

## 科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 27 年 6 月 9 日現在

機関番号：33902

研究種目：基盤研究(B)

研究期間：2012～2014

課題番号：24406036

研究課題名(和文) 発展途上国に対する口唇口蓋裂医療援助活動の効果を評価する指標

研究課題名(英文) An index of the evaluation for medical aid activity for the patients with cleft lip and palate in developing countries

研究代表者

南 克浩(MINAMI, KATSUHIRO)

愛知学院大学・歯学部・講師

研究者番号：70346162

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 12,300,000円

研究成果の概要(和文)：われわれは1998年からベトナムニンビン省において口唇口蓋裂医療援助と治療実態の調査を行ってきたので、この経験をもとに医療援助活動与える効果の評価を試みた。これまで15回の活動で460名の患者を登録、748名の患者を診察し、482例の手術を現地スタッフの教育を行いながら施行した。この活動により患者及び家族、医療関係者に一貫治療体系とその必要性を理解させ、現地スタッフのみで手術ができるようになりつつある。また適切な時期に治療が行えるようになり、治療結果も改善してきている。

研究成果の概要(英文)：We have been carried out medical aid project for the patients with cleft lip and/or palate in NinhBinh province, Vietnam. Our activity started from 1998 at the NinhBinh general hospital.

Based on these process, we rty to evaluate the efficacy of our project. For this purpose, we made assessment sheet for oral surgeons, anesthesiologists, and co-medical staff.

From 1998, we registered 460 patients with cleft lip and/or palate and related craniofacial deformities, and examined 784 patients. According to the request and necessity, we performed 482 surgery for the patients with CLP with the staff of NinhBinh general hospital to educate and transfer treatment technique. Based on our assessments of the efficacy of education, we recognized their capability. However some problem remained (management of speech and jaw development).

研究分野：歯科口腔外科

キーワード：口唇口蓋裂 医療援助 発展途上国 活動評価

### 1. 研究開始当初の背景

ベトナム社会主義共和国ではベトナム戦争以後多くの被害が報告されている。そのなかでも口唇口蓋裂をはじめとする先天性異常児の出生については、戦時中の枯葉剤の影響が深く関わっていると考えられており、国内外の関心が高く、様々な研究が進められている。口唇口蓋裂については、日本ではチームアプローチによる集学的治療が採用されている。一方、発展途上国では医療技術、設備等の不足により、口唇口蓋裂患者に対する保健医療は十分ではなく、手術を受けられないことにより成人の未治療患者の存在や手術時期の遅延による合併症が問題として挙げられている。ベトナムでは手術の安全性の問題等から口蓋裂は乳児期にはほとんど治療されず、多くの患児が未治療のまま残っていた。本邦では特別な事情を有する口蓋裂未治療患者の報告は散見されるが、青年期以降の未治療口蓋裂患者の治療成績はほとんどほとんど検討されていない。また、発展途上国では口唇口蓋裂患者に対する医療体制の遅れよりの発生数や有病率(罹患率)についての調査が行われていない場合が多い。そのため、現存する未治療患者数および新たな患者数の把握が困難であり、必要な手術数、援助活動期間、提供する医療の類(手術、矯正治療、言語治療など)の需要予測が難しい。日本をはじめ、世界各国の国際医療援助団体が発展途上国に対し、医療援助活動を行っている。我々も1998年からはニンビン省で国際医療援助活動として口唇口蓋裂患者に対する治療を行ってきた。しかし、人的・資金的配分を考える上で、発展途上国に関して援助評価指標を開発し、検討すること、さらに疫学調査を行って援助の需要を推測することによって、能率的、さらに質的に高い医療援助を可能にすることが可能になると思われる。そこで医療援助活動の効果を客観的に評価する指標を作成したいと考え、研究を企画した。

