徳島大学病院矯正歯科における口唇裂・口蓋裂患者の永久歯の歯数異常に関する調査

An investigation of anomaly in number of the permanent teeth of cleft lip and cleft palate patients at Tokushima University Hospital

市原　亜起[1)]，堀内　信也[2)]，小笠原　直子[1)]，森　浩喜[2)]，天知　良太[2)]，
渡邉　佳一郎[2)]，木内　奈央[2)]，泰江　章博[2)]，田中　栄二[2)]
ICHIHARA Aki[1)], HORIUCHI Shinya[2)], OGASAWARA Naoko[1)], MORI Hiroki[2)], AMACHI Ryota[2)],
WATANABE Keiichiro[2)], KINOUCHI Nao[2)], YASUE Akihiro[2)], TANAKA Eiji[2)]

抄　録

口唇裂・口蓋裂患者は，軟組織や骨の癒合不全だけでなく，永久歯の先天欠如や過剰などの歯数異常が認められ，歯科矯正学的対応に苦慮することも多い．そこで，口唇裂・口蓋裂患者における永久歯の歯数異常の実態を明らかにすることを目的として，1995年１月から2011年12月までの17年間に出生し，徳島大学病院矯正歯科を受診した口唇裂・口蓋裂患者（症候群を含まない）を対象とした調査を行い，以下の結果を得た．

１．調査資料が揃っている患者101名の男女比は，１：1.02であった．
２．顎裂保有者82名の顎裂部位は，１▼３の型が最も多く，次いで１▼23の型であった．（▼は顎裂部位を示す）
３．永久歯における歯数異常の発現率は63.4％であり，歯の欠如のみを有するものが50.5％，過剰歯のみを有するものは8.9％，歯の欠如と過剰歯をともに有するものは4.0％であった．
４．歯の欠如の歯種別頻度は，側切歯が最も多く，次いで第二小臼歯の順であった．
５．顎裂保有者のみを対象とすると，歯の欠如の発現頻度は披裂側で59.8％，非披裂側で24.3％であった．

以上のことから，口唇裂・口蓋裂患者での先天欠如歯の発現率は高いため，治療計画立案時に補綴治療を含めた包括的歯科治療の必要性が示唆された．

キーワード：口唇裂・口蓋裂，臨床統計学的調査，歯数異常

緒　　言

口唇裂・口蓋裂は顎顔面領域における比較的発生頻度の高い先天異常であり，我が国における外表奇形の中では最も発生率の高い疾患である[1)]．また，口唇裂・口蓋裂患者には高頻度に歯数の異常が生じることが知られており，過去にも多くの報告[2-7)]がなされている．松尾ら[2)]は，口唇裂・口蓋裂患者における乳歯歯数と永久歯歯胚数の異常発現状況及び両者の関連性について検討し，歯数異常の発現率は乳歯よりもとくに永久歯で顕著であったと報告しており，また渡邉ら[5)]は，口唇裂・口蓋裂患者における裂型別分布と永久歯先天性欠如の状況について調査を行い，永久歯先天性欠如は約半数に認められたと報告している．口唇裂・口蓋裂患者に対する矯正歯科治療の目的は，適正な咀嚼，発音，嚥下機能の獲得，審美性の改善を図るとともに，新たな口腔内外の環境に患者を適応させ，且つ，これを長期的に維持管理することにある．こうした観点から，徳島大学病院では出生後早期より多数の専門診療科による包括的チーム医療が実践されており，これまでに患者の実態[8,9)]や，治療法の変遷[10)]については報告されているものの，永久歯の歯数異常に関する検討は未だ行われていない．そこで今回，徳島大学病院矯正歯科における口唇裂・口蓋裂患者の歯数異常に関する実態調査を行い，その発現状態を明らかにすることとした．

調査対象および方法

1995年１月から2011年12月までの17年間に出生し，当科を受診した口唇裂・口蓋裂患者182名の中で，５～６歳時に通院歴があり，資料が完備している101名を調査対象

徳島大学大学院口腔科学教育部口腔顎顔面矯正学分野[1)]
徳島大学大学院医歯薬学研究部口腔顎顔面矯正学分野[2)]

受付日：平成30年２月28日

とした．

調査資料として，診療録，顔面写真，口腔内写真，口腔模型，単純エックス線写真，CT 画像を用い，以下の項目について臨床統計学的検討を行った．

なお，今回の調査では，永久歯と顎裂部位の関係性を調査するため，永久歯歯胚の中で最後に石灰化が開始する第二大臼歯が，確実に単純エックス線写真で確認できる５～６歳時において当科に通院歴があり，資料の揃っている患者を調査対象とした．また，症候群患者は除外した．さらに，問診により骨移植後に初診来院した患者であった場合，矮小側切歯や過剰歯が抜去されている可能性があるため，そのような患者も「資料不備」として除外した．

ただし，今回の臨床統計調査にあたり，徳島大学病院の倫理審査委員会にて承認を得た（平成29年１月17日承認番号2783）．

１．裂型別分類

調査対象患者を裂型（図１）に基づき，口唇裂，唇顎裂，唇顎口蓋裂，口蓋裂（粘膜下口蓋裂を含む），顎裂，口蓋垂裂，軟口蓋裂に分類し，披裂部の側性，および裂型別性差について検討した．

