

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

旭川医科大学研究フォーラム(2023.6)第20巻: -

報告

口唇口蓋裂治療の現状とベトナム医療援助

Current treatment for patients with cleft lip and
palate and medical assistance in Vietnam

吉田将亜*

【はじめに】

顎顔面領域の先天異常である口唇口蓋裂は、人体で最も発生頻度が高い体表奇形であり、わが国において新生児約 500~700 人に 1 人の割合で発生する。出生直後の哺乳障害に始まり、鼻口唇の変形、言語障害、咀嚼障害、歯列不正、顎発育障害、咬合異常がみられ、う蝕や歯周病、中耳炎の罹患率が高く、心疾患など合併先天異常を有する場合も少なくない。治療は出生後から顎発育の終了まで継続するため、患者、家族が与えられる精神心理的影響も大きい。これら問題を解決するために、本疾患の治療においては、関連する臨床各科により一貫した方針に基づく集学的治療が行われている。

治療の歴史は古く、ローマ時代のカエサル（BC25~AD40 年）は焼灼による口唇裂手術を著書に記載しており、口唇裂手術を受けた最も古い記録は西暦 390 年に中国で記録されている¹⁾。口唇口蓋裂の手術術式が発展したのは 19 世紀中期以降で、現在の標準的な手術方法が確立された。近年、診療ガイドライン²⁾も整備され、治療標準化の検討がすすみ、口唇裂や口蓋裂の治療後の口唇形態や機能、構音機能は大きく改善してきた。口蓋裂学会が発表した調査で、口唇口蓋裂を治療する日本の 111 施設の治療プロトコールについて報告している³⁾。各施設の治療プロトコールは、治療（手術）方法、治療時期は各施設で厳密には異なるものであったが、おおよそ共通した方針が採用され、成長発育に応じて適切な治療、管理が行われることで、安定した良好な成績が報告されるようになった。当科でもこれら各施設の治療結果を踏まえ、図 1 の治療スケジュールに従い出生前から成人に至るまで治療を行っている。

現在、本邦では口唇形態や構音機能以外の問題のさらなる改善を目指し、発育、成長に伴う顎顔面の形態変化、顎骨の劣成長、歯列不正、言語獲得などを考慮した治療方法、手術方法の開発が進められている。しかしながら、この疾患の最終的な治療結果は出生から顎顔面の成長終了のおよそ 20 年を要し、成人までの経過中に行われた治療も影響する。そのためどの治療プロトコール、どの手術方法が最良であるか、現在も議論されているのが現状である。

今回、本稿では本学開設後から当科で行ってきた口唇口蓋裂治療の概要と、これまでの取り組みについて報告したい。

出生前	哺乳・育児指導	超音波エコー検査（産科）	
出生	Hots床（哺乳床）	全身検査（小児科） 哺乳・育児指導（産科）	
3カ月（体重5kg）	口唇形成術	中耳炎診察（耳鼻科）	
1歳3カ月～	口蓋形成術	レジン床 瘻孔閉鎖床 う蝕治療 口腔衛生指導	鼓膜チューブ留置術 （耳鼻科）
4～6歳	口唇修正術 外鼻修正術	言語訓練	
7～8歳		矯正歯科	
8～10歳	顎裂部骨移植術		
		補綴治療	
16～18歳	外鼻修正術 顎外科手術		

図 1 片側・両側唇顎口蓋裂治療スケジュール

*旭川医科大学医学部 歯科口腔外科学講座

口唇口蓋裂とは

ヒトの上唇は胎生4～8週頃、口蓋は胎生8～2週頃に形成される。口唇裂は第一鰓弓由来の前頭隆起と上顎隆起の癒合不全、口蓋裂は正中および外側口蓋隆起の癒合不全によって生じる。発生機序は、遺伝的要因と環境的要因が関与した多因子説が有力で、多くの場合発生は散発的で、副耳や心奇形など合併奇形が認められることが多い。発生頻度は、人種により差がみられ、日本人を含めた黄色人種が最も多く（出生数に対して0.2%）、白色人種、黒色人種はそれぞれ0.1%、0.07%と少ない。その他の顔面裂奇形では、斜顔裂、横顔裂、正中裂があるが、これらは、10万人の出生数あたり1～2人と推測される。口唇口蓋裂の裂型分類は、左右、部位、状態（完全、不完全）に分類される（図2）。口唇裂を含む症例は、口蓋裂単独症例と遺伝的に異なる発症要因が存在するとされる。

