

口唇裂・口蓋裂の診療ガイドライン 2022
Practical Guidelines for Cleft Lip and Cleft Palate 2022

一般社団法人 日本口蓋裂学会
General Incorporated Association Japanese Cleft Palate Association

目次

序文

ガイドライン作成にあたって

I. 診療ガイドラインの策定の経緯と概要

1. 本診療ガイドライン策定の経緯と位置付け
2. 目標
3. 利用者
4. 対象者
5. 策定組織
6. 更新の計画
7. 臨床医の意見の反映

II. 口唇裂・口蓋裂のクリニカル・クエスション (CQ) の調査

III. クリニカル・クエスション (CQ) に対する診療ガイドラインの作成手順

1. 本ガイドラインのレビューと決定の手順
2. CQ の選定とその後の策定経緯
3. 利益相反
4. エビデンスの収集
5. 推奨度決定のプロセスと基準

IV. クリニカル・クエスション (CQ)

1. 形成外科

CQ1 口唇外鼻形態に関して早期手術は待機手術よりも長期的結果が優れているか？

CQ2 言語成績に関して、口蓋裂の早期手術は晚期手術よりも優れているか？

CQ3 口蓋瘻孔の発生頻度、口蓋裂術式により、影響を受けるか？

2. 矯正歯科

CQ1 口唇裂・口蓋裂による上顎劣成長（反対咬合）症例において上顎前方牽引装置の使用は、同装置を使用しないよりも顎間関係の改善を期待できるか？

CQ2 初回口唇形成術前のNAM治療は、非施行症例よりも口唇鼻形態を改善に有効か？

CQ3 上顎劣成長を認める症例に対して、上顎骨延長は一期的な上顎前方移動術よりも上顎骨の前方移動に有効か？

CQ4 顎裂骨移植術の施行は施行しないよりも上顎前歯部の排列に有効か？

3. 口腔外科

CQ1 唇顎（口蓋）裂患者の初回口唇形成時に、咬合形成のために歯肉骨膜形成術は推奨できるか？

CQ2 顎裂部二次骨移植において、永久前歯萌出時期の手術施行は、永久犬歯萌出時期の施行よりも、効果があるか？

CQ3 口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能に、上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術よりも効果があるか？

4. 補綴歯科

- CQ1 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、支台歯の1次固定によるブリッジは、2次固定の可撤性義歯よりも有効か？
- CQ2 口唇裂・口蓋裂の顎裂付近の転位した矮小歯に対して、根面キャップはサブマージドルートよりも有効か？
- CQ3 口唇裂・口蓋裂患者の固定性ブリッジによる補綴治療において、外科治療による欠損部顎堤の回復処置は（行わないよりも）有効か？
- CQ4 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、顎裂部へのシングルインプラントの適用は、残存歯の固定性ブリッジよりも有効か？
- CQ5 口唇裂・口蓋裂患者の多数歯欠損の補綴治療において、インプラント義歯の適用は、他の可撤性義歯よりも有効か？

5. 音声言語

- CQ1 口蓋裂術後の発語の改善において、blowing訓練は、実施しないより有効か？
- CQ2 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの親に対して、乳幼児期から言語聴覚士が言語発達を促す助言指導を行うと、行わないより子どもの言語発達が促進されるか？
- CQ3 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの家族に対して診断直後からカウンセリングを行うと、行わないより家族の負担は軽減されるのか？

序 文

日本口蓋裂学会診療ガイドライン

『口唇裂・口蓋裂診療ガイドライン』発刊にあたって

一般社団法人 日本口蓋裂学会
理事長 槙 宏太郎

口唇裂・口蓋裂は、最も発生頻度の高い先天性疾患のひとつです。形成外科医や口腔外科医による口唇裂と口蓋裂の手術は、患者の数だけバリエーションがあるとされ、さらに術者の数だけ術式があるとまで言われます。さらに、顎顔面の成長発育に関しても患者個々によって大きく異なり、口蓋形成術による口蓋瘢痕組織の影響などによって、かなり複雑な咬合異常を呈します。

口唇裂・口蓋裂の手術史を紐解くと、単に裂を開鎖する術式から、言語機能や顎発育を考慮した術式へと変遷が成され、矯正歯科領域においても初回手術の前に鼻形態や顎骨へアプローチする術前顎矯正治療が考案されました。このような現状を支える基盤には、新しい治療概念の導入、新しい治療技術の開発、および術式の精巧化等が挙げられます。

口蓋裂に伴う問題は哺乳、摂食、言語、聴力、顎発育、容貌、遺伝、合併障害等、多岐にわたり、出生時から成人するまで各ステージに併せた長期的な治療が必要となります。加えてこれらの問題は、二次的に患者や家族の心理的問題を引き起こす原因となります。従って、口唇裂・口蓋裂の治療は、形成外科、口腔外科等の単独の分野で全ての問題を解決することは不可能であり、言語聴覚士、心理士、および医療福祉ソーシャルワーカー等のパラメディカルを含んだチーム医療へと治療体制も変遷してきました。

このような変遷をたどってきた口唇裂・口蓋裂診療のガイドライン作成に当たり、「治療に対する科学的根拠（EBM）」は非常に重要な要素ではあります。しかし、他の疾患と比較すると様々な要因によって交絡バイアスが高くなるため、エビデンスが乏しいことは否めません。一方で、豊富な臨床経験に基づくこれまでの蓄積された経験もまた重要です。したがって、EBMで考慮すべき要素である「エビデンス」、「患者の病状と周囲を取り巻く環境」、「患者の意向と行動」、「医療者の臨床経験」の4つのバランスを医療者が考慮する必要があります。

今回、口唇裂・口蓋裂診療を専門とする他分野が一堂に会した極めて専門性の高い学会としてガイドラインを作成することができました。このガイドラインと患者周囲の環境、患者側の価値観、そして臨床経験による知見を考慮することで、複雑なバリエーションを持った患者への治療の一助となることを期待しております。

最後に、本ガイドラインの編集に尽力いただいた、ガイドライン作成委員会 高橋 哲委員長、委員各位、理事の皆様に深く感謝の意を表し、本書が学会員ならびに医療関係者に広く活用され、口唇裂・口蓋裂診療に貢献できることを切に願います。

ガイドライン作成にあたって

口唇裂・口蓋裂は顔面・上顎・口腔内の先天異常であり、生ずる問題は多岐にわたっており、出生直後から大人になるまであるいはそれ以降まで治療が長期にわたるため一人の専門家が全ての治療を行うのは不可能である。したがってその治療は形成外科、言語聴覚士、口腔外科、矯正歯科、小児歯科、耳鼻咽喉科などを中心とした多職種の専門家が関わるチーム医療が必須であることは論を俟たない。その一方で患者の通院環境や、医療体制の問題などにより、チームアプローチも様々な形態になることが予想される。口唇裂・口蓋裂に関する診療ガイドラインについては、これまで日本形成外科学会、日本口腔外科学会から出されているが、他職種の専門家が関わるチーム医療であるがゆえに、それぞれの専門他職種の学際的な学会である本学会において診療ガイドラインを作成することが求められていた。本学会では 2012 年 7 月に初めて診療ガイドライン作成委員会が開催された。診療ガイドラインの作成においては、まず形成外科、口腔外科、矯正歯科、小児歯科、耳鼻咽喉科、音声言語の 6 つのワーキンググループ(WG)が組織されそれぞれの WG において CQ を作成し、さらに委員会の全体会議において CQ の整合性はかり、その後それぞれの CQ についてのシステムティックレビューを行い、推奨を検討した。分野によってはエビデンスが十分でないところもあり、小児歯科においては今回ガイドラインの作成を見送った。また耳鼻咽喉科においても、日本耳鼻咽喉科頭頸部外科学会でのガイドラインがあり、そちらに包括されるために見送った。したがって最終的には形成外科、口腔外科、矯正歯科、補綴歯科、音声言語の 5 つの分野における診療ガイドラインの作成となった。2020 年の本学会においてガイドラインのシンポジウムを開催し、その後 2021 年に会員からのパブリックコメントを募集し、最終案の決定となった。委員会発足から 10 年の長きを経てようやく日本口蓋裂学会の診療ガイドラインが完成したことになる。口唇裂・口蓋裂の治療は従来よりそれぞれの分野のエキスパート等の技術と経験に基づく診療が主であり、エビデンスレベルに基づく推奨度は低くならざるを得なかった。しかし口唇裂・口蓋裂の診断と治療を主導する本学会が診療ガイドラインを出す意義は極めて高く、より質の高い、患者のための医療への第一歩であると考えている。今後さらなるエビデンスの蓄積により、口唇裂・口蓋裂の診療ガイドラインがさらに充実していることを切に願う。

2022 年 10 月

日本口蓋裂学会診療ガイドライン作成委員会委員長
高橋 哲

診療ガイドライン作成手順

1. WG の選定

2. クリニカルクエスチョン (CQ) のリストアップ[◦]

対面会議における自由討論にて、本疾患診療の現状および問題点を討議した。その後診療ガイドライン作成委員会 WG から CQ の候補を集め、診療ガイドライン作成委員会で重複などを整理し、再度会議において検討を重ね、○○の CQ を候補とした。

3. 論文の検索

それぞれの CQ に対して論文検索を行うと共に、各担当 WG で回答となるステートメントを作成した。

論文検索は、日本医学図書館協会に依頼して行った。遡求検索年代は 1980～20XX 年、対象データベースは PubMed, Cochrane Review, 医学中央雑誌、英文・和文で、対象は Human, 0～XX 歳とした。

4. ステートメントの改定

それぞれ WG において最低 2 度の対面会議、診療ガイドライン作成委員会による 2 度の対面会議、およびメール会議において、それぞれ担当分野のステートメントを改定すると共に、後述の分類法(表)によりエビデンスレベルを決定した。

5. コンセンサスレベルの決定

全作成委員に対して、CQ、ステートメント、関連論文とそのエビデンスレベル、担当者グループによる説明文を配布し、さらにエキスパートから意見を求めた上で協議を重ね、全作成委員のコンセンサスで決定した。

6. 推奨度の決定

上記によって定められたコンセンサスレベルと論文のエビデンスレベルに基づき、後述の表 によって各ステートメントの推奨度が決定された。

7. 解説文の作成

各ステートメントに付記する解説文についても、WG によって作成され、委員全員のメール会議によって了承された。

8. 外部評価（パブリックコメントの募集）

2021 年 10 月 1 日から 2021 年 12 月 31 日まで本学会ホームページ上で作成されたガイドライン原案を公開し、広く学会会員に意見を求めた。

9. 学会での承認

本ガイドラインは、日本口蓋裂学会理事会（2022 年 12 月 18 日）において承認を受けた。

I. 診療ガイドラインの概要

1. 本診療ガイドライン策定の経緯と位置付け

近年の人口構成および疾病構造の急速な変化、人権および医療を選ぶ権利の明確化への社会への説明責任として、根拠に基づく医療の必要性・質の向上が求められ、各学会で診療ガイドラインの作成が行われている。日本口蓋裂学会でも2012年に任命された診療ガイドライン委員会で、矯正歯科、形成外科、口腔外科、耳鼻咽喉科、補綴歯科、音声言語、小児歯科の7つのワーキンググループ(WG)を起ち上げ、口唇裂口蓋裂の診療ガイドライン策定に取り組んできた。

しかし先天性形態異常の口唇裂口蓋裂には、医科、歯科、音声言語等の多領域における集学的アプローチが必要なため、各分野の特性に応じた診療ガイドラインの検討、分野間の調整を要する。また診療ガイドラインは通常、一般臨床医が対象だが、口唇裂口蓋裂の診療には専門医が従事することが多い等の特殊性により、各WGでCQの選定、診療ガイドラインの策定、WG間での擦り合わせに苦慮した。

診療ガイドライン委員会ではまず高戸毅委員長の下、臨床上の疑問となるCQを調査し、2014年に日本口蓋裂学会第23回大会でパネルディスカッションを開催した。

その後、高橋哲委員長に変わり、各WGでCQの絞り込み、文献検索の外部委託等を進め、6つのWGで計20題のCQ、診療ガイドラインを策定し、2021年の第45回大会のシンポジウムにて公表した。

さらに2021年10月1日から2021年12月31日まで本学会ホームページ上で作成されたガイドライン原案を公開し、広く学会会員に意見を求め、2022年の理事会に本診療ガイドラインの最終案を提出し、了承された。

「歯科診療ガイドライン」は Evidence Based Medicine (科学的根拠に基づく医療：EBM) による診療ガイドラインであり、一般の歯科診療に従事する歯科医師が特定の臨床状況のもとで行う、歯科疾患の予防および治療の適切な選択、意思決定を支援するものである²⁾。したがって手技の解説や保険診療の指針等とは異なり、また担当医師の裁量を規制する趣旨のものでもない。

診療ガイドラインの策定法は従来より種々の方法があるが、現在 GRADE (Grading of Recommendations Assessment, Development and Evaluation) と呼ばれるグループの考案したシステム²⁾に準拠して、エビデンスの評価と推奨度を決定するのが主流となっており、日本医療評価機構の医療情報サービス MINDS (Medical Information Network Distribution Service) および日本歯科医学会においても GRADE システムを推奨している。本方法では医師の専門性・経験・技能と、患者因子、エビデンスの質の3つの要素を加味し、エビデンスの質、利益・不利益のバランス、価値観・好み、コスト・資源利用の4つの主要因子を総合的に判断して推奨度が決定される。

ただし、口唇裂口蓋裂診療の特殊性とエビデンス不足であることから、GRADE システムを参照しな

がら本学会の特色、独自性を生かした評価法等を取り入れた。

口唇裂口蓋裂の診療を進める際には、処置を必要とする原因と問題点を分析するとともに、患者自身の補綴歯科診療に対する要望、価値観、身体社会的条件、精神医学的条件など口腔の形態と機能だけでなく全人的な因子を把握することがきわめて重要である。これを怠ると、たとえ適切な診療を行おうとも、十分な患者の満足を望めないことをまず銘記すべきである。この多様性が口唇裂口蓋裂診療の特殊性であり、難解なものにしている大きな要因と考えられる。

本診療ガイドラインは、上述の背景を理解した上で、日本歯科医学会の指針である「歯科診療ガイドラインのあり方について（歯科診療所における歯科保健医療の標準化のあり方等に関する検討会報告書、2018）」に準じた診療ガイドラインである。

現時点では本ガイドライン策定に患者の参加を求めるのは、時期尚早と考えられる。エビデンス不足のCQについては、当口蓋裂学会のみならず医科・歯科関連分野全体が、研究テーマとして取り組むべき課題と言えよう。エビデンスが十分でない現状での医療者の臨床態度としては、常に自らの医療行為の成果を評価・検証する姿勢を堅持し、あわせて独善に陥らないような自らに対する厳しさが求められる。

このように本ガイドラインの作成に際しては、客觀性を保持することに努めたものの、すべての内容について保障するものではない。今後CQの追加、推奨度の修正、推奨度の内容に対する利用者の意見、提案を受け入れる体制の整備など多くの改編作業が継続的に行われていかなければならぬ。

2. 目標

診療ガイドラインとは一般的に「特定の臨床状況において、適切な判断を行うために、医療者と患者を支援する目的で系統的に作成された文書」とされる。本ガイドラインの目標は口唇裂口蓋裂症例の、出生時より成人に至るまでの診療における臨床決断を支援する推奨を、エビデンスに基づいて系統的に示すことにより、口唇裂口蓋裂診療の質を向上させるツールとして機能させ、さらにわが国における口唇裂口蓋裂診療のレベルアップを図り、信頼性を高めることにある。

また診療ガイドラインの意義を学会員のみならず、一般臨床医にも広く周知し、さらに国民、社会に対する説明責任を果たすことも目標となる。

3. 利用者

本ガイドラインは、口唇裂口蓋裂の診療にかかわるすべての医師、歯科医師、医療従事者が、それ

ぞれの診療状況において診察、検査、診断（治療方法選択）をめぐる臨床決断を行うあらゆる局面で活用されることを想定して策定された。ただし、この推奨は担当する医師、歯科医師、医療従事者の専門性、医療施設の設備、環境によって異なるため、どの施設、どの症例にも適用できるわけではない。また、本ガイドラインで示す推奨は、患者の臨床的特徴、診療施設の状況、医療者の特性などを度外視して、個々のケースに画一的な適用を求めるものではない。本ガイドラインを参照した上で、患者の意見を十分に聞き、最適な診療方法を決定することが望ましい。

4. 対象者

本ガイドラインの対象は、あらゆる診療施設または在宅において発生しうる、出生時より成人に至るまでのすべての口唇裂口蓋裂症例とする。

5. 策定組織

本ガイドラインは日本口蓋裂学会で任命された診療ガイドライン作成委員会と、委員会より任命された担当委員により作成された。

各専門分野より矯正歯科、形成外科、口腔外科、耳鼻咽喉科、補綴歯科、音声言語、小児歯科の7つのワーキンググループ(WG)を起ち上げ、2名ずつの委員を決め、関連する専門医、施設にクリニカルクエスチョン(CQ)の選定、診療ガイドラインの策定を依頼した。

構成は下記の通りである。

一般社団法人 日本口蓋裂学会

理事長 槙 宏太郎

作成委員

委員長：高橋 哲(東北大学)、高戸 育 (前委員長、JR 東京病院)

委 員： 形成外科 WG: 土佐 泰祥 (慶應義塾大学), 杠俊介 (信州大学)

矯正歯科 WG: 末石 研二(東京歯科大学), 須田 直人(明海大学)

口腔外科 WG: 高木 律男(新潟大学), 中村 典史(鹿児島大学)

耳鼻咽喉科 WG: 新美 成二 (国際医療福祉大学), 小林 一女(昭和大学)

補綴歯科 WG: 秀島 雅之(東京医科歯科大学), 尾澤 昌悟(愛知学院大学)

音声言語 WG: 鈴木 恵子(北里大学), 井上 直子 (大阪母子保健センター)

小児歯科 WG: 落合 聰(おちあい小児歯科医院), 船津 敬弘(昭和大学)

幹事：西條 英人(東京大学)

診療 WG 名簿

WG 分野	委員長・副委員長	メンバー
形成外科	委員長：土佐泰祥（慶應義塾大学医学部形成外科学） 副委員長：杠俊介（信州大学医学部形成再建外科学）	玉田一敬（地方独立行政法人東京都立病院機構 東京都立小児総合医療センター），今井啓道（東北大学大学院医学系研究科形成外科学分野），朴修三（静岡済生会総合病院 形成外科），河合勝也（京都桂病院形成外科），時岡一幸（埼玉医科大学形成外科・美容外科），加持秀明（静岡県立こども病院 頭蓋顔面・口蓋裂センター 形成外科），赤松正（東海大学医学部外科学系形成外科学），中嶋優太（信州大学形成再建外科），大慈弥裕之（北里大学医学部形成外科・美容外科学）
矯正歯科	委員長：末石 研二(東京歯科大学歯科矯正学講座) 2020 年まで 須田直人（明海大学歯科矯正学分野） 2021 年より 副委員長：須田直人（明海大学歯科矯正学分野） 2020 年まで	朝日藤寿一（あさひとう矯正&こども歯科クリニック），石井武展（東京歯科大学歯科矯正学講座），小川卓也（東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科 頸顎面矯正学分野），金野吉晃（元 岩手医科大学歯科矯正学分野），佐藤嘉晃（北海道大学大学院歯学研究院口腔機能学分野歯科矯正学教室），谷本幸太郎（広島大学大学院医系科学研究科歯科矯正学），平川崇（ひらかわ矯正歯科），藤本舞（明海大学歯科矯正学分野），宮崎春代（東京歯科大学歯科矯正学講座），森下格（天神矯正歯科クリニック福岡），山本（佐藤）友紀（昭和大学歯科矯正学講座・日本矯正歯科研究所附属デンタルクリニック）
口腔外科	委員長：高木律男（新潟大学大学院医歯学総合研究科 頸顎面口腔外科学分野） 副委員長：中村典史（鹿児島大学大学院医歯学総合研究科口腔顎面外科学分野）	飯野光喜（山形大学医学部歯科口腔・形成外科学講座），西條英人（東京大学大学院医学系研究科外科学専攻感覚・運動機能医学講座口腔顎面外科学），代田達夫（昭和大学歯学部口腔外科学講座顎顎面口腔外

