

徳島大学病院矯正歯科における保険診療に関する実態調査 —先天性疾患における裂奇形の併発について—

Clinical survey of orthodontic treatment covered by national health insurance in the
Department of Orthodontics, Tokushima University Hospital
—Presence of cleft lip and palate in congenital
craniofacial disorders—

清水 宗¹⁾, 堀内 信也²⁾, 森 浩喜²⁾, 天真 寛文²⁾, 岩浅 亮彦²⁾, 渡邊 佳一郎²⁾,
高木 豊明³⁾, 田中 栄二²⁾
SHIMIZU So¹⁾, HORIUCHI Shinya²⁾, MORI Hiroki²⁾, TENSHIN Hirofumi²⁾, IWASA Akihiko²⁾,
WATANABE Keiichiro²⁾, TAKAGI Toyooki³⁾, TANAKA Eiji²⁾

抄 録

矯正歯科治療に健康保険が導入されて約40年が経過し、唇顎口蓋裂と顎変形症の他に2018年現在53項目が保険治療の対象になっている。今回、我々は当科における矯正歯科治療の保険適用患者の実態を調査し、特に唇顎口蓋裂と他の先天性疾患との関連性について臨床統計学的検討を行ったので報告する。徳島大学病院病院情報システム・データウェアハウスを用い、2008年1月から2018年12月までの11年間に当院矯正歯科を受診した患者から保険治療を受けている患者を抽出し、顎変形症単独症例を除く先天性疾患患者について、電子カルテ全文検索システムを用いて臨床統計学的検討を行った。研究対象期間に当科にて保険治療を受けた矯正患者は345人で、そのうち、本研究対象患者は、顎変形症単独症例を除く207人であった。患者の内訳は、裂奇形を主徴候とする症例が全体の5割を占め最も多く、次いで、6歯以上の先天性部分性無歯症、ゴールドデンハー症候群(鰓弓異常症を含む)、ダウン症候群の順であった。また、症候性疾患の中で裂奇形の併発は、ビエール・ロバン症候群、ダウン症候群、ゴールドデンハー症候群の順に多く、その裂型は、口蓋裂(軟口蓋裂を含む)、唇顎口蓋裂、唇裂の順に多かった。以上のことから、当病院は裂奇形を併発した先天性疾患への専門的な対応が不可欠であり、希少疾患にも柔軟に対応できるよう複数の診療科、職種による診療科の枠組みを超えたチーム医療体制の構築が必要であることが示唆された。

キーワード：先天性疾患、口唇裂・口蓋裂、臨床統計学的調査、合併症

緒 言

矯正歯科臨床への健康保険制度の導入は、1982年の唇顎口蓋裂患者に始まり現在では55疾患にまでその対象が拡大された。特に、2018年2月の改定では「顎・口腔の奇形、変形を伴う先天性疾患であり、当該疾患に起因する咬合異常について、歯科矯正の必要性が認められる場合に、その都度当局に内議の上、歯科矯正の対象とすることができる」という項目が加わり、先天性疾患に起因した咬合異常に対する歯科矯正の保険医療制度の整備は転機を迎え¹⁾、不正咬合を有する先天性疾患患者のQOL(Quality Of Life)の向上に大きく貢献するものと期待さ

れている。

一方、唇顎口蓋裂などの裂奇形は、頭蓋顎顔面領域に不調をきたす先天性疾患の一つの表現型としても発現することが知られており、両者はしばしば合併して発症する²⁾。これらの疾患は出生直後から長期にわたる複雑な治療を要する場合も多く、両者の関連性を検討することは治療計画を立案する上でも有用である。当科においては、伊東ら³⁾は1984年から1994年の10年間、西ら⁴⁾は1994年から2006年の12年間、谷本ら⁵⁾は2006年から2016年の10年間の唇顎口蓋裂患者の動向について報告したが、他の先天性疾患との関連についての実態調査は行われていない。そこで、本稿では当科における矯正歯科治療の保

