

学位論文内容の要旨

愛知学院大学

論文提出者

松井 義人

論文題目

当科における片側性完全唇顎口蓋裂患者に対する二
段階口蓋形成術：鼻咽腔閉鎖機能

【緒 言】

1970 年代に Perko、Hotz らは口蓋形成術の際に筋輪形成を行うことにより鼻咽腔閉鎖機能を改善し、5～8 歳頃に硬口蓋閉鎖術を行うチューリッヒアプローチを発表した。これにより顎発育ならびに言語の面でも比較的良好的な成績を収めている。しかし、他論文にて硬口蓋が長期間未閉鎖になることにより呼気鼻漏出が起こり、言語障害を引き起こすと指摘されている。それに対し、空気の漏れを防ぐためにすべての患者で口蓋閉鎖床（以下、スピーチプレート）を使用している。今回の研究で、当科の二段階口蓋形成術を施行した片側性完全唇顎口蓋裂の鼻咽腔閉鎖機能やスピーチプレートの影響について評価を行った。

【対 象 お よ び 方 法】

1. 治療体系

当施設では 1986 年から上顎発育障害を防ぐために Perko 法を使用してきた。唇顎口蓋裂児に対し、18～24 か月時に Perko 法に準じて粘膜弁法による軟口蓋形成術を行っている。術後創部が治癒したら、硬口蓋裂と顎裂に対して呼気鼻漏出を防ぐことを目的にスピーチプレートを使用している。術後、鼻咽腔閉鎖機能不全があり、言語訓練でも改善が見込めない場合は、咽頭弁形成術を行っている。顎発育への影響を最小限に抑え、手術回数を減らすために、8 歳時以降に硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術を同時に行っている。

2. 対象

愛知学院大学歯学部附属病院顎口腔外科学講座を受診し、1986年6月～2008年12月までの期間に初診登録をされ、片側性完全唇顎口蓋裂と診断された患者を対象とした。その中で初診より前述した当科治療体系に準じた二段階口蓋形成術にて治療を行い、硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術が終了した連続した36例とした(手術はすべて同一術者が施行)。なお、定期的な言語管理ができなかったものや言語習得に影響を及ぼすような難聴や発達遅滞などを伴う患者6例は対象から除外し、残りの30例に対して検討を行った。手術時期の中央値は軟口蓋形成術が1歳10か月、硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術が9歳4.5か月であった。

3. 鼻咽腔閉鎖機能

評価は口蓋裂言語の臨床経験が5年以上である当院言語治療外来の言語聴覚士3名で実施した。評価基準に関して、今回は日本で多く用いられている日本コミュニケーション障害学会口蓋裂言語検査基準に準じて評価を行った。開鼻声、呼気鼻漏出の子音の歪み、ブローイング時の呼気鼻漏出の程度をそれぞれ評価し、良好・ごく軽度不全・軽度不全・不全と判定した。良好・ごく軽度不全は良好群、軽度不良・不良は不良群とした。

軟口蓋形成術が終了している5-6歳時(A)、硬口蓋閉鎖+顎裂骨移植術の直前(B)、硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術後(C)の3段階で鼻咽腔閉鎖機能の評価を行った。軟口蓋形成術終了後と硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植

術の期間に、すべての患者でスピーチプレートを使用できていた。4人の患者で硬口蓋裂や顎裂が狭く鼻漏出を認めなかったため、Bの段階でスピーチプレートを使用せず評価を行った。

口唇口蓋裂の言語管理に習熟した言語聴覚士が定期的に言語訓練を行い、鼻咽腔閉鎖機能の改善が困難と判断した患者に対して咽頭弁形成術を施行した。

4. スピーチプレート

スピーチプレートは顎発育の抑制を考慮し、クラスプは使用せず、可能な限り薄いもの(臼歯部で0.5mmほど)を考案した。その維持には顎裂部の歯牙欠損部の両隣在歯牙のアンダーカットを利用し、装着時には義歯安定剤を使用した。スピーチプレートの装着は、軟口蓋形成術後の創部が落ち着いた時期から開始し、硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術施行時もしくは言語に影響がないと判断するまで装着した。今回、スピーチプレートの使用状況を確認するために、軟口蓋形成術後から装着までの期間を調査した。

5. 統計分析

f. 軟口蓋形成術の終了からスピーチプレート装着までの期間について、マンホイットニーのU検定を用いて、5-6歳時の良好群および不良群で比較検討し、p値が0.05以下を有意差ありとした。

【結果】

1. 鼻咽腔閉鎖機能

1-1. A: 5-6歳時 (中央値5歳3か月、4歳2か月～6歳4か月)

軟口蓋裂のみ閉鎖され、硬口蓋裂と顎裂はそのまま開いた状態。評価の際は全例でスピーチプレートを使用した。鼻咽腔閉鎖機能は良好15例(50%)、ごく軽度不全10例(33%)、軽度不全2例(7%)、不全3例(10%)であった。良好群は合計83%となった。

1-2. B: 硬口蓋閉鎖+顎裂骨移植術前 (中央値9歳8か月、7歳8か月～13歳5か月)

