

愛知・岐阜・三重県で1989年に出生した日本人56,712名中の口唇・口蓋裂発生頻度に関する研究

(分担研究：先天異常のモニタリングと対策に関する研究)

夏目長門, 鈴木俊夫, 河合 幹

要約 1989年1月1日より12月31日の間に出生した日本人56,712名中の口唇・口蓋裂発現率について調査を行った。その結果, 83名(0.146%)に口唇・口蓋裂が認められ, 口唇・口蓋裂発現率は1.46/1000であった。裂型分類では口唇裂36.1%, 口唇・口蓋裂36.1%, 口蓋裂27.8%であった。

見出し語: 口唇裂, 口蓋裂, 発現率

研究目的: 口唇, 口蓋裂については, 多くの研究がなされてきた。しかし, その発現のメカニズムについては不明な点が多い。最近では, 多因子遺伝にて発現すると裏付けるいくつかの報告がある。我々はそのような観点にたち, 1981年より本学の所在する愛知県における出産施設ベースでの調査を行っている。本編では1989年に出生した愛知, 岐阜, 三重の3県における口唇, 口蓋裂発生率を知る目的で調査を行ったので報告する。

研究方法: 愛知, 岐阜, 三重の3県下に所在するすべての出産施設に調査依頼を行い, 協力の得られた774施設のうち334施設を調査対象施設とした。調査対象者は, 56,712名であり, これは同時期の愛知, 岐阜, 三重県の全出生数110,448名の51.3%である。

下記の項目について記載を依頼した。

1. 施設における総出生数
2. 口唇, 口蓋裂児の有無
 - a. 裂型, b. 性別, c. 出生日, d. 他の合併症の有無, 内容
3. 施設所在地

結果: 愛知県の総出生数56.0%の232施設40,091名, 岐阜県の総出生数43.6%の61施設, 8,989名, 三重県の総出生数42.4%の41施設, 7,704名において調査した。本調査では愛知県は40,091名中に58名, 岐阜県は8,989名中に12名, 三重県は7,704名中に13名の口唇, 口蓋裂児が認められた。その結果, 本症の出現率は愛知県0.145%(1:691.2), 岐阜県0.133%(1:749.1), 三重県0.169%(1:592.6)であった。この数値をもとに調査対象年の本症患者の総出生数を推定すると95%信頼限界内において愛知県105.2~105.5名, 岐阜県28.0~28.1名, 三重県35.4~35.5名の本症患者が出生していたと推定された。

裂型分類についてみると愛知県では口唇裂19名(32.8%), 口唇, 口蓋裂23名(39.7%), 口蓋裂16名(27.6%), 岐阜県では口唇裂6名(50.0%), 口唇・口蓋裂2名(16.7%), 口蓋裂4名(33.3%), 三重県では, 口唇裂5名(38.5%), 口唇, 口蓋裂5名(38.5%), 口蓋裂3名(23.1%)であった。

* 愛知学院大学歯学部第二口腔外科

考察 本研究は1981年より本学の所在する愛知県において愛知県産婦人科医会、並びに助産婦会の協力を得て調査を開始し、1984年からは科学技術用コンピューター日立E-7300を導入して解析プログラムを開発してデータベース化をはかっている。本プログラムには1989年までの545名の登録を行った。本研究のこれまでの1982-1989年の愛知県の総調査対象数を表5に示した。本データベースに登録された1982-1989年の総調査対象数は323,468名で、本症患者は483名であったので本症発現率は0.149%であった(表6)。さらに、このデータベースをもとに愛知県の本症患者の総出生数の推定をした(表7)。裂型分類については、1981-1988年の545名についてみると表8の如く、男性では口唇裂118名、口唇、口蓋裂156名、口蓋裂42名であった。女性では口唇裂67名、口唇、口蓋裂96名、口蓋裂66名であった。

口唇・口蓋裂の疫学調査の発現率については、1か所、あるいは数か所程度の出産施設における調査結果が長年用いられてきた。しかし、本症発現の一般集団中の真の値を得ようとした場合、一定期間において可及的に多くの出産施設において調査をしなければならない。そのような観点に立って最近ではモニタリングシステムとして多数のマーカー-奇型の1つとして口唇裂、口蓋裂といった大分類による集計が行われる傾向にある。しかしながらこの方式では詳細な分類は明らかにできないばかりか、環境要因、母体要因等の追求は不可能で、こういったデータベースからは、本症発現のメカニズムと関連因子の追求は困難である。

一方、口腔外科では、口唇、口蓋裂の専門家が詳細な調査用紙を作製して、母体要因等も含めた調査が可能であるが、病院により患者の受診に差があり、この方法からは一般集団中の真の発現率は推定できない。

我々の施設においては、データベースにおいて疫学解析を行う場合、病院統計による誤差を最少にするためPrimary caseのみを基本資料とするようにしているが、この方法をとったところで前述のことを防ぎ得ない。このため、我々は、本症発現率、季節変動については愛知県に所在する出産施設のものを、また環境要因等を含めた詳細な調査は方式を統一して、本学ならび約20の関連施設で行っているが、本研究結果はそのサンプリングの状態を見るコントロールとしても使用したいと考えている。

最後に、本症発現率については本調査を継続していき本症の真の値に近づけたいと考えている。また、その変動については種々の要因もあり注意深く観察していかなければならないと考えている。

文 献

- 1) Natsume, N., Suzuki, T., and Kawai, T.: Clinical analysis of cleft patterns of lip and palate, *Cong. Anom.*, 24: 74-82, 1984.
- 2) Natsume, N., Suzuki, T., Kawai, T.: The prevalence of cleft lip and palate in the Japanese. *Brit. J. Oral. Maxillofac. Surg.*, 26: 232-236, 1988

Abstract

Incidence of cleft lip and/or palate among Japanese babies in Aichi, Gifu, Mie prefecture during 1989.

