

科学研究費助成事業（科学研究費補助金）研究成果報告書

平成24年 5月31日現在

機関番号：33902

研究種目：基盤研究（B）

研究期間：2009～2011

課題番号：21406031

研究課題名（和文） 発展途上国における口唇口蓋裂治療の手術効果と医療援助活動評価指標に関する研究

研究課題名（英文） Research on surgical treatment effect and evaluation index of medical aid activities for cleft lip and palate treatment 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

研究成果の概要（和文）：

我々は1998年からベトナムニンビン省にて口唇口蓋裂医療援助と調査を行ってきた。これまでの経験をもとに医療援助活動の効果を評価することを試みた。これまで12回の医療活動で382名の患者を診察し、335例の手術を施行した。これまでの医療援助により口唇口蓋裂患者にチームアプローチによる一貫治療の必要なことを啓蒙し、現地医療者に手術指導を行うことにより、現地スタッフのみでも治療できるようになりつつあり、患者も予後調査に来院する必要性を認識しつつある。また適切な時期に適切な治療を行うことにより、良好な治療結果が得られるようになってきている。

研究成果の概要（英文）：

We have been carried out medical aid project for CLP patients in Ninh Binh Province, Vietnam. Our project started from 1998 in Ninh Binh General Hospital that is the only principle hospital in the province and has about 350 beds for inpatients.

Based on the process, we evaluate the efficacy of our activity. For this purpose, we made self-assessment sheet for oral surgeons, anesthesiologists, and co-medical. We evaluated from the same point of view simultaneously.

From 1998, 382 patients came to Ninh Binh General Hospital to treat CLP and related craniofacial deformity, and we examined about 600 patient. We performed 335 surgery for CLP patients with Vietnamese medical staff. From our assessments of the efficacy of technical transfer, we recognized their capability of primary cleft surgery. However many problem remained. In Vietnam, speech therapy had not established yet. Other problem is maxillary growth inhibition due to pushback palatoplasty.

交付決定額

（金額単位：円）

	直接経費	間接経費	合計
2009年度	3,900,000	1,170,000	5,070,000
2010年度	2,600,000	780,000	3,380,000
2011年度	2,800,000	840,000	3,640,000
年度			
年度			
総計	9,300,000	2,790,000	12,090,000

研究分野：医歯薬学

科研費の分科・細目：外科系歯学

キーワード：口唇口蓋裂、発展途上国、医療援助、手術効果、援助活動評価

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。我々は1998年からニンビン省で国際医療協力活動として口唇口蓋裂患者に対する治療を行ってきた。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る。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に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が、人的・資金的配分を考える上でも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ならびに南部メコンデルタにあるベンチェ省および北部に位置するニンビン省の人民委員会保健局、同総合病院とともに、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。

- (1) 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いる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。
- (2) 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い、我々の考案する医療援助活動評価指標を用いて今後の医療援助活動の需要予想を推定する。
- (3) ベトナム全国を対象に調査を行い、同国における口唇口蓋裂患者の実態を客観的に把握したうえで、提供すべき医療の類、特に人的資金的必要量を明らかにする。
- (4) 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

(1) 調査実施国、ベトナム国 ニンビン省
ベンチュエ省

(2) 研究方法

① 口唇口蓋裂発現率調査

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調査を現地人医師とともに実態調査を実施する。

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り、すでに我々は他の地域でも実施した経験をもつ。

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次調査を実施する。ニンビン省で口唇口蓋裂手術をうけた口唇口蓋裂患者を対象に調査。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を行うが、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う。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て行う。手術実施年齢等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作製を開始する。

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する。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う。

④ 日本人のデータとの比較分析

ベトナムで得られたデータをデータベースに入力し、我々の行ってきた治療成績の比較分析を行う。

4. 研究成果

(1) 以前ニンビン省で人民委員会の協力を得て口唇口蓋裂患者の出生率調査を行った。2002年1月から12月までの1年間のニンビン省における出生数は男子7066人、女子5473人であり、そのうちで口唇口蓋裂は男子5例、女子12例であった。出生10000人あたりの口唇口蓋裂発生率は約13.6人であり、これは本邦よりやや少ない傾向であった。またベンチュエ省・クエンティエンチュエ病院で行った調査では、2008年度は11/6930、2009年度は7/6856であり、出生10000人あたりの口唇口蓋裂発生率は2008年度は10.1人、2009年度は17.2人で、やはり日本の発生率より少ないものであった。