徳島大学大学院口腔科学教育部口腔顎顔面矯正学分野¹⁾
徳島大学大学院医歯薬学研究部口腔顎顔面矯正学分野²⁾
矯正歯科たかぎ・クリニック³⁾

險適用患者の実態を調査するとともに、唇顎口蓋裂と他の先天性疾患との関連性について臨床統計学的検討を行ったので報告する。

調査対象および方法

徳島大学病院病院情報システム・データウェアハウスを用い、2008年1月から2018年12月までの11年間に当院矯正歯科に初診患者として登録された患者から保険診療を受療している患者を抽出し、電子カルテ全文検索システムを用い、以下の項目について臨床統計学的検討を行った。なお、保険診療が適用される患者とは2018年2月に厚生労働大臣が定めた53疾患および顎変形症と定義した。今回の臨床統計調査にあたり、徳島大学病院の倫理審査委員会にて承認を得た（徳島大学病院臨床試験認証第3050-1号）。

1. 診療費用の区分と病名

1) 自費患者と保険患者の割合

対象期間に当院矯正歯科を受診した全患者を調査対象とし、初診時に登録された病名に基づいて自費患者と保険患者に分類した。

2) 保険患者の病名割合

保険患者のうち、顎変形症単独症例とその他の先天性疾患に分類し、その割合を算出した。

2. 保険患者数の年次推移と先天性疾患患者の内訳

調査対象は全保険患者とし、当院矯正歯科に初診で来院した日を調査し、年別に集計を行った。

顎変形症単独症例を除く先天性疾患患者を対象として、健康保険の適用となる厚生労働大臣が定める53疾患に基づいて病名の内訳を調査した。また、同一患者で先天性疾患と裂奇形の複数の病名をもつ場合、重複を避けるため症候性疾患をカウントした。例えば、ピエール・ロバン症候群で口蓋裂を併発している場合、ピエール・ロバン症候群1症例として集計を行った。

3. 唇顎口蓋裂と先天性疾患患者の合併患者数

調査対象は、唇顎口蓋裂を呈する患者123名とし、唇顎口蓋裂単独症例と、その他の先天性疾患を併発している症例に分類し集計を行った。また、唇顎口蓋裂とその他の先天性疾患を併発している患者を対象として、唇裂、唇顎裂、唇顎口蓋裂、口蓋裂（軟口蓋裂を含む）、顔面裂の発現割合を算出した。

結 果

1. 診療費用の区分と病名

1) 自費患者と保険患者の割合

過去11年間における当科初診の総患者数は2,754名であり、そのうち保険患者は345名で全体の12.5%、自費患者は2,409名で全体の87.5%であった（図1-①）。

2) 保険患者の病名割合

保険患者345名のうち、先天性疾患を有するものは207名（60.0%）、先天性疾患のみられない顎変形症単独発症のものは138名（40.0%）であった（図1-②）。

2. 保険患者数の年次推移と先天性疾患患者の内訳

保険患者数は年次ごとにばらつきがみられた（図2）。

年次別では、保険患者の総数は2013年の46名が最多であり、先天性疾患患者も2013年の29名が最多であった。顎変形症単独発症は2013年、2017年の17名が最多であった。

