

— 原 著 —

口腔内微小奇形に関する臨床統計的研究

——唇・顎・口蓋裂との関連を含めて——

滝 沢 きよみ

新潟大学歯学部口腔外科学第二教室（指導：大橋 靖教授）

（昭和56年11月27日受付）

Clinico-Statistical Studies on Intra Oral Minor Anomalies

Kiyomi TAKIZAWA

*The 2nd Department of Oral Surgery, School of Dentistry, Niigata University
(Director: Prof. Yasushi Ohashi)*

要 旨

唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形（口蓋垂裂，上顎切歯の異常，舌強直症）との関連性を調査し，本症の発症原因の解明の一助とすることを目的に，当科を受診した唇・顎・口蓋裂患児の母親193名について口腔内微小奇形を，また，一般集団として新潟市内および県内の幼児から成人までの総数8,802名について，粘膜下口蓋裂を含む唇・顎・口蓋裂の頻度および口腔内微小奇形を調査した。

その結果，一般集団中における唇・顎・口蓋裂の頻度は0.23% (1:440)，このうち，典型的な三徴候を有する粘膜下口蓋裂の頻度は0.034% (1:2,934) で，3.5歳児のみでは0.097% (1:1,027)，中学生のみでは0.099% (1:1,010) であった。

また，口腔内微小奇形のうち，口蓋垂裂の頻度は3.43%，上顎切歯の異常の頻度は5.9%，舌強直症の頻度は24.3%であった。

唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連性については，唇・顎・口蓋裂患児の母親193名における口腔内微小奇形の頻度を一般集団中の成人女性733名におけるそれと比較して検索した。

その結果，患児の母親に見られた口蓋垂裂，上

顎切歯の異常，舌強直症のいずれの頻度も，対照とした成人女性における頻度に比較して，同等もしくは低値を示し，唇・顎・口蓋裂との間に積極的な関連性を示唆する所見は認められなかった。

緒 言

唇・顎・口蓋裂の成因について，内因，外因両面から多くの研究が報告されている。内因に関しては，Fogh-Andersen (1942)¹⁾により詳細な検索がなされて以来，本邦においても小林²⁾，讚井³⁾，黒住ら⁴⁾，赤坂⁵⁾ら多数の報告が見られる。

また，外因に関しても動物実験⁶⁾をはじめ，母親の妊娠歴調査⁷⁾など，多くの研究が行われている。

このように，内因，外因に関し，種々なる検索が行われているが，ヒトにおける本症の発症原因については，未だ明確な解答は得られていないのが現状である。

一方，唇・顎・口蓋裂には完全裂を示すものの他に，いわゆる微小型 microform の存在が指摘され，それとの関連から本症の発症原因を考察しようとする考えがある。

すなわち，本症の microform として，鼻の形態の非対称性・上口唇の条痕・上顎（中）側切歯

の数・形態・位置の異常^{8,9)}, 断層 X 線写真上における鼻口蓋部の骨欠損あるいは骨異常⁹⁾, 口蓋垂裂^{8,10~12)}などを挙げ, 唇・顎・口蓋裂との関連性を指摘している報告が多い。

特に, 口蓋垂裂について, 志村¹⁰⁾が唇・顎・口蓋裂の家系調査で口蓋垂裂が多発することを認め, 口蓋垂裂は唇・顎・口蓋裂の microform であると報告し, また Meskin ら¹¹⁾も口蓋垂裂の家系調査の結果, 口蓋垂裂の遺伝性と遺伝様式が口蓋裂に類似していること, および口蓋垂裂の家系における唇・顎・口蓋裂の発生頻度が高いこと, さらに, 唇(顎)口蓋裂, 口蓋裂の家系を調査して, 一般集団に比較して口蓋垂裂ははるかに高率に発生することを見出し¹²⁾, 同じく口蓋垂裂が, 唇(顎)口蓋裂, 口蓋裂の microform であるとした。

しかし, 一方では, これら microform とされているもののうち, 鼻の形態の非対称性¹³⁾, 側切歯の異常¹⁴⁾, 断層 X 線写真上における鼻口蓋部の骨欠損あるいは骨異常¹⁵⁾については, この関係を否定するものもあり, また, 口蓋垂裂についても Chosack and Eidelman¹⁶⁾は口蓋垂裂の家系調査で, 口蓋裂の発生頻度が一般集団と差がないことを認め, 口蓋垂裂が microform であるという考えを疑問視しており, 未だ一定していない。

また, 唇・顎・口蓋裂の病態像についても, 完全裂例から不完全裂例まで種々のものがみられ, 特に, 口蓋裂の一型と考えられている粘膜下口蓋裂では, その病態は複雑でさまざまな程度のもが見られる。粘膜下口蓋裂では口蓋垂裂を伴うのが一般であるが, 逆に口蓋垂裂を認めるものでも他の粘膜下口蓋裂の徴候を欠く例の多いことも事実であり, その関連性を明らかにしておく意義は大きいと思われる。

