

両側性唇顎口蓋裂の長期管理症例 —思春期性成長発育期に治療が中断された1例—

與儀 賢* 堀口リラ 森崎彰将 平出隆俊

医療法人社団お茶の水会小石川矯正歯科クリニック
(受付：2023年3月1日, 受理：2023年5月12日)

Long-term management of bilateral cleft lip and palate: A case of interrupted orthodontic treatment during adolescence

Satoshi YOGI*, Leela HORIGUCHI, Akimasa MORISAKI and Takatoshi HIRAIDE

Koishikawa Orthodontic Clinic, Medical Corporation Ochanomizu-kai

New-koishikawa Bldg 3F, 5-11-17 Koishikawa, Bunkyo-ku, Tokyo, 112-0002, Japan

Abstract

The treatment of cleft lip and palate usually begins with plastic or oral surgery, followed by long-term management into adulthood that requires collaboration with specialists in pediatrics, pediatric dentistry, orthodontics, otolaryngology, and speech therapy. However, these collaborations don't always go smoothly, and treatment is often interrupted.

Herein, we report a case of a 8-year-and-7-months-old male patient whose treatment started in the mixed dentition stage but was interrupted during adolescence (at 11 years and 9 months of age). Treatment was resumed at the age of 16 years and 0 months.

The patient had an ANB (relative position of the maxilla to the mandible) of +6.0 degrees during the mixed dentition stage, but after resumption of treatment, the ANB was -3.0 degrees, requiring a major modification in the treatment plan. As a result, Le Fort I osteotomy and sagittal split ramus osteotomy were prescribed. The patient was placed on retainers after 6 years and 9 months (at 22 years and 9 months of age) of treatment. The occlusion was confirmed to be stable after 2 years and 6 months of follow-up (at 25 years and 3 months of age), and the patient's hospital visit was completed after 16 years and 8 months of long-term management.

In this case, we report on the factors that led to the discontinuation of treatment, the changes in the treatment plan that occurred as a result of the discontinuation, and the treatment process and results.

* 責任著者連絡先：〒112-0002 東京都文京区小石川 5-11-17 ニュー小石川ビル 3 階
医療法人社団お茶の水会小石川矯正歯科クリニック
與儀 賢
e-mail: satoshi_yogi@icloud.com

Table 1 Lateral cephalometric analysis and Model analysis

Variables	First record (8y7m)	Re-treatment (16y0m)	After retention (25y3m)
SNA (°)	79.5 (±1SD)	74.0 (-2SD)	77.0 (-1SD)
SNB (°)	73.5 (±1SD)	77.0 (±1SD)	76.0 (±1SD)
ANB (°)	+6.0 (±1SD)	-3.0 (-2SD)	+1.0 (±1SD)
FMA (°)	32.0 (±1SD)	33.0 (+1SD)	31.0 (±1SD)
IMPA (°)	83.0 (-1SD)	78.0 (-2SD)	80.0 (-2SD)
FMIA (°)	65.0 (+2SD)	69.0 (-3SD)	69.0 (-3SD)
U1 to SN (°)	52.0 (-9SD)	85.0 (-3SD)	107.0 (±1SD)
Gonial angle (°)	135.5 (+1SD)	136.0 (+3SD)	132.0 (+2SD)
Upper lip to E-line (mm)	+2.5	-2.5	-2.5
Lower lip to E-line (mm)	+8.5	+3.0	+2.0
Over jet (mm)	-9.0	-7.5	+2.0
Over bite (mm)	+7.0	+7.0	+1.0
Upper arch length discrepancy (mm)	—	-16.0	0 (2+2は除く)
Lower arch length discrepancy (mm)	—	-6.0	0
Upper coronal arch width (mm)	26.0 (D-D)	28.5(-4SD)	42.0(±1SD)
Upper basal arch width (mm)	39.0 (D-D)	40.5(-2SD)	47.0(±1SD)

