平成３年度厚生省心身障害研究
「地域・家庭環境の小児に対する影響等に関する研究」

愛知・岐阜・三重県で1990年に出生した日本人60,372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：1990年１月１日より12月31日の間に出生した日本人60,372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、79名(0.131％）に口唇・口蓋裂が認められ、口唇・口蓋裂発現率は1.31／1000であった。裂型分類では口唇裂45.6％、口唇・口蓋裂39.2％、口蓋裂15.2％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1990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 765施設のうち 386施設を調査対象施設とした。調査対象者は、60,372名であり、これは同時期の愛知・岐阜・三重県の全出生数109,155名の55.3％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．出生月、d．出生時体重、e．他の合併症の有無、内容
3. 施設所在地

＊　愛知学院大学歯学部第二口腔外科
(The Second Depertment of Oral Maxillofacial Surgery School of Dentistry, Aichi-Gakuin Univ.)

結果：愛知県の総出生数の48.0％、34,034名（226施設）、岐阜県の総出生数の70.1％、14,280名（95施設）、三重県の総出生数の63.7％、12,058名（65％）について調査した。本調査では愛知県は34,034名中に44名、岐阜県は14,280名中に18名、三重県は12,058名中に17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 0.129％（１：773.5）、岐阜県 0.126％（１：793.0）、三重県 0.141％（１：709)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91.4～91.7名、岐阜県26.0～26.1名、三重県25.2～25.3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21名（47.7％）、口唇・口蓋裂18名（40.9％）、口蓋裂５名（11.4％）、岐阜県では口唇裂７名（38.9％）、口唇・口蓋裂７名（38.9％）、口蓋裂４名（22.2％）、三重県では口唇裂８名（47.1％）、口唇・口蓋裂６名（35.3％）、口蓋裂３名（17.6％）であった。

本調査も愛知県においては10年目を迎え、患者数も愛知・岐阜・三重の３県を合わせると 600名を迎えたため、今回、出生時体重を裂タイプ別に集計した。体重の明らかな 501名について集計したところ口唇裂2990.5g(±568.4)、口唇・口蓋裂2951.2g(±657.4)、口蓋裂3064.8g(±576.3)、男女別では男3028.6g(±597.9)女2935.9g(±597.9)であった。

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－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1990年までの 624名の登録を行った。本データベースに登録された1982～1990年の総調査対象数は 383,840名で本症患者は 562名であったので、本症発現率は 0.146％であった。

裂型分類については1981～1990年の 589名についてみると表８のごとく男性では口唇裂 129名、口唇・口蓋裂 167名、口蓋裂44名であった。女性では口唇裂77名、口唇・口蓋裂 103名、口蓋裂69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ヵ所あるいは数ヵ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、一般集団における本症発現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形の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、こういったデーターベースからは、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、データー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。

参考文献：

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., and Kawai, T. : The prevalence of cleft lip and platein the Japanese. Brit. J. Oral. Maxillofoc. Surg., 26 : 232-236, 1988

Abstract

Incidence of cleft lip and/or palate among Japanese babies in Aichi, Gifu, Mie prefecture during 1990.

Nagato Natsume, Toshio Suzuki, Tsuyoshi Kawai

To determine the incidence or cleft lip and/or palate (CL/P)among the Japanase, infants born between Jan.1,1990, and Dec.31, 1990 were investigated. Eighty-three infants (0.131％)were found to have the abnormalities;approximately 1. 31/1000 live birth. Of these infants the number CL, CLP, and CP were 36(45.6％),31(39.2 ％),and 12(15.2％), respectively.

表1　調査対象者（愛知・岐阜・三重）

（1990）

	調　査　対　象　者	総出生児数
愛　知	34,034名（48.0%）	70,942名
岐　阜	14,280名（70.1%）	20,295名
三　重	12,058名（67.3%）	17,918名
計	60,372名（55.3%）	109,155名

表2　調査対象者（愛知・岐阜・三重）

（1990）

	本症患者	調査対象者	%	出現頻度
愛　知	44名	34,034名	0.129 %	1 : 773.5
岐　阜	18名	14,280名	0.126 %	1 : 793.3
三　重	17名	12,058名	0.141 %	1 : 709.3
計	79名	60,372名	0.131 %	1 : 764.2

表3　本症患者の総出生数の推定（愛知・岐阜・三重）

（1990）

愛　知	91.4～91.7名	（95%　C. L.）
岐　阜	24.0～26.1名	（95%　C. L.）
三　重	25.2～25.3名	（95%　C. L.）

表4　裂型分類（愛知・岐阜・三重）

（1990）　　単位：名

	口唇裂	口唇・口蓋裂	口蓋裂	合　計
男	19	21	6	46
女	17	10	6	33
合　計	36	31	12	79

表5　裂型・性別平均体重（愛知・岐阜・三重）

（g）

	口唇裂	口唇・口蓋裂	口蓋裂	合計
男	3,077.1 （±535.1）	2,975.2 （±686.5）	3,071.6 （±563.0）	3,028.6 （±597.9）
女	2,857.1 （±592.0）	2,907.3 （±598.2）	3,060.5 （±584.5）	2,935.9 （±597.9）
合計	2,990.5 （±568.4）	2,951.2 （±657.4）	3,064.8 （±576.3）	2,989.5 （±610.4）

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
1990年	44 名	34,034 名	0.129 %	1 : 773.5
合計	527 名	357,502 名	0.147 %	1 : 678.4

表7　裂型分類（愛知県）（1981～1990）

	口唇裂	口唇・口蓋裂	口蓋裂	計
男	129 名 37.9%	167 名 49.1%	44 名 13.0%	340 名 100 %
女	77 名 30.9%	103 名 41.4%	69 名 27.7%	249 名 100 %
合計	206 名 35.6%	270 名 45.8%	113 名 19.2%	589 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:1990年1月1日より12月31日の間に出生した日本人60,372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、79名(0.131%)に口唇・口蓋裂が認められ、口唇・口蓋裂発現率は1.31/1000であった。裂型分類では口唇裂45.6%、口唇・口蓋裂39.2%、口蓋裂15.2%であった