先天性疾患患者207名の中では、唇顎口蓋裂単独症例が

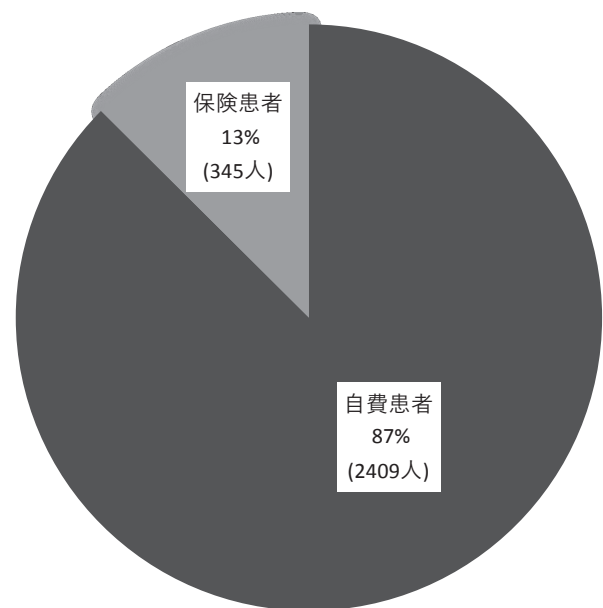


図1-① 自費患者と保険患者の割合

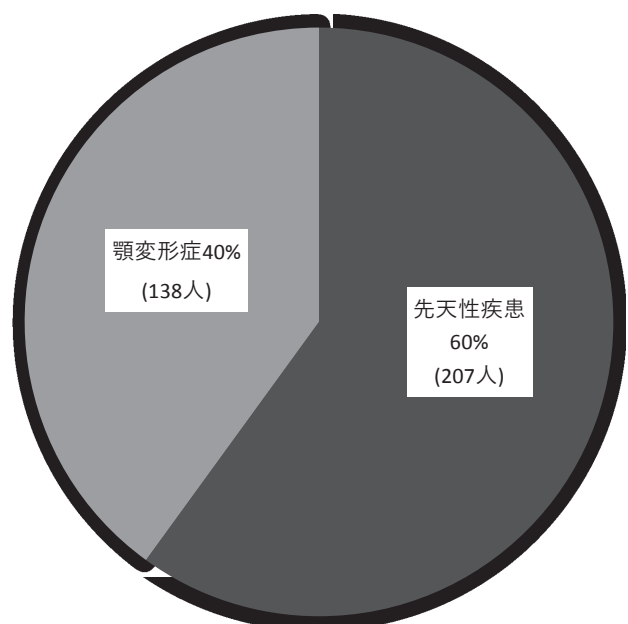


図1-② 保険患者の病名割合

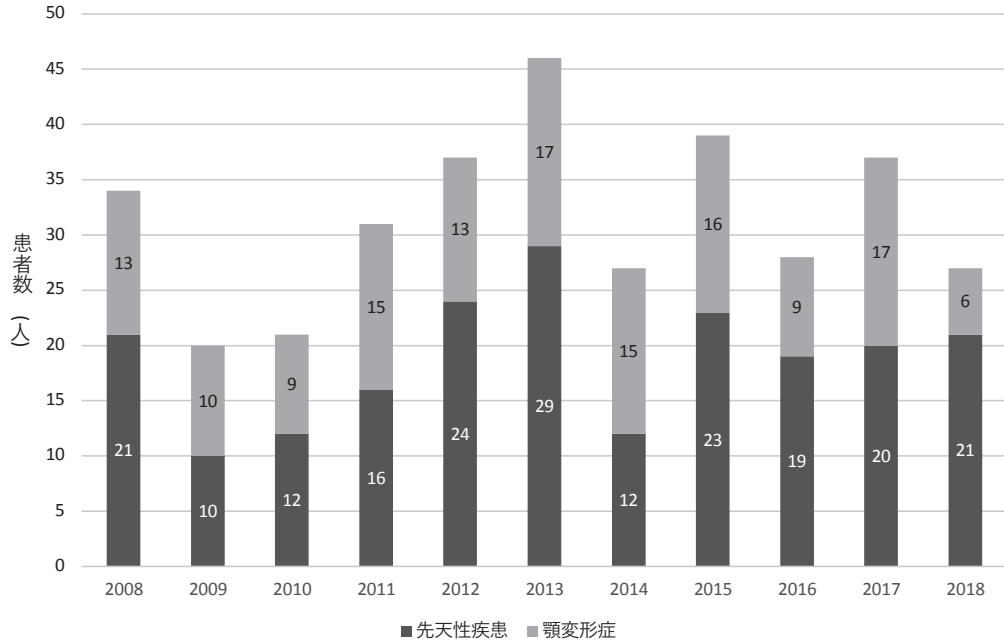


図2 保険患者数の年次推移

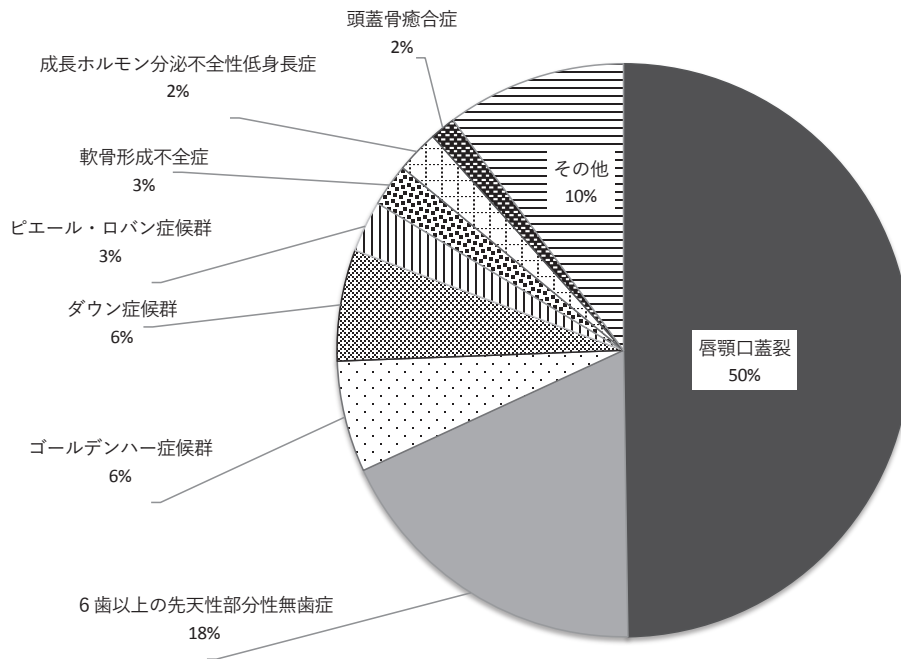


図3 先天性疾患患者の内訳

表1 先天性疾患患者の年次推移

	2008	2009	2010	2011	2012	2013	2014	2015	2016	2017	2018	計 (人)
唇顎口蓋裂	14	8	5	11	17	14	1	9	11	9	4	103
6 歯以上の先天性部分性無歯症	0	0	0	0	3	3	7	6	5	5	9	38
ゴールデンハー症候群	0	1	2	2	0	5	1	1	0	0	1	13
ダウン症候群	1	1	0	2	0	2	2	2	1	1	1	13
ピアール・ロバン症候群	1	0	1	0	0	0	0	2	1	1	0	6
軟骨形成不全症	1	0	0	0	0	0	0	2	0	2	0	5
成長ホルモン分泌不全性低身長症	0	0	0	0	0	0	0	0	0	2	3	5
頭蓋骨癒合症	1	0	0	0	1	1	0	0	0	0	0	3