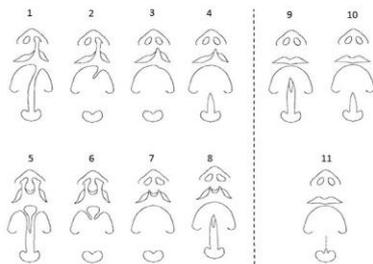


図2 口唇・口蓋裂の裂型分類
 1～4：片側性口唇裂（口蓋裂あり、口蓋裂なし）
 5～8：両側性口唇裂（口蓋裂あり、口蓋裂なし）
 1, 5：唇顎口蓋裂
 2, 6：唇顎裂
 3, 7：唇裂
 4, 8：口唇裂＋口蓋裂
 9～10：口蓋裂

術前顎矯正（図3）

顎裂および口蓋裂を有する症例では出生直後に哺乳障害の対策が最初の治療となる。出生後、できるだけ早期に上顎の印象採得を行い、哺乳床を作製し、顎裂・硬口蓋裂を閉鎖することで哺乳障害を改善することが可能になる。この哺乳床には、裂の閉鎖以外に嚙下時の舌が異常な位置にくることを防止する効果もあり、将来の構音機能や顎発育に良い影響を与えることができる。また、口唇形成術や口蓋形成術までに変形した裂幅や顎形態を制御する

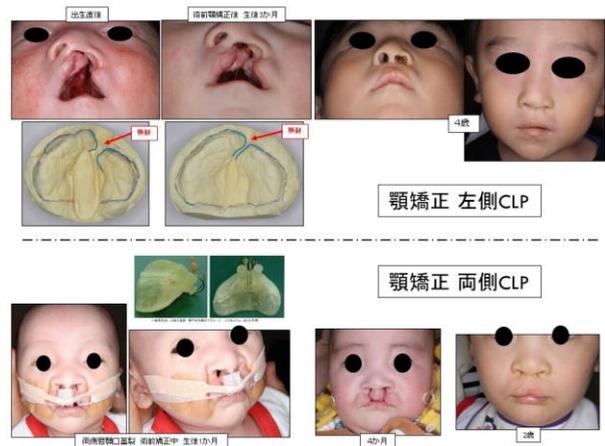


図3 術前顎矯正と両側唇顎口蓋裂におけるNAM法

口唇テープや口蓋床で術前顎矯正を行うことで、口唇形成術後の審美的な結果を期待できる。また、顎口蓋裂の狭小化により手術で口蓋が閉鎖しやすい形態にすることができる。

目的で哺乳床を利用した術前顎矯正が日本では多くの施設で標準治療となっており、口腔外科、矯正歯科、小児歯科で行われている。これには、顎の成長能を利用した受動的な顎矯正と顔面皮膚を支持組織とした能動的な顎矯正がある。

受動的顎矯正の哺乳床として代表的なものはチューリッヒ大学の Hots らが始めた Hots 床である⁴⁾。Hots 床は周囲の軟性と中央部の硬性レジンからなり、粘膜面の潰瘍形成が少なく顎発育を抑制しないなど利点を有しており、当科でも1990年以降使用してきた。しかし、上顎の発育に伴い調整が頻回に必要であり、再製作が煩雑であること、軟性レジンのため顎堤の矯正力があまり働かないなど欠点もある。そこで当科では近年、理想的な顎堤・口蓋形態をある程度予測した硬質レジンによるプレートを作製し義歯安定剤にて口腔内に装着する方法を採用した。これにより、口唇形成術を行う時期までに顎堤・口蓋の形態は矯正され、それに伴い上唇は理想的な形態へ改善がなされる。完全口唇裂では鼻の形態の変形に対する能動的な矯正装置として nasoalveolar molding (NAM) 法⁵⁾がある（図3）。NAMを使用することで鼻の形態改善は望めるが、装置による鼻の潰瘍形成のトラブルや頻回の装置の調整が必要である。また、成人までに完全に鼻の修正術を回避できるわけではないため、当科では、家族にNAM装置の使用に理解があり、頻回の