緒 言 症 例

口唇口蓋裂の治療は、生後間もなく形成外科や歯科口腔外科での手術をともなう治療からはじまり、小児科、小児歯科、矯正歯科、耳鼻咽喉科、言語治療などの長期間にわたる連携を要する¹⁾。そのため患者ならびに保護者は治療に対する意識を長く持ち続けることが必要となる。

しかし現実には就学期、思春期、受験、就職等の個人や家庭の抱える複雑な問題もあり、治療の中断や治療計画の修正などを要することも少なくない。このことに関連して高尾ら²⁾は保護者が患者へ疾患を伝える状況、熊谷ら³⁾は家族内の心理、北尾ら⁴⁾は学童期の教育現場で生じる問題などについて治療が中断するいくつかの関連要因を提示している。

今回、著者らは混合歯列期(8歳7か月)から治療を開始したが、思春期性成長発育期での治療の中断(11歳9か月)を経験し、その後4年3か月間の中断を経て(16歳0か月)治療を再開することになった症例を得た。思春期性成長発育期での治療の中断を経験し、混合歯列期から通院終了まで合計16年8か月の長期管理症例を経験したので、治療経過ならびに結果を報告すると共に治療中断要因の考察を合わせて報告する。

1. 混合歯列期

(Table 1, Fig.1-A, Fig.2-A, Fig3-A, Fig.6)

- 1) 初診時年齢、性別：8歳7か月、男児。
- 2) 主訴：前歯の噛み合わせと歯並びを改善したい。
- 3) 家族歴：特記事項なし。
- 4) 既往歴：両側性唇顎口蓋裂で幼少期に口唇形成術を受けた。
- 5) 経過および処置

(1) 8歳7か月時(初診時)

- a) 現症：顔貌所見として正面は卵円形でほぼ左右対称、側面はストレート型を示した。口腔内所見は前歯部反対咬合、上顎歯列の著しい狭窄、下顎前歯部の叢生がみられる。模型分析では overjet -9.0 mm, overbite +7.0 mm, 上顎両側第一乳臼歯部における歯列弓幅径は、26.0 mm Basal arch width は 39.0 mm であった。計測値を便宜的に永久歯列期における模型分析に当てはめると前者の 26.0 mm は -5SD, 後者の 39.0 mm は -2SD で、上顎歯列は過度の歯列狭窄を認めた。エックス線写真所見として、パノラマエックス線写真所見では上顎両側側切歯の埋伏が認められた。次に側面頭部エックス線規格写真所見では、上顎前歯歯軸角



Figure 1. Facial photographs

A: First record (8Y7M)

B: Re-treatment (16Y0M)

C: After retention (25Y3M)

が 52.0° で $-9SD$ 小さい, 下顎前歯歯軸角は 83.0° で $-1SD$ 小さかった。E-line に対する上唇の位置は $+2.5\text{ mm}$, 下唇は $+8.5\text{ mm}$ であった。骨格性の分析は SNA 角が 79.5° で標準値内, SNB 角は 73.5° で標準値内, ANB 角は $+6.0^\circ$ で $+1SD$ 大きい値を示した。

- b) 診断：骨格性Ⅱ級, 大白歯の咬合関係は Angle Ⅲ級, 前歯から大白歯部にかけて反対咬合, 正中線の偏位, 上顎狭窄歯列, 上下顎歯列叢生, 正中離開, 上顎前歯舌側傾斜, 下顎前歯舌側傾斜, 上顎右側口蓋粘膜部に瘻孔, 上顎両側側切歯の矮小歯の診断を得た。
- c) 治療計画：はじめに狭窄した上顎歯列に対して拡大床やリングルアーチを使用し, 前方および側方拡大をおこない前歯部の反対咬合や大白歯部の交叉咬合を改善する。次に上顎前歯部に $.018'' \times .025''$ サイズのスタンダードブラケットをダイレクトボ

