

Epidemiologic Research on Malformations Associated with Cleft Lip and Cleft Palate in Japan

古賀, 寛史

<https://doi.org/10.15017/1931999>

出版情報 : 九州大学, 2017, 博士 (医学), 論文博士
バージョン :
権利関係 : CC BY 4.0

氏 名： 古賀 寛史

論 文 名： Epidemiologic Research on Malformations Associated with Cleft Lip and Cleft Palate in Japan

(日本国内における口唇裂口蓋裂患者の合併奇形に関する疫学調査)

区 分： 乙

論 文 内 容 の 要 旨

背景：これまで日本国内における口唇裂口蓋裂の疫学調査は新生児集中治療室 Neonatal intensive care unit (NICU) 以外の施設群を対象に行われてきた。

目的：口唇裂口蓋裂患者の合併奇形に関して、NICU とそれ以外の施設群を対象とした調査間で合併奇形の頻度を比較し、どちらがより精度の高い調査結果が得られるかを検証する。

方法：大分県内で 2004 年から 2013 年の 10 年間に発生した口唇口蓋裂 Cleft lip and palate (CLP) と口蓋裂 Cleft palate (CP) の計 92 例を対象として、県内の NICU5 施設群を対象とした地域調査を行った。日本国内の口腔外科、形成外科、産婦人科施設群で 2000 年以降に報告された口唇裂 Cleft lip (CL)、CLP、CP の計 16,452 例を対象とした全国調査を行った。この 2 つの調査間で口唇裂口蓋裂の発生頻度および合併奇形の頻度と詳細を比較した。

結果：NICU 施設群を対象とした大分県内の地域調査では 10,000 出生あたり CLP6.3、CP2.9 の発生頻度であった。NICU 以外の施設群を対象とした全国調査では 10,000 出生あたり CL 4.2、CLP 6.2、CP 2.8 であり、2 つの調査間で CLP と CP の発生頻度は同等であった。一方、地域調査と口腔外科および形成外科施設群を対象とした全国調査で合併奇形の頻度を比較すると、何らかの合併奇形 41.3% vs. 19.8%、先天性心疾患 21.7% vs. 6.8%、染色体異常 16.3% vs. 0.5% であり、NICU 施設群を対象とした調査の方が奇形の合併頻度が有意に高く、国際的な疫学調査と同等の結果であった。産科施設群を対象とした全国調査と比較した場合も同様であった。

結論：NICU 施設群とそれ以外の施設群を対象とした調査間で CLP および CP の発生頻度に差はなかったが、十分な精査が行われる NICU 施設群を対象とした調査の方が口唇裂口蓋裂の合併奇形に関して正確なデータが得られる。