通院が可能で、鼻の変形が高度の両側完全口唇裂の症例に対し適用している。

口唇形成術および口唇修正術

口唇形成術は乳児期の体内動態が安定し新生児黄疸が消失する生後 3 か月以降に行われる。口唇形成術の目的は口唇の閉鎖、口輪筋の再建、口唇の形成であり、機能と形態の回復である。出生後の初回手術となる口唇形成術の術式は、各施設で様々な方法が採用されている。どの術式で行っても皮膚切開線以外の基本的手技、すなわち、口輪筋の形成、鼻腔底の形成、口腔粘膜の縫合などに大きな違いはなく術後の機能回復が問題となることは少ない。しかし、術式の違いで成人までにどのように口唇の形態が変化していくか予測することは難しい。片側口唇形成術で、もっとも新しいコンセプトを提唱した術式は Fisher 法⁶⁾で、近年、当科でもその概念を取り入れた治療を行っている (図 4)。



図4 口唇裂手術後の経過
Fisher法(2005年):口唇形成術で鼻柱基部の縫合線を解剖学的な subunitの概念に基づき整容的に自然な形態に近づけようとする方法



図5 口唇形成術後の鼻・口唇の形態変化

重要なことは顎顔面の成長発育に伴って、手術後の口唇形態は変化していくことである。術後早期に満足いく結果が得られていても、成長に伴い口唇形態の変形や瘢痕拘縮など問題が起こり得る (図 5)。その場合、患者の年齢やその変形の程度に応じた二次修正術が必要となる。片側唇裂では鼻の左右対称性を得るために初回の手術で患側の鼻翼軟骨の修正を加えるか否かについては現在も議論がなされている。成長に伴う口唇の変形に対する口唇修正術 (口唇鼻修正術) の適した手術時期について絶対的な規定はない。通常は本人あるいは、家族の希望を考慮して就学前や成長終了後に行われるのが一般的である。両側性の口唇裂では中間唇と鼻柱の組織量不足により、術後鼻柱短縮の変形が残存することが多い。鼻の変形改善のため、就学前もしくは成長終了後に軟骨移植もしくは人工物を利用して鼻柱延長を考慮した鼻修正術が必須となる。

口蓋形成術

口蓋形成術の目的は構音機能に重要な鼻咽腔閉鎖機能の獲得であるが、それと同時に手術侵襲による上顎骨の劣成長、歯列不正、鼻口腔瘻を避けることが大切である。手術時期は言葉を獲得し始める 1 歳 3 か月頃が望ましいとされる。過去に最も行われていた術式は push back 法と呼ばれる方法で、この方法により言語成績は著しく向上し、およそ 90% 以上で正常の鼻咽腔閉鎖機能が獲得できた。しかし、この方法は硬口蓋粘膜を大きく後方に移動することから硬口蓋に骨露出が生じ、人工粘膜等で被覆しても瘢痕形成は避けられず、上顎劣成長の原因となり、上顎骨の狭窄による乳歯や永久歯の歯列不正を回避することは困難であった。また、硬口蓋が浅い形態となり、口蓋の前方には大きな鼻口腔瘻 (瘻孔) が生じるため言語機能に悪影響を与え、瘻孔閉鎖のため口蓋床を閉鎖術まで継続して使用する必要があった (図 6)。