### 2. 研究の目的

本研究では、ベトナム政府医療省国際協力局の協力を得、北部に位置するニンビン省人民委員会保健局、同総合病院、南部メコンデルタにあるベンチェ省、ゲンデンチュウ病院を拠点として、両省やその周辺に居住する口蓋裂患者に対し、各省人民委員会と共同で我々がこれまでに口唇口蓋裂手術を行った患者の予後調査および手術記録調査および、疫学調査を行うことを目的とした。

そのために以下の項目の調査を企画した。

ニンビン省・ベンチェ省での未治療手術患者数や手術時期についての調査を

行い、さらに家族歴や発生率等の聞き取り調査を行う。

未治療口蓋裂患者の顎顔面形態特に顎発育の異常の解析、口蓋裂形成術後の摂食・嚥下機能の改善の状況、発音機能の改善の状況を調査し、我々がこれまでに行ってきた発展途上国での口蓋裂形成手術の形態的・機能的な影響を明らかにするとともに、成人手術におけるさらなる改良のための基礎資料を得る。

医療援助活動評価指標を作成し、これを用いて今後の医療援助活動の需要予想を推定する。

ベトナム医療省と協力し、効果的な医療援助活動計画を作成するための資料を作成する。

以上のごとき項目により口腔外科分野における医療援助の質の向上を行うための基礎資料を得ることを目的とした。

### 3. 研究の方法

調査実施国、**ベトナム社会主義共和**

#### **国 ニンビン省・ベンチェ省**

研究計画を遂行するための研究体制

#### **1. 口唇口蓋裂発現率調査**

ベンチェ省、ゲンデンチュウ病院に設置した先天異常モニタリングセンターと協力し、調査対象のエリアにおいて口唇口蓋裂を中心とした先天異常発生率に関して現地人医師とともに実態調査を実施した。

調査は日本人とベトナム人医師で構成、日本人が調査のキャリブレーションなどを十分行ったうえで、現地人医師による全体的な調査を各地の行政官とともに行う。症候群など診断の困難なものは日本人専門家が診断する。この方法は、出生時の正確な発現率を知ることはできないが、産院で出産することのまれな発展途上国において、短期間である程度正確な罹患率を知るために有効であると考えている。

#### **2. 医療援助活動評価のための調査**

すでにニンビン省で行った調査を基に1次調査を実施した。ニンビン省で口唇口蓋裂手術を受けた口唇口蓋裂患者を対象に調査した。調査においてはニンビン省総合病院の医療記録を中心に行ったが、日本人が手術した患者においては日本での記録があるため、

正確性を期すために両資料を使用して行った。この調査に関してはニンビン省人民委員会において倫理的配慮を考慮したうえで調査許可を得た。これまでの医療実施記録より我々が実施した10年間の患者データベースを作製した。

### 3. 口蓋裂形成手術についてのケースコントロールスタディ

口蓋裂形成手術の術後評価を行うための調査項目を設定した。調査対象地域は、研究代表者自身が口唇口蓋裂の手術を行っているニンビン省とその付近とした。その後日本に結果を持ち帰り、患者の年齢、披裂形態等の項目ごとに集計分析を行った。

#### 4. 研究成果

今研究期間中にニンビン省人民委員会・ニンビン総合病院の協力を得て毎年2月下旬から3月上旬にそれぞれ約2週間の日程で現地調査を行った。

1) 今回の研究以前にニンビン省人民委員会の協力を得て行った口唇口蓋裂出生率調査では、年間出生数 12,539 人(男子 7066 人、女子 5473 人)中、男子 5 名、女子 12 名であった。10,000 人あたりの口唇口蓋裂発生率は 13.6 人で本邦より少ない傾向があった。

今研究期間中にはベンチエ省ゲンデンチュー病院内の先天異常モニタリングセンターで口唇口蓋裂発生率調査を行った。

年度	出生数	口唇口蓋裂患者数
2012	8376	12
2013	7934	14
2014	7996	14

これによると 10,000 人あたりの出生率は 15 から 17 人であった。この割合をニンビン省の年間出生数に換算すると、1 年あたりの口唇口蓋裂患者の出生数は 20 人前後と考えられる。近年のニンビン総合病院での活動期間中の新患者数を鑑みると、当該年度内に出生した患者の 70%程度は来院していると推定され、同省内の治療のニーズをほぼ満たすことができていると考えられた。

