

令和元年6月26日現在

機関番号：32622

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2015～2018

課題番号：15K10950

研究課題名(和文) 発展途上国での海外医療援助による口唇口蓋裂術後患者の社会適応

研究課題名(英文) Social adaptation of post-operative cleft lip and cleft palate patients with overseas medical assistance in developing countries

研究代表者

吉本 信也 (YOSHIMOTO, SHINYA)

昭和大学・医学部・客員教授

研究者番号：90220748

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 2,900,000円

研究成果の概要(和文)：口唇口蓋裂の患者では、口蓋の手術が遅くなると言語障害を残し易く、先進国では一般に2歳までに手術が行われる。一方、発展途上国の患者は手術を受ける機会が少なく、学童期以後に手術を受けることが多い。今回のネパールでの調査では、2歳以前に口蓋の手術を受けた患者では言語障害が残っている患者は少なく、3歳以降に手術を受けた患者で、言語障害を残す割合はるかに多かった。しかし、飲食に関しては、口蓋の手術を受けていない患者では、殆ど全ての患者が水や食物が飲み込みにくいと訴えているのに対し、3歳以降に手術を受けた患者でも、それらは容易であった。

口唇裂の手術後のケロイドの発生の割合は、日本人と殆ど差がなかった。

研究成果の学術的意義や社会的意義

3歳を過ぎてからの口蓋裂の手術では言語障害を残し易いが、学童期位までの患者では、手術後の言語訓練により改善することが多い。そのため、発展途上国における口唇口蓋裂のボランティア手術においては、年齢の低い患者を優先すべきである。また、2-3歳の患者では、口唇の手術より口蓋の手術を優先し、口唇の手術を後にすべきである。ただ、発展途上国には、言語の治療を行う言語聴覚士が殆どいないため、形成外科医と共に言語聴覚士の育成も重要である。

黒人の患者では口唇裂の手術後にケロイドを発生することが多い。ネパールは色の黒い人種が多いが、今回の調査では、ケロイドが多く発生する傾向はなく、遺伝子の差であると思われた。

研究成果の概要(英文)： Of the 1,000 people who underwent cleft lip and cleft palate surgery in Nepal, a questionnaire survey was conducted on about 200 people, and the post-operative social adaptation status of patients was examined. In patients with cleft palate, the group who underwent surgery before the age of 2 had better speech results than the group who had surgery later. Water intake and swallowing improved regardless of the age of surgery. Post-operative bullying and the like decreased considerably after surgery, but there are still many cases that remain. There were also situations such as being unable to get a good job due to speech problems and not being able to get married. The training of plastic surgeons, the creation of an environment where surgery can be performed early, and the training of speech therapists seems to be urgent issues. There was no difference in the occurrence rate of keloid between the patients in Nepal and ones in Japan.

研究分野：形成外科(小児形成外科)

キーワード：口唇口蓋裂 発展途上国 手術時期 社会適応 言語障害 鼻咽腔閉鎖機能 ケロイド

様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19、CK - 19 (共通)

1. 研究開始当初の背景

口唇口蓋裂に対する形成術は、先進国による海外医療援助の中でも最も多く行われている手術の1つであると思われる。しかし、発展途上国で行われるボランティア手術では、年長児や成人が対象となることが多く、この年齢では口唇や鼻の形態は劇的に改善されても、言葉に関する改善はわずかである。

それ故、このような患者が、術後、どの程度社会に適応できているのか？ 年齢的に何歳くらいまでに手術すれば、社会適応しやすいのか？ 社会適応を阻む要因は何か？ また、人種によるケロイドの発生率はどうか？ 等々を知ることは、今後の医療援助を考える上で重要と思われる。

2. 研究の目的

(1) 口蓋裂のある患者に手術を行うことによって、その後の患者の言語や QOL の改善がどれだけ得られるのかを調査することは、今後の医療援助を考える上で重要と思われる。即ち、過大な期待を抱いている患者への術前の説明がしやすくなる。