ンディングし $.014''$ ステンレススチールワイヤーを屈曲し入れて正中離開を改善する。また, 瘻孔部への骨移植をおこなって瘻孔を閉鎖する。その後, 永久歯交換期まで一時保定をおこない必要に応じて上顎前方牽引装置を使用する。永久歯列期における治療計画は混合歯列期による治療結果による。混合歯列期の治療結果および顎骨の成長によっては外科的矯正の可能性も説明する。

- d) 治療経過：はじめに上顎狭窄歯列に対し拡大床の使用をおこなった。しかし発音機能に支障をきたすとのことから装置を拡大用のリングルアーチに変更した。その後, 拡大を継続していたが患者が来院しなくなり治療は中断となった (11歳9か月)。理由は不明であるが, 教育現場や家族内での何らかの出来事が原因と推測された。保護者からは本人を含め治療継続の意思はあるが, 現時点では中断したいとの連絡があり治療再開を待つこと



Figure 2. Intraoral photographs

A: First record (8Y7M)

B: Re-treatment (16Y0M)

C: After retention (25Y3M)

になった。

治療中断から4年3か月後(16歳0か月), 治療再開の申し出があり再診断をおこなった。

2. 永久歯列期 (Table 1, Fig.1-B, Fig.2-B, Fig.3-B)

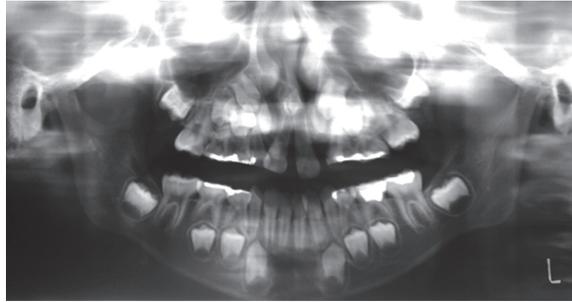
1) 経過および処置

(1) 16歳0か月時 (治療再開時)

- a) 現症: 顔貌所見として正面は卵円形で左右対称, 側面はコンケイブ型を示した。口腔内所見として上顎は著しい狭窄歯列を呈し, 口蓋側に歯牙様硬組織をみとめる。下顎は前歯部に叢生がみられ, 左側第一大臼歯および両側第二大臼歯にう蝕をみとめる。模型分析では overjet -7.5 mm, overbite $+7.0$ mm, 上顎歯列弓幅径は 28.5 mm で $-4SD$ 小さい, Basal arch width は 40.5 mm で $-2SD$ 小さい。上顎歯列の arch length discrepancy 量は -16.0 mm, 下顎歯列は -6.0 mm であった。また上顎歯列弓の狭窄歯列に伴い左側第二小臼歯は口

蓋側転位を示し, これに伴い小臼歯部から前歯部にかけて反対咬合を認めた。Angle の不正咬合の分類では両側ともにⅢ級を呈していた。エックス線写真所見として, パノラマエックス線写真所見では上顎両側側切歯の埋伏, 下顎両側第三大臼歯の埋伏が認められた。側面頭部エックス線規格写真では上顎前歯歯軸角が 85.0° と $-3SD$ 小さく, 下顎前歯歯軸角は 78.0° と $-2SD$ 小さかった。E-line に対する上唇の位置は -2.5 mm, 下唇は $+3.0$ mm であった。骨格性の分析では SNA 角が 74.0° と $-2SD$ 小さく, SNB 角は 77.0° で標準値内, ANB 角は -3.0° で $-2SD$ 小さい。

- b) 診断: 上顎骨劣成長による骨格性Ⅲ級, Angle Ⅲ級, 前歯から小臼歯部にかけて反対咬合, 正中線の偏位, 上顎狭窄歯列, 上下顎の叢生, 正中離開, 上顎前歯舌側傾斜, 下顎前歯舌側傾斜, 小さな上顎両側側切歯, 瘻孔, 下顎両側第三大臼歯の埋伏



A



B



C

Figure 3. Panoramic radiographs

A: First record (8Y7M)

B: Re-treatment (16Y0M)

