向けての必要性を示唆するものであった。

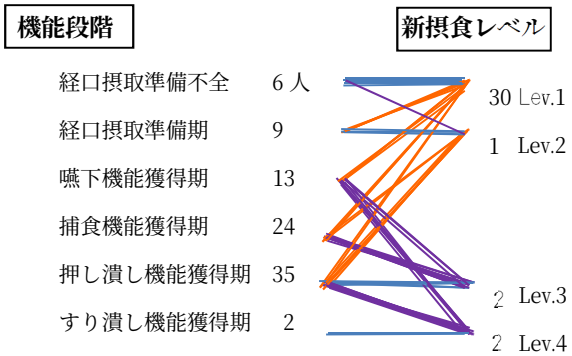

図２　摂食嚥下機能の段階分類と新摂食レベルとの人数分布

（３）咀嚼機能未獲得であった75人の対象児は、1年間摂食指導の介入を行った後、38人（50.7%）が咀嚼機能を獲得し、37人（49.3%）は、咀嚼機能を獲得することができなかった。

（４）１年間摂食指導の介入後の咀嚼機能獲得の可否と、年齢、出生体重、栄養摂取方法、偏食、感覚過敏、認知発達評価（太田ステージ）、粗大運動の発達、咬合発育段階、（Hellman’s dental stage）、摂食時の舌突出・口唇閉鎖（安静時、処理時、嚥下時）との関連を検討した。

結果、咀嚼機能に関連すると仮説をたてた項目のうち、栄養摂取の方法、感覚過敏、認知発達の評価（太田ステージ）、咬合発育段階（Hellman’s dental stage）、舌突出、口唇閉鎖（安静時、処理時、嚥下時）には、有意な関連は認められなかった。重度の心身障害児では、大脳病変による食事への意欲、認知、感覚の障害や脳幹病変による嚥下や呼吸の障害によって経口摂取が困難となり咀嚼機能の獲得に影響がでることが想定される。しかし、今回の対象者は、経管栄養摂取は嚥下障害が原因ではなく、食思の問題によって経口摂取量の不足を補うために用いられていたため、経管栄養と咀嚼機能獲得との関連が認められなかったものと推察された。認知発達および、咬合発育段階との関連が認められなかった要因として、対象者の年齢が12か月からであった事を考慮しても、ダウン症候群の知的能力が定型発達児に比較して低かったことが、咀嚼機能の獲得に至らなかった原因の可能性もある。また、咬合発育においても、今回の対象者の年齢は低年齢であり、歯の萌出、顎の成長も未完成の時期である事から明確な関連が出なかった可能性が考えられた。しかし、一方では年齢が高くなるにつれて、成熟した咀嚼機能を獲得する事が困難になるという報告もあるため、顔面、口腔の形態が未完成であってもその時期に適切な摂食機能を獲得するための指導の必要性はあると考える。さらに、口唇閉鎖と舌突出では咀嚼との関連が認められなかったことは、ダウン症候群が口唇閉鎖を獲得しないまま咀嚼を行ったり、舌突出をしたりしながら嚥下を行う事など、口唇閉鎖が未熟でも咀嚼は可能であるとされている。また、口唇閉鎖機能は、摂食機能の重要な要素ではあるが、咀嚼機能の獲得の必要条件ではないという報告もあることより、ダウン症候群は口唇の閉鎖や舌突出の有無が咀嚼に影響を及ぼす可能性は低いと考えられた。

（５）１年間摂食指導の介入後の咀嚼機能獲得の可否と関連する項目は、年齢、低出生体重、偏食、粗大運動が関連していた（表１）。中でも粗大運動の歩行の有無が最も関連が強いことが判った。

低出生体重に成長、運動発達や認知発達の遅れ、口腔の過敏性など、摂食嚥下障害のリスクが高く、好き嫌いや食べ方の他に咀嚼に問題が多いとされていることから、低出生体重は、正体重児に比較して咀嚼機能の未獲得の割合が有意に多かったと考えられた。