これら問題を回避するため、軟口蓋と硬口蓋の閉鎖時期をずらして瘢痕による上顎劣成長を軽減す

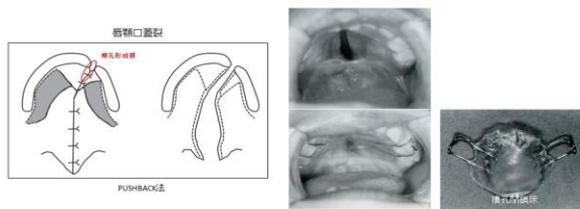


図6 push back法による口蓋形成術と瘻孔閉鎖床

の方法が開発された。口蓋閉鎖を二期的に閉鎖する方法であり、Perko⁷⁾は口蓋骨の骨膜を温存して二期的に閉鎖する方法、Furlow⁸⁾は骨を完全に粘膜で被覆して二期的に閉鎖する方法を報告した。二期的閉鎖による口蓋形成術の push back 法との比較は、鼻咽腔閉鎖機能に関しては同等で、上顎劣成長については優位に二期的閉鎖術が優れていたと報告されており⁹⁾、2000年以降は軟口蓋にZ形成で閉鎖するFurlow法を応用した手術方法を採用する施設が多くを占めるようになってきた。当科の治療の変遷をみてみると、開設当初、push back法を採用していたが、その後、症例によりpush back法とFurlow法を併用してきた。現在は、口蓋裂全例でFurlow法を応用した口蓋形成術を行い良好な結果が得られている(図7-1, 2)。

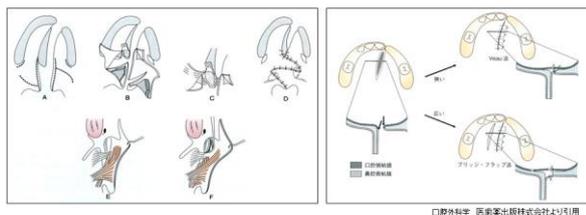


図7-1 furlow法による二期的口蓋閉鎖術

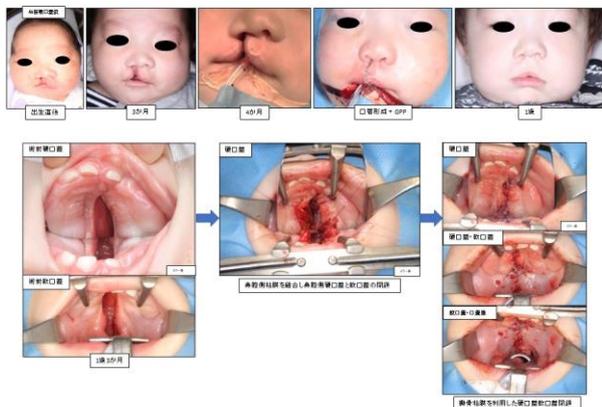


図7-2 furlow法による一次的口蓋閉鎖術

Furlow法を応用した手術法で最新の手術方法は、鳥飼ら¹⁰⁾が口唇形成術と同時に一次的に口蓋閉鎖術を行う方法を報告しており、現在、少数の施設で行われている。術後の咬合や言語機能に問題はないとしており、手術回数が減って術後の成績が同じであれば有用な方法であり近い将来、この手術方法が主流になると予測される。しかし、術前に顎矯正を行うことが前提ですべての症例で適用できないこと、手術時間(麻酔時間)が長くなり患児への負担が大きい、執刀は経験豊富な術者が望ましい、などの問題も有している。また、この方法による顎顔面の成長終了後の形態や機能の最終的な結果は明らかになっておらず、今後の評価が待たれている。

口蓋裂二次手術

初回口蓋形成術後の評価は、4~5歳頃より開始しおおよそ就学時にほぼ固定される。同時期より鼻咽腔閉鎖機能と異常構音の評価を行うが、近年、当科ではFurlow法による口蓋形成術を採用することで、鼻咽腔閉鎖機能不全は認めず、また、硬口蓋形態の異常や歯列不正が軽減されることで異常構音の出現率も低下している。これまで多くの施設でも、いずれも厳密には同じ手術手技ではないものの、鼻咽腔閉鎖機能、構音機能についてFurlow法の治療成績の優位性を報告している。これら治療方法の改善により成績向上が見られても術後も鼻咽腔閉鎖機能不全が残存する症例が存在するのは事実で、それら症例では、スピーチエイドや軟口蓋挙上装置などの補助装置を作製して言語訓練を開始する。これら補助装置は歯と硬口蓋粘膜を固定原とした装置のため、上顎の成長に伴って頻回の調整が必要となる。通常、矯正治療の開始時期は永久前歯萌出後の7歳以降となり、矯正装置が障害となることがあり歯科矯正科と連携した言語訓練補助装置の装着が必要となる。多くは、補助装置を利用した言語訓練によって言語機能が賦活し構音障害は改善され、補助装置は離脱可能となる。以降も、鼻咽腔閉鎖不全が原因の構音障害が残存する症例については、軟口