その他	3	0	4	1	3	4	1	1	1	0	3	21
総 計	21	10	12	16	24	29	12	23	19	20	21	207
(唇顎口蓋裂を除く先天性疾患の合計)	7	2	7	5	7	15	11	14	8	11	17	104

最も多く103名 (49.8%)、総患者に占める割合としては3.7%であった。次いで6歯以上の先天性部分性無歯症が38名 (18.4%)であり、ゴールデンハー症候群13名 (6.3%)、ダウン症候群13名 (6.3%)、ピエール・ロバン症候群6名 (3.3%)の順であった (図3、表1)。唇顎口蓋裂患者数の年次ごとの平均は約9.4名であった。その他としては、トリーチャー・コリンズ症候群 (1名)、ウイリアムズ症候群 (1名)、ターナー症候群 (1名)、プラダー・ウィリー症候群 (1名)、マルファン症候群 (1名) など、21疾患の患者が確認できた。

3. 唇顎口蓋裂と先天性疾患の合併患者数

唇顎口蓋裂患者における、唇顎口蓋裂単独症例は103名 (83.7%)、唇顎口蓋裂に加え、その他の先天性疾患を併発した症例は20名 (16.3%)であった。症候性疾患における裂奇形の併発はピエール・ロバン症候群が最も多く6名であり、ダウン症候群3名、ゴールデンハー症候群2名が続いた。その他としてトリーチャー・コリンズ症候群 (1名)、ヌーナン症候群 (1名)、常染色体欠失症候群 (1名) など様々で9疾患であった。その裂型につ