２．顎裂部位の構成

調査対象患者のうち顎裂保有者82名を対象として，以下の大矢ら[3]の「顎裂部位と隣接歯との関係に基づく分類」に準じ，１）顎裂部位別の発現数，２）裂型別顎裂部位の発現頻度を算出した．

１．１▼23
２．１▼２過３
３．１▼３
４．１過▼23
５．12▼３
６．12▼過３
７．その他

（▼は顎裂部位を，過は過剰歯を示す）

なお，左右側の顎裂を区別せずに片側性の顎裂部位を１顎，両側性は２顎として集計を行った．

３．裂型別・顎裂部位別歯数異常の発現頻度

調査対象患者の智歯を除く上下顎永久歯を対象とし，歯数異常について調査した．歯の欠如および過剰歯のうち少なくともいずれか一方を有する者を歯数異常症例とし，裂型別に，また顎裂部位別に歯数異常の発現頻度を算出した．なお，顎裂を有する上顎側切歯部において歯数の過剰が認められた場合，大矢ら[3]に準じ，便宜的にそのうち１歯を側切歯，他を過剰歯（形態異常の度合いにより決定）とみなした．

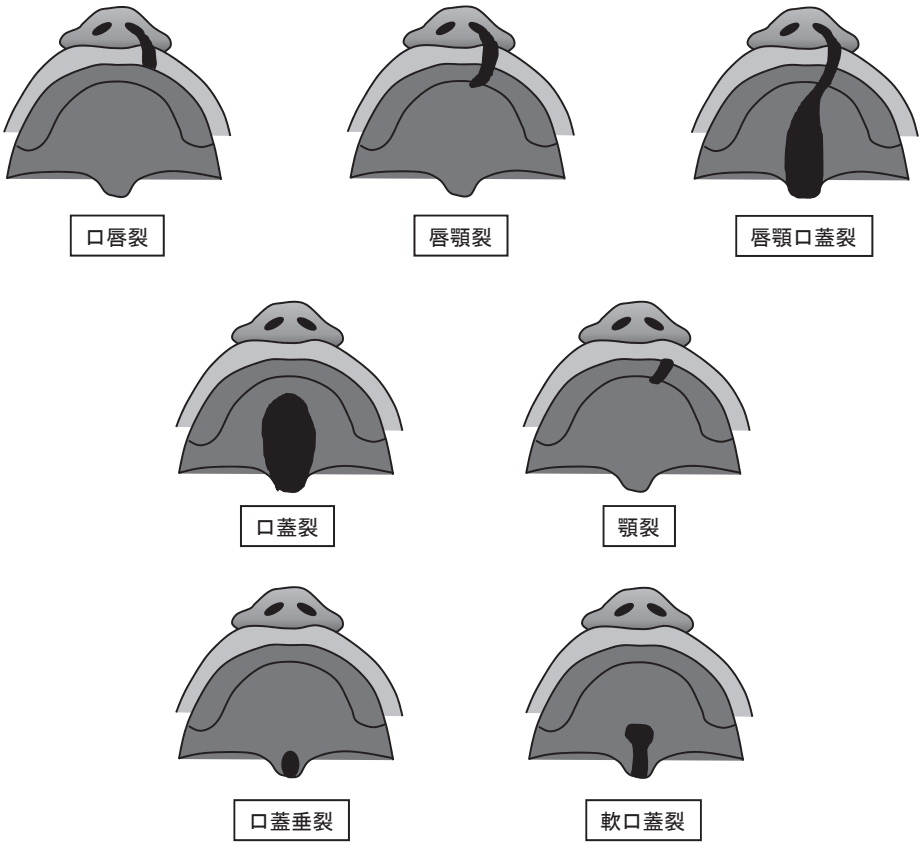

図１　裂型別分類

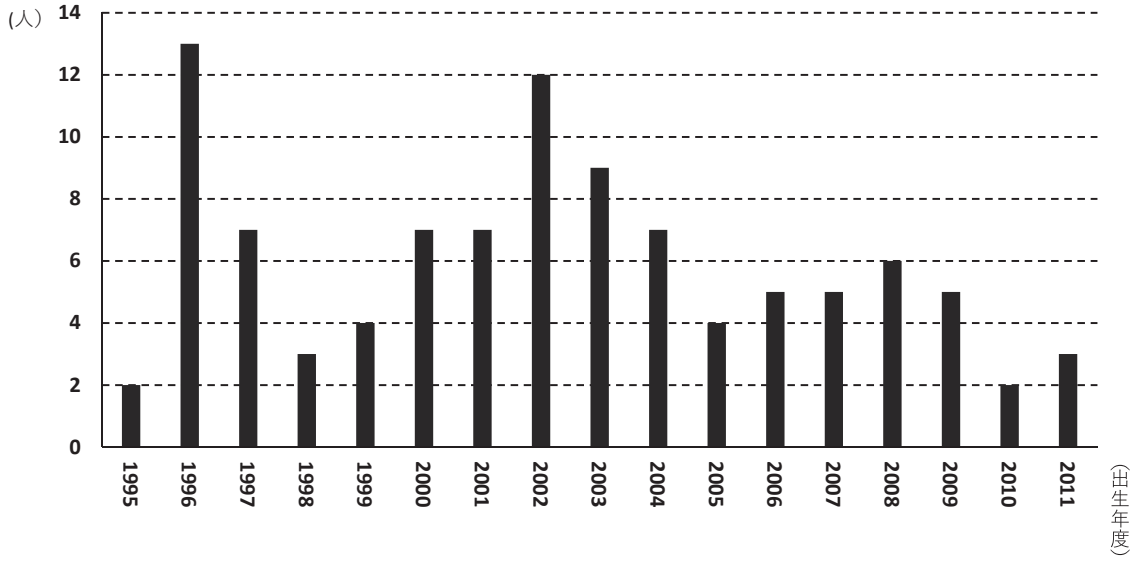

図２　出生年度別来院患者数

４．欠如歯の歯種別発現頻度

調査対象患者全体と，そのうち患者数の多かった唇顎口蓋裂患者，あるいは唇顎裂患者を対象として，欠如歯の歯種別発現頻度を調査した．

５．披裂・非披裂側別欠如歯の発現症例数

調査対象患者のうち顎裂保有者82名を対象として，披裂・非披裂側別欠如歯の発現症例数を調査した．例えば，右側唇顎口蓋裂患者が右側側切歯，右側第二小臼歯および左側側切歯を共に欠如している場合，披裂側の側切歯欠如症例として１症例，第二小臼歯欠如症例として１症例，非披裂側の欠如症例としても１症例とみなし，集計を行った．なお，顎裂を両側に有する場合は両側共に披裂側とみなし，顎裂のない下顎における欠如歯は除外した．