ダウン症候群の摂食機能を遅らせる要因の中に、口腔内の感覚の問題や特定の食品の物性を選択する事がある。今回、感覚過敏と咀嚼機能獲得には有意な関連はなかったが、感覚過敏と偏食は単独の問題ではなく両方の要因が関連している場合も視野にいれて指導する必要性がある。一方、今回の結果で最も関連が強かった項目は粗大運動能の歩行の獲得の有無であった。定形発達児の粗大運動は12か月頃につかまり立ちをし、15か月頃に歩行が獲得される。そして、安定した顎のコントロールによって持続した咀嚼が営まれるとされている。しかし、今回の対象者の役 7 割が歩行を獲得できていなかった。粗大運動が遅れる傾向にあるダウン症候群に対して咀嚼を獲得するための指導を行う際には、口腔機能に対する指導、訓練を適切な時期に行うとともに、歩行の獲得の可否も評価する事が重要と考えられた。

以上の事よりプロトコールの基盤を得ることができた。

	咀嚼獲得 （n＝38）	咀嚼未獲得 （n＝37）	*p*値	OR (95%CI)	*p*値
年齢（か月）	*n*（%）				
12-23	24(63.2)	30(81.1)	0.070	―	―
24-36	14(36.8)	7(18.9)			
出生体重					
正常	32(84.2)	26(70.3)	0.078	―	―
低出生体重	5(13.2)	11(29.7)			
偏食					
なし	38(100)	33(89.2)	0.054	―	―
あり	0(0)	4(10.8)			
粗大運動				0.08	
歩行未獲得	22(57.9)	33(89.2)	0.002	(0.041-0.61)	0.003
歩行獲得	16(42.1)	4(10.8)			

表１．咀嚼機能の獲得の有無との関連

<引用文献>

・水上美樹、田村文誉、松山美和、菊谷武：ダウン症候群児の粗大運動能と摂食に関わる口腔異常習癖との関連.障歯誌、36:17-24,2015.

・Jackson A, Maybee J, et:Clinical Characteristics of Dysphagia in Children with Down Syndrom, Dysphagia 31:663-671,2016.

５．主な発表論文等

〔雑誌論文〕　計4件（うち査読付論文　4件／うち国際共著　0件／うちオープンアクセス　4件）

１．著者名 浅野一恵，小城明子，近藤和泉，鈴木崇之，曽根翠，藤谷順子，水上美樹，向井美惠，弘中祥司，武原格	４．巻 22
２．論文標題 発達期摂食嚥下障害児（者）のための嚥下調整食分類2018	５．発行年 2018年
３．雑誌名 日摂食嚥下リハ会誌	６．最初と最後の頁 59-73
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 Nakazawa Y, Tamura F, Genkai S, shindo H, Isoda T, Mizukami M	４．巻 107
２．論文標題 Effects of oral ingestion on physical functions before tube feeding in adults with severe motor and intellectual disabilities	５．発行年 2019年
３．雑誌名 Odontology	６．最初と最後の頁 368-373
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s10266-018-0396-8	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 Isoda T, Tamura F, Kikutani T, Mizukami M, Yamada H, Hobo K	４．巻 45
２．論文標題 Development of lip closing function during taking food into the mouth in children with Down Syndrome	５．発行年 2019年
３．雑誌名 International Journal of Orofacial Myology	６．最初と最後の頁 31-45
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 Mizukami M, Kikutani T, Matsuyama M, Nagashima K, Isoda T, Tamura F	４．巻 45
２．論文標題 Investigating factors related to the acquisition of masticatory function in Down Syndrome children	５．発行年 2019年
３．雑誌名 International Journal of Orofacial Myology	６．最初と最後の頁 46-56
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

〔学会発表〕　計13件（うち招待講演　0件／うち国際学会　1件）

1．発表者名 水上美樹
2．発表標題 摂食嚥下障害児がかかえる偏食と感覚過敏の問題
3．学会等名 日本摂食嚥下リハビリテーション学会学術大会
4．発表年 2018年

1．発表者名 永島圭悟，田村文誉，水上美樹，古屋裕康，町田麗子，菊谷　武
2．発表標題 オンライン医療による小児患者への摂食指導の試み
3．学会等名 障害者歯科学会
4．発表年 2018年

1．発表者名 田中祐子，田村文誉，松山美和，山田裕之，保母妃美子，礒田友子，永島圭悟，水上美樹，
2．発表標題 口腔リハビリテーションクリニックにおける偏食を有する障害児の実態調査
3．学会等名 障害者歯科学会
4．発表年 2018年

1．発表者名 田村文誉，永島圭悟，水上美樹，古屋裕康，町田麗子，菊谷　武
2．発表標題 遠隔診療による摂食指導の小児患者への試み
3．学会等名 日本摂食嚥下リハビリテーション学会
4．発表年 2018年