蓋の後方移動を目的に push back 法を行っているが、これまでの経験から、再口蓋形成術を必要とする症例は初期治療で軟口蓋の筋（口蓋帆挙筋）の発達が悪い症例や、軟口蓋が極端に短い症例など、閉鎖機能不全を生じやすい形態的要因を有する症例であった。また、鼻咽腔閉鎖不全の治療に咽頭弁形成術があるが、施行により経鼻挿管での全身麻酔ができなくなるため、その後、顎矯正手術が施行できなくなるなどの理由から、成長終了まで行っていない。

顎裂部骨移植術

顎裂のある症例は患側の永久側切歯が先天欠如しており、また、顎裂の歯槽骨欠損部には歯を移動することができないため、歯列矯正治療のみで理想的な噛み合わせの獲得は困難である。顎裂に骨移植を行うことで、歯列矯正治療のみならず、分離した上顎骨の一体化、歯槽骨形態の再建、鼻口腔瘻の閉鎖、未萌出歯の萌出誘導、歯の移植やインプラント埋入など利点は大きい。顎裂部骨移植は Boyne ら¹⁾ によって腸骨海綿骨の移植が報告されて以降、急速に普及し現在ほとんどの施設で取り入れられている。それまで、顎裂部に対してはブロック骨移植などが試みられていたが、海綿骨移植の利点は、移植時に形態付与の必要が無いこと、口腔内では感染に強くとえ感染しても表層のみの脱落し残った骨は安定して生着すること、など利点が多い。また、人工骨を用いた骨移植も行われていたが、口腔細菌の存在や無菌的な完全閉鎖は困難などの環境から、成績は海綿骨と比較するとやはり劣ったものであった。近年、口腔内で使用しても骨吸収が少なく、感染に強い人工骨（Bonarc®）が開発され、治療では海綿骨と同等の結果が報告されている。2023 年より口唇口蓋裂の顎裂部骨移植に保険適用される予定である。

治療時期は犬歯萌出前の 8~10 歳頃が適当とされているが、側切歯萌出前の 7 歳前に行う施設もあり開始時期の早期化が進んでいる。当科では開設

当初、骨移植は行っておらず欠損部補綴はブリッジや可撤性義歯で対応していたが、骨移植導入後は歯の欠損部を歯科矯正治療により天然歯で歯列形成することが可能となっている。

海外医療援助

旭川医科大学歯科口腔外科では 2007 年よりベトナムのベンチェ省で麻酔蘇生科医師、看護師の協力のもと医療援助として口唇口蓋裂患者の無償手術を実施してきた。この活動は日本口唇口蓋裂協会（本部、愛知学院大学歯学部）の短期滞在型医療援助活動に同行する形で 2019 年まで行われた。COVID19 の流行により現在まで活動を自粛しているが、これまでの活動について概要を報告する。

口唇口蓋裂は世界各国で発症する疾患であるが、発展途上国では経済的な理由などで治療を受けられない多くの子供が放置されており、複数の NGO 団体が医療援助を行っている。日本口唇口蓋裂協会はその団体の一つで、1993 年からベトナム社会主義共和国南部メコンデルタ地域ベンチェ省からの要請を受けて口唇口蓋裂患者の無償医療援助を毎年行っている。この地域は 1960 年から 1975 年にわたるベトナム戦争の際、多量の枯葉剤が多量に散布されたことで有名となった土地でもある。ベンチェ省はホーチミン市の南西、およそ 110 km に位置し、自動車ですら約 2 時間半、メコン川のデルタ地帯に位置している。活動拠点はベンチェ省唯一の総合病院グエンデンチュー病院で、26 診療科、ベッド数 1000 床、医師 130 名、現地最大の病院である。病