		科学部門), 西原一秀(沖縄赤十字病院歯科口腔外科), 三古谷 忠(北海道大学病院高次口腔医療センター)
補綴歯科	委員長: 谷口 尚(東京医科歯科大学大学院 頸顎面補綴学) 尾澤昌悟(愛知学院大学 有床義歯学) 副委員長: 秀島雅之(東京医科歯科大 快眠歯科外来)	乙丸貴史(東京医科歯科大学大学院 頸顎面補綴学), 金崎彩子(東京医科歯科大学大学院 頸顎面補綴学), 松井桂子(東北大学大学院頸顎面・口腔外科学分野), 高橋 哲(東北大学大学院頸顎面・口腔外科学), 代田達夫(昭和大学頸顎面口腔外科学), 檜上 敦(佐賀大学歯科口腔外科学), 山下佳雄(佐賀大学歯科口腔外科学)
音声言語	委員長: 鈴木恵子(北里大学) 副委員長: 井上直子(大阪母子医療センター)	今井智子(北海道医療大学), 緒方祐子(倉重こどもクリニック), 鈴木 藍(静岡県立こども病院), 武井良子(昭和大学歯科病院), 竹内真理子(京都大学医学部附属病院), 藤原百合(大阪保健医療大学)

6. 更新の計画

本ガイドラインは5年毎を目途に、担当委員会(あるいは部会)で調整、改訂を行う予定である。
ガイドラインの部分的更新が必要となった場合は、適宜、学会ホームページに掲載する。

7. 臨床医の意見の反映

本ガイドラインの作成において、II, IIIに記述するように幅広い会員、臨床医からの意見収集に努めた。

本ガイドラインは全会員に配布予定である。また、本ガイドラインは、誰もがアクセス可能なホームページからダウンロードできるようにし、あわせて本ガイドラインに対する意見を同じホームページ上からくみ上げができるようになる予定である。

本ガイドライン出版後の意見収集や臨床医への広報を目的として、MINDS((財)日本医療機能評価機構医療情報サービスセンター)への掲載も予定している。

II. 口唇裂・口蓋裂の診療に対するクリニカル・クエスチョンの調査

口唇裂・口蓋裂のクリニカル・クエスチョン(CQ: 臨床的疑問)の選定においては、各WGとその

関連施設にアンケート調査等の実施を依頼した。

CQは症例(Patient ; ~に対して), 介入(Intervention ; ~は), 対象(Comparison ; ~よりも), 結果(Outcome ; 有効か?)の PICO の書式に準じ, 記載例を呈示して複数の回答の記入を依頼した。以下に補綴歯科のCQのアンケート調査(表1)を示す。

- ・口唇裂・口蓋裂の補綴治療に対し、どのような疑問をお持ちでしょうか？以下の書式で3個以上、5個以内ご記入下さい。

どんな症例(患者:P)に どんな検査・治療に	～は(介入:I)	～よりも (対象:C)	効果があるか? 有効か(アウトカム:
1)片側性口唇裂口蓋裂の1歯欠損の 補綴治療において	顎裂を挟む2歯を支台歯と する固定性ブリッジは	1歯支台歯の固定 性ブリッジよりも	有効か？
2)口唇裂口蓋裂の固定性ブリッジによる 補綴治療において 3)口唇裂口蓋裂のインプラントによる 補綴治療において	外科、歯科矯正治療にて交叉 咬合の被蓋を修正する処置は 顎裂部へのシングルインプラ ントは	(行わないよりも) 顎裂を挟む固定 性ブリッジよりも	有効か？ 有効か？
①			
②			
③			
④			
⑤		.	

補綴歯科で回収したCQ41題を内容別に分類すると、補綴装置と設計、外科処置の導入、インプラント、その他の4グループに大別され、以下の8題の代表的なCQが選定された。今回、その中からCQ1, 4, 5, 6, 7の5題について、補綴WGより関連施設に依頼し、診療ガイドラインを策定した。

【補綴装置と設計】

1. 口唇裂・口蓋裂の補綴治療において、支台歯の1次固定によるブリッジは、2次固定の可撤性義歯よりも有効か？
2. 口唇裂・口蓋裂の固定性ブリッジによる補綴治療において、水平・垂直的な被蓋付与は、反対・切端咬合のまま修復するよりも有効か？
3. 口唇裂・口蓋裂の残遺孔のある症例において、プランパーを併用した固定性ブリッジは、可撤性有床義歯よりも有効か？

【外科処置の導入】

4. 口唇裂・口蓋裂の顎裂付近の転位した矮小歯に対して、根面キャップはサブマージドルートよりも有効か？

5. 口唇裂・口蓋裂の固定性ブリッジによる補綴治療において、外科治療による欠損部顎堤の回復処置は（行わないよりも）有効か？

【インプラント】

6. 口唇裂・口蓋裂の補綴治療において、顎裂部へのシングルレインプラントの適用は、残存歯の固定性ブリッジよりも有効か？

7. 口唇裂・口蓋裂の多数歯欠損の補綴治療において、インプラント義歯の適用は、他の可撤性義歯よりも有効か？

【その他】

8. 口唇裂・口蓋裂の鼻咽腔閉鎖機能不全症例において、スピーチエイドの装着は外科手術等の他の処置よりも有効か？

以上の経過より、各WGでCQ全20題を選定した。なお小児歯科WGのCQについては、再検討を要したため除外した。

1) 形成外科

CQ1 口唇外鼻形態に関して早期手術は待機手術よりも長期的結果が優れているか？

CQ2 言語成績に関して、口蓋裂の早期手術は晚期手術よりも優れているか？

CQ3 口蓋瘻孔の発生頻度は、口蓋裂術式により、影響を受けるか？

2) 矯正歯科

CQ1 口唇裂・口蓋裂による上顎劣成長（反対咬合）症例において上顎前方牽引装置の使用は、同装置を使用しないよりも顎間関係の改善を期待できるか？

CQ2 初回口唇形成術前のNAM治療は、非施行症例よりも口唇鼻形態を改善に有効か？

CQ3 上顎劣成長を認める症例に対して、上顎骨延長は一期的な上顎前方移動術よりも上顎骨の前方移動に有効か？

CQ4 顎裂骨移植術の施行は施行しないよりも上顎前歯部の排列に有効か？

3) 口腔外科

CQ1 脣顎（口蓋）裂患者の初回口唇形成時に、咬合形成のために歯肉骨膜形成術は推奨できるか？

CQ2 顎裂部二次骨移植において、永久前歯萌出時期の手術施行は、永久犬歯萌出時期の施行よりも、効果があるか？

CQ3 口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能に、上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術よりも効果があるか？

4) 耳鼻咽喉科

CQ1 口蓋裂の滲出性中耳炎の診断にティンパノメトリーは有効か？

CQ2 鼓膜換気チューブ留置術はどの様な症例に適応となるか？

5) 補綴歯科

- CQ1 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、支台歯の1次固定によるブリッジは、2次固定の可撤性義歯よりも有効か？
- CQ2 口唇裂・口蓋裂の顎裂付近の転位した矮小歯に対して、根面キャップはサブマージドルートよりも有効か？
- CQ3 口唇裂・口蓋裂患者の固定性ブリッジによる補綴治療において、外科治療による欠損部顎堤の回復処置は（行わないよりも）有効か？
- CQ4 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、顎裂部へのシングルインプラントの適用は、残存歯の固定性ブリッジよりも有効か？
- CQ5 口唇裂・口蓋裂患者の多数歯欠損の補綴治療において、インプラント義歯の適用は、他の可撤性義歯よりも有効か？

6) 音声言語

- CQ1 口蓋裂術後の発語の改善において、blowing訓練は、実施しないより有効か？
- CQ2 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの親に対して、乳幼児期から言語聴覚士が言語発達を促す助言指導を行うと、行わない子どもの言語発達が促進されるか？
- CQ3 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの家族に対して診断直後からカウンセリングを行うと、行わないより家族の負担は軽減されるのか？

III. クリニカル・クエスション(CQ)に対する診療ガイドラインの作成手順

1. 本ガイドラインのレビューと決定の手順

本ガイドラインを公開する前に、MINDS 診療ガイドライン作成の手引き 2018 年版に準拠して記載し、レビューを行った。

本ガイドラインは、第 23 回日本口蓋裂学会学術大会のパネルディスカッション、第 45 回大会のシンポジウムにて公表し、会員からの意見聴取と集約を行い、適宜その結果を反映させた。最終的に、2021 年 10 月 1 日から 2021 年 12 月 31 日まで本学会ホームページ上で作成されたガイドライン原案を公開し、広く学会会員に意見を求めた後、日本口蓋裂学会理事会の議を経て決定した。

2. CQ の選定とその後の策定経緯

本ガイドラインでは各 WG の CQ を前述の手続きに従い、その回答を作成した。なお、耳鼻咽喉科の CQ2 題は検討を要するため、以下の 18 題について記載する。

1. 形成外科
CQ1 口唇外鼻形態に関して早期手術は待機手術よりも長期的結果が優れているか？
CQ2 言語成績に関して、口蓋裂の早期手術は晚期手術よりも優れているか？
CQ3 口蓋瘻孔の発生頻度、口蓋裂術式により、影響を受けるか？

2. 矯正歯科
CQ1 口唇裂・口蓋裂による上顎劣成長（反対咬合）症例において上顎前方牽引装置の使用は、同装置を使用しないよりも顎間関係の改善を期待できるか？
CQ2 初回口唇形成術の NAM 治療は、非施行症例よりも口唇鼻形態の改善に有効か？
CQ3 上顎劣成長を認める症例に対して、上顎骨延長は一期的な上顎前方移動術よりも上顎骨の前方移動に有効か？
CQ4 顎裂骨移植の施行は施行しないよりも上顎前歯部の排列に有効か？
3. 口腔外科
CQ1 唇顎（口蓋）裂患者の初回口唇形成時に、咬合形成のために歯肉骨膜形成術は推奨できるか？
CQ2 顎裂部二次骨移植において、永久前歯萌出時期の手術施行は、永久犬歯萌出時期の施行よりも、効果があるか？
CQ3 口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能に、上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術よりも効果があるか？
4. 補綴歯科
CQ1 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、支台歯の1次固定に夜ブリッジは、2次固定の可撤式義歯よりも有効か？
CQ2 口唇裂・口蓋裂患者の顎裂付近の転位した矮小歯に対して、根面キャップはサブマージドルートよりも有効か？
CQ3 口唇裂・口蓋裂患者の固定性ブリッジによる補綴治療において、外科治療による欠損部顎堤の回復処置は（行わないよりも）有効か？
CQ4 口唇裂・口蓋裂患者の補綴治療において、顎裂部へのシングルインプラントの適用は、残存歯の固定性ブリッジよりも有効か？
CQ5 口唇裂・口蓋裂患者の多数歯欠損の補綴治療において、インプラント義歯の適用は、他の可撤式義歯よりも有効か？
5. 音声言語
CQ1 口蓋裂術後の発語の改善において、blowing 訓練は、実施しないより有効か？
CQ2 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの親に対して、乳幼児期から言語聴覚士が言語発達を促す助言指導を行うと、行わない子どもの言語発達が促進されるか？
CQ3 口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの家族に対して診断直後からカウンセリングを行うと、行わないより家族の負担は軽減されるのか？

表 CQ (クリニカルクエスチョン) 18 題とその策定経緯

3. 利益相反

本ガイドラインは日本口蓋裂学会の運営費によって策定された。日本口蓋裂学会は一部の団体・企業から広告費、研究費等の支援を受けてはいるが、本ガイドラインの作成には特定の団体、企業の資金は用いられていない。

策定者が関連特定材料の開発などに関与していた場合は、関連部の策定担当からは除外した。

4. エビデンスの収集

文献検索は MEDLINE、医中誌 Web (Ver. 4)、Cochrane Oral Health Group Trials Register、Cochrane Central Register of Controlled Trials (CENTRAL)、EMBASE、UMIN 臨床試験登録システム、UMIN Clinical Trials Registry (UMIN-CTR) 等を利用し、検索原則として 2022 年 3 月までにデータベースで検索可能であった文献を検索した。採択はランダム化比較試験 (RCT)、コホート研究、症例対照研究、横断研究、観察研究、症例報告を検索するとともに、その引用文献をハンドサーチした。

検索期間：

原則として 2022 年 3 月までにデータベースで検索可能であった文献を検索した。

採択基準：

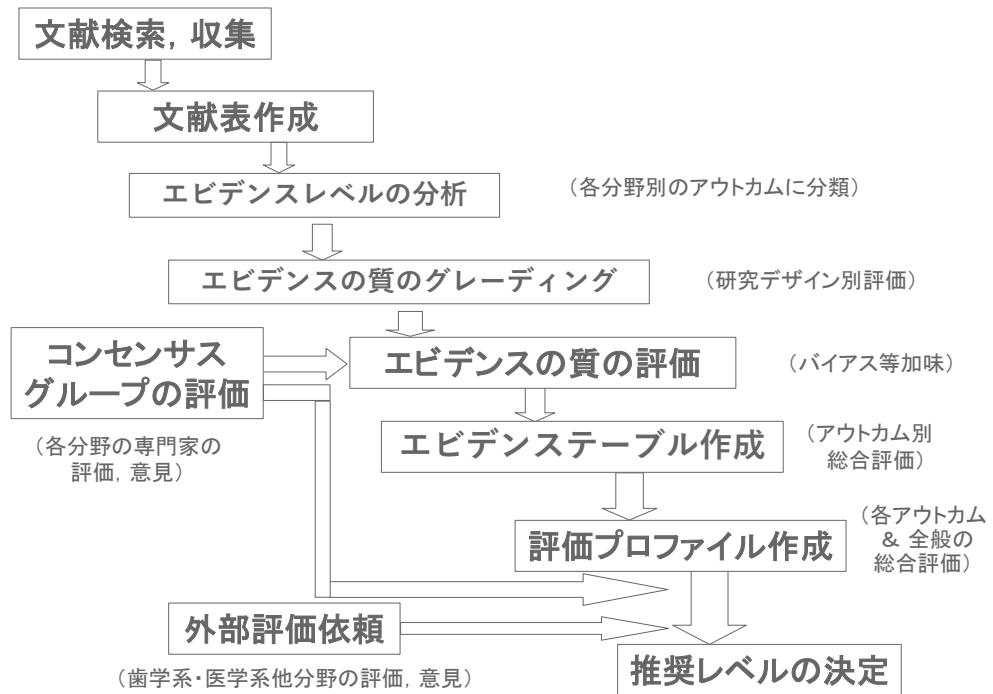
ランダム化比較試験 (RCT)、コホート研究、症例対照研究、横断研究、観察研究、症例報告を検索するとともに、その引用文献をハンドサーチした。また、妥当な総説論文を、日本語の商業誌を含めてチェックし、引用文献のハンドサーチを行った。言語は日本語、英語について検索した。

検索にあたっては、検索式、もしくはキーワード等検索項目の内容と結果を記録した（別冊資料参照）。

5. 推奨度決定のプロセスと基準

推奨度の明示は診療ガイドラインの最も重要な役割となるが、本ガイドラインでは GRADE システムを参考とし、補綴歯科診療の特殊性を勘案して、以下のようなプロセスで推奨度を決定した。

推奨度決定のプロセス



研究デザインからみたエビデンスレベル

エビデンスレベル	研究デザイン
A (高い)	ランダム化比較試験, システマティックレビュー
B (低い)	観察研究
C (非常に低い)	症例報告, ケーススタディ

エビデンスの質

エビデンスの質	その意味
H (高い)	推定効果の変更はほとんどない
M (中)	推定効果の変更の可能性はあるかもしれない
L (低い)	推定効果の変更の可能性はある
VL (非常に低い)	推定効果は非常に不確か

5. コンセンサスマетод

口唇裂・口蓋裂の臨床的な特殊性から、各 CQ に対するガイドラインに十分なエビデンスの質が担保されない、もしくは意見が拮抗する場合は、エキスパートのコンセンサスによる推奨度と意見を付記した。本来は関連する専門家からなるコンセンサスグループを選定し、アンケート調査を行い、その結果を開示、フィードバックし、複数回の調査で傾向とコンセンサスを得るデルファイ法を適用するのがよいが、今回は行わなかった。

全作成委員に対して CQ、ステートメント、関連論文とそのエビデンスレベル、担当ワーキンググループによる説明文を配布し、エキスパートからの意見を求めた。

口唇裂・口蓋裂のアウトカム因子

分野別に以下のアウトカムを設定し、エビデンスの質、評価、評価プロファイルの作成を行った。

分野	アウトカム
矯正歯科	顎間関係、上顎骨の前方移動量、下顎骨の後方回転、歯の移動、軟組織の審美性、口唇鼻形態、口唇鼻形成手術後経過、害、骨・歯のダメージ、苦痛、鼻咽腔閉鎖機能、構音機能、軟組織変化、合併症、心理的変化
形成外科	整容性(attractiveness)、顔面骨格計測、鼻咽腔閉鎖機能、構音異常の有無 術後口蓋瘻孔の発生率
口腔外科	骨架橋形成、顎発育、咬合形成、二次的骨移植術の回避率、矯正治療の必要性 入院回数、隣接歯の骨性支持、隣接犬歯・隣接側切歯の萌出誘導、上下歯列弓関係・咬合関係、上顎の発育、鼻咽腔閉鎖機能、構音機能、審美性 心理的変化、咀嚼機能・咬合回復、骨移動量、術後の後戻り
補綴歯科	咀嚼機能・咬合の回復、発音機能、審美性、快適性、歯列弓形態の安定、対応性、修理、耐久性、歯周組織への影響、害、歯のダメージ、苦痛、顎堤・歯槽形態の保持、コスト、治療期間、維持・安定
音声言語	開鼻声・子音の歪み・構音、筋運動の賦活・口蓋咽頭間距離の短縮、呼気の口腔誘導 語彙数、習得子音数、カウンセリング時の満足度、治療への不安、親の感情

推奨度の強さと意味

推奨の強さ (positive/negative)	その意味
強い	利益と害・負担コストの差が著しい 患者：ほぼ全員がその推奨に従うべきである 歯科医師：患者がその推奨を受諾するよう説得すべきである 行政：施策として採用すべき コンセンサスグループのほぼ全員が推奨する
弱い	利益が害、負担コストのバランスの差が近接、不確実、エビデンスが低い 患者：半数以上がその推奨に従うとよい 歯科医師：患者と十分な議論が必要である 行政：かなりの議論が必要となる コンセンサスグループの過半数が推奨する
判断不能	エビデンスの意見が相反する コンセンサスグループの意見が一致しない、もしくは判断不能と判断した場合

推奨度の表現

PP：推奨する (positive な強い推奨)

P：推奨してよい (positive な弱い推奨)

N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨)

NN：推奨しない (negative な強い推奨)