結　　果

１．調査対象患者の構成

調査対象患者101名の性別は，男性50名（49.5%），女性51名（50.5%）で男女比は１：1.02であった．また，調査対象患者の出生年度別患者数では1996年生まれが13名と最も多く，次いで2002年生まれの12名であった（図２）．

２．裂型別分類

裂型別分類に基づく患者数と頻度は，唇顎口蓋裂47名（46.5%），唇顎裂32名（31.7%），口唇裂７名（6.9%），口蓋裂６名（5.9%），軟口蓋裂５名（5.0%），顎裂３名（3.0%），口蓋垂裂１名（1.0%）であった（図３－①）．また，披裂部の側性については唇顎口蓋裂，唇顎裂，口唇裂，顎裂のいずれも左側に高い割合でみられた（図３－②）．裂型別性差については，唇顎裂，口唇裂および軟口蓋裂では男性に多く認められ，唇顎口蓋裂，口蓋裂，顎裂，口蓋垂裂は女性に多く認められた．

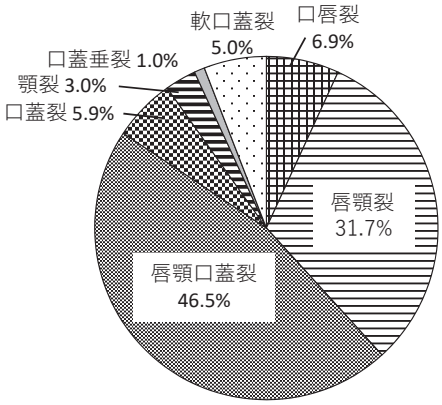

図３－①　裂型分類別分布

３．顎裂部位の検討

１）顎裂部位別の発現数

顎裂部位別の発現者数は，顎裂保有者82名（94顎裂）のうち，１▼３の型が46顎と最も多く，次いで１▼23の型の27顎，12▼３の型の11顎であった．また，１▼23と１▼３の型を併せた数は全体の約80%を占めた（図４）．また，その他として，過１▼23，１過過▼23，１▼６，▼23の型がみられた．

２）裂型別顎裂部位の発現頻度

唇顎口蓋裂患者においては１▼３の型が過半数を占め，唇顎裂患者においては１▼23の型が多かった．特に両側性唇顎口蓋裂患者においては１▼３の型が65%を占めており，次いで１▼23の型が多かった（図５）．また，両側性の裂型において左右の顎裂部位を比較した場合，左右同型を示すものは両側性唇顎口蓋裂患者で60%，両側性唇顎裂患者では100%を占めていた（図６）．