これらのことから, 著者は, 唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連性を調査し, 唇・顎・口蓋裂の発症原因の解明の一助とすることを目的に, 本症患者の母親の口腔内微小奇形を, また, 各年齢層別一般集団について, 粘膜下口蓋裂を含む唇・顎・口蓋裂の頻度および口腔内微小奇形を調査し, 若干の知見を得たので報告する。

研究対象および方法

1. 患児の母親: 昭和54年6月から同56年6月までの2年1カ月間に, 新潟大学歯学部附属病院第二口腔外科を受診した唇・顎・口蓋裂患児に同伴し, 著者が直接診査し得た母親193名を対象とした(表1)。これらの母親について, 口蓋垂裂,

表1 唇・顎・口蓋裂患児の母親の内訳

患児の症型	母親の例数
唇(顎)裂	24
唇(顎)口蓋裂	97
口蓋裂	48
粘膜下口蓋裂	24
計	193

上顎切歯の異常, 舌強直症の有無を調査した。

口蓋垂裂の判定は望月らの基準¹⁷⁾を参考に,

第1度: 口蓋垂の先端のみ裂けているもの

第2度: 口蓋垂の中央部まで裂けているもの

第3度: 口蓋垂の基底部まで裂けているものおよび一部, 軟口蓋にまで及ぶもの

とした。

上顎切歯の異常は, 主に, 上顎中切歯と側切歯の数・形態・位置の異常について調査した。

舌強直症の判定基準¹⁷⁾は,

第1度: 十分開口させ舌尖を挙上しても口蓋にとどかず舌尖がくびれて2つに見えるもの

第2度: 舌尖を挙上しても咬合平面よりあがらないもの

第3度: 舌尖をほとんど挙上しえないもの

とした。

2. 一般集団: 一般集団として, 幼児, 児童・生徒, 成人の各年齢層をとった。すなわち, 幼児として, 昭和54年9月から同56年6月までの1年10カ月間に新潟市H保健所において行われた母子保健法による健康診査に受診した1.5歳児, 3.5歳児の3,990名, 児童・生徒として, 新潟県内の小学校4校, 中学校3校および市内の女子高校1校の

3,462名, 成人として, 新潟市内の一大学の成人男性617名および上述した保健所における妊産婦検診に受診した成人女性733名, 総計8,802名を対象とした(表2)。これら一般集団について, 粘膜

表2 一般集団の内訳

対象	場所	男性	女性	計
幼児	1.5歳児	982	954	1,936
	3.5歳児	1,055	999	2,054
児童	小学生			
	Y 小学校	336	313	649
	T 小学校	145	120	265
	I 小学校	86	105	191
	N 小学校	174	160	334
	計	741	698	1,439
生徒	中学生			
	Y 中学校	173	174	347
	N 中学校	200	206	406
	K 中学校	128	129	257
	計	501	509	1,010
高校生	S 高校	-	1,013	1,013
成人	男性	617	-	617
	女性	-	733	733
計		3,896	4,906	8,802

下口蓋裂を含む唇・顎・口蓋裂および口蓋垂裂, 上顎切歯の異常, 舌強直症の有無を調査した。

各々の判定は前述の基準によったが, 粘膜下口蓋裂については, Calnan¹⁸⁾の三徴候(①口蓋垂裂, ②軟口蓋正中部の筋層の断裂, ③硬口蓋後縁正中部のくさび状骨欠損)を有するものとした。

研究結果

1. 唇・顎・口蓋裂患児の母親について

1) 口蓋垂裂の頻度

調査総数193名のうち, 口蓋垂裂は4名に認められ, その頻度は2.07%であった。

患児の症型別では, 唇(顎)口蓋裂患児の母親が3名(3.09%), 口蓋裂患児の母親が1名(2.08%)で, 他の症型には認められなかった。

ちなみに, 唇(顎)裂単独を除く, 唇(顎)口蓋裂, 口蓋裂, 粘膜下口蓋裂患児の母親の総数は193名中169名で, これら口蓋裂を有する患児の母親における頻度は2.37%であった。

破裂の程度別では, 第1度が2名, 第2度および第3度が各1名である(表3)。

表3 唇・顎・口蓋裂患児の母親における口蓋垂裂の頻度

患児の症型	口 蓋 垂 裂			
	第 1 度	第 2 度	第 3 度	計 (%)
唇(顎)裂(24例)	0	0	0	0
唇(顎)口蓋裂(97例)	2	1	0	3 (3.09)
口蓋裂(48例)	0	0	1	1 (2.08)
粘膜下口蓋裂(24例)	0	0	0	0
計 (193例)	2	1	1	4 (2.07)

2) 上顎切歯の異常の頻度

上顎中・側切歯の数・形態・位置の異常をみると, 193名中, 何らかの異常の認められたものは9名で, その頻度は4.7%であった。このうち, 口蓋裂, 粘膜下口蓋裂を除く唇(顎)裂, 唇(顎)口蓋裂患児の母親の総数は193名中121名で, これら唇(顎)裂を有する患児の母親における頻度は4.9%であった。