しかし、ベトナムでは新生児先天異常のスクリーニングシステムが我が国とは異なっており、助産師が異常と認めたものだけを小児科医が診察するシステムであるようで、口蓋裂単独症例を全てが検出されていない可能性もある。

(2) ニンビン省内において、我々の活動が開始される以前には、口唇口蓋裂治療はほとんど実施されていない状況で、ハノイ等の中核都市にある医療施設で治療を受けているものがおおく、未治療成人症例も見られた。

我々が治療を行うと同時に現地口腔外科医に技術指導を行うようになってからは、日本における口唇口蓋裂一貫治療のシステムが導入され、適切な時期に適切な治療を受けるという治療体系の必要性を患者家族のみならず医療関係者にも浸透させることができてきた。

1998年から2011年までの間に382名の患者が受診し、延べ600名の患者の診察を行った。来院した患者には治療を行うとともに、継続的に予後診査に来院するように指示した。

2009年から2011年に来院した患者を示す。

	受診患者数	新来患者数
2009	64	38
2010	46	16
2011	43	19

近年は我々の治療実績が現地に周知されるようになり、前年に手術を受けた患者の70%が次年度の調査に応じてくれるようになっている。

(3) 活動開始当初は未治療口蓋裂患者が多く見られた(唇裂のみ実施されていたものも多い)。このような患者に口蓋形成術を実施した場合、口腔鼻腔交通の遮断は可能となっても、言語機能の回復は望めない状況であった。

活動開始当初は未治療成人口蓋裂患者が散見されたが、10年以上の活動によりその比率は減少してきている。

口蓋形成術施行患者の年齢構成を見ても、初回口蓋形成手術施行時の年齢が5歳以上の患者の割合は、

1998年度 4/11、1999年度 3/12、2000年度 7/17であったのに対し、2009年度 1/12、2010年度 3/17、2011年度 2/10と減少してきている。

近年は新生児期より来院し、適正な時期に口蓋形成術を行うことができるようになってきており、術後の言語治療の体系ができていないという問題はあるものの、適切な時期に口蓋形成術を施行することにより、言語機能の成績も今後向上してくるものと考えられる。

(4)口蓋形成術の顎発育に与える影響を考慮して、本邦では2段階手術を行う施設が増えてきている。我々の施設でも口蓋形成術に2段階手術を適用しており、上顎の発育に与える影響を軽減させようとしている。

ベトナムでは口唇口蓋裂患者の治療の中に未だ矯正医の介入がほとんどなされておらず、口蓋裂患者の咬合に問題が残存している。また日本でも高度成長期に小児のう蝕が増えたように、経済成長に伴って患児のう蝕が目立つようになってきている。

矯正治療の関与が十分でない状況では患児の顎発育に与える影響をできる限り少なくする必要があると考え、ニンビン省においても日本と同じ時期に手術を施行することのできる患児には、インフォームドコンセントを行って口蓋裂2段階手術を適用しつつある。この術後成績は今後解析を行っていく予定である。

われわれが今後も継続的に事業展開を行なうためのうえで、都市部での治療の現状を調査する必要があると考えた。そこで2011年の活動の際に首都であるハノイ市を訪問し、ハノイ医科大学およびベトナムキューバ病院の口腔外科・口唇口蓋裂治療担当者と治療の現状や今後の問題点等の意見交換を行った。その結果都市部では矯正治療や骨移植術等の先進国では当然と考えられている治療も導入されつつあり、今後は地方都市にもこのような一貫治療のシステムを導入する必要性を教育するとともに、治療を実践できる医療者の育成も必要であると考えられた。

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 12 件)