(2) 乳幼児期であれば、何歳までに口蓋形成術を行えば、日常生活にさほどの不自由を感じないほどの言語機能が得られるのか？

(3) 小児期以降であれば、手術により、いじめや差別はどのように変わるか？

(4) 口唇裂と口蓋裂が存在する場合、口唇形成術と口蓋形成術のどちらを優先させるべきか？

(5) 人種の違いによるケロイドの発生率に差があるか？

3. 研究の方法

対象は、われわれが 1995 年以来、ネパールで行ってきた口唇口蓋裂のボランティア手術を受けた 1000 余名の口唇口蓋裂患者およびネパールの口唇口蓋裂の手術に熟練した形成外科医の手術を受けた患者の内、アンケートに協力してくれた患者である。

現地の病院のスタッフが各地に赴き、作成したアンケート用紙に従ってアンケート調査を実施した。

4. 研究成果

調査期間中に、アンケートに回答が得られた 214 例の内、不適切と思われる 24 例(口唇口蓋裂以外の口唇部の疾患)を除いた 190 名の口唇口蓋裂患者について分析を行った。裂の型は、口唇裂単独：53 例、口唇口蓋裂：97 例、口蓋裂単独：40 例であった。

(1) アンケートの内容と結果(それぞれの質問に対して得られた有効回答総数には、若干の違いがある)の一部は以下の通りである。特に、患児が小さい場合など、親からの回答も含まれている。

名前： \_\_\_\_\_ 男・女、 生年月日： \_\_\_\_\_ ( 歳)

. 写真：

- 1) 顔(正面、下方から)
- 2) 口の中(口蓋裂の有る患者)

. 観察

- 1) 口唇のケロイド 1. 有 2. 無
- 2) 口蓋の瘻孔(穴) 1. 有 2. 無

数 : 個

大きさ: mm × mm、 mm × mm

瘻孔の場所(図)



. 質問事項

1) 手術時年齢：(はっきり分からなければ何歳頃)

口唇形成術 : 生後 月、 歳

口蓋形成術 : 生後 月、 歳

その他の修正術 : 生後 月、 歳

2) 言葉(4 歳以上で口蓋裂を有する患者)

1. 術前と比べて、術後は言葉が通じるようになったか？ :

a. かなり通じるようになった(56/110) b. 少し良くなった(45/110) c. あまり変わらない(9/110) d. ほとんど変わらない(0/110) e. 全く変わらない(0/110)

2. 現在、言葉は通じるか？ :

a. 通じる(24/112) b. 時々、通じにくい(63/112) c. 通じにくい(21/112) d. かなり通じにくい(4/112) e. ほとんど通じない(0/112)

3. 言葉に関して、どの時に最も困るか？ :

電話(39/89)、 遊び中(26/89)、 授業中(14/89)、 その他(10/89)

4. 言葉に関して人から何か言われるか? :
  - a. いつも言われる(15/92)
  - b. しばしば言われる(18/92)
  - c. 時々、言われる(30/92)
  - d. ほとんど言われない(24/92)
  - e. 全く言われない(5/92)
5. 言葉は気になるか? :
  - a. すごく気になる(19/102)
  - b. 少し気になる(42/102)
  - c. 余り気にならない(18/102)
  - d. ほとんど気にならない(13/102)
  - e. 全く気にならない(10/102)
6. 言葉がもっとよくなるなら、手術を受けたいか? :
  - a. 受けたい(63/126)
  - b. 受けたくない(18/126)
  - c. わからない(45/126)