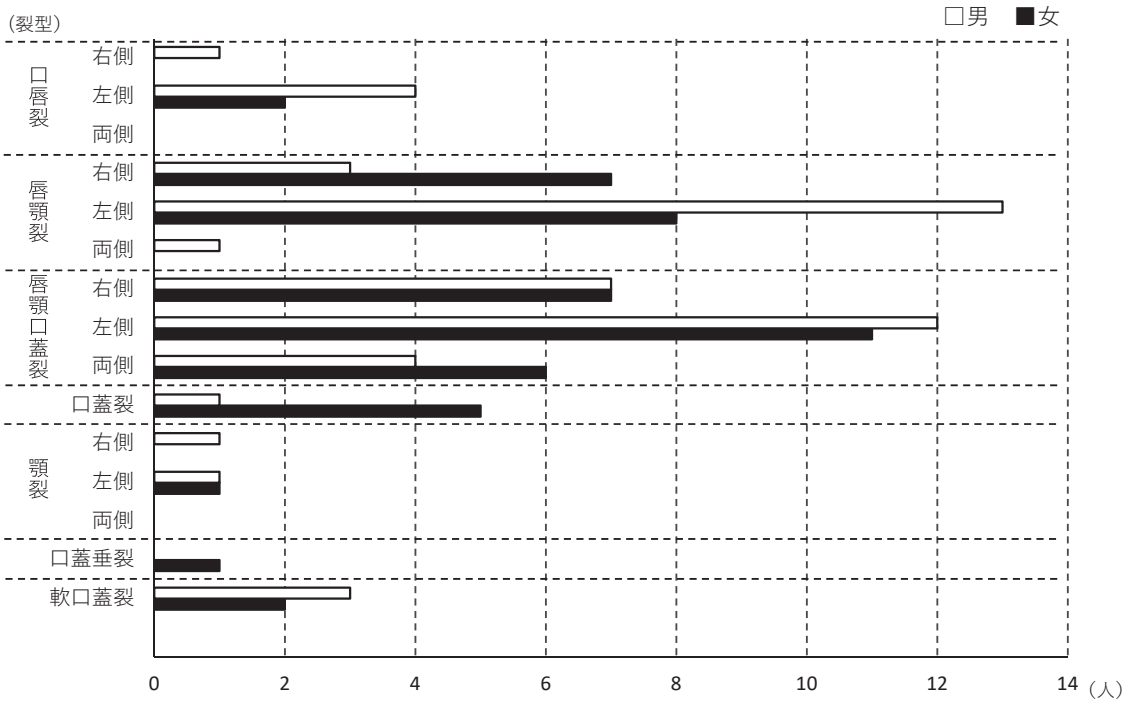

図３－②　裂型分類別分布

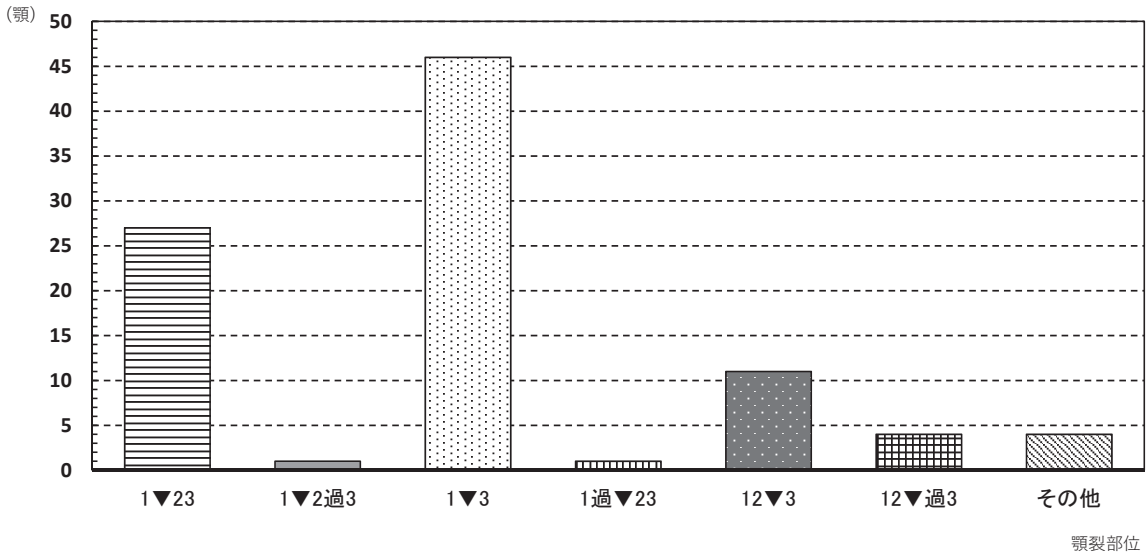

図４　顎裂部位別の発現数

４．裂型別・顎裂部位別歯数異常の発現頻度

口唇裂・口蓋裂患者における永久歯の歯数異常発現頻度は，63.4％（64例）であり，そのうち永久歯の欠如のみが50.5％（51例）と最も多かった．また過剰歯のみを有するものは8.9％（９例），歯の欠如と過剰歯をともに有するものは4.0％（４例）であった．唇顎口蓋裂患者のみを対象としても欠如のみが最も多かったが，唇顎裂患者では歯数異常なしが最も多く認められた（表１）．また顎裂部位別では，１▼３の型で欠如歯が最も多く（側切歯が欠如している顎裂であるため，欠如歯率は100％），次いで１▼23の型（欠如歯率：25.9％）であった．過剰歯は，１▼23の型（過剰歯率：14.8％）で最も多く認められた（表２）．

５．欠如歯の歯種別発現頻度

すべての口唇裂・口蓋裂患者を対象とすると，全欠如歯数は118本であった．歯種別欠如歯数は側切歯が61本（51.7％）と最も多く，次いで第二小臼歯で46本（39.0％）であった．また，上下顎別では下顎において第二小臼歯の欠如が最も多く認められた．裂型別調査結果