- ①井村英人、南 克浩、久保勝俊、古川博雄、前田初彦、夏目長門：乳臼歯の根尖病巣が原因と考えられる慢性下顎骨骨髓炎の1例。日本口腔外科学会雑誌 58:77-81, 2012. (査読あり)
- ②Y Mori, H Shimizu, K Minami, TG Kwon, T Mano: Development of a simulation system in mandibular orthognathic surgery based on integrated three-dimensional data. Oral Maxillofac Surg. 15:131-138, 2011. (査読あり)
- ③Lee SH, Mori Y, Minami K, Park HS, Kwon TG: Evaluation of pterygomaxillary anatomy using computed tomography: are there any structural variations in cleft patients? J Oral Maxillofac Surg. 69:2644-2649, 2011. (査読あり)
- ④加藤大貴, 古川博雄, 南 克浩, 新美照幸, 藤原久美子, 夏目長門：口唇形成術術後に認められた類皮嚢胞および類表皮嚢胞に関する検討. 日本口蓋裂学会雑誌, 36 巻, 7-11, 2011. (査読あり)
- ⑤ Imura H, Yamada T, Mishima K, Fujiwara K, Kawaki H, Hirata A, Sogawa N, Ueno T, Sugahara T.: Effect of 2, 3, 7, 8-tetrachlorodibenzo-p-dioxin suggests abnormal palate development after palatal fusion., Congenit Anom, 50:77-84, 2010. (査読あり)
- ⑥ Nakano H, Mori Y, Mano T, Minami K, Matsumoto K, Ueyama Y, Yura Y.: Diagnosis and treatment of an infant case with temporomandibular joint osteoarthritis caused by tumor. Oral Maxillofac Surg. 14 :119-121, 2010. (査読あり)
- ⑦ 加藤理恵, 田中誠也, 高見観, 杉山裕美, 北村洋子, 南 克浩, 古川博雄, 辰巳寛, 山本正彦：構音障害に対する治療効果の音響学的考察. 心身科学 2:25-36, 2010. (査読あり)
- ⑧ 松下明日香, 中野旬之, 岸正海, 真野隆充, 森悦秀, 上山吉哉：下顎隆起が原因と

考えられた閉塞型睡眠時無呼吸症候群の1例.
日本口腔外科学会雑誌 56 巻 9 号, 524-527,
2010. (査読あり)

⑨ Suzuki S, Marazita ML, Cooper ME, Miwa N, Hing A, Jugessur A, Natsume N, Shimozato K, Ohbayashi N, Suzuki Y, Niimi T, Minami K, Yamamoto M, Altannamar TJ, Erkhembaatar T, Furukawa H, Daack-Hirsch S, L'heureux J, Brandon CA, Weinberg SM, Neiswanger K, Deleyiannis FW, de Salamanca JE, Vieira AR, Lidral AC, Martin JF, Murray JC.: Mutations in BMP4 are associated with subepithelial, microform, and overt cleft lip. *Am J Hum Genet.* 84: 406-411. 2009. (査読あり)

⑩ 富永智子, 伊藤美知恵, 井上知佐子, 早川統子, 名倉知里, 岩田阿佑美, 高見観, 牧野日和, 古川博雄, 南克浩, 新美照幸, 豊田哲郎, 夏目長門, 岩田敏男, 後藤滋巳, 加藤正子: 構音障害を呈した片側性口唇顎口蓋裂患児の口蓋形態 非接触型三次元形状計測装置による評価. *愛院大歯誌* 47: 7-16. 2009. (査読あり)

⑪ T Yamada, K Mishima, H Imura, T Ueno, T Matsumura, N Moritani: Osteomyelitis of the mandible secondary to infantile osteopetrosis: a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 107:25-29, 2009. (査読あり)

⑫ 山田朋弘, 三島克章, 植野高章, 井村英人, 松村達志, 森谷徳文: 下顎枝に発生した脈瘤性骨嚢胞の1例. *日本口腔診断学会雑誌* 22:60-63, 2009. (査読あり)

[学会発表] (計 15 件)

① 南克浩・井村英人・村上弘・新美照幸・菅原利夫・夏目長門: 口唇口蓋裂患者の欠損補綴へのインプラントの応用. 第 56 回日本口腔外科学会総会, 2011 年 10 月 21 日, 大阪市

② 井村英人・古川博雄・鈴木聡・新美照幸・南克浩・藤原久美子・加藤大貴・大野磨弥・夏目長門: 左側口唇顎裂を伴った Tetrasomy 15q の一例. 第 56 回日本口腔外科学会総会, 2011 年 10 月 21 日, 大阪市

③ 森 明弘・南克浩・井村英人・大野磨弥・鈴木聡・新美照幸・藤原久美子・加藤大貴・夏目長門: 骨延長術とインプラントにより機能改善を図った口唇口蓋裂患者の一例. 第 56 回日本口腔外科学会総会, 2011 年 10 月 21 日, 大阪市