U：判断不能

6. 推奨度の決定と評価プロファイル

評価プロファイル

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
分野別の各アウトカム	H(高), M(中), L(低), VL(極低) の4段階評価	PP, P, N, NN, U の5段階評価
推奨度	全体としての判断 (PP, P, N, NN, U の5段階評価)	

全体的な推奨度については、前述のように口唇裂口蓋裂の診療の臨床決断やアウトカムが患者自

身の価値観等に大きく左右されるため、実際にはこの推奨プロファイルと患者の価値観のプロファイルのマッチングが必要となる。しかし、本診療ガイドラインでは、策定委員会で協議の下にあえて全体的な推奨度を提示し、利用者に示唆を与えた。したがって、この全体的な推奨度の使用に際しては上記のような前提が必要であることを理解しなければならない。

また、全体的な推奨度に複数の推奨度が記述されている場合（たとえば、N～P）には、エビデンスに基づく各治療アウトカムの重要性が拮抗しており、単一の推奨度の選択が難しいことを示している。この際には、患者自身の価値観、医療資源、術者の技量等を十分に把握した上で決定すべきであることを意味する。

参考文献

- 1) 福井次矢、吉田雅博、山口直人. Minds 診療ガイドライン作成の手引き 2007. 医学書院 2007.
- 2) 相原守夫. Grade システム：エビデンスから推奨へ. The informed Prescriber. 第 22 卷 8.9 号 2007.
- 3) 日本補綴誌学会編：補綴歯科診療ガイドライン；歯の欠損の補綴歯科診療ガイドライン 2008. 1-117, 東京, 2009.
- 4) M. Hidemitsu, Y. Igarashi, T. Ichikawa, J. Tanaka, T. Kochi, T. Ishigami, T. Andoh, A. Nishiyama: Questionnaire Survey for formulating Clinical Practice Guidelines for Magnetic Attachments Applications – Analysis and Selection of the Clinical Questions (CQ) -. JJ Mag Dent 20 : 5-10, 2011.
- 5) 秀島雅之、五十嵐順正、市川哲雄、他：磁性アタッチメントの診療ガイドラインに関するアンケート調査 ークリニカルクエスチョン (CQ) の調査と選定ー. 日本磁気歯科学会雑誌, 第 20 卷 1 号, 114, 2011.
- 6) 日本磁気歯科学会編「磁性アタッチメントの診療ガイドライン 2013」：日本磁気歯科学会ホームページ, <http://jsmad.jp/guideline>.
- 7) 秀島雅之：補綴歯科 WG における診療ガイドライン CQ 作成. 日口蓋誌, 39-2, 抄録号, 86, 2014.
- 8) 日本磁気歯科学会：歯科診療ガイドライン；磁性アタッチメントの診療ガイドライン 2018. 2018; 29-34.
- 9) 日本磁気歯科学会編「磁性アタッチメントの診療ガイドライン 2018」：日本磁気歯科学会ホームページ, <<http://jsmad.jp/guideline>>
- 10) 秀島 雅之、乙丸 貴史、金崎 彩子、尾澤 昌悟、松井 桂子、高橋 哲、代田 達夫、檀上 敏、山下 佳雄：口唇裂・口蓋裂の診療ガイドラインについて 口唇裂・口蓋裂の補綴歯科診療ガイドライン策定；日本口蓋裂学会雑誌 46 : 77, 2021.

秀島雅之、高橋 哲

V. クリニカル・クエスション

【形成外科】

【口唇裂初期手術】

【CQ 1】 口唇裂初回手術の時期が早期であるほど術後の口唇外鼻形態は優れているか？

【推奨プロファイル】

評価者による主観的整容性、上顎発育への影響という2つの観点において、手術時期が早ければ早いほど術後結果が優れているとは言えない。生後早期の全身麻酔手術は比較的安全に施行可能となってきているとはいえ、口唇裂初回手術時期は、各治療施設のプロトコールの中での意義づけを明確にしたうえで決定する必要がある。

【エビデンスの質と推奨度】

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①整容性(attractiveness)	VL	U
②顔面骨格計測	VL	U
推奨度	全体としての判断 U	

【エビデンスの質】

H:高い、M:中、L:低い、VL:きわめて低い

【推奨度の分類】 PP:推奨する (positiveな強い推奨) P:推奨してよい (positiveな弱い推奨)

N:推奨しない方がよい (negativeな弱い推奨) NN:推奨しない (negativeな強い推奨)

U:判断不能

【推奨の強さと根拠】 (Minds 2014)

2D 弱い推奨 非常に弱い根拠

行うよう勧めるだけの根拠が明確でない

【推奨度】 (Minds 2014)

強い推奨(recommend) 「1」:「実施する」または「実施しない」ことを推奨する

弱い推奨(suggest) 「2」:「実施する」または「実施しない」ことを提案する

【エビデンスレベル】 (Minds 2014)

A (強) 効果の推定値ご強く確証がある

B (中) 効果の推定値ご中程度の確証がある

C (弱) 効果の推定値ご対する確証が限局的である

D（非常に弱い）効果の推定値が不確実である

【解説】

PubMed で 305 文献、医中誌で 24 文献が検索された。一次スクリーニングの結果、22 文献が本 CQ に対する二次スクリーニングの対象文献となった。顎発育に関する症例対照研究の報告が多く、直接的に整容性を評価しようと試みた報告は 1 文献であった。RCT は存在せず、手術時期が術後結果に与える影響は、論文によって報告されている結果が異なるためエビデンスの質としては「VL」と判断した。

「口唇外鼻形態は優れているか？」という CQ に関して、主観的に整容性を評価した報告は 1 件のみ¹⁾であり、生後 4 日での手術例でも生後 104 日での手術例でも整容性に差はみられなかつたとしている。上顎形態は間接的に口唇外鼻形態に関与すると考えられるため、中期的な上顎形態の評価や²⁻⁷⁾、長期的に Le Fort 手術を要した症例の分析を行った報告⁸⁾をさらに検討したところ、早期手術が上顎形態に良い影響を与えたとする報告 1 件と、早期手術は上顎形態に悪い影響を与えたとする報告 3 件、有意な差を与えないとする報告 3 件が存在した。これらの異なる結論の論文の間に特に大きなエビデンスレベルの差は認められず、少なくとも早期手術が待機的手術よりも優れているとは言えない。

近年では麻酔技術の進歩により生後早期の全身麻酔手術は比較的安全施行可能となってきており、手術時期の決定にあたって生後週数や体重、ヘモグロビン値などを規定した「10 の法則」に必ずしも従う必要はないかもしれない⁹⁾。しかしながら、口唇裂初回手術は各治療施設のプロトコール全体の中で、その意義と目的を明確に定義されるべきであり、現時点において積極的に生後早期の手術を推奨するには至らないと判断した。

【今後の課題】

現存する文献では、対象を片側完全唇顎口蓋裂に限ったものや、口蓋裂の有無を問わずに検討に加えている研究が多い。長期的な結果を評価するためには、口蓋裂手術の影響がバイアスとなることが避け難いため、なるべく口蓋裂を伴わない口唇裂症例に対象を限定するなどして、単施設での前向き観察研究を行うか、もし可能であれば無作為割り付けを伴う比較研究を行うことが望ましいと考える。

【参考文献】

- 1) Goodacre TE, Hentges F, Moss TL, et al.: Does repairing a cleft lip neonatally have any effect on the longer-term attractiveness of the repair? Cleft Palate Craniofac J 41: 603-608, 2004.

- 2) Girinon F, Ketoff S, Hennocq Q, et al.: Maxillary shape after primary cleft closure and before alveolar bone graft in two different management protocols: A comparative morphometric study. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg* 120: 406–409, 2019.
- 3) Kotova M, Urbanova W, Sukop A, et al.: Dentoalveolar Arch Dimensions in UCLP Boys After Neonatal Cheiloplasty or After Lip Surgery at the Age of 3 or 6 Months. *Cleft Palate Craniofac J* 56: 1020–1025, 2019.
- 4) Valentová-Strenáčiková S, Malina R: Effects of early and late cheiloplasty on anterior part of maxillary dental arch development in infants with unilateral complete cleft lip and palate. *PeerJ* 15; 4: e1620, 2016.
- 5) Meazzini MC, Tortora C, Morabito A, et al.: Factors that affect variability in impairment of maxillary growth in patients with cleft lip and palate treated using the same surgical protocol. *J Plast Surg Hand Surg* 45: 188–193, 2011.
- 6) Meazzini MC, Donati V, Garattini G, et al.: Maxillary growth impairment in cleft lip and palate patients: a simplified approach in the search for a cause. *J Craniofac Surg* 19: 1302–1307, 2008.
- 7) Williams AC, Sandy JR.: Risk factors for poor dental arch relationships in young children born with unilateral cleft lip and palate. *Plast Reconstr Surg* 111: 586–593, 2003.
- 8) Dalle Ore C, Schoenbrunner A, Brandel M, et al.: Incidence of Le Fort surgery in a mature cohort of patients with cleft Lip and palate. *Ann Plast Surg* 78: S199–S203, 2017.
- 9) Chow I, Purnell CA, Hanwright, PJ, et al.: Evaluating the Rule of 10s in Cleft Lip Repair: Do Data Support Dogma? *Plast Reconstr Surg* 138: 670–679, 2016.

【口蓋裂の手術時期】

【CQ 2】言語成績に関して、口蓋裂の早期手術は、晚期手術よりも、有効か？

【推奨プロファイル】

口蓋裂の早期手術は晚期手術よりも言語成績に対しては有効である。しかし顎発育に対しては早期手術が悪影響を及ぼす可能性がある。

【エビデンスの質と推奨度】

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①鼻咽腔閉鎖機能	L	P
②構音異常の有無	L	P
③		
推奨度	全体としての判断 P	

【エビデンスの質】 H：高い， M：中， L：低い， VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）， P：推奨してよい（positive な弱い推奨） N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）， NN：推奨しない（negative な強い推奨） U：判断不能

【推奨の強さと根拠】（Minds 2014）

2C 弱い推奨、弱い根拠

効果の推定値に対する確信は限定的である

【解説】

PubMed で 72 文献、医中誌で 43 文献が検索され、それに重要と考えられる 10 文献をハンドサーチにより追加し、合計が 125 編となった。一次スクリーニングの結果、29 編の文献が本 CQ に対する二次スクリーニングの対象文献となった。さらに、その 16 文献を読み込み、最終的に 13 文献にて定性的システムティックレビューを行った。ランダム化比較試験の報告は存在しなかった。4 文献は症例集積報告で、2 編は総説であった。各研究におけるバイアスリスクが高く、研究間の非一貫性も高いため、エビデンスの質としては「L」と判断した。

初回口蓋形成術の適切な手術時期についてはさまざまな報告があるが、わが国では 12～18 か月に行われ

ることが多い。しかし、言語発達において乳児期の babbling や cooing の重要性が指摘されており、口蓋裂児において 12 か月未満の早期手術は正常言語の獲得に有利に働くと考えられる¹⁻⁸⁾。

言語成績のうち鼻咽腔閉鎖機能に関する報告をみると、種々の理由で 3 歳以降に手術を施行された症例で不良例が多いという報告がある⁹⁻¹⁰⁾。2 歳までの手術時期について検討した報告をみると、8~12 か月未満の手術を推奨する報告がみられる^{3-6, 8, 11)}一方で、手術時期で鼻咽腔閉鎖機能に差がなかったとする報告もあり¹²⁾、一定の結論がみられない。以上の知見を総合すると、正常な鼻咽腔閉鎖機能獲得のためには口蓋裂手術は遅くとも 18 か月前後までに行う方が良いと考えられる。

一方、正常構音の獲得については鼻咽腔閉鎖機能よりも、早期手術を推奨する報告^{3-6, 9, 10)}が数多く見られ、早期手術により構音障害を生じる可能性が低くなると考えられた。しかし、構音障害については言語訓練や顎形態などの手術時期以外の要素の影響も考慮に入れる必要がある。

【今後の課題】

多くの論文は評価時年齢が 10 歳未満である。構音障害の種類によっては経年的に改善するものもあり¹³⁾、評価時年齢も言語成績に大きく影響するため、できるだけ長期間の経過観察で比較した検証が期待される。

【参考文献】

- 1) Evans D, Renfrew C: The timing of primary cleft palate repair. Scand J Plast Reconstr Surg 8: 153-155, 1974.
- 2) Oiler DK, Wieman LA, Doyle WJ, et al.: Infant babbling and speech. J Child Lang 3: 1-11, 1976.
- 3) Dorf DS, Curtin JW: Early cleft palate repair and speech outcome. Plast Reconstr Surg 70: 74-79, 1982.
- 4) 岡崎恵子, 加藤正子, 鬼塚卓弥, ほか: 口蓋裂初回手術後の言語成績. 日口蓋誌 10: 161-168, 1985.
- 5) 岡崎恵子, 加藤正子, 大久保文雄, ほか: 口蓋裂の手術年齢と言語成績. 形成外科 35: 1467-1472, 1992.
- 6) Dalston RM: Timing of cleft palate repair: a speech pathologist's viewpoint. In: Problems of Plastic Surgery in Cleft Palate Surgery, edited by JA Lehman. Philadelphia: JB Lippincott, pp30-38, 1992.

- 7) Peterson-Falzone SJ: The relationship between timing of cleft palate surgery and speech outcome: what have we learned, and where do we stand in the 1990s? *Semin Orthod* 2: 185–191, 1996.
- 8) Marrinan EM, Labrie RA, Mulliken JB: Velopharyngeal function in nonsyndromic cleft palate: relevance of surgical technique, age at repair, and cleft type. *Cleft Palate Craniofac J* 35: 95–100, 1998.
- 9) Rohrich RJ, Love EJ, Byrd HS, et al.: Optimal timing of cleft palate closure. *Plast Reconstr Surg* 106: 413–421, 2000.
- 10) Pasick CM, Shay PL, Stransky CA, et al.: Long term speech outcomes following late cleft palate repair using the modified Furlow technique. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 78: 2275–2280, 2014.
- 11) Sullivan SR, Jung YS, Mulliken JB: Outcomes of cleft palatal repair for internationally adopted children. *Plast Reconstr Surg* 133: 1445–1452, 2014.
- 12) Nandlal B, Tewari A, Utreja AK, et al.: Effects of variation of the timing of palatal repair on nasality of speech in complete cleft lip and palate children. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 17: 146–149, 1999.
- 13) 朴 修三: 口蓋裂術後の長期言語成績 4歳から16歳までの言語成績の変化と16歳時の言語成績について. *日形会誌* 34, 92–97, 2014.

【口蓋裂合併症】

【CQ3】口蓋瘻孔の発生頻度は、口蓋裂術式により、影響を受けるか？

【推奨プロファイル】

Furlow 法や two-flap 法は、Langenbeck's method や pushback 法 (Wardill's method) と比較した場合、術後口蓋瘻孔発生率の低い術式であろう。しかし、それぞれの術式について様々な改変手技が行われ、術後の管理方法を含めた患者を取り巻く環境が異なり、さらに研究報告によって瘻孔発生を観察した時期も異なるため、各術式間で口蓋瘻孔発生頻度に差が存在するのか、強い根拠を持って判断するのは困難である。日本を含めた東アジア圏での研究報告も不足している現状がある。

【エビデンスの質と推奨度】

アウトカム	エビデンスの質	評価(有効性等)
①術後口蓋瘻孔の発生率	L	P
②		
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】H：高い、M：中、L：低い、VL：きわめて低い

【推奨度の分類】PP：推奨する (positive な強い推奨)，P：推奨してよい (positive な弱い推奨) N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨)，NN：推奨しない (negative な強い推奨) U：判断不能

【推奨の強さと根拠】 (Minds 2014)

2C 弱い推奨、弱い根拠

効果の推定値に対する確信は限定的である

【解説】

PubMed で 880 文献、医中誌で 78 文献が検索され、それに重要と考えられる 1 文献をハンドサーチにより追加し、合計が 959 編となった。一次スクリーニングの結果、20 編の文献が本 CQ に対する二次スクリーニングの対象文献となった。さらに、その 20 文献を読み込み、最終的に 18 文献にて定性的システムティックレビューを行った。ランダム化比較試験の報告は存在しなかった。17 文献は症例集積報告で、1 文献でメタ解析が行われていた。各研究におけるバイアスリスクが高く、研究間の非一貫性も高いため、

エビデンスの質としては「L」と判断した。

Stein らは術後口蓋瘻孔発生率について Meta-Analysis を行い、von Langenbeck, pushback, two-flap, Furlow 法についてそれぞれ比較を行った。結果は、Furlow 法は von Langenbeck と pushback と比較すると、有意に術後口蓋瘻孔発生率が低値であった（対 von Langenbeck：相対リスク 0.56, 95%CI [0.39–0.79]，対 pushback：相対リスク 0.23, 95%CI [0.12–0.52]）。しかし、それ以外のすべての組み合わせでは有意差は出なかった¹⁾。

日本国内からの報告では術式比較は無く、単一術式の報告が同一施設から、福屋ら²⁾が 332 例、上村ら³⁾が 776 例に対して、pushback による術後瘻孔発生率をそれぞれ 37.3%, 25.2% と報告し、さらに詳細に裂型に分類して報告している。しかしながら、他の術式については報告がない。

東アジア圏からの報告については、Chan ら⁴⁾が、Furlow 法 118 例、von Langenbeck 法 122 例を比較したところ、瘻孔発生率はそれぞれ 5%, 10% であったが、統計学有意差は無く、Dong ら⁵⁾が、Furlow 法 48 例、two-flap 法 40 例を平均観察期間 3 年 (0.5–5 年) で比較したところ、瘻孔発生率はどちらも 0% であったと報告している。

その他地域からの報告では術式比較報告は、Cohen ら⁶⁾：観察期間 7–15 年で pushback 法 43% (N=20/47), Furlow 法 10% (N=3/29). Phua ら⁷⁾：平均観察期間 4 年 10 か月 (9 か月–14 年) で pushback 法 12% (N=13/108), Furlow 法 10% (N=5/49). Losken ら⁸⁾：観察期間 1 年以上で von Langenbeck 法 0% (N=0/36) pushback 法 5% (N=1/20), two-flap 法 2.1% (N=1/48), Furlow 法 0% (N=0/36). Salimi ら⁹⁾：観察期間 10 年以上で two-flap 法 37% (N=95/261), Furlow 法 17% (N=22/131) と報告している。

以下に、単一術式報告も含めてそれぞれの術式についてまとめる。

Pushback 法

福屋ら²⁾：37.3% (N=124/332)

Cohen ら⁶⁾：43% (N=20/47, 観察期間 7–15 年)

上村ら³⁾：25.2% (N=196/776, 観察期間 9 か月–15 年)

Phua ら⁷⁾：12% (N=12/108, 平均観察期間 4 年 10 か月 (9 か月–14 年))

Losken ら⁸⁾：5% (N=1/20, 観察期間 1 年以上)

Annigeri ら¹⁰⁾：20% (N=6/30, 平均観察期間 6 年 (5–7 年))

El-Anwar ら¹¹⁾：13.6% (N=3/22, 観察期間 6 か月)。

Two-flap 法

Wilhelmi ら¹²⁾：3.4% (N=4/119, 観察期間 7–48 か月)

Salyer ら¹³⁾ : 9%(N=34/381, 観察期間 4 年以上)

Murthy ら¹⁴⁾ : 2. 4%(N=8/332, 平均観察期間 74 か月(23-277 か月))

Losken ら⁸⁾ : 2. 1%(N=1/48, 観察期間 1 年以上)