2) われわれの活動が開始される以前、ニンビン省では口唇口蓋裂治療はほとんど行われておらず、ハノイ等の中核都市にある一部医療施設で手術を受けていたものの、未治療のままの患者も多く存在した。また手術を受けた後のフォローアップ体制もなかった。

我々が治療システムを導入し現地の口腔外科医に技術指導を行うようになって以後、日本におけるような口唇口蓋裂一貫治療システム概念が理解され、適切な時期に適切な治療を受けて機能改善を図るという治療体系の必要性が患者および家族、さらには医

療関係者にも浸透しつつある。限られた期間の活動であるにもかかわらず、経過観察に受診する患者の割合も増加している。

	受診患者数	初診患者数
2012	69	32
2013	69	25
2014	43	21

表に3年間の受診患者を示すが、近年は我々の導入した治療システムが患者および家族に周知されるようになり、前年に治療を受けた患者の多くが次年度の調査に来院するようになっている。

3) 活動期間中に3回の現地調査および治療活動を行った。下表に手術件数を示す。

2012 年度	29
2013 年度	29
2014 年度	35

活動初期には口蓋裂未治療患者が多く見られたが、これまでの活動により成人の未治療患者の来院数は減少し、一貫治療にのっとった治療体系が確立されつつある。口蓋裂形成術施行時の患者年齢構成をみる。下表に口蓋裂形成術施行数とそのうち5歳以上の患者の割合を示す。

年度		年度	
1998	4/11	2012	0/11
1999	3/12	2013	2/10
2000	7/17	2014	0/13

5歳以上の手術患者は活動初期と比較して減少しており、近年は乳児期から治療を受けるために来院し、適切な時期に一次治療を行うことができるようになっている。今後は言語管理が課題として残っている。

4) 口蓋形成術は言語機能の獲得では安定した成績が得られているが、顎発育に与える問題が残っている。顎発育に与える影響を軽減するために、本邦では2段階手術を適用する施設が増えている。また矯正治療も保険適用され、早期から顎発育の管理が行われている。

ベトナムにおいては現時点では矯正治療がほとんど普及していない。そこでわれわれはここ数年は日本と同じ時期に手術を施行できる患者には、十分にインフォームドコンセントを行ったうえで口蓋裂2段階治療を適用してきている。本研究活動中、2014年度には矯正専門医を研究協力者に加え、顎発育のモニタリング調査を開始した。今回は指針による評価のみとなったが、今後は模型や可能になればセファログラム等も導入して口蓋形成術と顎発育の関連性を解析していく予定である。

#### 5. 主な発表論文等

(研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線)

〔雑誌論文〕(計 7 件)

声門下気道狭窄を認めた口唇顎裂患者の一例. 井村英人, 新美照幸, 藤原久美子, 南 克浩, 古川博雄, 加藤大貴, 森明弘, 大野磨弥, 原田純, 夏目長門. 日口蓋裂誌, 39: 41-45, 2014.

Effectiveness of a combined system of medical assistance and microcredit for families with congenital abnormalities in a developing country, Noriko Hirose, Miyuki Iida, Teruyuki Niimi, Hideto Imura Toko Hayakawa, Nagato Natsume, AICHI GAKUIN DENTAL SCIENCE, 27:37-43, 2014.

Beckwith-Wiedemann 症候群の臨床的研究 インプリント遺伝子解析と臨床経過を中心として. 加藤大貴, 井村英人, 東元健, 八木ひとみ, 芝崎龍典, 古川博雄, 新美照幸, 藤原久美子, 鈴木聡, 南 克浩, 夏目長門. 日口蓋裂誌 39-1: 21-27, 2014.