④ 南克浩・森 悦秀・三島克章・丹羽均・花本博・菅原利夫: ベトナム社会主義共和国ニンビン省における口唇口蓋裂医療援助ならびに

技術指導. 第 22 回歯科保健医療国際協力協議会総会, 2011 年 7 月 1 日, 常滑市

⑤ 井村英人・新美照幸・大野磨弥・古川博雄・藤原久美子・鈴木聡・加藤大貴・夏目長門: ベトナム社会主義共和国での医療援助活動の実態調査ーベンチェ省プロジェクトー. 第 22 回歯科保健医療国際協力協議会総会, 2011 年 7 月 1 日, 常滑市

⑥ K MINAMI, H IMURA, T NIIMI, K FUJIWARA, T KATOH, N NATSUME: Clinical Application of Dental Implant for the Patients with Cleft Lip and/or Palate. 3rd Workshop of International Cleft Lip and Palate Foundation. 2011 年 6 月 10 日, San Francisco

⑦ 新美照幸, 藤原久美子, 井村英人, 吉田和加, 南克浩, 古川博雄, 鈴木聡, 加藤大貴, 夏目長門: ベトナム社会主義共和国ベンチェ省における先天異常発生調査 2009 年調査実施分. 第 35 回日本口蓋裂学会総会, 2011 年 5 月 25 日, 新潟市

⑧ K Minami, Y Mori, H Imura, K Fujiwara, T Niimi, N Natsume, T Sugahara: Clinical Results of Obwegeser II Method For Correction of Severe Mandibular Protrusion. 20th Congress of the European association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery, 2010.09.14-17, Brugge

⑨ T. Sugahara, A. Hirata, K. Minami, H. Imura: Localization of Heparan Sulfate and Heparanase during Palatal Bone Formation in Palatogenesis in Mice. 20th Congress of the European association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery, 2010.09.14-17, Brugge

⑩ A Hirata, T Tsuji, T Yamada, T Ueno, K Mishima, K Minami, N Natsume, T Sugahara, H Nakamura: Localization of the Hoxc Homeobox Gene Family During Palate Formation in Mice. 20th Congress of the European association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery, 2010.09.14-17, Brugge

⑪ 南克浩・新美照幸・藤原久美子・井村英人・古川博雄・久保勝俊・前田初彦・夏目長門: 高齢者に発生した ameloblastoma、unicystic type の一例. 第 64 回日本口腔科学会総会, 2010.6.24, 札幌市

⑫ 井村英人・南克浩・古川博雄・新美照幸・藤原久美子・加藤大貴・久保勝俊・前田初彦・夏目長門: 治療後に永久歯萌出を認めた下顎骨 Garre 骨髄炎の 1 例. 第 64 回日本口腔科学会総会, 2010.6.24, 札幌市

⑬ 南克浩・井村英人・藤原久美子・古川博雄・夏目長門: 上顎骨延長術の周術期に問題を生じた口唇口蓋裂患者の治療経験.

第 20 回日本顎変形症会総会, 2010. 6. 17, 札幌市

⑭ 南 克浩、村上 弘、古川博雄、新美照幸、井村英人、藤原久美子、菅原利夫、夏目長門：当科における口唇口蓋裂患者に対するインプラント治療。第 54 回日本口腔外科学会総会, 2009 年 10 月 20 日, 札幌市

⑮ 南 克浩、井村英人、新美照幸、古川博雄、菅原利夫、夏目長門：歯槽と鼻腔にポリマー状の腫瘤を認めた正中裂の一例。第 63 回日本口腔外科学会総会, 2009. 5. 20, 浜松市

〔図書〕(計 3 件)

① 南 克浩； 口腔外科専門医マニュアル(日本口腔外科学会編) 第 5 章 救急救命医療。医歯薬出版 46-49, 2011

② 菅原利夫； 口腔外科専門医マニュアル(日本口腔外科学会編) 第 2 章 口腔外科専門医として修得すべき手術、第 6 章 臨床経験として必要な難易度別疾患と診療技術・手術手技。医歯薬出版 2011

③ 井村英人：哺乳障害、今日の治療指針(山口徹、北原光夫、福井次矢 編)、医学書院、今日の治療指針 1310-1311, 2011

〔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：
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：70346162

(2) 研究分担者

菅原 利夫 (SUGAHARA TOSHIO)
愛知学院大学・歯学部・客員教授
研究者番号：10116048

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

森 悦秀 (MORI TOSHIHIDE)
九州大学・歯学研究院・教授
研究者番号：00231639