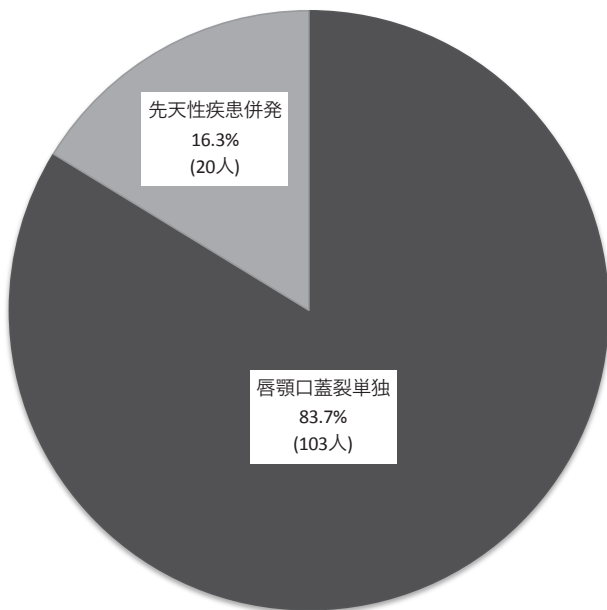


図4 唇顎口蓋裂と先天性疾患の合併患者数

いては、口蓋裂 (軟口蓋裂を含む) 11名、唇顎口蓋裂5名、唇裂3名、唇顎裂1名であった (図4、表2)。

考 察

1. 診療費用の区分と病名

2002~2014年の大阪大学歯学部附属病院矯正歯科の調査⁶⁾では自費診療患者は70.8%、保険診療患者は29.2%であり、2009~2014年の日本大学歯学部附属病院矯正歯科の調査⁷⁾では自費診療患者は65.6%、保険診療患者は34.4%であった。当科での自費診療患者は87.5%と、他の調査と比較すると割合が高く、保険診療患者の割合は低かった。これは、大阪府や東京都では矯正歯科専門開業医の増加により、不正咬合 (自費診療) の治療は近医で受けることが可能になり、大学病院での自費患者率は低下し、結果として相対的に保険診療の増加に繋がっていると考えられる。

我々の調査結果では総患者に占める唇顎口蓋裂患者の割合は3.7%であり、過去に当科で調査を行った伊東ら³⁾、西ら⁴⁾の報告より低い値を示した。一方、徳島県の2007年から2018年の年間平均出生数は5,641人で、宮崎ら⁸⁾の報告による唇顎口蓋裂の発生率 (0.182%) が一定であるとする、徳島県における唇顎口蓋裂の推定年間平均出生数は約10人となる。当科での唇顎口蓋裂患者数の年間平均数は約9.4名であり、年間推定数とほぼ同数であった。これは、徳島県下において徳島大学病院矯正歯科が唇顎口蓋裂患者の重要な中核病院としての役割を担っていることを示している。

2. 保険患者数の年次推移と先天性疾患患者の内訳

当科における年次別の保険患者数の推移を観察すると、顎変形症患者、先天性疾患患者は年によって患者数の変動が見られ、特徴的な所見は見いだせなかった。

一方、唇顎口蓋裂を除く先天性疾患患者数については、2013年を境に若干の患者数の増加が見られた。1982年に唇顎口蓋裂が矯正歯科治療において最初の保険適用となって以来、およそ2年ごとに保険診療改定による先天性疾患の保険導入が行われた。今回の調査期間では2008年に、軟骨形成不全症、プラダー・ウィリー症候群、マルファン症候群など12疾患の追加に始まり、2018年まで

表2 唇顎口蓋裂と先天性疾患の合併患者の裂型内訳

	患者数	唇裂	唇顎裂	唇顎口蓋裂	口蓋裂	顔面裂	計 (人)
6歯以上の先天性部分性無歯症	38	0	0	0	0	0	0
ゴールデンハー症候群	13	2	0	0	0	0	2
ダウン症候群	13	0	0	3	0	0	3
ピエール・ロバン症候群	6	0	0	0	6	0	6
軟骨形成不全症	5	0	0	0	0	0	0
成長ホルモン分泌不全性低身長症	5	0	0	0	0	0	0
頭蓋骨癒合症	3	0	0	0	0	0	0
その他	21	1	1	2	5	0	9
合計	104	3	1	5	11	0	20