### 3) 食事(4歳以上で口蓋裂を有する患者)

1. 水は簡単に飲めるか? :
  - a. 簡単に飲める(88/110)
  - b. 少し飲みにくい(15/110)
  - c. 飲みにくい(7/110)
  - d. かなり飲みにくい(0/110)
2. 鼻から、水が漏れるか? :
  - a. いつも漏れる(15/109)
  - b. ときどき漏れる(44/109)
  - c. 漏れない(50/109)
3. 水が鼻から漏れるのは気になるか? :
  - a. すごく気になる(7/92)
  - b. 少し気になる(24/92)
  - c. 余り気にならない(24/92)
  - d. ほとんど気にならない(9/92)
  - e. 全然気にならない(28/92)
4. 食物は簡単に飲み込めるか? :
  - a. 簡単に飲み込める(100/108)
  - b. 少し飲み込みにくい(4/108)
  - c. 飲み込みにくい(2/108)
  - d. かなり飲み込みにくい(2/108)
5. 鼻から食物が漏れるか? :
  - a. いつも漏れる(5/111)
  - b. ときどき漏れる(37/111)
  - c. 漏れない(69/111)
6. ラーメンのような麺類などをすすることができるか? :
  - a. できる(68/110)
  - b. 少しできにくい(34/110)
  - c. できにくい(8/110)
  - d. ほとんどできない(0/110)
  - e. 全くできない(0/110)
7. ストローで吸ったり、ラッパやピアノカなどを吹いたりできるか? :
  - a. できる(64/107)
  - b. 少しできにくい(35/107)
  - c. できにくい(7/107)
  - d. ほとんどできない(1/107)
  - e. 全くできない(0/107)
8. 術前に比べて、飲食が容易になったか? :
  - a. かなり良くなった(82/102)
  - b. 少し良くなった(18/102)
  - c. あまり変わらない(1/102)
  - d. ほとんど変わらない(102)
  - e. 全く変わらない(102)

### 4) その他

1. 傷は気になるか? :
  - a. 気になる(13/126)
  - b. 少し気になる(45/126)
  - c. あまり気にならない(25/126)
  - d. ほとんど気にならない(20/126)
  - e. 全く気にならない(23/126)
2. 傷がもっときれいになるなら、手術を受けたいか? :
  - a. 受けたい(62/120)
  - b. 受けたくない(15/120)
  - c. わからない(43/120)
3. いじめられたりすることがあるか? :
  - a. いつもある(0/106)
  - b. よくある(3/106)
  - c. 時々ある(9/106)
  - d. ほとんどない(5/106)
  - e. 全くない(72/106)
4. いじめは術前にあったか(4歳以上の患者に対して)? :
  - a. いつもあった(1/93)
  - b. 時々あった(10/93)
  - c. あまりなかった(2/93)
  - d. ほとんどなかった(14/93)
  - e. 全くなかった(66/93)
5. いじめは術後は減ったか? :
  - a. いじめはなくなった(9/27)
  - b. かなり減った(15/27)
  - c. あまり変わらない(0/27)
  - d. ほとんど変わらない(2/27)
  - e. 全く変わらない(1/27)
5. 友達が多くなったか?(4歳以上) :
  - a. かなり多くなった(98/126)
  - b. 少し多くなった(26/126)
  - c. あまり変わらない(2/126)
  - d. ほとんど変わらない(0/126)
  - e. 全く変わらない(0/126)
6. 本人が明るくなったか?(4歳以上) :
  - a. かなり明るくなった(96/129)
  - b. 少し明るくなった(28/129)
  - c. あまり変わらない(4/129)
  - d. ほとんど変わらない(1/129)
  - e. 全く変わらない(0/129)
7. 物事に積極的になったか?(4歳以上) :
  - a. かなり積極的になった(72/131)
  - b. 少し積極的になった(57/131)
  - c. あまり変わらない(2/131)
  - d. ほとんど変わらない(0/131)
  - e. 全く変わらない(0/131)
8. 術後変わったことは何か?  
 外見が良くなった(73/179)、 飲食が容易になった(67/179)、 言葉が良くなった(23/179)、 その他(16/179)
9. 今、最も心配なことは何か  
 口唇裂単独(53名)  
 瘢痕:6、結婚:2、虐め:1、学業:1、無し:7  
 口蓋裂単独(40名)  
 言葉:25、結婚:7、仕事:3、鼻漏れ:3、勉強:1、口蓋瘻孔:1、無し:6  
 口唇口蓋裂

言葉：55、傷：8、結婚：5、鼻漏れ：2、鼻変形：2、摂食2、勉強：2、健康：2、口蓋瘻孔：1、呼吸：1、仕事：1、無し：5

具体的な内容、その他

( )

**5) この患者の言葉は、アンケートの実施者が聞いていて、分かりやすいか？**

a. 完全に理解できる(19/90)    b. 少し困難あるが、ほぼ理解できる(/6490)    c. 少しわかりにくい(7/90)    d. かなりわかりにくい(0/90)    e. ほとんど分からない(0/90)