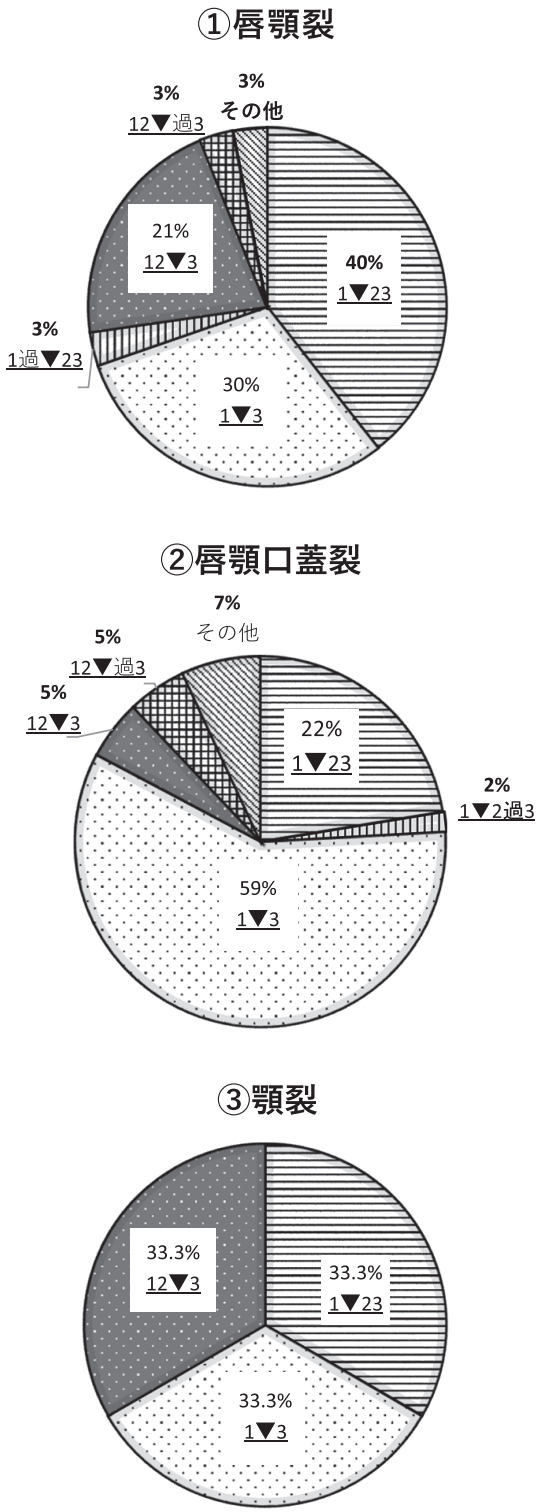

図５　裂型ごとの顎裂部位別発現分布

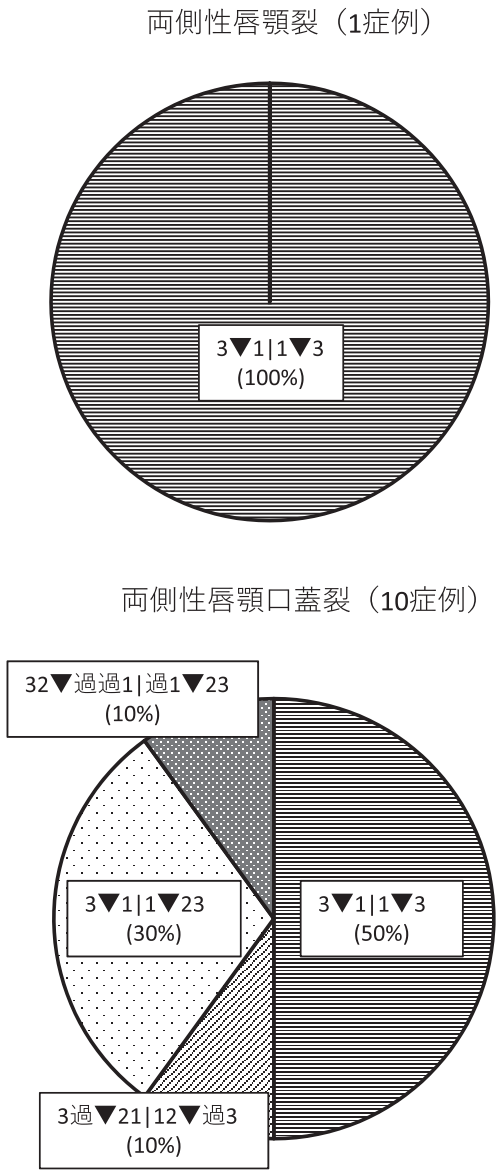

図６　両側性の顎裂部位別発現分布

については唇顎裂患者，唇顎口蓋裂患者とも側切歯の欠如が最も多く認められた（図７）．

６．披裂・非披裂側別欠如歯の発現症例数

顎裂保有者（82例）を対象とすると，披裂側の歯種別欠如歯で最も多いのは唇顎口蓋裂患者の側切歯で29例，次いで唇顎口蓋裂患者の第二小臼歯で13例であった．ま

表１　裂型別歯数異常の発現頻度

歯数異常＼裂型	口唇裂	唇顎裂	唇顎口蓋裂	口蓋裂	顎裂	その他	計
欠如のみ	1	13	32	2	1	2	51（50.5%）
過剰歯のみ	2	4	3	0	0	0	9（ 8.9%）
欠如と過剰歯	0	0	4	0	0	0	4（ 4.0%）
歯数異常なし	4	15	8	4	2	4	37（36.6%）