細菌カウンタの臨床応用とモニタリング調査. 井村英人, 根岸明秀, 森 良之, 古賀陽子, 宮田 勝, 宮浦朗子, 堤 寛, 木下輝美, 柳澤繁孝, 大田奈央, 糸田昌隆, 外山佳孝, 菊池一江, 村松真澄, 大西徹郎, 横尾聡, 夏目長門. 日本口腔ケア学会雑誌 9:91 - 96, 2014.

Does Skeletal Surgery for Asymmetric Mandibular Prognathism Influence the Soft Tissue Contour and Thickness? Lee ST, Mori Y, Minami K, An CH, Park JW, Kwon TG. J Oral Maxillofac Surg. 71:1577-1587, 2013.

先天性側方上唇瘻孔と鼻瘻孔が合併した右側口唇顎裂の 1 例. 加藤大貴, 藤原久美子, 古川博雄, 新美照幸, 外山佳孝, 長瀬好和, 麻生昌邦, 井村英人, 南 克浩, 大野磨弥, 夏目長門. 日口蓋裂誌 37-1: 44-48, 2012.

乳臼歯の根尖病巣が原因と考えられる慢性下顎骨髄炎(Garre 骨髄炎)の 1 例. 井村英人, 南 克浩, 久保勝俊, 古川博雄, 前田初彦, 夏目長門. 日口外誌, 査読あり 58-2, 77-81, 2012.

〔学会発表〕(計 16 件)

, Long Term Results of Dental Implant for the Patients with Cleft Lip and/or Palate. K Minami, H Imura, T Niimi, T Sugahara, N Natsume. 22th Congress of European Association of Cranio-Maxillo-Facial Surgery. Prague(Czech Republic), 2014/9/23-26.

, 口唇先天異常に関する遺伝子研究第 2 報: 2013 年遺伝子バンキングシステム成果報告. 夏目長門, 吉田和加, 古川博雄, 新美照幸,

南 克浩, 井村英人, 鈴木聡, 早川統子, 加藤大貴, 大野磨弥, 森明弘, 越路千佳子, 後藤尊広, 砂川元, 新崎章, 森悦秀. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, 口唇・口蓋裂患者に関する疫学的研究第 58 報: 口唇口蓋裂患者 1843 例中の口蓋裂家族内発現率. 夏目長門, 加藤大貴, 大野磨弥, 森明弘, 長瀬好和, 石川拓, 秋山芳夫, 菅原利夫, 井村英人, 早川統子, 南 克浩, 河合幹. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, ベトナム社会主義共和国における先天異常発生調査-2008 年~2013 年-. 新美照幸, 藤原久美子, 井村英人, 大野磨弥, 夏目長門. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, 口唇・口蓋裂患者に関する疫学的研究(第 56 報) 東海地区における 2012 年の本症患者出生調査報告. 井村英人, 藤原久美子, 吉田和加, 加藤大貴, 鈴木 聡, 古川博雄, 南 克浩, 新美照幸, 森 明弘, 夏目長門. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, 口唇・口蓋裂患者に関する疫学的研究(第 57 報) 東海地区における 2012 年の先天異常中の口唇口蓋裂の発現比率. 井村英人, 藤原久美子, 吉田和加, 加藤大貴, 鈴木 聡, 古川博雄, 南 克浩, 新美照幸, 森 明弘, 大野磨弥, 夏目長門. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, 口唇口蓋裂患者とその家族に対する遺伝カウンセリングの現状(第 4 報) 2013 年度成果報告. 井村英人, 藤原久美子, 鈴木 聡, 古川博雄, 南 克浩, 新美照幸, 加藤大貴, 大野磨弥, 森明弘, 片山和男, 夏目長門: 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学術大会. 札幌, 2014/5/29-30

, 口唇・口蓋裂患者に関する疫学的研究(第 57 報) 東海地区における 2012 年の先天異常中の口唇口蓋裂の発現比率. 井村英人, 藤

原久美子, 吉田和加, 加藤大貴, 鈴木 聡,  
古川博雄, 南 克浩, 新美照幸, 森 明弘,  
大野磨弥, 夏目長門. 第 38 回日本口蓋裂学  
会総会・学術大会(札幌), 2014.5.29-30.