**(2) 術後の言語の評価と手術時期について**

アンケートの中で口蓋裂を有する患者 137 名中、言語の判定が可能と思われる 4 歳以上で、口蓋形成術の年齢がはっきりしている 90 名（口蓋裂:30 名、片側口唇口蓋裂:42 名、両側口唇口蓋裂:17 名）を対象とした。アンケートを行う者に対して、アンケートを行っているときの患者の言葉を「完全に理解できる」、「少し困難があるが、ほぼ理解できる」、「少しわかりにくい」、「かなりわかりにくい」、「ほとんどわからない」の 5 段階（会話の明瞭度）で判定した。

その結果は各々、19 名、64 名、7 名、0 名、0 名であり、言語に障害のあるものは 90 名中 71 名(78.9%)あった。裂型別にみると口蓋裂単独 83.9%、片側口唇口蓋裂 73.9%、両側口唇口蓋裂 82.4%であった。「言葉が完全に理解できる」者 19 名(21.1%)は、全員、手術時年齢が 8 歳以下であった（1 歳以下:3 名/14 名、2 歳以下:10 名/29 名、5 歳以下:16 名/54 名）。「言葉が完全に理解できる」症例を裂型別にみると、口蓋裂単独患者では 31 名中 5 名で、手術時年齢は 3, 4, 5, 5, 6 歳で各 1 名、片側口唇口蓋裂患者では 42 名中 11 名で、手術時年齢は 1 歳 2 名、2 歳 7 名、7 歳・8 歳が各 1 名、両側口唇口蓋裂では 17 名中 3 名であり、手術時年齢は生後 10 か月、3 歳、5 歳で各 1 名であった。また、手術時年齢が 3 歳未満の症例 29 名中、言葉が「完全に理解できる」者は 10 名で、裂型別にみると、口蓋裂単独患者では 8 名中 0(0%)、片側口唇口蓋裂患者で 14 名中 9 名(64.3%)、両側口唇口蓋裂患者で 7 名中 1 名(14.3%)であった（表 1）。

岡崎<sup>1)</sup>によると、一般的に、口蓋裂初回手術後の構音障害の発現率は、30-50%台(外国の報告では 50-75%)といわれており、岡崎の自験例<sup>1)</sup>では、1 歳半未満で口蓋形成術を受け、その後、5 歳時に訓練や再手術を受けていなかった 1037 例中、51.9%に構音障害がみられた。また、一般に、裂の程度が重度であるほど構音障害の発現頻度が高いという(両側口唇口蓋裂(72.4%) > 片側口唇口蓋裂(51.7%) > 口蓋裂単独(27.6%))。三浦<sup>1)</sup>によると、口唇口蓋裂の術後患者で、中学生以上で初回面接を行った患者 55 例の中で、40 例(73%)に鼻咽腔閉鎖機能不全並びに軽度不全(これらは一般に手術を要する)が、また、37 例(67%)に訓練を要する構音障害が存在したという。

これらの報告と今回のわれわれのネパールの症例には、それぞれの値にある程度の差がみられるが、この差は、以下のような様々な要因によりものと思われる。

- a. 日本での結果<sup>1)</sup>は、言語聴覚士の判定によるものであるが、一方、われわれのネパールにおける判定は素人によるものである。
- b. われわれの口蓋裂症例には、最も言語成績の悪い症候性の口蓋裂や粘膜下口蓋裂が含まれている。
- c. アンケート形式による会話では、実際よりも言葉は理解しやすいため、言語成績が良いように判断される。

以上のように、日本の症例とわれわれの今回のネパールの症例をおなじ尺度で測ることはできないが、上記のことを考え合わせると、ネパールにおけるわれわれの症例と日本における症例との差はないものと思われる。

口蓋裂の言語に関して、何歳までに口蓋形成術を施行したら障害が少ないかに関しては、一般に、2 歳未満といわれており、1 歳半未満で手術した患者では、術後、約半数は経過観察のみで正常言語を獲得し、残りの症例の多くは言語訓練のみで言語は改善し、開鼻声の残っている一部の患者で言語訓練 + 医学的治療(手術、歯科的処置)が必要といわれている<sup>3)</sup>。今回のわれわれのネパールの症例では、2 歳以下(3 歳未満)に手術した症例で言語の結果が良く、術後言葉が完全に理解できる症例は、全例 8 歳以下であった。