Koudouumnaski ら¹⁵⁾ : 5. 4%(N=14/257, 平均観察期間 50 か月(1-11 年))

Dong ら⁵⁾ : 0%(N=0/40, 平均観察期間 3 年(0. 5-5. 1 年))

Salimi ら⁹⁾ : 37%(N=95/261, 観察期間 10 年以上)

Furlow 法

Cohen ら⁶⁾ : 10%(N=3/29, 観察期間 7-15 年)

Losee ら¹⁶⁾ : 3%(N=4/132, 平均観察期間 25 か月(2 か月-5 年))

Phua ら⁷⁾ : 10%(N=5/49, 平均観察期間 4 年 10 か月(9 か月-14 年))

Losken ら⁸⁾ : 0%(N=0/36, 観察期間 1 年以上)

Dong ら⁵⁾ : 0%(N=0/48, 平均観察期間 3 年(0. 5-5. 1 年))

Jackson ら¹⁷⁾ : 5. 2%(N=45/869, 平均観察期間 6. 7 年(3 か月-18. 5 年))

Chan ら⁴⁾ : 5%(N=6/118, 平均観察期間 66 か月)

Mann ら¹⁸⁾ : 1%(N=2/170, 平均観察期間 7. 7 年)

Salimi ら⁹⁾ : 17%(N=22/131, 観察期間 10 年以上)

以上より報告者や施設によりばらつきがあるが、pushback 法と比較した場合、two-flap 法や Furlow 法は術後口蓋瘻孔発生率が低くなる術式である可能性がある。

【今後の課題】

わが国において術式間で口蓋瘻孔発生率や言語成績について、管理方法や観察期間をそろえた上での多症例数での比較研究が無く、強い根拠を持ってそれぞれの術式の有効性と安全性を検証するには、統一された臨床研究プロトコールに沿った多施設共同研究が行われることが求められよう。それぞれ名のついた術式の中で、術者それぞれの考えに基づき、様々な材料器械を用いて様々な改変手技や付加手技が施行されている現状があり、術式名の括りで比較研究するには限界があり、今後は各々の手技や材料が持つ優位性や安全性について検証していくような形の研究もあり得ると考える。

【参考文献】

- 1) Stein MJ, Zhang Z, Fell M, et al.: Determining postoperative outcomes after cleft

- palate repair: A systematic review and meta-analysis. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 72: 85–91, 2019.
- 2) 福屋安彦, 青山亮介, 四宮茂, ほか: 口蓋裂手術後の瘻孔について. *形成外科* 38: 574–581, 1985.
 - 3) 上村哲司, 鬼塚卓弥, 大久保文雄, ほか: 当施設12年間の口蓋裂push back手術後の瘻孔について. *日口蓋誌* 19: 100–106, 1994.
 - 4) Chan EKW, Lee KH, Tsui BSY, et al.: From von Langenbeck to Furlow palatoplasty: a 16-year review of cleft palate repair. *Surg Pract J* 18: 67–71, 2014.
 - 5) Dong Y, Dong F, Zhang X, et al.: An effect comparison between Furlow double opposing Z-plasty and two-flap palatoplasty on velopharyngeal closure. *Int J Oral Maxillofac Surg* 41: 604–611, 2012.
 - 6) Cohen SR, Kalinowski J, LaRossa D, et al.: Cleft palate fistulas: a multivariate statistical analysis of prevalence, etiology, and surgical management. *Plast Reconstr Surg* 87: 1041–1047, 1991.
 - 7) Phua YS, de Chalain T: Incidence of oronasal fistulae and velopharyngeal insufficiency after cleft palate repair: an audit of 211 children born between 1990 and 2004. *Cleft Palate Craniofac J* 45: 172–178, 2008.
 - 8) Losken HW, van Aalst JA, Teotia SS, et al.: Achieving low cleft palate fistula rates: surgical results and techniques. *Cleft Palate Craniofac J* 48: 312–320, 2011.
 - 9) Salimi N, Aleksejünienė J, Yen E, et al.: Time trends and determinants of fistula in cleft patients at BC Children's Hospital, Canada: a retrospective 18-year medical chart audit. *Cleft Palate Craniofac J* 55: 1013–1019, 2018.
 - 10) Annigeri VM, Mahajan JK, Nagarkar A, et al.: Outcome analysis of palatoplasty in various types of cleft palate. *J Indian Assoc Pediatr Surg* 17: 157–161, 2012.
 - 11) El-Anwar MW, Nofal AAF, Khalifa M, et al.: Use of autologous platelet-rich plasma in complete cleft palate repair. *Laryngoscope* 126: 1524–1528, 2016.
 - 12) Wilhelmi BJ, Appelt EA, Hill L, et al.: Palatal fistulas: rare with the two-flap palatoplasty repair. *Plast Reconstr Surg* 107: 315–318, 2001.
 - 13) Salyer KE, Sng KW, Sperry EE: Two-flap palatoplasty: 20-year experience and evolution of surgical technique. *Plast Reconstr Surg* 118: 193–204, 2006.

- 14) Murthy AS, Parikh PM, Cristion C, et al.: Boyajian MJ. Fistula after 2-flap palatoplasty: a 20-year review. *Ann Plast Surg* 63: 632–635, 2009.
- 15) Koudoumnakis E, Vlastos IM, Parpounas K, et al.: Two-flap palatoplasty: description of the surgical technique and reporting of results at a single center. *Ear Nose Throat J* 91: E33–37, 2012.
- 16) Losee JE, Smith DM, Afifi AM, et al.: A successful algorithm for limiting postoperative fistulae following palatal procedures in the patient with orofacial clefting. *Plast Reconstr Surg* 122: 544–554, 2008.
- 17) Jackson O, Stransky CA, Jawad AF, et al.: The Children's Hospital of Philadelphia modification of the Furlow double-opposing Z-palatoplasty: 30-year experience and long-term speech outcomes. *Plast Reconstr Surg* 132: 613–622, 2013.
- 18) Mann RJ, Martin MD, Eichhorn MG, et al.: The double opposing Z-plasty plus or minus buccal flap approach for repair of cleft palate: a review of 505 consecutive cases. *Plast Reconstr Surg* 139: 735e–744e, 2017.

【矯正歯科】

【歯科矯正、前方牽引】

【CQ1】口唇裂・口蓋裂による上顎劣成長（反対咬合）症例において、上顎前方牽引装置の使用は同装置を使用しないよりも顎間関係の改善を期待できるか？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂による上顎劣成長（反対咬合）症例において上顎前方牽引装置の使用は使用しないよりも、顎間関係の改善が期待できるとする報告が大半である。しかしながら、口蓋形成術の術式の影響や、サンプル数が少ない、長期的な効果についての検討がなされていない点がある。したがって、現時点では、短期的には効果があるが長期的な安定性や効果について、今後の検討が必要であるため弱い推奨とした。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①顎間関係の改善	L	P
②上顎骨の前方移動による改善	L	P
③下顎骨の後方回転による改善	L	P
④歯系の移動による改善	L	P
⑤軟組織の審美性の改善	L	P
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、 P：推奨してよい（positive な弱い推奨）、 N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、 NN：推奨しない（negative な強い推奨）、 U：判断不能

【推奨】 P

【解説】口唇裂・口蓋裂は口蓋形成術後の瘢痕により上顎劣成長をきたし、反対咬合になりやすい。この反対咬合を改善できない場合には、外科的介入による顎間関係の改善が必要になることが多い。したがって、上顎前方牽引装置による顎間関係の改善が期待でき外科的侵襲を回避できるならば患者にとって有益である。一方、もし効果がない場合には、口腔内外にまたがる装置を装着することで患者の QOL を低下させる可能性があるため、患者に過度な期待を与えるべきではない。

上記の点を踏まえて CQ の調査を行った。上顎前方牽引装置における口腔内装置は、概ね急速拡大装置が選択されるが、この使用法には 2 つあり、通法に従い必要な分だけ急速拡大する方法、拡大と縮小を繰り返す方法がある。これらの 2 つの方法についてはエビデンスが弱いものの前向き調査により差がなかった。なお日本では、口腔内装置として急速拡大装置だけでなく、舌側弧線装置や床装置も用いられている。

続いて、上顎前方牽引の時期と使用期間については、混合歯列期前期が多く、この時期に行う場合には 7-12 か月程度で効果が認められ、この効果は初めの 1 年間が最も効果があり、2 年目以降は継続使用しても効果が少なかった。これらの効果として、歯性の変化は少なく骨格的な変化が最も大きく、上顎骨の前方移動、後上顎面高の増加、下顎骨の後下方回転によるものであった。また、口蓋形成術後に形成された瘢痕が上顎前方牽引装置の効果に個人差を生む可能性が示唆されている。軟組織変化としては、鼻とオトガイの位置変化は認めず、上下口唇の前後関係が改善される傾向にあり、骨格性変化の相乗効果によりコンケイブタイプの顔貌の改善に有効である。しかしながら、長期安定性についてはまだ詳細な報告があたらない。

以上のように、若年者における上顎前方牽引装置の上顎劣成長に対する短期的効果は、多くの報告で認められている。一方、思春期成長スパート時期まで追跡調査を行っている報告はあるものの、症例数が少なくエビデンスが弱い。短期的に改善した顎間関係の予後は今後の検討課題である。

【文献リスト】

1. Tome W, Yashiro K, Kogo M, Yamashiro T. Cephalometric outcomes of maxillary expansion and protraction in patients with unilateral cleft lip and palate after two types of palatoplasty. *Cleft Palate Craniofac J.* 2016. 53(6);690-4.
2. Singla S, Utreja A, Singh SP, Lou W, Suri S. Increase in sagittal depth of the bony nasopharynx following maxillary protraction in patients with unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2014. 51(5);585-92.
3. Susami T, Okayasu M, Inokuchi T, Ohkubo K, Uchino N, Uwatoko K, Takahashi-Ichikawa N,

- Nagahama K, Takato T. Maxillary protraction in patients with cleft lip and palate in mixed dentition: cephalometric evaluation after completion of growth. *Cleft Palate Craniofac J.* 2014; 51(5):514-24.
4. Dogan S. The effects of face mask therapy in cleft lip and palate patients. *Ann Maxillofac Surg.* 2017; 2(2):116-20.
 5. Borzabadi-Farahani A, Lane CJ, Yen SL. Late maxillary protraction in patients with unilateral cleft lip and palate: a retrospective study. *Cleft Palate Craniofac J.* 2014; 51(1):e1-e10.
 6. Jia H, Li W, Lin J. Maxillary protraction effects on anterior crossbites. Repaired unilateral cleft versus noncleft prepubertal boys. *Angle Orthod.* 2008; 78(4):617-24.
 7. da Luz Vieira G, de Menezes LM, de Lima EM, Rizzato S. Dentoskeletal effects of maxillary protraction in cleft patients with repetitive weekly protocol of alternate rapid maxillary expansions and constrictions. *Cleft Palate Craniofac J.* 2009; 46(4):391-8.
 8. Jia H, Li W, Lin J. Maxillary protraction effects on anterior crossbites. Repaired unilateral cleft versus noncleft prepubertal boys. *Angle Orthod.* 2008; 78(4): 617-24.
 9. Chen KF, So LL. Soft tissue profile changes of reverse headgear treatment in Chinese boys with complete unilateral cleft lip and palate. *Angle Orthod.* 1997; 67(1): 31-8.
 10. Chen KF, So LL. Sagittal skeletal and dental changes of reverse headgear treatment in Chinese boys with complete unilateral cleft lip and palate. *Angle Orthod.* 1996; 66(5): 363-72.
 11. So LL. Effects of reverse headgear treatment on sagittal correction in girls born with unilateral complete cleft lip and cleft palate--skeletal and dental changes. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 1996; 109(2): 140-7.

【ホット床 NAM】

【CQ2】 初回口唇形成術前の NAM 治療は、非施行症例よりも口唇鼻形態の改善に有効か？

【推奨プロファイル】

初回手術前に症状を軽減し、症例の難易度を下げるという点で有効である。また初回手術後の口唇鼻形態の短期的改善結果（6か月後）に関して有効性が認められる。したがって患者の社会的背景を十分配慮したうえで、広い顎裂幅や口唇鼻形態の強い変形を伴う口唇裂・口蓋裂乳児に対し弱い推奨とした。しかしながら、手術デザインおよび術後矯正などの交絡因子が関与するため、短期的な効果が長期的に継続しうるか十分なエビデンスを得ることは難しい。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①口唇鼻形態の改善	L	P
②口唇鼻形成手術後の経過	L	P
③害、骨・歯のダメージ、苦痛	L	N
推奨度	全体としての判断 P	

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する (positive な強い推奨), P：推奨してよい (positive な弱い推奨)
N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨), NN：推奨しない (negative な強い推奨) U：判断不能

【推奨】 P

【解説】

口唇裂・口蓋裂患者は、裂の存在とその周囲の筋機能バランスによって特異な中顔面の口唇鼻形態変形を生じる。変形の程度は裂の状態に応じて個々に異なるが、一般的には裂幅が広く口唇鼻変形が強いほど治療も難しいとされている。近年このような症例に対し、NAM 治療によって、術前に裂幅の縮小や口唇鼻変形を軽減することで、初回口唇鼻形成術の効果が向上している。

NAM 治療単独による顎裂の縮小や口唇鼻形態改善に対する短期的改善効果は、一定の科学的根拠を伴うため有効であると考える。特に両側性口唇裂・口蓋裂では左右対称性の獲得に一定の効果を認める。また口唇鼻形態の変形が強い片側性及び両側性口唇裂・口蓋裂乳児では、初回手術前の症状を軽減し手術の難易度を下げると考えられる。

一方、手術後の長期的效果については結果が限定的なことや、初回手術法やその後の矯正治療、後戻りの影響など複数の交絡因子が存在するため、現時点では NAM 治療単独の効果として科学的根拠があると断定できない。世界的にも NAM 治療は有効であるとする報告、NAM 治療は有効でないとする報告の双方が散見される中で、そのどちらも質の高いエビデンスデータが欠けている。長期的な NAM 治療の医学的有効性に関して、今後コンセンサスのある報告が期待される。

NAM 治療の導入に関して、今まで医学的・身体的に有害性を示す結果は報告されておらず、積極的に治療を推奨しない根拠は認められなかった。したがって、前述したように口唇鼻形態の変形が強い片側性及び両側性口唇裂・口蓋裂乳児に対し、NAM 治療を検討しても良いと考える。ただし治療可能な機関が限定期のことや治療期間中の保護者の積極的協力を必要とするため、社会的背景によっては患者とその保護者に大きな負担をもたらすという報告もある。導入に際しては、様々な点を考慮した総合的な判断のもと慎重に検討すべきである。

【文献】

1. Liou EJ, Subramanian M, Chen PK, Huang CS. The progressive changes of nasal symmetry and growth after nasoalveolar molding: a three-year follow-up study. *Plast Reconstr Surg.* 2004. 114(4); 858-64.
2. Pai BC, Ko EW, Huang CS, Liou EJ. Symmetry of the nose after presurgical nasoalveolar molding in infants with unilateral cleft lip and palate: a preliminary study. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005. 42(6); 658-63.
3. Liou EJ, Subramanian M, Chen PK. Progressive changes of columella length and nasal growth after nasoalveolar molding in bilateral cleft patients: a 3-year follow-up study. *Plast Reconstr Surg.* 2007. 119(2); 642-8.
4. Barillas I, Dec W, Warren SM, Cutting CB, Grayson BH. Nasoalveolar molding improves long-term nasal symmetry in complete unilateral cleft lip-cleft palate patients. *Plast Reconstr Surg.* 2009. 123(3); 1002-6.
5. Chang CS, Por YC, Liou EJ, Chang CJ, Chen PK, Noordhoff MS. Long-term comparison of

- four techniques for obtaining nasal symmetry in unilateral complete cleft lip patients: a single surgeon's experience. *Plast Reconstr Surg.* 2010. 126(4); 1276-84.
6. Clark SL, Teichgraeber JF, Fleshman RG, Shaw JD, Chavarria C, Kau CH, Gateno J, Xia JJ. Long-term treatment outcome of presurgical nasoalveolar molding in patients with unilateral cleft lip and palate. *J Craniofac Surg.* 2011. 22(1); 333-6.
 7. Garfinkle JS, King TW, Grayson BH, Brecht LE, Cutting CB. A 12-year anthropometric evaluation of the nose in bilateral cleft lip-cleft palate patients following nasoalveolar molding and cutting bilateral cleft lip and nose reconstruction. *Plast Reconstr Surg.* 2011. 127(4); 1659-67.
 8. Abbott MM, Meara JG. Nasoalveolar molding in cleft care: is it efficacious? *Plast Reconstr Surg.* 2012. 130(3); 659-66.
 9. van der Heijden P, Dijkstra PU, Stellingsma C, van der Laan BF, Korsten-Meijer AGW, Goorhuis-Brouwer SM. Limited evidence for the effect of presurgical nasoalveolar molding in unilateral cleft on nasal symmetry: a call for unified research. *Plast Reconstr Surg.* 2013. 131(1); 62e-71e.
 10. Henry C, Samson T, Mackay D. Evidence-based medicine: The cleft lip nasal deformity. *Plast Reconstr Surg.* 2014. 133(5); 1276-88.
 11. Greives MR, Camison L, Losee JE. Evidence-based medicine: Unilateral cleft lip and nose repair. *Plast Reconstr Surg.* 2014. 134(6); 1372-80.
 12. Chang CS, Liao YF, Wallace CG, Chan FC, Liou EJ, Chen PK, Noordhoff MS. Long-term comparison of the results of four techniques used for bilateral cleft nose repair: a single surgeon's experience. *Plast Reconstr Surg.* 2014. 134(6); 926e-936e.
 13. Rubin MS, Clouston S, Ahmed MM, Lowe K, Shetye PR, Broder HL, Warren SM, Grayson BH. Assessment of presurgical clefs and predicted surgical outcome in patients treated with and without nasoalveolar molding. *J Craniofac Surg.* 2015. 26(1); 71-5.
 14. Rau A, Ritschl LM, Mücke T, Wolff KD, Loeffelbein DJ. Nasoalveolar molding in cleft care--experience in 40 patients from a single centre in Germany. *PLoS One.* 2015. 10(3); e0118103.
 15. Maillard S, Retrouvey JM, Ahmed MK, Taub PJ. Correlation between nasoalveolar molding and surgical, aesthetic, functional and socioeconomic outcomes following primary

- repair surgery: a systematic review. *J Oral Maxillofac Res.* 2017. 8(3); e2.
16. Singer E, Daskalogiannakis J, Russell KA, Mercado AM, Hathaway RR, Stoutland A, Long RE Jr, Fessler J, Semb G, Shaw WC. Burden of care of various infant orthopedic protocols for improvement of nasolabial esthetics in patients with Cleft Palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2018. 55(9); 1236–43.
17. Bonanthaya K, Nayak T, Bitra S, Rachwalski M, Shetty PN. An assessment and comparison of nasolabial aesthetics in bilateral clefts using the anatomical subunit-based scale: a nasoalveolar moulding versus non-nasoalveolar moulding study. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2019. 48(3): 298–301.