症例数（%）

表２　顎裂部位別歯数異常の発現数

顎裂部位 / 歯数異常	１▼23	１▼２過３	１▼３	１過▼23	12▼３	12▼過３	その他
欠如のみ	7	0	43	0	4	0	2
過剰歯のみ	4	1	0	1	0	2	0
欠如と過剰歯	0	0	2	0	0	2	2
歯数異常なし	14	0	0	0	10	0	0

（症例数）

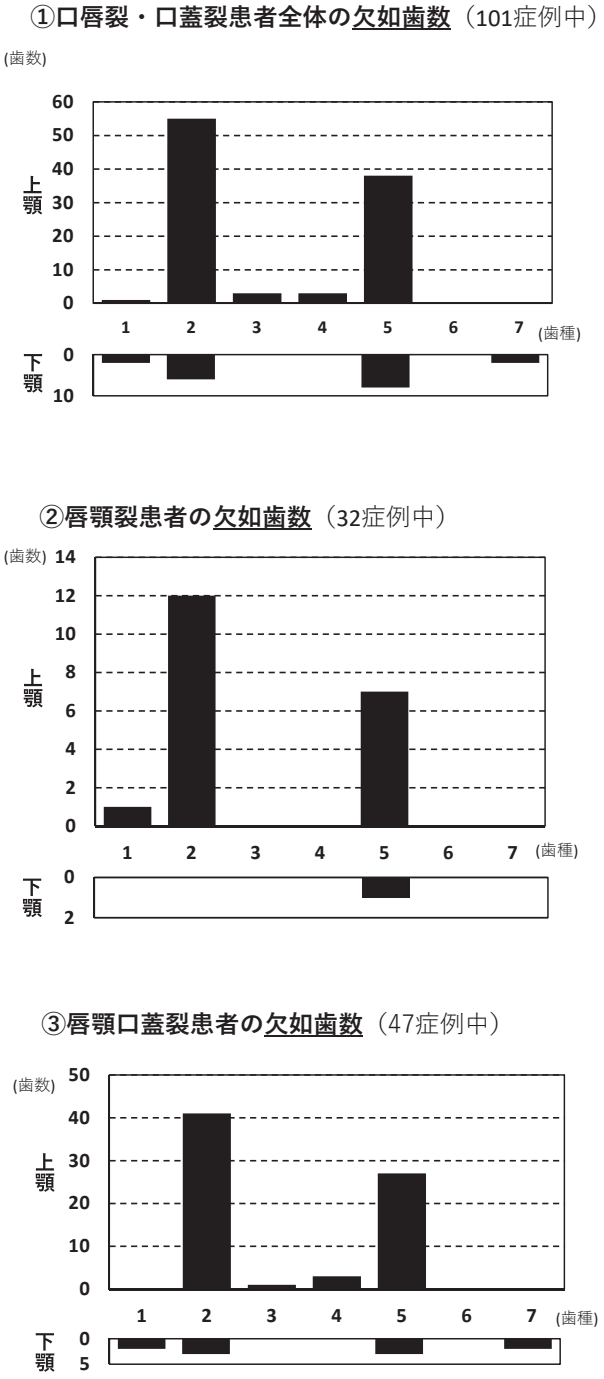

図７　欠如歯の種類別発現頻度

た，非披裂側の欠如歯は唇顎口蓋裂患者の側切歯で８例，次いで第二小臼歯で７例であった．なお，歯の欠如の発現症例数は披裂側で47例（57.3%）非披裂側で15例（18.3%）であった（表３）．

考　　察

徳島大学病院矯正歯科における口唇裂・口蓋裂患者の永久歯の歯数異常に関する検討を行うにあたり，その実態を明らかにする目的で，本調査を実施した．

１．調査対象患者の構成

我が国の口唇裂・口蓋裂患者の発生率における男女比は男性の方がわずかに多いとされている[11]．また他大学の報告からも男女比に関しては男性が女性をわずかに上回る報告が多い[4,5,8,9]．一方，本調査での男女比はほぼ同数であった．また出生年度別患者数においても，その因果関係は不明であった．

２．裂型別分類

裂型別分類の発現頻度について，全国産科医療機関を対象とした宮崎ら[11]の調査では，唇顎口蓋裂が48.9%，唇顎裂が29.8%であったと報告している．一方，歯科医療機関を対象とした松尾ら[2]や大矢ら[3]の報告では，唇顎口蓋裂が約65%，唇顎裂が約15%であり，稲森ら[4]，渡邊ら[5]，角野ら[6]の報告では唇顎口蓋裂が約50%，唇顎裂が約20%と報告している．これに対し，本調査結果は，唇顎口蓋裂が46.5%，唇顎裂が31.7%であり，宮崎ら[11]の報告と近似した結果を示した．本調査では永久歯の歯数異常を歯胚の時期から確認するため，５～６歳時の資料が完備している患者を調査対象とした．したがって，本調査結果は歯科医療機関における調査よりはむしろ産科医療機関における調査結果に近似したと推察された．また，被裂部の側性については他の報告[2-7,11]と同様に，左側が多く認められた．