Nagato Natsume*, Toshio Suzuki*, Tsuyoshi Kawai*

To determine the incidence of cleft lip and/or palate (CL/P) among the Japanese, infants born between Jan. 1, 1989, and Dec. 31, 1989 were investigated. Eighty-three infants (0.146%) were found to have the abnormalities; approximately 1.46/1000 live birth. Of these infants the number CL, CLP, and CP were 30 (26.1%), 30 (36.1%), and 23 (27.8%), respectively.

表1 調査対象者（愛知・岐阜・三重）
(1989)

| | 調査対象者 | 総出生児数 |
|----|-----------------|----------|
| 愛知 | 40,091名 (56.0%) | 71,651名 |
| 岐阜 | 8,989名 (43.6%) | 20,614名 |
| 三重 | 7,704名 (42.4%) | 18,183名 |
| 合計 | 56,784名 (51.4%) | 110,448名 |

表2 本症患者出現頻度（愛知・岐阜・三重）
(1989)

| | 本症患者 | 調査対象者 | % | 出現頻度 |
|----|------|---------|--------|---------|
| 愛知 | 58名 | 40,091名 | 0.145% | 1:691.2 |
| 岐阜 | 12名 | 8,989名 | 0.133% | 1:749.1 |
| 三重 | 13名 | 7,704名 | 0.169% | 1:592.6 |
| 合計 | 83名 | 56,784名 | 0.146% | 1:684.1 |

表3 本症患者の総出生数の推定（愛知・岐阜・三重）
(1989)

| | | |
|----|----------------|-------------|
| 愛知 | 105.2 ~ 105.5名 | (95% C. L.) |
| 岐阜 | 28.0 ~ 28.1名 | (95% C. L.) |
| 三重 | 35.4 ~ 35.5名 | (95% C. L.) |

表4 裂型分類（愛知・岐阜・三重）
(1989)

| | 口唇裂 | 口唇・口蓋裂 | 口蓋裂 | 合計 |
|----|-----|--------|-----|----|
| 男 | 15 | 21 | 9 | 45 |
| 女 | 15 | 9 | 14 | 38 |
| 合計 | 30 | 30 | 23 | 83 |

表5 調査対象者（愛知県）

| | 調査対象者 | 愛知県の総出生児数 | |
|-------|----------|-----------|-------|
| 1982年 | 40,304名 | 82,001名 | 49.1% |
| 1983年 | 39,696名 | 83,925名 | 47.3% |
| 1984年 | 41,529名 | 83,304名 | 49.9% |
| 1985年 | 43,821名 | 80,686名 | 54.3% |
| 1986年 | 42,375名 | 77,435名 | 55.2% |
| 1987年 | 42,107名 | 77,734名 | 54.2% |
| 1988年 | 33,545名 | 75,286名 | 44.6% |
| 1989年 | 40,091名 | 71,651名 | 56.0% |
| 合計 | 323,468名 | 632,022名 | 51.3% |

表6 本症患者出現頻度（愛知県）

| | 本症患者 | 調査対象者 | % | 出現頻度 |
|-------|------|----------|--------|---------|
| 1982年 | 83名 | 40,304名 | 0.206% | 1:485.6 |
| 1983年 | 65名 | 39,696名 | 0.163% | 1:610.7 |
| 1984年 | 52名 | 41,529名 | 0.125% | 1:798.6 |
| 1985年 | 64名 | 43,821名 | 0.146% | 1:684.7 |
| 1986年 | 60名 | 42,375名 | 0.142% | 1:706.3 |
| 1987年 | 61名 | 42,107名 | 0.145% | 1:690.3 |
| 1988年 | 40名 | 33,545名 | 0.119% | 1:838.6 |
| 1989年 | 58名 | 40,091名 | 0.145% | 1:691.2 |
| 合計 | 483名 | 323,468名 | 0.149% | 1:688.3 |

表7 愛知県における本症患者の総出生数の推定

| | | |
|-------|----------------|-------------|
| 1982年 | 168.6 ~ 169.2名 | (95% C. L.) |
| 1983年 | 136.5 ~ 137.1名 | (95% C. L.) |
| 1984年 | 103.9 ~ 104.7名 | (95% C. L.) |
| 1985年 | 117.5 ~ 118.1名 | (95% C. L.) |
| 1986年 | 109.8 ~ 110.1名 | (95% C. L.) |
| 1987年 | 112.6 ~ 112.9名 | (95% C. L.) |
| 1988年 | 89.4 ~ 89.7名 | (95% C. L.) |
| 1989年 | 105.2 ~ 105.5名 | (95% C. L.) |

表8 裂型分類（愛知県）

| | 口唇裂 | 口唇・口蓋裂 | 口蓋裂 | 計 |
|----|---------------|---------------|---------------|--------------|
| 男 | 118名 37.3% | 156名 49.4% | 42名 13.3% | 316名 100% |
| 女 | 67名 29.3% | 96名 41.9% | 66名 28.8% | 229名 100% |
| 合計 | 185名 34.0% | 252名 46.2% | 108名 19.8% | 545名 100% |



検索用テキスト OCR(光学的文字認識)ソフト使用

論文の一部ですが、認識率の関係で誤字が含まれる場合があります



要約 1989年1月1日より12月31日の間に出生した日本人56,712名中の口唇・口蓋裂発現率について調査を行った。その結果,83名(0.146%)に口唇・口蓋裂が認められ,口唇・口蓋裂発現率は1.46/1000であった。裂型分類では口唇裂36.1%,口唇・口蓋裂36.1%,口蓋裂27.8%であった。