【顎矯正】

CQ3 上顎骨劣成長を認める症例に対して、上顎骨延長は一期的な上顎骨前方移動術よりも上顎骨の前方移動に有効か？

【推奨プロファイル】

著しい上下顎骨の不調和を認める症例に対しては、上顎骨延長はより大きな前方移動量を期待することができ、また術後の後戻りが少ないという点で有用である。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①移動量	L	P
②術後安定性	M	P
③鼻咽腔閉鎖機能	M	U
④構音機能	M	U
⑤軟組織変化	M	U
⑥合併症	M	U
⑦心理	M	U
推奨度	全体としての判断 P 断	

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、 P：推奨してよい（positive な弱い推奨）

N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、 NN：推奨しない（negative な強い推奨） U：判断不能

【推奨】 P

【解説】

口唇裂・口蓋裂患者においては、口蓋形成術後の瘢痕が上顎劣成長と反対咬合を惹起し、非外科的な矯正歯科治療あるいは従来型の骨切り術を併用した外科的矯正治療だけでは咬合の改善を十分に図ることが困難な場合がある。近年このような症例に対しては、上顎骨延長による外科的矯正治療が施行されるよ

うになってきた。骨延長は骨新生のみならず血管、神経、皮膚、粘膜を含めた周囲軟組織の伸展を期待できることから、一般的な骨切り術と比較して大きな顎骨移動が可能であると考えられる。

上顎骨の術後変化に関する報告では、Cheung らによるランダム化比較試験において、一期的な上顎骨前方移動術群では上顎骨延長群と比較して、短期的には垂直的な後戻りが術後 2 週から 12 週にかけて、水平的な後戻りが 8 週から 12 週にかけて有意に認められた¹⁾。また、長期的な変化を評価したランダム化比較試験においても、術後 5 年において水平的な上顎骨の後戻り量が前方移動量に対して、上顎骨骨延長群では 8.24%，一期的な前方移動術群では 36.99% であったことから、上顎骨骨延長は一期的な前方移動術と比較し、術後の安定性が認められたと報告している⁶⁾。これら 2 報は、同一施設での創内型延長器のみを用いた術後評価であり、他施設におけるランダム化比較試験が待たれる。現時点で、上顎骨延長は一期的な上顎骨前方移動術と比較し、大きな顎骨移動が可能で術後安定性が得られると考えられる。

しかしながら、延長器装着による負担ならびに入院期間の長期化、延長器撤去のための二次的手術の必要性など患者に多大な負担を強いるため、その施行には慎重を要す。上下顎の移動量によっては骨延長を伴わない上下顎移動術の施行も選択肢の一つである。

【文献】

1. Cheung LK, Chua HD, Hagg MB. Cleft maxillary distraction versus orthognathic surgery: clinical morbidities and surgical relapse. *Plastic and Reconstructive Surgery*. 2006;118(4): 996–1008.
2. Chua HD, Cheung LK. Soft tissue changes from maxillary distraction osteogenesis versus orthognathic surgery in patients with cleft lip and palate-a randomized controlled clinical trial. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2012;70(7): 1648–58.
3. Chua HD, Whitehill TL, Samman N, Cheung LK. Maxillary distraction versus orthognathic surgery in cleft lip and palate patients: effects on speech and velopharyngeal function. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2010;39(7):633–40.
4. Chua HD, Ho SM, Cheung LK. The comparison of psychological adjustment of patients with cleft lip and palate after maxillary distraction osteogenesis and conventional orthognathic surgery. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2012;114(5 Suppl):S5–10.

5. Daimaruya T, Imai Y, Kochi S, Tachi M, Takano-Yamamoto T. Midfacial changes through distraction osteogenesis using a rigid external distraction system with retention plates in cleft lip and palate patients. *J Oral Maxillofac Surg.* 2010;68(7):1480-6.
6. Chua HD, Hägg MB, Cheung LK. Cleft maxillary distraction versus orthognathic surgery—which one is more stable in 5 years? *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2010;109(6):803-14.
7. Chanchareonsook N, Whitehill TL, Samman N. Speech outcome and velopharyngeal function in cleft palate: comparison of Le Fort I maxillary osteotomy and distraction osteogenesis—early results. *Cleft palate-craniofacial journal.* 2006;44(1):23-32..

【顎裂部骨移植】

【CQ4】 顎裂部骨移植術の施行は施行しないよりも上顎前歯部の排列に有効か？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂症例で、永久歯の排列に支障があることが予測される歯槽堤の骨欠損（顎裂部）に対して顎裂部骨移植術を施行する事は、裂側（両側性症例の場合、両側）の中切歯、側切歯、犬歯を矯正歯科治療により排列したり、欠損部へのインプラント治療を含めた欠損補綴処置を行う上で有効であり、行うよう勧められる。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
① 顎裂部骨組織の形成	L	P
② 顎裂部における歯の配列	L	P
③ 害、骨・歯のダメージ、苦痛	-	U
推奨度	全体としての判断 P	

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、P：推奨してよい（positive な弱い推奨）、N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、NN：推奨しない（negative な強い推奨）、U：判断不能

【推奨】 P

【解説】

顎裂骨移植の施行は

- ① 裂に隣接した中切歯、側切歯、犬歯の歯軸の改善が可能となる
- ② 移植部への顎裂隣在歯の萌出誘導や排列が可能となる
- ③ 移植部へ歯の萌出誘導や排列ができない場合でも、欠損部の形態的・機能的な補綴が可能となる
- ④ 患者の選択により、欠損部をインプラントで対応することが可能になる

⑤ 歯列の連続性があるため上顎骨切り術の施行が容易になる

などが、多くの症例集積研究や症例対照研究で報告されている

しかし、裂型や口唇口蓋裂手術法の多様性からランダム化しにくいこと、対照群を用いた研究デザインがそもそも困難であることから、エビデンスレベルの高い論文はない。

また、これらの研究の大半が、骨移植の時期、移植骨や移植骨代用材料の選択、骨移植前の拡大の有無が、骨架橋形成に代表される骨移植の成績にどう関係するかについての報告であり、移植後の歯の排列に言及したものは極めて少ない。顎裂骨移植を施行しても、移植骨が吸収し生着が不良だと骨架橋が十分に形成されず、良好な咬合を獲得できない例も報告されている。

顎裂骨移植は出生から成人に至るまでどの時期でも施行されうる手術であり、時期については永久犬歯萌出前の二次骨移植がよく検討されており、特に移植前の犬歯の位置は適正な移植時期の判定要件となることを多くの研究が示している。しかし、この点についても側切歯の有無により対応が異なる部分もある。また近年は術前顎矯正の普及や進歩により、口唇形成時に gingivoperiosteoplasty (GPP) を施行した例や、永久前歯萌出以前の早期骨移植についての議論も増加しているが、早期介入の成果についての結論は出ていない。

現時点では、顎裂部骨移植術の施行が前歯の排列に寄与することを直接関連付けたエビデンスレベルの高い論文はなく、顎裂部骨移植術の施行と骨架橋の形成などについての RCT やシステムティックレビューも見当たらない。しかし、骨移植の時期や方法に関しては多様な意見があるものの、患者の咬合形成においては総合的に判断して有利になることを示す論文は多く、行うよう勧められると結論づけた。

【文献】

- 1) 吉田秀児, 須賀賢一郎, 中野洋子ら:三次元 CT データを用いた顎裂部における移植骨の術後評価. 日口蓋誌 39(3): 209-216, 2014. (IV)
- 2) 新垣敬一, 天願俊泉, 牧志祥子:顎裂部への二次的腸骨海綿細片骨移植術後の咬合構築における検討. 日口蓋誌 38(1): 97-103, 2013. (V)
- 3) 飯野光喜, 幸地省子, 森川秀広ら:永久歯咬合形成からみた顎裂に対する骨移植術の手術時期に関する検討. 日口蓋誌 19:249-256, 1994. (V)
- 4) 飯野光喜, 幸地省子, 松井桂子ら:顎裂部に対する自家腸骨海綿骨細片移植術—X 線 CT による骨架橋の評価一. 日口蓋誌 19:23-31, 1994. (V)
- 5) 柿本朱, 坂本輝雄, 末石研二ら:片側性唇顎口蓋裂患者の動的矯正治療終了後の咬合状態について 二段階口蓋形成術および顎裂部骨移植を施行した症例. 歯科学報 109(4): 388-

394, 2009. (IV)

- 6) 小澤知倫:唇顎口蓋裂患者の早期二次的顎裂部骨移植術における骨架橋形成に及ぼす因子の検討. 横浜医学 56:167-179, 2005. (IV)
- 7) 新垣敬一, 砂川元, 天願俊泉, 新崎章ら:当科における2次的顎裂部骨移植後の臨床的検討. 琉球医学会誌 23(4): 163-171, 2004. (V)
- 8) Trotman CA, Papillon F, Ross RB: A retrospective comparison of frontal facial dimensions in alveolar-bone-grafted and nongrafted unilateral cleft lip and palate patients., Angle Orthod 67(5): 389-94, 1997. (IV)
- 9) Park HM, Han DH, Baek SH:Comparison of tooth development stage of the maxillary anterior teeth before and after secondary alveolar bone graft: Unilateral cleft lip and alveolus vs unilateral cleft lip and palate. Angle Orthod 84(6):989-94, 2014. (I V)
- 10) Russell KA, McLeod CE :Canine eruption in patients with complete cleft lip and palate. Cleft Palate Craniofac J 45(1):73-80, 2008. (IV)
- 11) Fudalej P, Janiszewska-Olszowska J, Wedrychowska-Szulc B:Early alveolar bone grafting has a negative effect on maxillary dental arch dimensions of pre-school children with complete unilateral cleft lip and palate. Orthod Craniofac Res 14(2): 51-7, 2011. (I V)
- 12) Schultze-Mosgau S, Nkenke E, Schlegel AK: Analysis of bone resorption after secondary alveolar cleft bone grafts before and after canine eruption in connection with orthodontic gap closure or prosthodontic treatment. J Oral Maxillofac Surg 61:1245-8, 2003. (IV)
- 13) Yatabe MS, Ozawa T0, Janson G:Are there bone dehiscences in maxillary canines orthodontically moved into the grafted alveolar cleft?. Am J Orthod Dentofacial Orthop 147(2): 205-13, 2015. (IV)

【エビデンスレベル (GLGL ver. 4)】

- I システマティック・レビュー/ メタ・アナリシス
- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による

- IV 分析疫学的研究（コホート研究や症例対象研究による）
- V 記述研究（症例報告やケースシリーズ）による
- VI 患者データに基づかない、専門医委員会や専門家個人の見解

【口腔外科】

【歯肉骨膜形成術（GPP）】

【CQ1】：口唇裂・口蓋裂患者の初回口唇形成術時に、咬合形成のために歯肉骨膜形成術（Gingivoperiosteoplasty, GPP）は推奨できるか？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂患者の初回口唇形成術時に術前顎矯正治療と歯肉骨膜形成術（Gingivoperiosteoplasty, GPP）を行った患者は、顎裂部に骨架橋形成が見られ、二次的顎裂部骨移植術を回避する症例を認めた（エビデンスレベルIV b）。しかし、GPP 施行患者では、前歯部の反対咬合および上顎骨の劣成長を認めることがある（エビデンスレベルIV b）。長期経過観察を行った報告が少なく、今後のデータの蓄積が必要である。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
① 骨架橋形成	L	P
② 顎発育	L	N
③ 咬合形成	L	N
④ 二次的骨移植術の回避率	L	U
⑤ 矯正治療の必要性	L	P
⑥ 入院回数	L	U
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H:高い, M:中, L:低い, VL:きわめて低い

【推奨度の分類】 PP : 推奨する (positive な強い推奨), P : 推奨してよい (positive な弱い推奨), N : 推奨しない方がよい (negative な弱い推奨), NN : 推奨しない (negative な強い推奨), U : 判断不能

【背景と目的】

歯肉骨膜形成術（Gingivoperiosteoplasty, GPP）が、唇顎口蓋裂患者の骨架橋の形成ならびに顎発育、咬合歯列形態の状態、二次的顎裂部骨移植術の回避などについて効果的であるか否かについて、適

切なガイドラインが必要である。

【概説】

歯肉骨膜形成術 (Gingivoperiosteoplasty, GPP) は、PNAM 装置や Latham 装置などによる術前顎矯正治療によって狭小された顎裂部に対して初回口唇形成術時に行われ、上顎骨の歯列弓を早期から獲得することを目的としている^{1,2)}。

GPP 施行によって骨架橋は 41%から 80%の割合で形成されたと報告されているが、一方、27%から 59%の割合で二次的顎裂部骨移植術が必要になったと述べられている。

顎発育については、Latham 装置による術前顎矯正治療後に GPP を施行した群では、GPP 非施行群に比べて上顎骨の劣成長を認め、特に、前歯部と臼歯部の交叉咬合の割合が高い傾向が示された報告が見られた。また、Henkel らは 237 名の唇顎口蓋裂症例について側方頭部 X 線規格写真と石膏模型を GPP 施行群と非施行群で比較した結果、片側性唇顎口蓋裂 42%，両側性唇顎口蓋裂で 40%が開咬を生じ、顎顔面発育に良い影響を与えたと報告している。一方、Renkielska らは、片側性唇顎裂患者で早期に反対咬合を呈した症例を認めたが、歯科矯正治療で改善できる程度であったと記載している。

【今後の課題】

歯肉骨膜形成術 (Gingivoperiosteoplasty, GPP) を行うには、術前の顎矯正治療が必要であるが、Latham 装置、PNAM (Pre-NasoAlveolarMolding) 装置などの矯正装置が顎発育に影響を与える可能性も否定できない。

現状では、症例や施設ごとの状況に応じて術前の顎矯正治療や歯肉骨膜形成術が行われ、後ろ向き研究コホート研究が多数を占めており、今後は長期経過観察を行った前向き研究に期待したい。

【文献】

- 1) Millard DR Jr, Latham RA: Improved primary surgical and dental treatment of cleft. Plast Reconstr Surg. 86:856-871. 1990. [V]
- 2) Santago PE, Grayson BH, Cutting CB, et al: Reduced need for alveolar bone grafting by presurgical orthopedics and primary gingivoperiosteoplasty. Cleft Palate craniofac J- 35: 77-88-, 1998. [V]
- 3) Hsieh YJ, Liao YF, Shetty A: Predictors of poor dental arch relationship in young children with unilateral cleft lip and palate., Clin Oral Investig. 16(4):1261-6,

2012

- 4) Hsieh CH, Ko EW, Chen PK, Huang CS: The effect of gingivoperiosteoplasty on facial growth in patients with complete unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.*— 47(5):439–46, 2010.
- 5) Power SM, Matic DB:Gingivoperiosteoplasty following alveolar molding with a Latham appliance versus secondary bone grafting: the effects on bone production and midfacial growth in patients with bilateral clefts., *Plast Reconstr Surg.*— 124(2):573–82, 2009.
- 6) Sato Y, Grayson BH, Garfinkle JS, Barillas I, Maki K, Cutting CB, Success rate of gingivoperiosteoplasty with and without secondary bone grafts compared with secondary alveolar bone grafts alone., *Plast Reconstr Surg.* 121(4):1356–67, 2008.
- 7) Sato Y, Grayson BH, Garfinkle JS, Barillas I, Maki K, Cutting CB, Success rate of gingivoperiosteoplasty with and without secondary bone grafts compared with secondary alveolar bone grafts alone., *Plast Reconstr Surg.* 121(4):1356–67, 2008.
- 8) Matic DB, Power SM: Evaluating the success of gingivoperiosteoplasty versus secondary bone grafting in patients with unilateral clefts. *Plast Reconstr* 121(4):1343–53, 2008.
- 9) Berkowitz S, Mejia M, Bystrik A: A comparison of the effects of the Latham-Millard procedure with those of a conservative treatment approach for dental occlusion and facial aesthetics in unilateral and bilateral complete cleft lip and palate: part I. *Dental occlusion.*, *Plast Reconstr Surg* 113(1):1–18, 2004.
- 10) Millard DR, Latham R, Huifen X, Spiro S, Morovic C: Cleft lip and palate treated by presurgical orthopedics, gingivoperiosteoplasty, and lip adhesion (POPLA) compared with previous lip adhesion method: a preliminary study of serial dental casts. *Plast Reconstr Surg* 103(6):1630–44, 1999.
- 11) Henkel KO, Gundlach KK: Analysis of primary gingivoperiosteoplasty in alveolar cleft repair. Part I: Facial growth. *J Craniomaxillofac Surg* 25(5):266–9., 1997.
- 12) Matic CB, Power SM: The effects of gingivoperisoteoplasty following alveolar molding with a pin-retained Latham appliance versus secondary bone grafting on midfacial growth in patients with unilateral cleft., *Plast Reconstr Surg* 122:863–870, 2008.

- 13) Torikai K, Hirakawa T, Kijima T, Oomura S, Yamamoto M, Naganishi H: Primary alveolar bone grafting and gingivoperiosteoplasty or gingivomucoperioseal flap at the time of 1-stage repair of unilateral cleft lip and palate., Journal of Craniofacial Surgery 20 (Supple2): 1729–1732, 2009.
- 14) Wojtaszek-Slominska A, Renkielska A, Dobke M, Gosman A, Slominski W: Orthodontic characteristics of maxillary arch deficiency on 5-year-old patients undergoing unilateral cleft lip and palate repair with and without early gingivoplasty. Journal of Cranio-Maxillofacial Surgery 38:155–159, 2010.
- 15) Renkielska A, Wajtaszek-Slomiska A, Dobke M: Early cleft lip repair in children with unilateral complete cleft lip and palate. Annals of Plastic Surgery 54(6), 5995–597, 2005.