C: After retention (25Y3M)

の診断を得た。
 混合歯列期から再治療開始までの変化 (Table 1, Fig.1-A,B, Fig.2-A,B, Fig.3-A,B, Fig.4, Fig.7-A)

上顎前歯歯軸角は 52.0° ($-9SD$) から 85.0° ($-3SD$) へ変化した。下顎前歯歯軸角は 83.0° ($-1SD$) から 78.0° ($-2SD$) へより舌側傾斜した。E-line に対する上唇の位置は $+2.5\text{ mm}$ から -2.5 mm , 下唇は $+8.5\text{ mm}$ から $+3.0\text{ mm}$ と変化を認めた。骨格性の変化は SNA 角が 79.5° で標準値内から 74.0° で $-2SD$ 小さい値へ変化し, SNB 角は 73.5° で標準値内から 77.0° で標準値内, ANB 角は $+6.0^\circ$ ($+1SD$) から



Figure 4. Occlusal radiograph: Re-treatment (16Y0M)



Figure 5. Periapical radiograph: After retention (25Y3M)

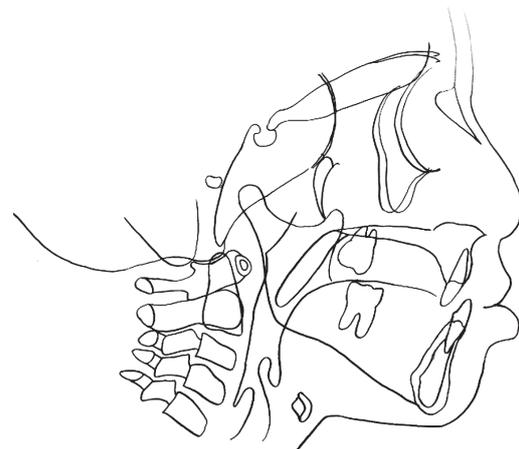


Figure 6. Tracing of lateral cephalogram: First record (8Y7M)

-3.0° ($-2SD$) になり骨格性Ⅲ級に変化した。overjet は -9.0 mm から -7.5 mm , overbite は $+7.0\text{ mm}$ から $+7.0\text{ mm}$, 混合歯列期で便宜的に設定した上顎第一乳臼歯間幅径は 26.0 mm で永久歯列における上顎歯列弓幅径は 28.5 mm で $-4SD$ 小さい値, 同様に混合歯列期における Basal arch width は 39.0 mm で永久歯列では 43.0 mm で標準値内であった。また上顎の狭窄に伴い上顎左側第二小白歯は口蓋側転位を示し, Angle の不正咬合の分類では両側ともⅢ級を呈していた。以上の変化を考慮し, 治療計画の修正がおこなった。