以上のことから、口蓋形成術は 3 歳未満で手術をした方が言語成績が良いと考えられる。それ故、少なくとも 3 歳未満の口唇口蓋裂患者が受診して、口唇か口蓋の片方だけに手術を行う場合、先ず、機能的に重要な口蓋から手術を行い、口唇の手術は、次の機会に行うのが良いと思われる。それ以降の年齢の患者では、口蓋の手術は早いに越したことはないが、半年、1 年手術が遅れても、大差は無いように思われる。

表 1. 患者の裂型と手術時年齢分布および会話の明瞭度

裂型	患者数	手術時年齢と患者数		会話の明瞭度	
		1 歳, 2, 3-5, 6-10, <	完全に理解できる	少し困難あるが ほぼ理解できる	少しわかりにくい
CP	31 名	5 名, 3, 10, 6, 6	5 名(3,4,5,5,6 歳)	21 名	5 名(1,1,1,3,7 歳)
UCLP	42 名	4 名, 10, 9, 9, 10	11 名(1,1,2 歳:7 名, 7,8 歳)	30 名	1 名(5 歳)

BCLP	17名	5名, 2, 6, 4, 0	3名(10か月, 3, 5歳)	13名	1名(5歳)
計	89	14名, 15, 25, 19, 16	19名(<3歳: 10名)	64名	7名

CP: 口蓋裂、UCLP: 片側口唇口蓋裂、BCLP: 両側口唇口蓋裂

### (3) 患者は術後どの程度社会に適応できているのか？

言葉、摂食、口唇の傷、虐め、今最大の心配事およびその具体的な内容等につき質問した。

術後の言葉はどうか？（「アンケートの内容と結果」参照）

口蓋裂を有する4歳以上の患者において施行したアンケートで、言葉に関しては、ほとんどの患者が術後の改善を自覚していた。「言葉に関して、どういう時に最も困るか？」との問いに対しては、10歳以下では「遊び中」が多く、その後、「遊び中」に加えて「電話」が多くなり、20歳を超えると多くが「電話」となった。「言葉に関して人から何か言われるか？」に対しては、約1/3の患者では、ほとんど、または全く言われない、と言う答えであったが、約1/3は、いつも、またはしばしば言葉の異常を指摘されており、残りの約1/3は、時々指摘されていた。これを反映して、言葉を気にしている患者は約60%であった。言葉の改善の手術を希望する者は約50%で、希望しない者が約15%、「分からない」が約35%であった。

飲食および鼻咽腔閉鎖機能に関しては、「ほぼ80%の患者が、飲食がかなり容易になった」と答えている。しかし、鼻から水が漏れる患者が(54.1%)、鼻から食物が漏れる患者が37.8%にみられ、33.7%の患者が水の鼻漏れを気にしていた。瘻孔発生率は、6-40%<sup>3)</sup>とされているが、今回のわれわれの症例では61.0%であった。

麺をすすったりラッパを吹いたりする時に約1/3の患者が不自由を感じていた。一般に、2歳未満で手術を受けても20%前後の患者には鼻咽腔閉鎖機能不全が残る<sup>3)</sup>とされており、それ以後になるとさらにその率は高くなる。ネパールでは口蓋形成術を受ける年齢が高いことや遺残瘻孔の発生が多いことを考えると、1/3という数字は当然の結果と思われる。

傷を気にする患者が、46.0%にみられた。これを反映して、口唇の修正術を希望する者は51.7%で、ほぼ同数であった。

虐めを経験している者は27名(29.0%)であった。術後は改善し、現在、17名(16.0%)で、術前に比べて改善傾向が見られた。手術時の時点で多少なりともいじめのあった27名は、2歳以下3/49、3-5歳6/32、6-10歳6/28、11歳以上12/33であり、10歳を過ぎるといじめが多くなった。それ以下では変わりはいみられなかった。