二段階口蓋形成術の軟口蓋形成術のみが終了した状態。鼻咽腔閉鎖機能は良好17例(57%)、ごく軽度不全12例(40%)、軽度不全1例(3%)であった。良好群は合計97%となった。Aのあと、5-6歳時の鼻咽腔閉鎖機能が不全であると評価された3例の患者は、咽頭弁形成術(5歳8ヶ月、8歳、11歳2ヶ月)を施行し、全例で鼻咽腔閉鎖機能が改善され、1例は良好に、2例はごく軽度不全になった。2例は外科的介入なしでAから改善が認められ、1例はごく軽度不全から良好に、もう1例は軽度不全からごく軽度不全に改善した。これらの5例はBまで連続してスピーチプレートを使用していた。

1-3. C: 硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術後 (中央値9歳11か月、8歳～13歳9か月)

硬口蓋裂および顎裂は外科的に閉鎖され、スピーチプレートが不要となった状態。鼻咽腔閉鎖機能は良好19例(63%)、ごく軽度不全11例(37%)

であった。良好群は合計 100%となった(評価は術後中央値 2 か月、0.5 か月～6 か月)。硬口蓋閉鎖および顎裂骨移植術後に 3 例で改善が認められ、すべての患者が良好群となった。

2. スピーチプレート

30 例すべてでスピーチプレートを使用していた。軟口蓋形成術後からスピーチプレート装着までの期間は 74 日であった。軟口蓋形成術後からスピーチプレート装着までの期間に関しては、5-6 歳時の鼻咽腔閉鎖機能が良好群だった患者は 25 例、不良群であった患者は 5 例であった。良好群は開始まで中央値 71 日(31～115 日)、不良群は中央値 104 日(56～130 日)となり、有意差が認められた($p < 0.05$ 、マンホイットニーの U 検定)。スピーチプレートを軟口蓋形成術後早期に使用したほうが、5-6 歳時の鼻咽腔閉鎖機能がよくなる結果となった。

【考察】

当科は二段階口蓋形成術の Perko 法に準じたチューリップアプローチを採用している。しかし、2つの点で改良を加えている。一つ目に、良好な顎発育が得られるように硬口蓋閉鎖術時期を遅らせ、8 歳以降に顎裂骨移植術と同時に行っている。硬口蓋閉鎖時期を遅らせることは、他の報告にもあるように上顎の発育障害を減少させることができ、同時に行うことにより手術回数やストレスを軽減することができる。二つ目に、硬口蓋未閉鎖部に対してすべての患者でスピーチプレートを使用している。

今回の調査で二段階口蓋形成術を施行した片側性完全唇顎口蓋裂 30 例の鼻咽腔閉鎖機能について調査し、5 - 6 歳時の鼻咽腔閉鎖機能は良好群 83%、不良群 17%であった。評価方法がほぼ同一である日本の報告では、良好群が pushback 法は 83.3~100%、Furlow 法は 81~84.6%となり、当科の鼻咽腔閉鎖機能はほぼ同一の結果が得られた。

今回の軟口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能が良好であった結果はスピーチプレートによるものと考えた。軟口蓋形成術後に未閉鎖部をスピーチプレートで覆うことにより硬口蓋裂や顎裂からの呼気鼻漏出を防ぎ、高い口腔内圧を維持できたためと考えた。軟口蓋形成術後からスピーチプレート装着までの期間に関して検討したところ、他の一部の報告と同様に術後早期にプレートを使用したほうが、鼻咽腔閉鎖機能が良好になりやすい結果となった。軟口蓋形成術後なるべく早期から使用することにより、口腔内圧を高め易くなり、鼻咽腔閉鎖機能の獲得に好条件に働くことが示唆された。今回の 5 - 6 歳時の鼻咽腔閉鎖機能良好群のスピーチプレート装着までの期間の中央値が 71 日であり、不良群の最小値が 56 日であるのを考えると、今後は初回装着の目安として術後 2 か月以内にスピーチプレートを装着しようと考えている。スピーチプレートの最適な装着時期を決定するために、さらなる研究が必要である。

今回の患者の中で咽頭弁形成術を行った患者は全体 10%であった。海外の文献では片側性唇顎口蓋裂の 11.4~23%の患者に対して咽頭弁形成術を

施行しており、当科の咽頭弁形成術を施行した割合は高くないと考える。また術後に咽頭弁形成術を行った患者は3例とも良好群に改善し、効果が再認識された。

硬口蓋閉鎖・顎裂骨移植術の前後で、いずれもスピーチプレートを使用していたが鼻咽腔閉鎖機能の評価に3例(10%)で差が認められた。おそらくスピーチプレートの適合が悪く、硬口蓋裂および顎裂部を閉鎖しきれていなかったことや同部からの呼気鼻漏出により鼻咽腔閉鎖機能に影響を及ぼしたものと考え。今後の課題として、呼気鼻漏出を防止し、正常な口腔内と同じ環境になるよう設計を見直す必要がある。

【まとめ】

今回連続した片側性唇顎口蓋裂30例に対してPerko法に準じた二段階口蓋形成術を試み、その鼻咽腔閉鎖機能に関して報告した。現在の治療体系は、軟口蓋形成術後早期にスピーチプレートを装着し、硬口蓋閉鎖術を顎裂骨移植術の時期まで遅らせ、同時に閉鎖するよう試みてきた。pushback法やFurlow法と同様の良い結果を得ることができた。これらの結果より、二段階口蓋形成術では口腔から鼻腔への呼気鼻漏出を防ぐスピーチプレートを早期に使用することが重要だと考えた。