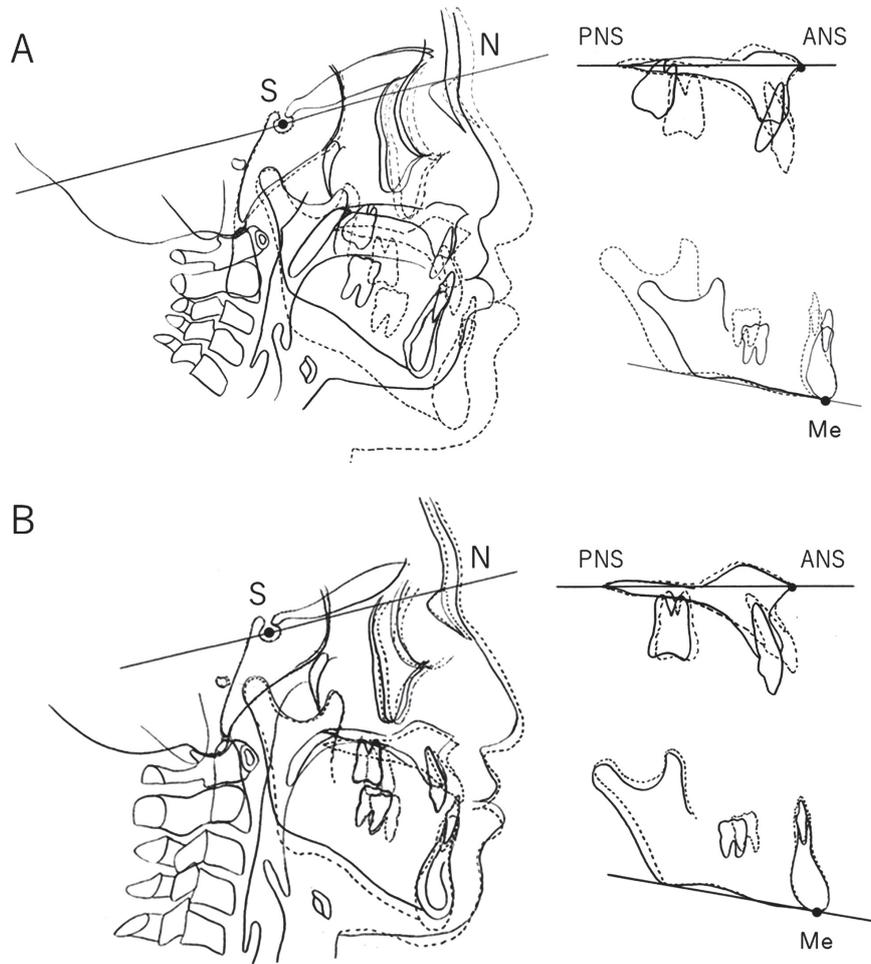


Figure 7. Superimposition of lateral cephalograms
 (SN plane at S, Palatal plane at ANS, Mandibular plane at Me)
 A: Solid line (First record), Dotted line (Re-treatment)
 B: Solid line (Re-treatment), Dotted line (After retention)

c) 治療計画

1. 上顎歯列の側方拡大 (Coffin タイプのリングルアーチ)
術前矯正：マルチブラケット (.018"×.025" slot)
上顎左側第二小臼歯抜歯
2. 上顎両側側切歯の抜歯，顎裂部への骨移植ならびに瘦孔閉鎖
3. 上下顎骨切り術
4. 術後矯正
5. 保定ならびに上顎両側側切歯部の補綴
3. 再治療から保定時までの治療経過および治療結果
(Table.1, Fig.1-B,C, Fig.2-B,C, Fig.3-B,C, Fig.4, Fig.5, Fig.7-B)
治療計画にともない，まず側方拡大のために Coffin タイプのリングルアーチを装着した。その後，上下顎に .018"×.025" サイズのスタンダードエッジワイズブ

ラケットを装着し .014" ニッケルチタン (Ni-Ti) ワイヤーから順に使用し .016"×.022" ステンレススチール (SS) ワイヤーまでワイヤースイズを上げながら動的治療をおこなった。再治療開始から 4 年 6 か月後 (20 歳 6 か月) に上顎顎裂部へ自家骨移植をおこなった。また骨移植の際に，口蓋にあった歯牙様硬組織は摘出した。その後，骨移植部の骨梁形成を確認し 22 歳 0 か月で上下顎骨切り術を実施した。同処置の選択については，患者の負担を考慮し下顎骨単独での骨切り術も検討したが，下顎骨の後方移動量が多くなり，気道を狭くして睡眠時無呼吸症候群を発症するリスクを高めることも考えられたため，上下顎の骨切り術を行うこととした。上顎は Le Fort I 型骨切り術で 2.0 mm 前方へ，下顎は下顎枝矢状分割術で 6.0 mm 後方へ，垂直的な移動は上下顎ともに計画しなかった。手術 6 か月後，プレートを除去し術後矯正を 9 か月間おこ