患者の社会性の変化

「友達が多くなったか」、「本人が明るくなったか」、「物事に積極的になったか」に対しては、ほぼ100%で改善がみられた。

術後変わったことは何か(複数回答可)と言う問いに関しては、外見が良くなった73名、飲食が容易になった67名、言葉が良くなった23名、鼻漏れが良くなった5名、普通になった(他の子と同じになった)4名、口蓋の穴が無くなった4名等であった。

現在最も心配なことに関しては、圧倒的に言葉に対する不安が多く、半数以上が気にしていた。その他は、傷、結婚、仕事等が続き、他は稀であった。

### (4) 人種によるケロイド(肥厚性瘢痕)の発生率はどうか？

黒人、黄色人種、白人の順でケロイドの発生率が多いが、ネパールには色の黒い人が多い。今回われわれは、ケロイドの発生率をデジタルカメラによる写真において調査した。その結果、日本とネパールでの発生率に差がなかった。

表2. 口唇のケロイド(肥厚性瘢痕)発生

裂型	症例数	RHS(%)	WHS(%)	RHS + WHS(%)
RCL	9	3 (33.3)	2 (22.2)	5 (55.6)
LCL	32	4 (12.5)	3 (9.4)	7 (21.9)
BCL	9	2 (22.2)	1 (11.1)	3 (33.3)
RCLP	16	3 (18.8)	4 (25.0)	7 (43.8)
LCLP	47	12 (25.5)	5 (10.6)	17 (36.2)
BCLP	26	4 (15.4)	4 (15.4)	8 (30.8)
計	140	27 (19.3)	20 (14.3)	47 (33.6)

RHS: 赤い肥厚性瘢痕、WHS: 白い肥厚性瘢痕、RCL: 右口唇裂、LCL: 左口唇裂、BCL: 両側唇裂、RCLP: 右口唇口蓋裂、LCLP: 左口唇口蓋裂、BCLP: 両側口唇口蓋裂

### (5) 結論

発展途上国における海外医療援助における口唇口蓋裂手術では、外見上の問題で唇裂の手術が優先されることが多いが、1-3歳の口蓋裂を有する患者では、言語の面から、この年齢を逃さないように、最優先に手術されてもいいのではないと思われる。

そして、患者がよりよい言語を獲得するためには、途上国では、形成外科医、言語聴覚士の育成が急務である。さらに耳鼻科医、矯正歯科医等も必要である。口蓋裂術後の遺残瘻孔を少なくするためには、患児の栄養障害や口腔衛生状態の改善も必要である。

日本人とネパール人との間で、ケロイドの発生頻度に関しては大差無いものと考えられた。

<引用文献>

岡崎恵子、口蓋裂言語、岡崎恵子、加藤正子、北野市子編、口蓋裂の言語臨床、第3版、医学書院、2011

Schönmeyr B, Wendby L, Sharma M, et al, Limited chances of speech improvement after late cleft palate repair, J. Craniofac. Surg, 26(4), 2015,1182-1185

Sell DA, Grunwell P. , Speech results following late palatal surgery in previous unoperated Sri Lankan adolescents with cleft palate, Cleft Palate J, 27, 1990,162-168 discussion 74-75

Landis P, Thi-Thu-Cuc P, Articulation patterns and speech intelligibility of 54 Vietnamese children with unoperated oral cleft: clinical observations and impressions, Cleft Palate J, 12,1975, 234-243

Ortiz-Monasterio F, Olmedo A, Trigos I, et al. , Final results from the delayed treatment of patients with clefts of the lip and palate, Scand J. Plast Reconstructive Surg, 1974, 8,109-115

大塚廣伸、口唇裂第1次手術後のケロイド発生について、昭医会誌、46巻2号、1986、249-259

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕(計 0 件)

〔学会発表〕(計 0 件)

〔図書〕(計 0 件)

〔産業財産権〕

出願状況(計 0 件)

取得状況(計 0 件)

6. 研究組織

(1)研究分担者

なし

(2)研究協力者

研究協力者氏名：橋本 笙子、Ram Timilsina

ローマ字氏名： HASHIMOTO SYOKO

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。