に計45疾患が保険適用となったこともあり、患者数は暫時増加すると予想されたもののそうではなかった。これは、調査期間内に保険適用となった疾患の発生頻度がそもそも低い、いわゆる希少疾患が多く含まれ、保険適用疾患数の増加が患者数の変動には影響を及ぼしにくかったと推察される。一方、2013年を境に患者数が微増したことは先天性疾患の中でも比較的発症頻度の高い6歯以上の先天性部分性無歯症が保険導入されたためと考えられ、その後の患者数も維持されていることから、本疾患の保険適用が潜在的な需要を掘り起こしたのと考えられた。

また、矢野下ら⁹⁾の報告によれば先天性疾患患者の内訳として、唇顎口蓋裂が最も多く、次いで、6歯以上の先天性部分性無歯症、ダウン症候群、ゴールデンハー症候群の順であり、当科でも同じ傾向を示した。6歯以上の先天性部分性無歯症は保険適用となって以降、当科でも年間平均約5名の患者が来院しており、保険患者における割合は高い。さらに、過去に当科で行われた歯の先天欠損に関する疫学調査¹⁰⁾においても、矯正歯科治療を開始した患者に占める割合は1.5%であり、今後も一定数の患者が見込まれる。また、今回の調査においては便宜上先天性疾患に分類した前歯3歯以上の埋伏歯についても、埋伏歯の発生頻度を考慮すると今後患者数の増加が見込まれ、定期的にその動向について注目していきたい。

3. 唇顎口蓋裂と先天性疾患の合併患者数

我々の調査結果では、先天性疾患の一表現型として裂奇形を併発したものは20名(16.3%)であった。吉田ら¹¹⁾の報告では12.4%、領家ら¹²⁾の報告では10.0%、神原ら¹³⁾の報告では12.8%であり、これらの報告と比較し高い値を示した。一方、西原ら¹⁴⁾や西村ら¹⁵⁾の報告では、我々の調査より高い割合を示した。これらの報告者による頻度の違いの理由として、先天性疾患の診断基準や評価の違い、統計の調査方法の違いなどが関与していると考えられる。また裂奇形を併発した先天性疾患について、領家ら¹²⁾の報告ではピエール・ロバン症候群、ゴールデンハー症候群の順に、吉田ら¹¹⁾の報告ではピエール・ロバン症候群、ゴールデンハー症候群、トリーチャー・コリンズ症候群の順に多かった。本研究においては、ピエール・ロバン症候群、ダウン症候群、ゴールデンハー症候群の順に多く、過去の報告と類似した傾向を示した。また、その裂型は、口蓋裂(軟口蓋裂を含む)、唇顎口蓋裂の順に多く、これは大槻ら¹⁶⁾、岐部ら¹⁷⁾の報告と同様の傾向を示し、口蓋裂が有意に高い割合を示した。ピエール・ロバン症候群はロバンシークエンスと言われるように、口蓋裂を併発する頻度が高い疾患として知られており、我々の調査でも6例全てに口蓋裂(軟口蓋裂を含む)を認めたことから、このような結果になったと考えられる。

第一第二鰓弓症候群は顔面奇形としては唇顎口蓋裂の

次に多い疾患¹⁸⁾とも言われている。本研究においては、ゴールデンハー症候群に併発した裂奇形の裂型は唇裂2例のみであったが、第一および第二鰓弓由来の症候群であるゴールデンハー症候群やトリーチャー・コリンズ症候群では口蓋裂や横顔裂を生じやすいことが報告¹⁸⁾されており、これらの症候群の治療を行うにあたり、十分な精査と検討が必要であると考えられた。

その他の疾患として裂奇形を伴うものは各1例ずつの計9疾患で、その多くが難病指定されている希少疾患であり、生命予後が極めて不良であることがわかった。そのため、口腔領域における報告は比較的に少なく、また全身的に重篤な問題を抱えているため、これらの希少疾患にも柔軟に対応できる診療科の枠組みを超えたチーム医療体制の構築が必要であると考えられる。