ベンチェ省グエンデンチュー病院

院近郊の宿泊施設（省運営ゲストハウス）に滞在して病院手術室に連日移動し医療援助活動を行った。

ベンチエ省は大部分がココナツの森林におおわれており、主な産業は農業で現地の経済状況について、2007年、当時通訳によれば月収は日本円で5000円程との話であった。日本貿易振興機構のデータによると2010年のベトナム平均月収が日本円約7000円で物価がおよそ日本の3分の1程度ということも考慮してもかなりかなり低い所得である。ベトナムは1986年のドイモイとよばれる自由化を推奨する政策以降、現在も急速な経済成長が進行中で、その影響はホーチミン市など大都市だけでなく遅れながら農村部にも及んでいる。空港からベンチエ省宿泊施設まではメコン川を横断することになるが、初回訪問から数年後に船で横断していた河川には橋が建設され、また、食料品の露店市場の近隣には近代的なスーパーマーケットが建設された。一方、われわれ日本人の治療を希望し訪れる患者の経済状況はあまり変化がないように思われた。現地では協会の手配で治療後の患者の住宅を毎年訪問するが、居住地はバナナやココナツなど熱帯植物が生い茂る密林の中の幹線道路からさらに数キロ歩いていかなければならないところも珍しくない。現地の水道、下水などのインフラ設備は十分ではなく、雨水を生活用水として貯蔵し、自宅の貯水池にトイレが設置されているなど、医療援助を受ける現地住民の生活水準は日本と比較できないほど低いものであった。

参加者は大学、病院の医師、歯科医師、看護師、



宿泊施設食堂

大学学生の40数名で、患者の治療と地元医療者への医療技術指導などの教育を行っている。地元では新聞などで我々の訪問が告知され、患者約100名とその家族が病院を訪れ、診察を行い、そのうちおよそ60名の手術が行われる。滞在期間はおよそ10日間で、初日、翌日に手術室での医療器材の準備、過去の患者自宅へ訪問、現地孤児施設訪問、術前診察、手術患者の印象採得、現地でベンチエ省職員との交流会など行われ、5日間手術室で治療にあたる。手術室や麻酔器は病院のものを使用できるが、手術器具、縫合糸、医薬品、麻酔器具などは日本から持参するか、現地で調達しなければならない。できるだけ多くの患者の手術を行うため、かなり密なスケジュールが組まれており、手術期間は朝5時半起床後、6時朝食とミーティング、7時には病院へ移動し8時から手術が開始される。術後は、夜8時夕食とミーティング、再度、病院の入院病棟へ移動し術後回診が行われる。手術最終日は慰労会が開催され、翌日、機材を撤収後にベンチエ省を出発、3時間ホーチミン市内の観光した後、空港より深夜12時頃の便で帰国する。

初回訪問から数年間、1～3歳の乳児の一次症例が多くを占めていたが、近年は児童、成人など口唇の修正や瘻孔の閉鎖といった二次症例が増加している。いずれも年に1度の訪問による治療のため、当然、顎矯正や口蓋床の装着など疾患管理はなされておらず高度の変形を有する難症例が多くを占めている。また、日本ではみられない成人や高齢者の



術前ミーティング

未治療例が受診することもあり患者の希望により治療が行われた。治療を受けた患者はすべて協会でカルテが作成され、顔写真、口腔内写真とともに治療記録が保存される。執刀医は口唇口蓋裂治療に経験豊富な医師、歯科医師（もしくはその指導下）が担当し、術中は現地医師が助手に入りベトナム語を交えて指導を行いながら治療する機会もある。また、全身麻酔は参加した日本人麻酔科医師が担当し、術後は翌朝まで日本人小児科医師が常駐するリカバリー室（NICUに類似した病室）で経過観察を行い、全身的に問題ないこと確認されると病棟の病室へ移動する。日本とほぼ同等の周術期管理が行われており、現在まで治療に関する医療事故は発生していないとのことであった。治療した患者は通常1年後診察に訪れるが、それまでの期間は抜糸以外のfollow upは行われないため、翌年に患者、両親の笑顔を見て術後問題なく治癒していることが確認できると一安心である。ベンチェ省によると、この医療援助によって多くの患者が無償で手術を受けることができ、患者本人、家族から大変感謝されているとのことであった。また、毎年同行するベトナム人通訳から患者本人ばかりでなく多くのベトナム人がこの医療援助に感謝の意を示していることを伝えられた。