１．発表者名 Tamura F, Yamada H, Kikutani T
２．発表標題 Developmental problems concerning children’s oral function, based on a
３．学会等名 Annual IAOM Convention（国際学会）
４．発表年 2018年

１．発表者名 水上　美樹
２．発表標題 ダウン症候群児に特化した摂食機能プロトコールの開発にむけての取り組み
３．学会等名 障害者歯科学会
４．発表年 2017年

１．発表者名 古屋裕康，水上美樹，有友たかね，駒形悠佳，佐藤志穂，矢島悠里，山田裕之，田村文誉
２．発表標題 思春期に嚥下機能が悪化し遠隔診療および在宅訪問による摂食指導をおこなったガラクトシアリドーシスの一例
３．学会等名 日本摂食嚥下リハビリテーション学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 永島圭悟，水上美樹，加藤陽子，礒田友子，山田裕之，田中裕子，菊池真依，田村文誉
２．発表標題 小児用嚥下評価ツールPedi-EAT-10の有用性の検討
３．学会等名 日本摂食嚥下リハビリテーション学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 Miki Mizukami, Fumiyo Tamura, Miwa Matsuyama, Kayoko Nishizawa, Yuko Tanaka, Mai Kikuchi, Takeshi Kikutani
２．発表標題 Investigating factors related to the acquisition of masticatory function in Down syndrome children
３．学会等名 Asia Association for Disability and Oral Health
４．発表年 2019年

１．発表者名 水上美樹
２．発表標題 学齢期におけるDown症候群児の摂食指導(ダウン症のライフステージ)
３．学会等名 日本摂食嚥下リハビリテーション学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 水上美樹
２．発表標題 ダウン症候群の子どもの咀嚼機能の獲得を目指すには
３．学会等名 日本障害者歯科学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 田村文誉
２．発表標題 小児における咀嚼・嚥下と味覚の発達
３．学会等名 日本小児臨床薬理学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 田村文誉
２．発表標題 こどもの「食べる」を育むために
３．学会等名 日本障害者歯科学会
４．発表年 2019年

〔図書〕　計7件

１．著者名 水上美樹	４．発行年 2018年
２．出版社 臨床栄養	５．総ページ数 5
３．書名 摂食嚥下機能の発達とその障害　1）摂食嚥下機能の正常発達	

１．著者名 水上美樹	４．発行年 2018年
２．出版社 デンタルハイジーン	５．総ページ数 7
３．書名 歯科衛生士が知っておきたい対象像の評価と管理	

１．著者名 水上美樹	４．発行年 2018年
２．出版社 臨床栄養	５．総ページ数 5
３．書名 【発達期摂食嚥下障害児(者)のための嚥下調整食分類2018-有効活用に向けた手引き】摂食嚥下機能の発達とその障害　摂食嚥下機能の正常発達	

1．著者名 田村文誉	4．発行年 2018年
2．出版社 建帛社	5．総ページ数 11
3．書名 子どもの「食べる楽しみ」を支援する 子どもの摂食嚥下の具体的なアセスメントの実際	

1．著者名 田村文誉，水上美樹	4．発行年 2018年
2．出版社 日本歯科医師会	5．総ページ数 8
3．書名 小児の口腔機能発達評価マニュアルを応用した口腔機能発達の支援～食べ方・栄養編～	

1．著者名 田村文誉，水上美樹	4．発行年 2018年
2．出版社 日本歯科医師会雑誌	5．総ページ数 8
3．書名 身近な臨床・これからの歯科医のための臨床講座，小児の口腔機能発達評価マニュアル	

1．著者名 田村文誉	4．発行年 2019年
2．出版社 小児保健研究	5．総ページ数 2
3．書名 新しい離乳食ガイドラインと食育について	

〔産業財産権〕

〔その他〕

－

６．研究組織

	氏名 （ローマ字氏名） （研究者番号）	所属研究機関・部局・職 （機関番号）	備考
研究分担者	菊谷　武 (KIKUTANI TAKESHI) (20214744)	日本歯科大学・生命歯学部・教授 (32667)	
研究分担者	松山　美和 (MATSUYAMA MIWA) (30253462)	徳島大学・大学院医歯薬学研究部（歯学域）・教授 (16101)	
研究分担者	田村　文誉 (TAMURA FUMIYO) (60297017)	日本歯科大学・生命歯学部・教授 (32667)	