結 語

過去11年間に徳島大学病院矯正歯科に来院した保険診療患者について、先天性疾患を中心に統計調査を行った。その結果、裂奇形を併発した先天性疾患への専門的な対応が不可欠で、希少疾患にも柔軟に対応できる幅の広い診療体制の構築が必要であることが示唆された。

文 献

- 1) 森山啓司：顔面先天異常に対する歯科矯正学的アプローチ—頭蓋縫合早期癒合症の臨床・研究を中心に—, 中・四矯歯誌 30: 1-6, 2018.
- 2) 本田光徳：唇・顎・口蓋裂患者の臨床的研究(1) 統計的観察, 日口蓋誌 3(2): 50-59, 1978.
- 3) 伊東正志, 岡田欣也, 大庭知子, 他：口唇裂口蓋裂患者に関する実態調査—徳島大学病院歯学部附属病院における過去10年間について—, 日口蓋誌 21: 55-64, 1996.
- 4) 西真寿美, 高橋巧, 森山啓司, 他：徳島大学病院矯正歯科における過去12年間の口唇裂・口蓋裂患者に関する実態調査—第2報—, 日口蓋誌 32: 317-325, 2007.
- 5) 谷本幸多朗, 森浩喜, 木内奈央, 他：徳島大学病院矯正歯科における過去10年間の口唇裂・口蓋裂患者に関する実態調査, 日口蓋誌 44: 1-6, 2019.
- 6) 谷川千尋, 西村佳世, 竹内優斗, 他：過去13年間の大阪大学歯学部附属病院における矯正患者の動向, Orthodontic Waves-Japanese Edition 76: 119-129, 2017.
- 7) 小川麻衣, 高橋康代, 伏木怜奈, 他：日本大学歯学部付属歯科病院歯科矯正科における実態調査—来院患者数およびその分布について—, 日大歯学 90: 53-60, 2016.
- 8) 宮崎正, 小浜源郁, 手島貞一, 他：我が国における口唇裂口蓋裂の発生率について, 日口蓋誌 10: 191-195, 1985.
- 9) 矢野下真, 廣瀬尚人, 大西梓, 他：広島大学病院矯正歯科を受診した先天性疾患患者の過去10年間の変遷, 中・四矯歯誌 30: 43-50, 2018.
- 10) 小笠原直子, 岩浅亮彦, 堀内信也, 他：矯正歯科患者における永久歯の先天性欠如に関する臨床統計調査, 中・四矯歯誌 30: 59-64, 2018.
- 11) 吉田優, 土井理恵子, 西尾幸与, 他：口唇裂・口蓋裂患者の臨床統計的検討—合併した先天異常について—, 日口蓋誌 39: 28-33, 2014.
- 12) 領家和男, 川崎一慶, 福本潤二, 他：顔裂・口唇裂・口蓋裂患

- 者の臨床統計的検討—合併した先天異常について—, 日口蓋誌 19: 177-185, 1994.
- 13) 神原春絵, 阿部厚, 中野雅哉, 他: 愛知学院大学歯学部口腔外科学第一講座における唇顎口蓋裂患者の臨床統計的観察, 日口蓋誌 30: 248-253, 2005.
 - 14) 西原一秀, 三村保, 野添悦郎, 他: 当科における口唇裂口蓋裂患者の臨床統計的観察: 第1報—一次症例について—, 日口蓋誌 23: 110-118, 1998.
 - 15) 西村壽見, 幸地省子, 五十嵐薫, 他: 東北大学病院顎口腔機能治療部における口唇裂・口蓋裂患者の臨床統計調査, 日口蓋誌 41: 31-38, 2016.
 - 16) 大槻玲子, 森田展雄, 和田健, 他: 口唇・口蓋裂患者の臨床統計学的観察—第一報: 裂型の特徴と合併奇形について—, 口科誌 51: 132-136, 2002.
 - 17) 岐部俊郎, 西原一秀, 瀧上貴央, 他: 当科における口唇裂・口蓋裂患者一次症例の30年間の臨床統計的観察, 日口外誌 63: 140-147, 2017.
 - 18) 藤村長久, 岡田康弘, 崔長雨, 他: 第1, 第2鰓弓症候群の1例, 日口外誌 36: 1506-1518, 1990.