【エビデンスレベル (GLGL ver. 4)】

- I システマティック・レビュー/ メタ・アナリシス
- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による
- IV 分析疫学的研究 (コホート研究や症例対象研究による)
- V 記述研究 (症例報告やケースシリーズ) による
- VI 患者データに基づかない、専門医委員会や専門家個人の見解

【顎裂部二次骨移植の時期】

【CQ2】顎裂部二次骨移植において、永久前歯萌出時期の手術施行は、永久犬歯萌出時期の施行よりも、効果があるか？

【推奨プロファイル】

顎裂部二次骨移植において永久前歯萌出時期の手術では顎裂に隣接する側切歯の萌出誘導が得られる（エビデンスレベル）点では、永久犬歯萌出時期の手術よりも効果があると言えるが、顎発育への影響について優劣は言えない。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①骨架橋形成	L	P
②隣接歯の骨性支持	L	P
③隣接犬歯の萌出誘導	L	P
④隣接側切歯の萌出誘導	L	P
⑤上下歯列弓関係・咬合関係	L	U
⑥上顎の発育	L	U
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】H：高い，M：中，L：低い，VL：きわめて低い

【推奨度の分類】PP：推奨する（positiveな強い推奨），P：推奨してよい（positiveな弱い推奨），N：推奨しない方がよい（negativeな弱い推奨），NN：推奨しない（negativeな強い推奨），U：判断不能

【背景と目的】

顎裂部二次骨移植は、唇顎裂、唇顎口蓋裂の包括治療において必須の治療手法として広く行われている。しかし、永久犬歯萌出期と永久前歯萌出期とどちらの時期に行うことがより効果的であるか否かについては明かではなく適切なガイドラインが必要である。

【概説】

顎裂部二次的骨移植術は Boyne ら¹⁾による報告以来、顎裂に隣接する永久歯の萌出誘導を可能とすることから、口唇裂・口蓋裂患者に対する歯科矯正治療の一環として、今や必須の治療手段となっている。本邦では 1979 年頃から行われ始め²⁾、狭窄した上顎歯列の拡大後に顎裂に隣接する犬歯の萌出誘導をはかることを目的に施行されてきた。2008 年時の日本口腔外科学会編集「口唇裂・口蓋裂診療ガイドライン」³⁾では、乳歯列期に行った場合、上顎骨の成長抑制が懸念されるため、永久前歯萌出後で、8 歳頃から 11 歳頃までの患側犬歯萌出前に行う二次的顎裂部骨移植が推奨されるとされた。犬歯萌出前の顎裂部骨移植では、犬歯の位置異常や埋伏リスクを下げる⁴⁾、自然萌出を促す⁵⁾、萌出後に良好な歯槽骨支持を得ることができる⁶⁾、犬歯歯胚発育を促す⁷⁾、術後には矯正治療により良好な歯槽弓関係を得ることができる⁸⁾などその有効性が認められている。

近年、顎発育を考慮した口唇裂・口蓋裂一次治療手法の進展により上顎の著しい狭窄が回避され、永久歯萌出期には比較的良好な上顎歯槽弓形態を得ることができるようになった。そこで、犬歯萌出時期を待たずに患側切歯の萌出誘導を目的に施行する施設もみられるようになった。前歯萌出時期の骨移植では、側切歯の架橋骨内への移動を促進する⁹⁾、側切歯の自然萌出を促し、萌出後に良好な歯槽骨支持を得ることができる¹⁰⁾との報告があり、萌出誘導への有効性が認められる。

一方、1960 年代に施行された顎裂部一次骨移植の不良な顎発育成績³⁾や、2~4 歳の乳歯列期の顎裂部骨移植では上顎歯槽弓の collapse を招くとの報告¹¹⁾から、上顎発育への影響が想定される。前歯萌出時の骨移植では犬歯萌出時と比べて、犬歯部幅径の成長が抑制される¹²⁾との報告があるが対象数が小さすぎる。また、唇顎裂症例では上顎の発育は抑制されない¹³⁾との報告がある。しかし、唇顎口蓋裂症例を十分な根拠をもって検討した報告は見当たらない。したがって、前歯萌出時の顎裂部骨移植では、犬歯萌出時と比べて上顎発育を障害するとは言えない。

【文献】

- 1) Boyne PJ & Sands NR. Secondary bone grafting of residual alveolar and palatal clefts. J Oral Surg. 30:87-92, 1972
- 2) 越後成志、猪狩俊郎、他. 顎裂部に対する自家腸骨海綿骨細片移植-第 1 報 手術手技について-. 日口外誌 32:1442-1446, 1986
- 3) 日本口腔外科学会「口唇裂・口蓋裂診療ガイドライン」策定ワーキンググループ. 口唇裂・口蓋裂診療ガイドライン. p34, 2008
- 4) Canine eruption in patients with complete cleft lip and palate. Russell KA, McLeod CE.

Cleft Palate Craniofac J. 45:73–80, 2008 (横断 IVb)

- 5) Oberoi S, Gill P, Chigurupati R, Hoffman WY, Hatcher DC, Vargervik K. Three-dimensional assessment of the eruption path of the canine in individuals with bone-grafted alveolar clefts using cone beam computed tomography. Cleft Palate Craniofac J. 47:507–512, 2010 (症例集積 V)
- 6) Simon Boyarskiy, Hyung Jun Choi, Kitae Park. Evaluation of Alveolar Bone Support of the Permanent Canine in Cleft and Noncleft Patients. Cleft Palate Craniofac J. 43(6):678–82, 2006 (横断 IVb)
- 7) Park HM, Han DH, Baek SH. Comparison of tooth development stage of the maxillary anterior teeth before and after secondary alveolar bone graft: Unilateral cleft lip and alveolus vs unilateral cleft lip and palate. Angle Orthod. 84:989–994, 2014 (対照有りコホート IVa)
- 8) de Ruiter A, van der Bilt A, Meijer G, Koole R. Orthodontic treatment results following grafting autologous mandibular bone to the alveolar cleft in patients with a complete unilateral cleft. Cleft Palate Craniofac J. 47:35–42, 2010 (術前後の比較, 対照無し IVb or V)
- 9) Tomomichi Ozawa, Susumu Omura, Eiji Fukuyama, Yoshiro Matsui, Katuyuki Torikai, Kiyohide Fujita. Factors Influencing Secondary Alveolar Bone Grafting in Cleft Lip and Palate Patients: Prospective Analysis Using CT Image Analyzer. Cleft Palate Craniofac J. 42:679–686, 2007 (症例集積 V)
- 10) Mikoya T, Inoue N, Matsuzawa Y, Totsuka Y, Kajii TS, Hirosawa T. Monocortical mandibular bone grafting for reconstruction of alveolar cleft. Cleft Palate Craniofac J. 47:454–468, 2010 (対照無しコホート IVa)
- 11) Fudalej P, Janiszewska-Olszowska J, Wedrychowska-Szulc B, Katsaros C. Early alveolar bone grafting has a negative effect on maxillary dental arch dimensions of pre-school children with complete unilateral cleft lip and palate. Orthod Craniofac Res. 14:51–57, 2011 (横断, 対象選択良好 IVb)
- 12) 松井 桂子, 越後 成志, 君塚 哲, 福井 功政, 高橋 正任, 森川 秀広, 千葉 雅俊, 伊藤 正健. 上顎骨成長を考慮した顎裂部への骨移植時期の検討 骨移植症例と非骨移植症例の比較. 日本口腔外科学会雑誌. 51:233–239, 2005 (対照有りコホート, 対象少なすぎ IVa)

- 13) 山崎 安晴, 中久木 康一, 石渡 靖夫, 濑崎 晃一郎, 内沼 栄樹. 唇顎裂症例に対する早期顎裂部骨移植の臨床的評価. 日本口腔外科学会雑誌. 56:305-312, 2010 (横断, 対象少ない IVb)

【エビデンスレベル (GLGL ver. 4)】

- I システマティック・レビュー/ RCT のメタ・アナリシス
- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による
- IVa 分析疫学的研究 (コホート研究)
- IVb 分析疫学的研究 (症例対照研究, 横断研究)
- V 記述研究 (症例報告やケースシリーズ) による
- VI 患者データに基づかない, 専門医委員会や専門家個人の見解

【上顎骨延長術と鼻咽腔閉鎖機能】

【CQ 3】 口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能に、上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術よりも効果があるか？

【推奨プロファイル】

口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能に上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術よりも効果があるとはいえない。（しかし、移動量の多い症例では有効性が示唆される）

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
① 鼻咽腔閉鎖機能	L	U
② 構音機能	L	U
③ 審美	L	U
④ 心理	L	U
⑤ 咀嚼機能、咬合回復	L	P
⑥ 移動量	H	PP
⑦ 後戻り	L	P
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H:高い, M:中, L:低い, VL:きわめて低い

【推奨度の分類】 PP: 推奨する (positive な強い推奨), P: 推奨してよい (positive な弱い推奨), N: 推奨しない方がよい (negative な弱い推奨), NN: 推奨しない (negative な強い推奨), U: 判断不能

【背景と目的】

口唇裂口蓋裂患者における上顎劣成長の影響は、口蓋裂一次手術によるものが大きいとされているが、この上顎劣成長をいかに少なくかつ鼻咽腔閉鎖機能に対し良好な結果をもたらす術式の検討がなされている。しかしながら、未だ解決はされておらず、上顎劣成長に対し、治療が必要な症例は散見される。上顎の前方発育障害を認める口唇裂口蓋裂患者に対して上顎骨の前方移動を行う際に、術後の鼻咽腔閉鎖機能不全を予防する上で上顎骨延長術は一期的上顎骨移動術に比較して効果があるか否かについて適切なガイドラインが必要である。

【概説】

①後戻り、鼻咽腔閉鎖機能(VPF)、開鼻声

口唇裂口蓋裂患者の VPF の術後変化に関して、Ko ら¹⁾は RED システム使用患者においてセファロ分析で評価し術後 1 年と術直後での骨格的後戻りおよび VPF の変化を追ったところ、16 例の患者で-1.10 から-1.92mm の後戻りを生じ、開鼻声は 21 例中 3 例(14.2%)で悪化した。一方で、Haapanen ら²⁾は一期的上顎骨切り術施行例(n=15)の報告で、開鼻声の悪化は 27%の患者で認めており早期の咽頭弁形成術を考慮すべきとされる。いずれも症例数は少ないものの統計学的な有意差を認めている。

さらに、2006 年に Kumar ら³⁾は、上顎骨延長術と一期的上顎骨切り術症例の後戻りと VPF を比較検討したところ、上顎移動量はいずれも 10mm 以上で術後 1 年の頭部 X 線規格写真評価(SNA-SNB 間距離)にて後戻りを認めたことを報告しているが、その詳細をみると上顎骨延長術症例(n=20)は 15%であったのに対し、一期的上顎骨切り術症例(n=20)は 63%であったとされる。VPF 悪化症例においては上顎骨延長術症例で 45%，上顎骨切り術症例では 82%に認めたとされる。

以上のことから、上顎骨延長術は一期的上顎骨切り術と比較し、現段階では症例によっては有効であると考えられる⁴⁻⁶⁾。一方で、今後の前向き研究と検討症例数の増加が期待される。

②言語評価時期、評価方法

発音・言語に関しては術前後の VPF 機能検査と実際の開鼻声が最も重要であると考えられている。前述の Ko¹⁾、Kumar³⁾らはともに術後 1 年で VPF 評価し前者は上顎骨延長術前後で、後者は上顎骨延長術と一期的上顎骨切り術間で統計学的有意差を認めたとされる。Chancareonsook ら¹⁰⁾は術後 3 か月時点で上顎骨延長術と一期的上顎骨切り術症例の開鼻声、VPF、nasometer 評価を比較検討しているが、術後早期の評価ではいずれも統計学的有意差を認めていない。

検査時期に関しては Chua ら¹¹⁾は上顎骨延長術症例と一期的上顎骨切り術後 4 か月(中間値)と術後 17 か月(中間値)での開鼻声、VPF 機能検査で有意差は認めないと報告もある。他方で Trindade ら¹²⁾は一期的上顎骨切り術症例のみで術後 45 日、術後 9 か月ともに術前と比較し nasometry が悪化していたとの報告もある。また 3DCT での鼻咽頭腔距離を評価する方法も 2015 年に Chen¹⁰⁾にて報告され口蓋帆拳筋面と FH 平面および軟口蓋位置との角度を基準に評価したところ VPF 不全群は VPF 正常群と比較し術後の角度が大きかったとしたが、評価項目としては検討の予知が残る。

評価方法に関しては、Phillips ら¹¹⁾は言語聴覚士による開鼻声評価、内視鏡検査は有用であるとし、手術の術式に関しては言語評価との有意差を認めなかつたとされる。頭部 X 線規格写真による術前後の評価も有用であるとされ¹²⁾、今後もさらに評価方法および評価時期については検討が必要である。

以上のように評価方法としては、言語評価(開鼻声)と内視鏡評価で術前から開鼻声や鼻咽腔閉鎖機

能が悪い患者においては、術後のそれらが悪化するリスク因子として評価されている論文が多く、評価方法としては、本邦でも言語聴覚士が早期に介入している施設が多いが、開鼻声の評価、nasometer、内視鏡検査および頭部X線規格写真は術前後での評価が可能な限り定期的に行われるのが今のところ望ましい。

③咽頭弁形成術のリスク因子

一期的上顎骨切り術後に咽頭弁形成術を施行し開鼻声評価を行った報告では、Maegawa ら¹³⁾は40例で検討し10mm以上の前方移動が開鼻声のリスク因子であるとした。2011年にはMcComb らは、多変量解析を行い一期的上顎骨切り術後に咽頭弁形成術が必要であった患者のリスク因子を検討している。ここでは裂型、口蓋形成術式や上顎移動量はリスク因子とは言えず、開鼻声・鼻咽腔閉鎖機能不全・短い軟口蓋・軟口蓋の厚さが薄い症例において統計学的に有意差を認めリスク因子であると報告された^{14, 15)}。

本報告は1施設のみの報告ではあるが、単変量解析と多変量解析を用いており信用性はやや高いものと考えられる。

【結論】

いずれも分析疫学研究レベルでは、上顎骨延長術症例は骨格的後戻りのリスクは一期的上顎骨切り術よりも少なく、VPF悪化のリスクも少ないとされる。一方、ランダム化比較試験やシステムティックレビューでは各施設による評価方法の違いに関する言及があり、評価方法の統一化が期待されている^{16, 17)}。以上のこと踏まえると、口唇裂口蓋裂患者でVPF機能不全や開鼻声がある患者では、上顎骨延長術はエビデンスレベルは低いものの、現段階では症例によって有効であると言える。

また術後VPF悪化による咽頭弁形成術の必要性に関して、正確な評価時期は未だ不明である。これまでの報告を踏まえると術後1年程度は各種評価フォローし検討を行う必要があると言える^{18, 19)}。

【エビデンスレベル（GLGL ver. 4）】

- I システマティック・レビュー/ メタ・アナリシス
- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による
- IV 分析疫学的研究（コホート研究や症例対象研究による）
- V 記述研究（症例報告やケースシリーズ）による
- VI 患者データに基づかない、専門医委員会や専門家個人の見解

【文献】

- 1) Ko EW, Figueroa AA, Guvette TW, Polley JW, Law WR. Velopharyngeal changes after maxillary advancement in cleft patients with distraction osteogenesis using a rigid external distraction device: a 1-year cephalometric follow-up. *Craniofac Surg* 10(4), 312–20; discussion 321–2(1999) PMID: 10686880 (IV)
- 2) Haapanen ML, Kalland M, Heliövaara A, Hukki J, Ranta R. Velopharyngeal function in cleft patients undergoing maxillary advancement. *Folia Phoniatr Logop* 49(1), 42–7(1997) PMID: 9097494 (IV)
- 3) Kumar A, Gabbay JS, Nikjoo R, Heller JB, O'Hara CM, Sisodia M, Garri JI, Wilson LS, Kawamoto HK Jr, Bradley JP. Improved outcomes in cleft patients with severe maxillary deficiency after LeFort I internal distraction. *Plast Reconstr Surg* 15;117(5), 1449–509(2006) PMID: 16641719 (IV)
- 4) Cheung LK, Chua HD. A meta-analysis of cleft maxillary osteotomy and distraction osteogenesis. *Int J Oral Maxillofac Surg* 35, 14–24(2006) PMID: 16154316 (I)
- 5) Harada K, Ishii Y, Ishii M, Imaizumi H, Mibu M, Omura K: Effect of maxillary distraction osteogenesis on velopharyngeal function: a pilot study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 93, 538–543(2002) PMID: 12075202 (V)
- 6) 代田達夫, 宮崎芳和, 歌門美枝, 鈴木規子, 新谷 悟, 横 宏太郎, 中村 篤, 三次正春: 上下顎骨延長を行った両側性唇顎口蓋裂の1例. *日口蓋誌* 31 : 319–328(2006) (V)
- 7) Chanchareonsook N, Whitehill TL, Samman N. Speech outcome and velopharyngeal function in cleft palate: comparison of Le Fort I maxillary osteotomy and distraction osteogenesis—early results. *Cleft Palate Craniofac J* 44(1), 23–32(2007) PMID: 17214524 (IV)
- 8) Chua HD, Whitehill TL, Samman N, Cheung LK. Maxillary distraction versus orthognathic surgery in cleft lip palate patients. *Int J Oral Maxillofac Surg* 39(7), 633–40(2010) PMID: 20413269 (IV)
- 9) Trindade IE, Yamashita RP, Suguimoto RM, Mazzottini R, Trindade AS Jr. Effects of orthognathic surgery on speech and breathing of subjects with cleft lip and palate: acoustic and aerodynamic assessment. *Cleft Palate Craniofac J* 40(1), 54–64(2003) PMID: 12498606 (IV)

- 10) Chen PK, Por YC, Liou EJ, Chang FC. The effect of cleft maxillary distraction osteogenesis on the levator veli palatini and velopharyngeal function. *J Craniofac Surg.* 26(3), 687–90(2015) PMID: 25974774 (IV)
- 11) Phillips JH, Klaiman P, Delorey R, MacDonald DB. Predictors of velopharyngeal insufficiency in cleft palate orthognathic surgery. *Plast Reconstr Surg* 115(3), 681–6(2005) PMID 15731664 (IV)
- 12) Heliövaara A, Ranta R, Hukki J, Haapanen ML. Cephalometric pharyngeal changes after Le Fort I osteotomy in patients with unilateral cleft lip and palate. *Acta Odontol Scand* 60(3), 141–5(2002) PMID: 12166906 (IV)
- 13) Maegawa J, Sells RK, David DJ. Speech changes after maxillary advancement in 40 cleft lip and palate patients. *J Craniofac Surg* 9(2), 177–82, discussion 183–4(1998) PMID: 9586548 (IV)
- 14) McComb RW, Marrinan EM, Nuss RC, Labrie RA, Mulliken JB, Padwa BL. Predictors of velopharyngeal insufficiency after Le Fort I maxillary advancement in patients with cleft palate. *J Oral Maxillofac Surg* 69(8), 2226–32(2011) PMID: 21783004 (IV)
- 15) Maegawa J, Sells RK, David DJ. Pharyngoplasty in patients with cleft lip and palate after maxillary advancement. *J Craniofac Surg* 9(4), 330–5(1998) PMID: 9780927 (V)
- 16) Austin SL, Mattick CR, Waterhouse PJ. Distraction osteogenesis versus orthognathic surgery for treatment of maxillary hypoplasia in cleft lip and palate patients: a systematic review. *Orthod Craniofac Res* 18(2), 96–108(2015) PMID: 25545424 (IV)
- 17) Kloukos D, Fudaleji P, Sequeira-Byron P, Katsaros C. Maxillary distraction osteogenesis versus orthognathic surgery for cleft lip and palate patients. *Cochrane Database Syst Rev* 30(9) CD010403(2016) PMID: 27689965 (I)
- 18) Scolozzi P. Distraction osteogenesis in the management of severe maxillary hypoplasia in cleft lip and palate patients. *J Craniofac Surg* 19(5), 1199–214(2008) PMID: 18812842 (I)
- 19) Chanchareonsook N, Samman N, Whitehill TL. The effect of cranio-maxillofacial osteotomies and distraction osteogenesis on speech and velopharyngeal status: a critical review. *Cleft Palate Craniofac J* 43(4), 477–87(2006) PMID: 16854207 (I)

【補綴歯科】

【補綴装置と設計】

【CQ 1】 口唇裂・口蓋裂の補綴治療において、支台歯の1次固定によるブリッジは、2次固定の可撤性義歯よりも有効か？

【推奨プロファイル】

口唇裂口蓋裂の補綴治療において、支台歯の1次固定によるブリッジは、可撤性義歯よりも有効で推奨できる。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①咀嚼機能、咬合の回復	L	P
②発音機能	L	P
③審美性	L	P
④快適性	L	P
⑤歯列弓形態の安定	L	P
⑥対応性、修理	L	N
⑦耐久性	L	P
⑧歯周組織への影響	L	P
⑨害、歯のダメージ、苦痛	L	U
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、P：推奨してよい（positive な弱い推奨）

N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、NN：推奨しない（negative な強い推奨）

U：判断不能

【背景と目的】

口唇裂口蓋裂への固定性ブリッジによる補綴治療の有効性ならびにその長期予後の観点から、補綴処置に関する適切なガイドラインが必要である。

【概説】

口唇裂・口蓋裂の治療では、外科的治療、歯科矯正治療がなされた後、最終処置として補綴治療が行われる。その中で、不適切な補綴治療は、歯のみならず顎骨の後戻りが生じ、結果として長期的な安定を得にくくなると考えられる。適切な骨移植が行われ顎裂部の欠損歯数が少ない場合は、固定性ブリッジによる補綴治療が行われ、顎裂部に瘻孔が残遺するなどの軟組織欠損への補綴治療が必要な場合は、固定性のブリッジとオプチュレータの組み合わせやテレスコープ冠を用いた可撤性義歯による補綴治療が選択される¹⁾。