３．顎裂部位の検討

過去の報告[2,3,7]と同様，本調査においても調査対象者の顎裂部位は中切歯と犬歯の間に位置しており，犬歯より後方に顎裂を認める者は１名も存在しなかった．また，松尾ら[2]の報告では両側性，片側性を問わず１▼23の型が最多であったが，今回の調査では大矢ら[3]と同様に側

表３　被裂・非被裂側別欠如歯の発現症例数

裂型	欠如歯種	中切歯	側切歯	犬歯	第一小臼歯	第二小臼歯	第一大臼歯	第二大臼歯	欠如歯の発現症例数	
披裂側	唇顎裂（32症例中）	1	9	0	0	4	0	0	12（37.5%）	
	唇顎口蓋裂（47症例中）	0	29	1	2	13	0	0	34（72.3%）	47（57.3%）
	顎裂（３症例中）	0	1	0	0	0	0	0	1（33.3%）	
非披裂側	唇顎裂（32症例中）	0	3	0	0	3	0	0	4（12.5%）	
	唇顎口蓋裂（47症例中）	0	8	0	1	7	0	0	11（23.4%）	15（18.3%）
	顎裂（３症例中）	0	0	0	0	0	0	0	0（０%）	

症例数　重複有

切歯が欠如する1▼3の型が最も多かった．しかし，1▼23と1▼3はいずれも中切歯の遠心に顎裂が存在しており，本調査において顎裂部位を中切歯の遠心部と定義した場合の発現頻度は約80%となり，松尾ら[2]，大矢ら[3]の報告とほぼ一致するものであった．顎裂・唇顎裂・唇顎口蓋裂と癒合不全が拡大するにつれ，欠如歯を有する1▼3の型の割合の増加が認められることより，顔面突起の癒合不全の程度との関連性が疑われた．なお，他の報告[2,3]では見られなかった1▼6の型に関しては，明確な症候性疾患の診断はなされてはいないものの，エナメル質減形成などが認められたことより，さらに詳細な検討が必要と考えられた．

４．裂型別・顎裂部位別歯数異常について

口唇裂・口蓋裂患者の永久歯（智歯を除く）を対象とする欠如歯の発現頻度について，松尾ら[2]は65.9%，大矢ら[3]は62.9%，和田ら[7]は53.9%と報告している．われわれの調査結果では，永久歯欠如が54.5%であり，和田ら[7]の報告と類似した結果であった．これは，調査対象患者の裂型分類において，唇顎口蓋裂の割合が少なかったために，歯の欠如が少ない結果となったと考えられる．なお当院における健常者の歯数異常（欠如歯）発現頻度は8.0%であった[12]ことから，口唇裂・口蓋裂患者は健常者と比較して著しく欠如歯の発現頻度が高いといえる．

また，本調査結果として口唇裂・口蓋裂患者の過剰歯の発現頻度は8.9%，過剰歯と欠如歯の双方を有するものは4.0%であったのに対し，中川ら[13]は健常者の過剰歯の発現頻度は2.8%，過剰歯と欠如歯の双方を有するものは0.2%と報告しており，口唇裂・口蓋裂患者は健常者と比較して，欠如歯だけでなく過剰歯も含めた歯数異常の発現頻度が高いと考えられている．口蓋裂の発生に関する関連遺伝子として知られている *Msx1* の変異が，永久歯の先天欠如に関する原因遺伝子のひとつであるように[14]口蓋裂の発生と永久歯の歯数異常との間には共通した遺伝的要因が存在している可能性が示唆された．

５．欠如歯の歯種別発現頻度

口唇裂・口蓋裂患者を対象とする欠如歯の上下顎別発現頻度について，松尾ら[2]は，上顎のみに欠如歯を認める者は61.2%，下顎のみに認める者は5.9%，上下顎に認める者は3.5%，歯数異常なしの者が29.4%であったとし，大矢ら[3]は上顎のみに欠如歯を認める者が62.1%，下顎のみに認める者は1.7%，上下顎に認める者は8.6%，歯数異常なしの者が27.6%であったと報告している．今回われわれの調査結果では，上顎のみに欠如歯を認める者が43.6%，下顎のみに認める者が2.9%，上下顎に認める者は7.9%，歯数異常なしの者が45.6%であった．

また口唇裂・口蓋裂患者の永久歯（智歯を除く）を対象とする欠如歯の歯種別発現頻度について，大矢ら[3]は上顎側切歯が60.3%，次いで上顎第二小臼歯が23.0%，下顎第二小臼歯は6.2%と報告し，角野ら[6]は上顎側切歯が50.3%，上顎第二小臼歯が24.5%，下顎第二小臼歯が7.0%であったとしている．一方，今回のわれわれの調査結果では，上顎側切歯が41.0%，上顎第二小臼歯が35.2%，下顎第二小臼歯が7.6%の発現頻度で欠如しており，過去の報告と比較して，本調査における欠如歯の発現頻度は低く，さらに欠如歯は裂部から離れた上顎第二小臼歯に多いという結果が得られた．これは，本調査の対象が他の報告と比較し，唇顎口蓋裂の割合が低く，逆に唇顎裂・口唇裂の占める割合が高く，即ち，裂範囲が小さく，裂奇形としては比較的軽度な患者の占める割合が高かったためと考えられた．