ない保定に移行した（再治療開始から6年9か月）。保定は上顎前歯部口蓋側にツイストワイヤーにて犬歯間保定（両側側切歯部は人工歯を付与）、下顎にはHawleyタイプの保定装置を装着した。その後24歳0か月時に上顎両側側切歯部にインプラント体を埋入し、24歳6か月時にインプラントの上部構造を装着して上顎の保定装置をクリアリテーナーに変更した。25歳3か月時、咬合機能の安定が確認されたため最終的な資料採得をおこなった。再治療開始から通院終了まで計9年3か月の管理をおこない、初診時からは16年8か月の長期管理を要した。

考 察

長期管理症例における処置について：一般的に口唇口蓋裂の矯正歯科治療は、乳歯列期あるいは混合歯列期からはじまり思春期性成長期を挟んで成人期に至るまでを要することが少なくない⁵⁾。長期的な治療の中で考慮すべき課題の一つは、上下顎骨の相対的位置の変化が生じる思春期性成長発育期における対応である。この時期の上下顎の成長変化によっては外科的な処置を必要とする。またその成長の程度によって上下顎の骨切り術を必要とするような複雑な術式となり治療の難易度を高めることにもなる^{6,7)}。

このことに関連して高橋ら⁷⁾は永久歯列期まで矯正歯科治療をおこなわなかった片側性唇顎口蓋裂、片側性唇顎裂、両側性唇顎口蓋裂、両側性唇顎裂、口蓋裂、口唇裂患者で成人期まで未治療だった59名（平均17歳4か月、男性53%、女性47%）についてそれらの症状を調査した。その結果、前歯部あるいは臼歯部の反対咬合を示したものが80%で、その中で前歯部から小臼歯部にかけての重症度を示すトータルクロスバイトは46%であったと報告している。加えて、外科的矯正治療の対象となったのは22%で徳永ら⁸⁾の早期治療からはじめた外科的症例が7%であったのに比べ3倍近くの差が認められたとしている。また齋藤ら⁹⁾は両側性口唇口蓋裂、唇顎口蓋裂で治療開始が混合歯列期からはじめた群（平均8歳8か月）と思春期性成長がほぼ終了した永久歯列期で治療を開始した群（平均17歳9か月）を比べると後者で高い割合で抜歯や顎骨の手術を要することが示されたと報告している。本症例でも思春期性成長発育期に治療の中断を経験し、結果としてANB角が $+6.0^\circ$ から -3.0° と上下顎骨の相対的位置関係が増悪した。上顎歯列のarch length discrepancyは -16.0 mm、また前歯部から大臼歯部にかけての反対咬合をみとめ、治療計画の難易度が上がり顎裂部に位置する両側側切歯の抜去、その後自家骨移植を伴う上下顎の骨切り術が加えられ

た。このように思春期性成長発育期の治療中断は治療計画の大幅な修正を余儀なくされることから、治療成績の良否に対する鍵の1つと考えられる。

すべての長期管理症例でこのような思春期性成長発育期での治療中断が治療計画の修正を必要とするか否かは定かでないが、特に口蓋閉鎖術をおこなった患者における思春期性成長発育の対応は十分に重要視されるべきものと思われる。