1次固定した方が経過は良いかということに関する科学的に比較分析した研究はないが、顎裂を挟んだ支台歯の本数の違いによる最大咬合力の変化をもとにブリッジの支台歯数を検討した報告では、顎裂を挟んで2本ずつの支台歯にてブリッジを設計することが推奨されており²⁾、振動解析であるモード解析を利用して顎裂部への骨移植前後の振動様相を検討した報告では、骨移植により、顎裂を挟んだ支台歯の振動の位相のずれが消失し、骨移植を行っていない症例では、ピンレッジや接着ブリッジなどは推奨されないと述べられている³⁾。

他の症例報告では、2次固定の可撤性義歯を装着することで口腔清掃が容易になると報告されているが⁴⁾、その一方で、テレスコープ冠を用いた可撤性義歯の支台歯のう蝕の再治療として固定性ブリッジを装着した報告もある⁵⁾。

後戻りについては、固定性ブリッジによる補綴処置後の経過観察の中で、後戻りを認めた報告はなく、適切な咬合関係や口腔衛生状態が保たれていることで、長期的な経過を得られたと報告されていた。客観的な機能評価はされていないが、いずれも審美性や機能性の回復、装着感について報告されていた。審美性の回復を目的とし、咬合挙上を行っている報告もあった。臨床的には固定性ブリッジ、テレスコープ冠のいずれも支台歯を切削する必要はある。

以上の点を踏まえ、患者の要望、心理面、身体・社会的状況等に合わせ、総合的な判断が必要となるが、支台歯の歯周状態・清掃性・咬合・欠損範囲等を勘案し、Brによる顎裂を挟む各セグメントの1次固定処置を推奨する。

なお、矯正治療により臼歯部の側方拡大を行った症例では、歯列の後戻り、咬合の変化を生じやすいため、定期的な経過観察を要する。

【文献】

- 1) 金崎彩子、乙丸貴史、隅田由香ら：最終補綴装置を装着した口唇口蓋裂患者の長期経過。日口蓋誌

- 40: 233–242, 2015. (V)
- 2) Suzuki R, Taniguchi H, Ohyama T: Prosthodontics abutment in four patients with unilateral cleft lip and palate. *Cleft Palate–Craniofacial Journal* 32: 442–447, 1995. (IV)
 - 3) Iida T, Mukohyama H, Inoie T et al: Modal analysis of the maxillary dentition in cleft lip and palate patients before and after bone grafting. *J Med Dent Sci* 48: 87–94, 2001. (IV)
 - 4) Okada W, Fukui T, Saito T, et al: Interdisciplinary treatment of an adult with complete bilateral cleft lip and palate. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 141: 149–158, 2012. (V)
 - 5) Ramstad T: Long-term Prosthodontics follow-up and revisional treatment of patients with cleft lip and palate: case presentation. *Int J Prosthodont* 14: 417–422, 2001. (V)

【エビデンスレベル (GLGL ver. 4)】

- I システマティック・レビュー/ メタ・アナリシス
- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による
- IV 分析疫学的研究 (コホート研究や症例対象研究による)
- V 記述研究 (症例報告やケースシリーズ) による
- VI 患者データに基づかない、専門医委員会や専門家個人の見解

【外科処置の導入】

【CQ2】： 口唇裂・口蓋裂の顎裂付近の転位した矮小歯に対して、根面キャップはサブマージドルートよりも有効か？

【推奨プロファイル】

顎裂付近に存在する矮小歯に対し、抜去する必要のない場合にはサブマージドルートの方が二次カリエス、歯周疾患の罹患、また口腔衛生上のメインテナンスの必要がないため有効と思われる。ただし保存する必要性がない場合は抜去してよいと思われる。

アウトカム	エビデンスの質	評価(有効性等)
①顎堤・歯槽形態の保持	L	P
②咀嚼機能、咬合の回復	L	U
③審美性	L	U
④歯のダメージ	L	P
⑤歯周組織への影響	L	P
⑥耐久性	L	U
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する (positive な強い推奨)、 P：推奨してよい (positive な弱い推奨)、 N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨)、 NN：推奨しない (negative な強い推奨)、 U：判断不能

【概説】

顎裂付近に存在する矮小歯に関しては、顎裂部に対する必須の治療となっている顎裂骨移植術時に、移植床形成の障害となる場合は積極的に抜去すべきであり、確実な顎裂閉鎖と骨架橋形成による上顎骨連続性の獲得を優先し、以後の咬合形成治療に利便性を持たせるべきである。

しかし、顎裂骨移植時に支障を来さない場合には顎堤の形態保持のためにはサブマージドルートは有効であると思われる。その際、生活歯のまま埋伏可能であり、外科施術費用のみで経済的である。ただし、サブマージドルートは歯槽および顎堤形態保持に寄与すると言われているが、長期的な経過での生存率は懐疑的な報告もある。よって、サブマージドルートの経過を勘案し、歯槽形態に影響を及ぼさない位置にある場合は、サブマージドルートの外科的侵襲より軽度な抜歯処置も考慮すべきである。

根面キャップは装着までに、歯髓処置の必要性が生じ、修復物作製等、複数回の診療、加えて材料費等の料金が発生する。さらにその歯自体の二次カリエスや歯周疾患の進行により、保存不可能な状態に陥ることもありうるため推奨しない。

【文献】

- 1) 大山喬史： 口唇裂口蓋裂の補綴治療. 大山喬史編：転位歯の外科処置 91–96, 医歯薬出版株式会社：東京. 1997
- 2) Uday G, Chandar B, Shilakshmi J, et.al. :A case of dentinogenesis imperfecta treated with submerged root technique. *J.Clin Diag Res*, 9(9), 04–05, 2015
- 3) Sunyoung C., In-Sung Y., Sung-Hum K., et al.: A root submergence technique for pontic site development in fixed dental prostheses in the maxillary anterior esthetic zone. *J.Period Imp Science*, 45 (4), 152–155, 2015
- 4) Alper C., Mamta M., Hanae S.:Pontic site development with a root submergence technique for a screw-retained prosthesis in the anterior maxilla. *J.Prosthet Dent.* 110(6), 337–343, 2013
- 5) Shankar YR, Srinivas K, Surapaneni H, et.al.:Prosthodontic treatment using vital and non vital submerged roots–two case reports. *J.Clin Diag Res*. 7 (10) : 2396–2399, 2013.
- 6) Wong KM, Chneh CM, Ang CW.:Modified root submergence technique for multiple implant-supported maxillary anterior restorations in a patient with thin gingival biotype :A clinical report. *J.Prosthet Dent.* 107 (6), 349–352, 2012
- 7) Nagaoka E, Okuno Y. :A case Treated with overdenture utilizing a root–submergence procedure and its follow-up evaluation. *J.Osaka Univ.Dent Sch*, 21, 233–244, 1981
- 8) Sharma A, Oberoi SS, Saxena S. :Submergence of vital roots for the preservation of residual ridge : A clinical study. *O r a l Health Prev Den.* 10(3), 259–265. 2012.
- 9) Pameshwar Hiremath H, S Doshi Y, Siddayya Kulkarni S, et.al. :Endodontic treatment

- in submerged roots: A case report. J.Clin Diag Res Dent Clin Dent Prospects. 4(2), 64–68, 2010
- 10) Kalk W, Denissen HW, Kayser AF. :Reevaluation of submerged vital roots. J Am Dent Assoc. 107(3), 429–432, 1983
- 11) MacEntee MI, Goldstein BM, Price C. :Submucosal root retention. A two-year clinical observation. J Prosthet Dent. 47 (5) , 483–487, 1982
- 12) Cassey DM, Lauciello FR. :A review of the submerged-root concept. J Prosthet Dent. 43 (2) , 128–132, 1980
- 13) Masterson MP. :Retention of vital submerged roots under complete dentures: Report of 10patients. J Prosthet Dent. 41 (1) , 12–15, 1979
- 14) Cook RT, Hutchens LH, Burkes EJ. :Periodontal osseous defects associated with vitally submerged roots. J.Periodontol, 48(5), 249–260, 1977
- 15) Guyer SE. :Selectively retained vital roots for partial support of overdentures: A patient report. J Prosthet Dent. 33 (3) , 258–263, 1975
- 16) 小林琢三：歯槽骨保全のための歯根骨内埋伏法に関する臨床的研究　　一オーバーデンチャー装着後の経過観察一. 岩医大歯誌, 12, 158–169, 1987.

【CQ3】口唇裂・口蓋裂の固定性ブリッジによる補綴治療において、外科治療による欠損部頸堤の回復処置は（行わないよりも）有効か？

【推奨プロファイル】

外科治療による欠損部頸堤の回復処置は有効であり推奨できる。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①咀嚼機能、咬合の回復	M	P
②発音機能	M	P
③審美性	L	P
④快適性（患者の満足度）		
⑤歯列弓形態の安定	H	PP
⑥耐久性		
⑦支台歯・歯周組織への影響	L	P
⑨コスト		
⑩歯のダメージ、苦痛、負担		
推奨度	全体としての判断 断 P	

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、P：推奨してよい（positive な弱い推奨）、N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、NN：推奨しない（negative な強い推奨）、U：判断不能

【背景と目的】

口唇裂・口蓋裂への固定性ブリッジによる補綴治療の有効性ならびにその長期予後の観点から、補綴治

療前に顎裂部へ骨移植を行う必要があるのか否かについて適切なガイドラインが必要である。

【概説】

1972年, Boyne ら¹⁾が顎裂骨移植部への永久歯の萌出誘導あるいは矯正移動が可能となり, 欠損補綴の必要性が少なることを報告して以来, 顎裂部への骨移植は口唇裂・口蓋裂の一貫治療における重要な手術の1つとされている。顎裂部への骨移植は患者の体格や顎裂の骨欠損形態, 歯の萌出状況を考慮して, 8歳頃から11歳頃までの患側犬歯萌出前の時期に行う二次的顎裂部骨移植が推奨されている²⁻⁵⁾。骨移植後, 矯正歯科治療によって永久歯を顎裂部に配列することが標準治療となっているが, 最終的な咬合形態は症例によって多様であり, 顎裂部に対して欠損補綴が必要となる場合もある⁶⁾。このような症例に対しては, 固定性ブリッジによる補綴治療によって咀嚼機能回復, 審美性の改善, あるいは快適性の面で患者の高い満足が得られることが報告されている⁷⁻¹¹⁾。現在までのところ, 固定性ブリッジによる補綴治療に対する顎裂部骨移植の有効性について検討した研究報告は認められない。しかし, 顎裂部骨移植には上顎骨の連続した歯槽堤を形成する, セグメント(歯槽堤)を固定して歯列弓形態を安定させる, 顎裂部に良好な歯槽形態を与えることができる, 鼻口腔瘻を開鎖するなどの利点も有している¹²⁻¹⁵⁾。したがって, 顎裂部に骨移植を行うことによって, 補綴治療による咀嚼機能回復, 審美性の改善, あるいは快適性などの治療効果をより高めることが期待できる^{8, 11)}。

以上から, 口唇裂・口蓋裂に対する顎裂部骨移植による欠損部顎堤の回復処置は推奨できる。

【文献】

- 1) Boyne PJ, Sands NR: Secondary bone grafting of residual alveolar and palatal clefts. J Oral Surg 30: 87-92, 1972. (V)
- 2) El Deeb M, Messer LB, Lehnert MW, Hebda TW, Waite DE: Canine eruption into grafted bone in maxillary alveolar cleft defects. Cleft Palate J 19: 9-6, 1982. (IV)
- 3) Enemark H, Sindet-Pedersen S, Bundgaard M: Long-term results after secondary bone grafting of alveolar clefts. J Oral Maxillofac Surg 45: 913-919, 1987. (III)
- 4) Kalaaji A, Lilja J, Friede H, Elander A: Bone grafting in the mixed and permanent

- dentition in cleft lip and palate patients: long-term results and the role of the surgeons experience. J Craniomaxillofac Surg 24: 29–35, 1996. (III)
- 5) 松井恵子, 越後成志, 君塚 哲, 福井功政, 高橋正任, 森川秀広, 千葉雅俊, 伊藤正健: 上顎骨成長を考慮した顎裂部への骨移植時期の検討 骨移植症例と非骨移植症例の比較. 日口外誌 51 : 233–239, 2005 (III).
- 6) Moore D, McCord JF : Prosthetic dentistry and the unilateral cleft lip and palate patient. The last 30 years. A review of the prosthodontic literature in respect of treatment options. Eur J Prosthodont Restor Dent 12: 70–4, 2004 (I)
- 7) 田中みか子: 固定性ブリッジを用いて前歯部の咬合と審美性を回復した唇顎口蓋裂症例. 補綴誌 48 : 465–468, 2004. (V)
- 8) Pellecchia R, Kang K-H, Hirayama H: Fixed partial denture supported by all-ceramic copings: A clinical report. J Prosthet Dent 92: 220–223, 2004. (V)
- 9) Watanabe I, Kurtz KS, Watanabe E, Yamada M, Yoshida N: Multi-unit fixed partial denture for a bilateral cleft palate patient: a clinical report. J Oral Rehabil 32: 620–622, 2005. (V)
- 10) Tuna SH, Pekkan G Keyf F: A method for positioning the premaxilla during impression making for a patient with bilateral cleft lip and palate: a clinical report. J Prosthet Dent 96: 233–236, 2006. (V)
- 11) Bidra AS: Esthetic and functional rehabilitation of bilateral cleft palate patient with fixed prosthodontic therapy. J Esthet Restor Dent 24: 236–244, 2012. (V)
- 12) Vig KW: Alveolar bone grafts: the surgical/orthodontic management of the cleft maxilla. Ann Acad Med Singapore 28: 721–727, 1999. (I)
- 13) Eppley BL, Sadove AM: Management of alveolar cleft bone grafting-state of the art. Cleft Palate Craniofac J 37: 229–33, 2000. (I)
- 14) Van der Meiji AJ, Baart JA, Prahl-Andersen B, Valk J, Kostense PJ, Tuinzing DB: Bone volume after secondary bone grafting in unilateral and bilateral clefts determined by computed tomography scans. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 92: 136–141, 2001. (IV)
- 15) Horswell BB, Henderson J: Secondary osteoplasty of the alveolar cleft defect. J Oral Maxillofac Surg 61: 1082–1090, 2003. (I)

【インプラント】

【CQ4】口唇裂・口蓋裂の補綴治療において、顎裂部へのシングルインプラントの適用は、残存歯の固定性ブリッジよりも有効か？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂の補綴治療において顎裂部のシングルインプラントの適応は、咀嚼機能、発音、審美性、隣在歯の保護を重要視する場合においては推奨されるが、矯正治療後の歯列の維持安定では不利である。特に口蓋裂術後患者では、メタルフレームのような強固な保定装置と併用し、後戻りによる咬合崩壊を防ぐ必要がある。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①維持安定	VL	P
②咀嚼機能、咬合回復	VL	P
③発音	VL	P
④審美性	L	P
⑤後戻り	L	N
⑥歯のダメージ	L	P
⑦対応性、修理	L	P
⑧耐久性	L	N
⑨支台歯・歯周組織への負担	VL	P
⑩治療期間	-	
⑪費用	L	U
全体としての判断： P		

【エビデンスの質】 H : 高い, M : 中, L : 低い, VL : きわめて低い

【推奨度の分類】 PP : 推奨する (positive な強い推奨), P : 推奨してよい (positive な弱い推奨)

N : 推奨しない方がよい (negative な弱い推奨), NN : 推奨しない (negative な強い推奨) U : 判断不能

【背景と目的】顎裂部には歯の先天欠損や顎堤の形態不良、鼻口腔瘻の残存等の問題を伴っていることが多い。

従来、顎裂部の欠損歯に対する補綴治療として顎裂をはさんで 2 歯ずつの支台歯で設計した固定性ブリッジによる補綴は、補綴装置の修理は必要であるが、矯正治療後の歯列の長期維持安定という観点から有利だと報告されてきたが¹⁾、シングルインプラントによる欠損補綴が、従来の固定性ブリッジに比べて有効かどうかは明確でない。本 CQ ではその有効性を検討する事を目的とする。

【概説】 顎裂の存在する口唇裂・口蓋裂患者においては、側切歯が先天的に欠損していることが多く、欠損歯に対して補綴治療が必要となる場合がある。これまでに、唇顎口蓋裂患者の欠損補綴治療として、インプラントによる補綴が固定性ブリッジによる補綴よりも有効かどうかを比較検討した前向き研究はなかった。過去に横断研究が 5 編あり、その他はすべて症例報告であった。

インプラントの維持安定に関しては、すべて症例報告であるが、残存率 86.7%～95.8%と報告されており、報告によって数値にばらつきがあった²⁻⁴⁾。成功するための要件として、顎裂部を含めた水平的、垂直的に歯列弓が整っていること、インプラントの長さが少なくとも 12 mm 以上あること、ベニアグラフト部にインプラント体が埋入されていないこと、3.7 ml 以上の十分な量の海綿骨の移植が行われている事が挙げられていた⁵⁾。咀嚼機能、咬合回復、発音、審美性に関しては、口腔内の QOL や機能評価に関するアンケートを用いた横断的研究で、部分床義歯や固定性ブリッジよりも単冠インプラントによる補綴治療のほうが、患者満足度が高いと報告されていた⁶⁾。さらに、審美性については顎裂部に埋入した単冠インプラントの場合、歯間乳頭の有無が歯冠形態や垂直的/水平距離や歯周組織のバイオタイプと関連するかどうかを検討した横断研究があり、インプラントと隣在歯との垂直的や水平距離と歯間乳頭の有無には有意差があったが、歯冠形態や歯周組織のバイオタイプと歯間乳頭の有無に関連性はないと報告されていた⁷⁾。後戻りに関しては、症例報告であるが、シングルインプラント補綴ではブリッジと異なり歯列弓形態の後戻り防止効果が期待できないため、咬合崩壊の原因となりうるとされ、特に後戻り傾向が強い唇顎口蓋裂症例では、補綴後もメタルフレームのような強固な保定装置を使用する等の配慮が必要だと述べられていた⁸⁾。また、10 年経過後の症例報告があり、補綴後の歯列弓は安定しているが、裂側のオーバーバイトが小さく、非裂側のオーバーバイトが大きくなり、咬合平面が裂側上がりの傾斜となる後戻りを認めたと報告されていた⁹⁾。歯のダメージや、対応性、修理、耐久性に関しての横断研究では、インプラント支台の単冠もしくはブリッジは、天然歯によるブリッジよりも早期に修理が必要になる傾向があつた事から、若年者に対してインプラント治療を適応する場合は、隣在天然歯を切削しなくてもよいという利点があるが、一方で、歯周組織の審美性な修正が必要であつたり、解剖学的にインプラントの埋入が困難なことがあるので、固定性ブリッジは治療の選択肢とすべきと述べられていた¹⁰⁾。支台歯・歯周

組織への負担に関しては、インプラントの使用により隣在歯の切削を避けることができる所以有用とされるが、インプラント埋入前に再度、顎裂部へ骨移植が必要となる事^{11, 12)} や、矯正治療によって歯列弓を改善しておくこと⁸⁾ が重要との症例報告があった。また、歯槽頂の高さが不十分で再度の骨移植が必要な時にはオトガイ部など、口腔内からの骨移植がふさわしいと報告しているものもあった¹³⁾。治療期間に関して比較検討した研究はなく、費用に関する本邦の報告はないが、スイスにおける報告（横断研究）では、ブリッジによる補綴とインプラント補綴（単冠とブリッジ別の解析はない）にかかる費用は長期的には有意差を認めないと示された¹⁴⁾。