６．披裂・非披裂側別欠如歯の発現症例数

健常者の欠如歯の左右別発現頻度は，当院での過去の報告[12]において，左側・右側ともきわめて近い値となり，またその欠如歯の発現頻度が8.0%と報告されているのに対し，今回，非被裂側で18.3%と高い発現率を示した．このことより，口唇裂・口蓋裂患者の歯の先天性欠如は

癒合不全部に歯胚が形成されないというだけでなく，systemic dysplasia とも関連すると推測された[15]．

結　　語

今回，徳島大学病院矯正歯科における口唇裂口蓋裂患者の永久歯の歯数異常の実態を明らかにする目的で，本調査を行い，以下の結果を得た．

1．調査資料が揃っている患者101名の男女比は，1：1.02であった．その裂型は，唇顎口蓋裂が46.5%，唇顎裂が31.7%，口唇裂が6.9%，口蓋裂が5.9%であった．

2．顎裂保有者82名の顎裂部位は，1▼3の型が最も多く，次いで1▼23の型であった．

3．永久歯における歯数異常の発現率は63.4%であり，歯の欠如のみを有するものが50.5%，過剰歯のみを有するものは8.9%，歯の欠如と過剰歯をともに有するものは4.0%であった．また，歯の欠如の歯種別頻度は，側切歯が最も多く，次いで第二小臼歯の順であった．

4．顎裂保有者のみを対象とすると，歯の欠如の発現頻度は披裂側で59.8%，非披裂側で24.3%であった．

口唇裂・口蓋裂患者における歯数異常，とりわけ先天欠如歯に関してはより詳細な検討が必要であり，また治療計画立案時においては，矯正歯科治療のみならず，形成外科・耳鼻科・口腔外科・補綴歯科等の複数の診療科にまたがる包括的治療の必要性が示唆された．

文　　献

1）平原史樹：先天異常モニタリング わが国と世界の取り組み，日産婦誌 59: 246-250，2007.

2）松尾ゆき子，真柳秀昭，阿部里美，他：唇顎口蓋裂における乳歯および永久歯歯胚の数の異常に関する研究，小児歯誌 25: 367-377, 1987.

3）大矢卓志，冨井恭子，山田尋士，他：口唇裂口蓋裂を有する矯正患者の歯の異常―大阪歯科大学附属病院矯正歯科における5年間の統計的観察―，第1報顎裂部位と歯数異常の発現頻度，日口蓋誌 20: 220-234, 1995.

4）稲森康二郎，野嶋邦彦，西井　康，他：東京歯科大学千葉病院矯正歯科における10年間の口唇裂・口蓋裂者の臨床統計的検討：第1報 受診動向と咬合状態，歯科学報 107: 183-189, 2007.

5）渡邉洋平，森田修一，高橋功次朗，他：口唇裂口蓋裂患者における裂型別永久歯先天性欠如の調査，Orthod Waves-Jpn Ed 70: 32-39, 2011.

6）角野晃大，梶井貴史，松野美乃，他：北海道大学病院矯正歯科における口唇裂・口蓋裂患者の臨床統計的調査―1997年から2006年の10年間―，日口蓋誌 33: 304-314, 2008.

7）和田康弘，大塚純正，柴崎好伸：口唇・口蓋裂患者における永久歯の歯数の異常―昭和大学歯科病院歯科矯正科における10年間の統計―，昭歯誌 22: 165-174, 2002.

8）伊東正志，岡田欣也，大庭知子，他：口唇口蓋裂患者に関する実態調査―徳島大学病院歯学部附属病院における過去10年間について―，日口蓋誌 21: 55-64, 1996.

9）西真寿美，高橋　巧，森山啓司，他：徳島大学病院矯正歯科における過去12年間の口唇裂・口蓋裂患者に関する実態調査―第2報―，日口蓋誌 32: 317-325, 2007.

10）永田久美子，木内奈央，中村竜也，他：過去25年間に徳島大学病院矯正歯科に来院した口唇裂・口蓋裂患者の臨床統計学的調査，中・四矯歯誌 23: 61-67, 2011.

11）宮崎　正，小浜源郁，手島貞一，他：我が国における口唇裂口蓋裂の発生率について，日口蓋誌 10: 191-195, 1985.

12）湯浅一浩，谷村一朗，山本真由，他：永久歯の先天性欠如と顎骨の形態との関連性に関する研究，中・四国矯歯誌 14: 125-131, 2002.

13）中川麻里，森田修一，八巻正樹，他：矯正患者にみられた歯数異常について―1993年から2006年までの臨床統計調査―，甲北信越矯誌 16: 40-43, 2008.

14）Mitsui, S.N., Yasue, A., Masuda, K., *et al.*: Novel human mutation and CRISPR/Cas genome-edited mice reveal the importance of C-terminal domain of MSX1 in tooth and plate development, Sci Rep 6: 38398, 2016.

15）窪田道男，清水良一，下村隆史，他：口唇裂・口蓋裂患者の歯数不足と裂型および裂部位との関連性についての研究，日口蓋誌 13: 114-119, 1998.