長期管理症例における治療中断要因について：長期管理を要する症例では、治療の中断は極力避けられることが重要になる。しかし、実際には治療の中断は少なからず見受けられる。中断や未治療の原因について高橋ら⁷⁾は患者側からの調査で「医師・歯科医師にまだ必要ないと言われた」「矯正の必要性を感じなかった」「金銭面の問題」「通院に要する時間が長い」などを挙げている。他方、関連する要因として北尾ら⁴⁾は就学時の患者を対象とした公立小学校教諭6,000名へのアンケートより、外見や発音などに関する「からかい・いじめ」などの点を挙げ、また教員の疾患に対する理解度の不足や接し方の困難さも関係していることを報告している。また家族内における中断要因については高尾ら²⁾は保護者が患者への疾患を伝える状況や、それを受け取る患者側の心理的迷いなど、熊谷ら³⁾は家族内での治療に対する理解の欠如、北尾ら¹⁰⁾は同疾患を持つ小学4～6年生の学童に対する調査で、患者自身が病気について理解し悩み時期であるため治療の中断や中止になることがあり得ることを示唆している。本症例の治療中断期間もこの時期に当たる。患者からの詳細な中断理由は聞けなかったものの、文献から同様の状況があったことは容易に推測できる。一方、医療従事者側が中断要因となることもある。特に、最も長期にわたり治療に携わる矯正歯科医に関しては、治療途中での担当医の変更や治療経過の伝達不足、そしてそのことに伴う患者へ寄り添う姿勢の変化などが挙げられる。以上のことから対策として、中断や未治療の原因や要因が複数あることを認識し、長期にわたり治療が必要なことを分かりやすくフローチャート等を作成して説明する、診断時だけでなく定期的に説明する、治療に対する意識が下がらないよう本人およびその家族とも積極的にコミュニケーションを取ることが必要と考えられる。

結 論

今回の治療中断を経験した症例より、筆者らは長期管理症例の難しさを改めて痛感した。特に唇顎口蓋裂の治療は長期にわたる。適切な時期に適切な治療をおこなえば治療の難易度を低く抑えられる可能性がある

が、治療開始時期が遅くなったり思春期性成長発育期での管理体制が円滑に進まないと治療の難易度も上がり治療結果に影響することも少なくない。本症例では、治療中断を経ても比較的良好な咬合が得られたが、治療計画の大幅な修正が求められた。このような、治療が長期に渡る症例では治療にたずさわる医療従事者に加え、家庭や社会の協力と対応が特に重要であることが示唆された。

利益相反

申告すべき利益相反なし。

文 献

1. 今井啓道, 館 正弘, 佐藤顕光ほか: 口唇・口蓋裂治療未来へのネットワーク 理想的なチーム医療を目指して 東北大学病院の挑戦. 日口蓋誌. **38**(1): 35-40, 2013.
2. 高尾佳代, 中新美保子: 口唇裂・口蓋裂の子どもに病気を伝える時の母親の苦悩と支援の希望. 川崎医療福祉学会誌. **30**(1): 129-137, 2020.
3. 熊谷由加里, 藤田優一, 北尾美香ほか: 口唇裂・口蓋裂の孫をもつ祖母の心理状態—娘・家族に関連する心理的側面—. 日口蓋誌. **45**(3): 213-219, 2020.
4. 北尾美香, 植木慎悟, 藤田優一: 小学校教諭の口唇裂・口蓋裂に関する認識. 日口蓋誌. **46**(1): 18-24, 2021.
5. 市瀬 毅, 小坂竜也, 海老原 環ほか: 長期管理の中で良好な咬合が得られた唇顎裂・唇顎口蓋裂治療例. 歯科学報. **111**(4): 365-374, 2011.
6. 内山健志: 私たちの施設における口唇裂・口蓋裂の一貫治療 臨床と研究を基盤にして. 小児口腔外科. **16**(2): 108-124, 2006.
7. 高橋まどか, 高橋一誠, 石井武展ほか: 永久歯列まで矯正治療を行わなかった口唇口蓋裂症例の矯正学的検討. 歯科学報. **118**(4): 347-352, 2018.
8. 徳永恵理, 野嶋邦彦, 西井 康ほか: 東京歯科大学千葉病院矯正歯科における 10 年間の唇顎口蓋裂者の臨床統計的検討 第二報: 顎態と治療方針. 歯科学報. **111**(4): 359-364, 2011.
9. 齋藤朋子, 水野高夫, 吉野直之ほか: 東京歯科大学千葉病院における両側性唇顎口蓋裂患者に対する矯正歯科治療の実態調査. 日口蓋誌. **44**(1): 7-15, 2019.
10. 北尾美香, 熊谷由加里, 池 美保ほか: 小学 4～6 年生の唇顎口蓋裂患児の病気に対する思い. 日本看護科学会誌. **41**: 824-831, 2021.