、両側口唇口蓋裂患者における突出した  
premaxilla に対するアプローチ. 井村英人,  
増田浩男, 南 克浩, 古川博雄, 新美照幸,  
夏目長門. 第 38 回日本口蓋裂学会総会・学  
術大会(札幌), 2014.5.29-30.

、OUR EXPERIENCE OF MEDICAL  
AID PROJECT FOR PATIENTS WITH  
CLEFT LIP AND/OR PALATE IN NINH  
BINH PROVINCE, VIETNAM. K MINAMI,  
Y MORI, H NIWA, T SUGAHARA, N  
NATSUME. 8th World Cleft Congress of  
the International Cleft Lip and Palate  
Foundation. HaNoi(Vietnam).  
2013/11/25-28

、Our Experience of Medical Aid Project  
for the Patients with Cleft Lip and/or  
Palate in Vietnam. Minami K, Mori Y,  
Imura H, Sugahara T, Natsume N. 12th  
International Congress on Cleft Lip/Plate  
and Related Craniofacial Anomalies.  
Orland (USA) 2013/5/5-10.

、Usefulness of Dental Implant for the  
Patients with Cleft Lip and/or Palate.  
Minami K, Imura H, Ohno M, Mori A, Kato  
T, Suzuki S, Sugahara T, Natsume N. 12th  
International Congress on Cleft Lip/Plate  
and Related Craniofacial Anomalies.  
Orland (USA) 2013/5/5-10

、ベトナム社会主義共和国における口唇口  
蓋裂医療援助ならびに技術指導. 南 克浩,  
森 悦秀, 菅原利夫. 第 24 回日本小児口腔  
外科学会総会・学術大会、名古屋、2012/11/25

、Our experience of maxillary distraction  
osteogenesis in CLP patients. Minami K,  
Mori Y, Imura H, Sugahara T, Natsume N.  
54th Congress of Korean Association of

Oral and Maxillofacial Surgeons. Daegu  
(Korea), 2013/4/25-27.

、Experience of medical aid project for  
cleft lip and palate patients in Ninh Binh  
Province, Vietnam. K Minami, Y Mori, H  
Imura, T Sugahara, N Natsume. 21<sup>th</sup>  
Congress of European association for  
Cranio-Maxillo- Facial Surgery.  
Dubrovnik(Croatia) 2012/9/11-15.

、Application of Dental Implant for the  
Patients with Cleft Lip and/or Palate. K  
Minami, H Imura, M Ohno, A Mori, T  
Niimi, K Fujiwara, T Sugahara, N  
Natsume. 21<sup>th</sup> Congress of European  
association for Cranio-Maxillo- Facial  
Surgery. Dubrovnik(Croatia) 2012/9/11-15.

〔図書〕(計 1 件)

井村英人:今日の治療指針「口腔乾燥症」.  
医学書院(東京), 1403-4, 2014.

〔産業財産権〕

出願状況(計 0 件)

名称:  
発明者:  
権利者:  
種類:  
番号:  
出願年月日:  
国内外の別:

取得状況(計 0 件)

名称:  
発明者:  
権利者:  
種類:  
番号:  
出願年月日:  
取得年月日:  
国内外の別:

〔その他〕

ホームページ等

6. 研究組織

(1) 研究代表者

南 克浩(MINAMI KATSUHIRO)  
愛知学院大学・歯学部・講師  
研究者番号: 7 0 3 4 6 1 6 2

(2)研究分担者

井村 英人 (IMURA HIDETO)  
愛知学院大学・歯学部・助教  
研究者番号：10513187

(3)連携研究者

( )

研究者番号：