旭川医科大学の教育目標に「国際社会への貢献」が掲げられている。私どものベトナムでの活動も大学の国際貢献の一つとして取り上げられ、参加した医学生、看護学生がこれら活動により国際的な地域医療格差の問題を認識し、改善、啓蒙を広げる役割を担う人材育成に活用されている。これら医療協力の参加には、所属する部署や家庭の協力、また、大学の資金援助など、支援が無ければ継続できなかったのも事実であり、これまでの活動実施に向けて尽力いただいた大学の関係各所に感謝の念をここに表したい。また、今後、国際社会で活躍を目指す方々の参考となれば幸いである。



患者自宅訪問(2012年)



患者自宅訪問(2012年)
口唇裂術後患者(前列左から3人目)と執刀した松田光悦歯科口腔外科教授(現名誉教授、前列左から4人目)



ベンチェ省主催歓迎会(2012年)

1) 高橋庄二郎：口唇裂・口蓋裂の基礎と臨床. 日本歯科評論社, 東京, 1996.

2) 後藤昌昭, 他：口唇裂・口蓋裂診療ガイドライン. 社団法人日本口腔外科学会,
http://jsoms.or.jp/guideline20080804/mg_cpf20080804.pdf, 2009年

3) 日本口蓋裂学会編：口唇裂・口蓋裂の治療プラン—全国111診療チームにおける現況—. 第1版, 日本口蓋裂学会事務局, 東京, 2008

4) Hots, M.: Pre- and early postoperative growth guidance in cleft lip and palate cases by maxillary orthopedics. Cleft Palate J. 6: 368-376, 1969.

5) Grayson, B. H., Cutting, C. B., et al.: Preoperative columella lengthening in bilateral cleft lip and palate. Plast Reconstr Surg. 92: 1422-1423 1993.

6) Fisher, D. M.: Unilateral cleft lip repair: an anatomical subunit approximation technique. Plast Reconstr Surg. 116: 61-71, 2005.

7) Perko, M.: Primary closure of the cleft palate using a palatal mucosal flap: an attempt to prevent growth impairment. J Maxillofac Surg 2, 40-43, 1974.

8) Furlow, L. T.: Cleft-palate repair by double opposing Z-plasty. Plast Reconstr Surg 2, 78(6), 724-736, 1986.

9) 小野和宏 大橋靖, 他：Furlow 法による口蓋形成術 第2報 鼻咽腔閉鎖機能ならびに顎発育への影響について. 日口外誌 41(3):220-223, 1995.

10) 鳥飼勝行, 長西裕樹：乳児期早期の口唇口蓋同時形成法 片側唇顎口蓋裂での顎発育・言語の成績. 形成外科 54(9) : 991-998, 2011.

11) Boyne, P. J., Sands, N. R.: Secondary bone grafting of residual alveolar and palatal clefts. J Oral Surg 30: 87-92, 1972.



術前診察



手術室・リハビリ室 病棟



術後リハビリ室



術中



現地ベトナム人への麻酔指導



グエンデンチュエ病院ベトナム人看護師と(2011年)



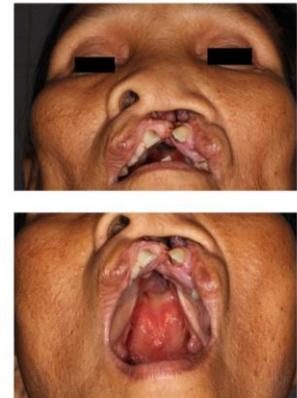
術後回診



手術室撤収後(2014年)



高齢者左口唇口蓋裂



高齢者左口唇口蓋裂、術中写真(執刀:愛知学院大学 夏目教授)



2011年参加者



2014年参加者