以上のことから、顎裂部へのシングルインプラントの適用は咀嚼機能、発音、審美面で有利であり、隣在歯の切削を必要とはしないが、ブリッジに比べて早期に修理や再製作の必要が生じる点、歯列弓形態を保持する効果が期待できないため、口蓋裂症例では強固な保定装置の併用が必要である点、また症例によってはインプラント埋入前に骨移植が必要となる点などを患者が受け入れられた場合において推奨される。

【参考文献】

- 1) 金崎彩子、乙丸貴史、他：最終補綴装置を装着した口唇口蓋裂患者の長期経過 日口蓋誌 40巻3号：p. 233-242, 2015 (V)
- 2) Landes CA, Bündgen L, et al: Patient satisfaction after prosthetic rehabilitation of bone-grafted alveolar clefts with nonsubmerged ITI Straumann dental implants loaded at three months. Cleft Palate Craniofac J. 49(5): 601-8, 2012. (V)
- 3) de Barros Ferreira S Jr, Esper LA, et al: Survival of dental implants in the cleft area—a retrospective study. Cleft Palate Craniofac J. 47(6): 586-90, 2010. (V)
- 4) Duskova M, Kotova M, et al: Bone reconstruction of the maxillary alveolus for subsequent insertion of a dental implant in patients with cleft lip and palate. J Craniofac Surg. 18(3): 630-8, 2007. (V)
- 5) Duskova M, Kotova M, et al: Bone reconstruction of the maxillary alveolus for subsequent insertion of a dental implant in patients with cleft lip and palate. J Craniofac Surg. 18(3): 630-8, 2007. (V)
- 6) Papi P, Giardino R, Sassano P, et al: Oral health related quality of life in cleft lip and palate patients rehabilitated with conventional prostheses or dental implants. J Int Soc Prev Community Dent. 5(6): 482-7, 2015. (IV)
- 7) Kawai ES, Almeida AL.: Evaluation of the presence or absence of papilla between tooth

- and implant. Cleft Palate Craniofac J. 45(4): 399–406, 2008. (IV)
- 8) 山下 佳雄, 黒田 好美, 他:顎裂骨移植部へのデンタルインプラントの使用 日口蓋裂会誌 36巻 1 号 : p26–32, 2011. (V)
- 9) 平川 崇, 佐々木 洋, 他 : 顎裂部デンタルインプラント植立後 10 年経過した片側唇顎口蓋裂の一例 日口蓋裂会誌 30巻 1 号 : p35–44, 2005. (V)
- 10) Krieger O, Matuliene G, et al: Failures and complications in patients with birth defects restored with fixed dental prostheses and single crowns on teeth and/or implants. Clin Oral Implants Res 20(8): 809—816, 2009. (IV)
- 11) Vecchiatini R, Mobilio N, et al: Implant–prosthetic rehabilitation for a patient with monolateral cleft lip and palate: a clinical report. Quintessence Int. 40(6):445–7, 2009 (V)
- 12) Sawaki Masako, Ueno Takaaki, et al: 両側性唇顎口蓋裂患者に対する歯科インプラント治療 (Dental Implant Treatment for a Patient with Bilateral Cleft Lip and Palate). Acta Medica Okayama 62巻 1 号 : p59–62, 2008. (V)
- 13) 高橋 哲, 福田雅幸, 他 : 口唇・口蓋裂患者の顎裂部への Osseointegrated Implant の応用 顎裂骨移植部への Branemark Implant の植立 日口腔科会誌 44巻 3 号 : p399–407, 1995. (V)
- 14) Incici E, Matuliene G, et al: Cumulative costs for the prosthetic reconstructions and maintenance in young adult patients with birth defects affecting the formation of teeth. Clin Oral Implants Res. 20(7): 715–21, 2009. (IV)

【CQ5】： 口唇裂・口蓋裂の多数歯欠損の補綴治療において、インプラント義歯の適用は、他の可撤性義歯よりも有効か？

【推奨プロファイル】

口唇裂口蓋裂患者において多数歯の欠損補綴を行う場合、上顎歯列に顎裂がある症例では、骨移植されれば健常者と同等な装置設計が可能であるが、顎裂が残存していたとしてもインプラントに磁性アタッチメントを装着することによって、顎堤形態に影響されない咬合支持が獲得できる。よってインプラント義歯は他の可撤性義歯よりも有効である。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①維持安定	M	P
②咀嚼機能、咬合回復	L	P
③発音	L	U
④審美性	L	P
⑤顎堤・歯列弓形態の安定	L	P
⑥対応性、修理	L	U
⑦耐久性	L	P
⑧歯周組織への影響	H	P
⑨害、歯のダメージ、苦痛	H	P
推奨度	全体としての判断	P

【エビデンスの質】 H：高い、 M：中、 L：低い、 VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）、P：推奨してよい（positive な弱い推奨）、N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）、NN：推奨しない（negative な強い推奨）、U：判断不能

【概説】

多数歯欠損がある場合、可撤性義歯を適用すると既存歯の残存率はインプラント義歯を適用したより

も有意に低くなる。また長期には頸堤の吸収や義歯取扱の煩雑さ、装着の違和感等の問題がある。多数歯欠損がある場合の欠損補綴の目的は、機能的、審美的改善、そして残存歯の保護である。可撤性義歯を選択することは、欠損形態や装置の設計によっては鉤歯や残存歯において荷重負担により動搖を誘発、あるいは充分な咀嚼効率が得られないことがある。一方、インプラント支台によれば、固定性上部構造あるいは可撤性のオーバーデンチャーでも欠損部に加わる負担を残存歯に分担させることなく咬合支持が期待できる。また、インプラント支持のオーバーデンチャーは義歯床があるため、人工歯の排列により歯冠や歯肉形態の付与、頸堤の回復が容易となり、顔貌との調和を図ることができる。また可撤式であるため清掃性にも優れる。

ただし、インプラント埋入のためには外科手術が不可避である。さらに、口唇裂口蓋裂者においては口腔内には大小様々な手術の影響が認められるため、症例によっては二次的な外科手術が必要となる。すなわち口腔前庭の狭小化、口唇・頬粘膜など可動粘膜の歯槽部への介在、付着歯肉の不足や瘢痕組織の存在、頸裂の残存や頸裂骨移植部では骨架橋形態、さらに鼻口腔瘻孔などの問題である。

骨量の不足には、インプラント体を埋植する部位の骨造成が必要である。またインプラント周囲炎を招来しないように可動粘膜を減じ、付着歯肉を獲得するために、口蓋遊離粘膜移植等の口腔前庭拡張術などをを行うべきである。また、インプラント支持の固定式上部構造を選択する場合には、欠損部の隣在歯周囲に歯槽骨吸収がみられ、歯根露出による歯冠高径の増大や歯自体の動搖が著明であるならば、同隣在歯の抜歯処置を考慮し、歯冠高径や歯列形態に不調和のない長期使用に耐えるような装置設計を考慮すべきである。

【参考文献】

- 1) 山崎聖也：インプラント義歯ならびに可撤性部分床義歯を装着した多数歯欠損患者の残存歯の予後に関する10年間の後ろ向きコホート研究 岡山大学歯学会雑誌, 30(1):1-12, 2011.
- 2) 野川敏史, 高山芳幸, 斎藤正恭, 横山敦郎：インプラント支持補綴装置と部分床義歯の違いが欠損隣接歯の予後に及ぼす影響. 日補綴会誌, 7: 170-178, 2015.
- 3) 佐藤文彦, 小山重人, 千葉貴大, 門脇研司, 川田哲男, 佐々木啓一：可撤性部分義歯装着が残存歯歯周組織状態に及ぼす影響. 日補綴会誌, 1: 130-138, 2009.
- 4) 門脇研司, 小山重人, 富士岳志, 佐々木啓一：可撤性部分床義歯装着患者の残存歯歯周組織状態に及ぼす因子の検討. 東北大学歯学雑誌, 34(1):1-6, 2015.
- 5) 中田秀美, 黒田真司, 立川敬子, 春日井昇平：頸裂を伴う多数歯欠損へのインプラント治療の1例：既存の頸義歯と磁性アタッチメントを利用した治療. 日口腔インプラント誌, 26(4):61・

711- 66・716, 2013.

- 6) 矢野尚一, 山本勝己, 上田秀朗, 加倉加恵, 添島義樹, 岡田美実子, 林 秀樹, 馬場正英, 城戸寛史, 松浦正朗: 多数歯欠損の上顎をインプラント支持オーバーデンチャーで補綴誌 15 年経過した 1 症例. 福岡歯大誌, 43(3) : 39-49, 2018.
- 7) 栗原祐史, 安 吉祐, 橋口大輔, 中納治久, 成平恭一, 阪 光太郎, 伏居玲香, 代田達夫: 歯槽骨延長術とインプラント義歯により顎裂部を補綴修復した唇顎口蓋裂の 1 例. 日口蓋誌, 43:223-228, 2018.

【音声言語】

【プローディング】

【CQ 1】口蓋裂術後の発話の改善において、blowing 訓練は、実施しないより有効か？

【推奨プロファイル】

口蓋裂術後の発話を改善する目的の blowing 訓練は、実施しないことを提案する。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①開鼻声・子音の歪みの改善 (あるいは構音の改善)	VL	N
②筋運動の賦活 (あるいは口蓋咽頭間距離の短縮)	VL	N
③呼気の口腔誘導	VL	P
推奨度	全体としての判断 N	

【エビデンスの質】 H：高い， M：中， L：低い， VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する (positive な強い推奨)， P：推奨してよい (positive な弱い推奨) N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨)， NN：推奨しない (negative な強い推奨) U：判断不能

【背景と目的】

1950 年代～1960 年代前半には、非言語口腔運動 non speech activities (blowing, sucking, swallowing, gagging など)に伴う鼻咽腔閉鎖運動が、発話にも般化するとして推奨されていた。ただこの時代においても、blowing 訓練の発話改善への効果について懐疑的な専門家の意見が既にみられた。1960 年代後半以降の研究^{1,5,6)}で発話時と発話以外の動作時の鼻咽腔閉鎖運動が異なることが示され、発話改善の目的で発話以外の動作を行う妥当性が疑問視されるようになった。しかし、わが国では、blowing 訓練を口蓋裂術後の発話の改善を目指す指導として実施する施設が依然として存在する。

【概説】

CQに関連する3つの介入研究のうち、2つがblowing訓練の効果について否定的^{2,3)}、1つが肯定的な結果⁴⁾を示したが、いずれもRCTではなく、症例数や条件統制等の観点からもエビデンスが非常に弱い報告であった。なお1980年代以降の成書、レビュー論文は、blowingなどの非言語口腔運動訓練が発話時の鼻咽腔閉鎖機能改善に寄与すると証明した研究がないと伝え、訓練の望ましくない効果（害）を示唆している。不明瞭な発話の改善を目指してblowing訓練のみが持続的に施された場合、鼻咽腔閉鎖不全例においては再手術や補綴治療の機会を逃し、鼻咽腔閉鎖は良好だが誤った構音が固定した例においては構音訓練の機会を逃し、いずれも発話改善が見込めないことが危惧される。

一方で、鼻咽腔閉鎖機能未習得児（口蓋裂術後間もない等）に口腔からの呼気流出を促すために、ラッパ等玩具を用いたblowing動作を活用し得るという専門家の意見が示されている。呼気の口腔誘導は構音習得の基礎動作であり、blowing動作を楽しみながらそれが促されるのであれば、患者にとって有益である。

【文献】

- 1) Mcwilliams BJ, Bradley DP: Ratings of velopharyngeal closure during blowing and speech. Cleft Palate J. 3: 46-55, 1965. (V)
- 2) Massengill R Jr, Quinn GW, et al: Therapeutic exercise and velopharyngeal gap. Cleft Palate J. 5: 44-47, 1968. (III)
- 3) Powers GL, Starr CD: The effects of muscle exercise on velopharyngeal gap and nasality. Cleft Palate J. 11: 28-35, 1974. (V)
- 4) Shprintzen RJ, McCall GN, et al: A new therapeutic technique for the treatment of velopharyngeal incompetence. J Speech Hear Disord. 40(1): 69-83, 1975. (V)
- 5) Matsuya T, Yamaoka M, et al; A fiberscopic study of velopharyngeal closure in patients with operated cleft palates. Plast Reconstr Surg. 63(4): 497-500, 1979. (V)
- 6) Kuehn DP, Moon JB. Levator veli palatini muscle activity in relation to intraoral air pressure variation. J Speech Hear Res. 37(6): 1260-1270, 1994. (V)

【エビデンスレベル (GLGL ver. 4)】

I システマティック・レビュー/メタ・アナリシス

- II 一つ以上のランダム化比較試験による
- III 非ランダム化比較試験による
- IV 分析疫学的研究（コホート研究や症例対照研究による）
- V 記述研究（症例報告やケースシリーズ）による
- VI 患者データに基づかない、専門医委員会や専門家個人の見解

【発達】

【CQ 2】口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの親に対して、乳幼児期から言語聴覚士が言語発達を促す助言指導を行うと、行わないより子どもの言語発達が促進されるか？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの親に対して、乳幼児期から言語聴覚士が言語発達を促す助言指導を行うことを提案する。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①子どもの語彙数の増加	VL	P
②子どもの習得子音数の増加	VL	P
推奨度	全体としての判断 P	

【エビデンスの質】 H：高い， M：中， L：低い， VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する（positive な強い推奨）， P：推奨してよい（positive な弱い推奨） N：推奨しない方がよい（negative な弱い推奨）， NN：推奨しない（negative な強い推奨） U：判断不能

【背景と目的】

子どもが健やかな言語発達を遂げるには、乳児期からの親（主たる養育者）との楽しく豊かな情動的関りは欠かせないものである。しかし、子どもが口唇裂・口蓋裂を伴って生まれた場合、親は大きな不安と心配のなかで日々の育児をおこなっていくことになる。また、この疾病の特徴上、「ことばをきちんと話すことができるようになるのか」という心配は大きい。言語聴覚士は日常の臨床で、親のこのような心配、不安に対応し、親が疾病、治療に対する理解を深められるように、また、家庭での子どもへの関わり方についても助言・指導を行っている。このような言語聴覚士の親への関わりが、子どもの言語発達を促進するのかを検討した¹⁻⁵⁾。

【概説】

研究の性質上、言語聴覚士が介入しない統制群を設定して、厳密な RCT 研究を行い効果を比較することは困難である。しかし、言語聴覚士が口唇裂・口蓋裂を伴う子どもを指導する際の母親同席の有無による効果の差^{2,5)}、さらに、言語聴覚士が子どもにしている指導を親が家庭でも行うことによる（早期介入プログラム）効果^{1,3-5)}が報告されており、いずれも、子どもの語彙数増加、子音習得数増加がみられた。

これらの報告は、言語聴覚士が、乳児期早期から子どもの親に助言・指導を行って良好な親・子関係を促し、幼児期には、親と連携しながら子どもに言語指導を行うことが、言語発達による効果をもたらすことを示唆している。

【文献】

- 1) Schere, NJ: The speech and language status of toddlers with cleft lip and/or palate following early vocabulary intervention. Am J Speech Lang Pathol. 8: 81-93, 1999. (V)
- 2) Pamplona MC, Ysunza, A: Active participation of mothers during speech therapy improved language development of children with cleft palate. Scand J Plast Reconstr hand Surg. 34: 231-236, 2000. (III)
- 3) Scherer NJ, D' Antonio LL, et al: Early intervention for speech impairment in children with cleft palate. Cleft Palate Craniofac J. 45(1): 18-31, 2008. (III)
- 4) Doblestyen C, Bird EK, et al: Effectiveness of the corrective babbling speech treatment program for children with a history of cleft palate or velopharyngeal dysfunction. Cleft Palate Craniofac J. 51(2): 129-144, 2014. (V)
- 5) Ha S: Effectiveness of a parent-implemented intervention program for young children with cleft palate. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 79(5), 707-715, 2015. (III)

【カウンセリング】

【CQ3】：口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの家族に対して診断直後からカウンセリングを行うと、行わないより家族の負担は軽減されるのか？

【推奨プロファイル】

口唇裂・口蓋裂を伴う子どもの家族に対して診断直後にカウンセリングを行うことを提案する。

アウトカム	エビデンスの質	評価（有効性等）
①診断直後にカウンセリングを受けた時の満足度	VL	P
②治療に対する不安の軽減	VL	P
③親のネガティブな感情の軽減	VL	P
推奨度	全体としての判断 P	

【エビデンスの質】 H：高い， M：中， L：低い， VL：きわめて低い

【推奨度の分類】 PP：推奨する (positive な強い推奨)， P：推奨してよい (positive な弱い推奨) N：推奨しない方がよい (negative な弱い推奨)， NN：推奨しない (negative な強い推奨) U：判断不能

【背景と目的】

子どもに口唇裂・口蓋裂があると診断を受けた家族は、病状や今後の治療、哺乳などのケアにおいて様々な不安を感じるであろう。この状況を解消するための家族へのカウンセリングは、これまで治療の一環として行われてきた。カウンセリングの内容は、今後の治療や哺乳といった直近の疑問や養育に関するもの、また原因の説明を求めるものの他、家族ごとに様々なニーズがある。さらに、カウンセリングを受ける時期は、出生後のみならず、現在では広く普及している胎児超音波検査による出生前の診断も併せて、診断後いつ行うのが家族にとって有益であるかを検討した¹⁻⁶⁾。

【概説】

出生前の診断、または出生後の診断のいずれにおいても、家族が診断後早期にカウンセリングを受け、専門的な知識や情報を得ることで、満足度は高く¹⁻⁵⁾、今後の治療に対する不安が和らぎ⁴⁻⁶⁾、ネガティブな感情が軽減することが示された²⁻⁴⁾。従って、診断後、家族が可及的早期にカウンセリングを受けることは、家族にとって有益である。

しかし、口唇裂・口蓋裂の治療に精通したチームや医療スタッフによるカウンセリングでなければ、家族の満足度は低下する（害）ことも述べられている^{1,3)}。これは、カウンセリングが情報提供の側面に加え、家族のニーズに応じて、共感的に行われるよう求められていることを示唆するものである^{3,4)}。

【文献】

- 1) Berggren H, Hansson E, et al: Prenatal compared with postnatal cleft diagnosis: what do the parents think? *J Plast Surg Hand Surg.* 46(3-4): 235-41, 2012. (V)
- 2) Davalbhakta A, Hall PN: The impact of antenatal diagnosis on the effectiveness and timing of counselling for cleft lip and palate. *BJ Plast Surg.* 5: 298-301, 2000. (V)
- 3) Kuttenberger J, Ohmer JN, et al: Initial counselling for cleft lip and palate: parents' evaluation, needs and expectations. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 39(3): 214-220, 2010. (V)
- 4) Rey-Bellet C, Hohlfeld J: Prenatal diagnosis of facial clefts: evaluation of a specialised counselling. *Swiss Med Wkly.* 134(43-44): 640-644, 2004. (V)
- 5) Berk NW, Marazita ML, et al: Medical genetics on the cleft palate-craniofacial team: understanding parental preference. *Cleft Palate Craniofac J.* 36(1):30-35, 1999. (V)
- 6) Nakanii M: The Relationship between Maternity Support and the Psychological State of Mothers of Babies Prenatally Diagnosed with Fetal Cleft Lip/Palate. *Kawasaki Medical Welfare Journal.* 14(1): 35-46, 2008. (V)