異常の種類では, 最も多いのが側切歯の形態異

常で6名に認められた(表4)。

3) 舌強直症の頻度

調査総数193名のうち, 舌強直症は24名に認められ, その頻度は12.4%であった。

舌強直症の程度別発現率は, 第1度が16名(8.3%), 第2度が7名(3.6%), 第3度が1名(0.5%)である。

患児の症型別発現率には差は認められなかった(表5)。

表 4 唇・顎・口蓋裂患児の母親における上顎切歯の異常の頻度

患児の症型	上 顎 切 歯 の 異 常					計 (%)
	2円錐歯	2矮小歯	2捻 転	2捻転&過剰歯	1捻 転	
唇 (顎) 裂 (24例)				1		1 (4.1)
唇(顎)口蓋裂 (97例)	2	1	1		1	5 (5.2)
口 蓋 裂 (48例)	2	1				3 (6.2)
粘膜下口蓋裂 (24例)						0
計 (193例)	4	2	1	1	1	9 (4.7)

表 5 唇・顎・口蓋裂患児の母親における舌強直症の頻度

患児の症型	舌 強 直 症				計 (%)
	第 1 度	第 2 度	第 3 度		
唇 (顎) 裂 (24例)	2	1	0		3 (12.5)
唇(顎)口蓋裂 (97例)	8	3	0		11 (11.3)
口 蓋 裂 (48例)	4	2	1		7 (14.6)
粘膜下口蓋裂 (24例)	2	1	0		3 (12.5)
計 (193例)	16	7	1		24 (12.4)

表 6 一般集団における唇・顎・口蓋裂の頻度

対 象	調査数	唇(顎)裂	唇(顎)口蓋裂	口 蓋 裂	粘膜下口蓋裂	計 (%)
幼 児 1.5 歳 児	1,936	0	1	2	0	3 (0.15)
3.5 歳 児	2,054	2	0	1**	2	5 (0.24)
見 童 小 学 生	1,439	3*	1	1	0	5 (0.35)
中 学 生	1,010	2	1	1	1	5 (0.49)
生 徒 高 校 生	1,013	1	1	0	0	2 (0.20)
成 人	1,350	0	0	0	0	0
計	8,802	8	4	5	3	20 (0.23)

* 1例は皮下唇裂 ** 先天性下口唇癒合併

2. 一般集団について

1) 唇・顎・口蓋裂の頻度

調査総数 8,802 名のうち、唇・顎・口蓋裂は 20 名、0.23% に認められた。その内訳は、唇 (顎) 裂 8 名、唇 (顎) 口蓋裂 4 名、口蓋裂 5 名、粘膜下口蓋裂 3 名であった。

年齢層別頻度では、小学生が 0.35%、中学生が 0.49% と両群の頻度は他に比して高く、次いで 1.5 歳児、3.5 歳児、高校生が 0.15~0.24% の範囲

であったが、各々の年齢層の間には統計学的に有意差を認めなかった。尚、今回の調査では成人男女には 1 例も認められなかった(表 6)。

性別発現頻度は、男性は 3,896 名中 9 名 (0.23%)、女性は 4,906 名中 11 名 (0.22%) で、発現率に差を認めない。

症型別に性別をみると、唇 (顎) 裂は男性 6 名、女性 2 名、唇 (顎) 口蓋裂は男性 2 名、女性 2 名、口蓋裂は男性 1 名、女性 4 名、粘膜下口蓋裂は女

性3名のみ認められた(表7)。

表7 一般集団における唇・顎・口蓋裂の性別分布

対 象	調 査 数		唇(顎)裂		唇(顎)口蓋裂		口 蓋 裂		粘膜下口蓋裂		計		
	男	女	男	女	男	女	男	女	男	女	男	女	
幼 児	1.5 歳 児	982	954	0	0	0	1	0	2	0	0	0	3
	3.5 歳 児	1,055	999	2	0	0	0	0	1	0	2	2	3
児 童 ・ 生 徒	小 学 生	741	698	3	0	1	0	1	0	0	0	5	0
	中 学 生	501	509	1	1	1	0	0	1	0	1	2	3
	高 校 生	-	1,013	-	1	-	1	-	0	-	0	-	2
成 人		617	733	0	0	0	0	0	0	0	0	0	0
計		3,896	4,906	6	2	2	2	1	4	0	3	9	11

2) 粘膜下口蓋裂の頻度

調査総数 8,802 名のうち、3 名に典型的な三徴候を有する粘膜下口蓋裂が認められ、その頻度は 1:2,934 (0.034%) であった。

年齢層別にみると、3 名のうち、2 名は 3.5 歳児で、その頻度は 1:1,027 (0.097%) に、他の 1 名は中学生で、その頻度は 1:1,010 (0.099%) に相当する。

性別は、全て女性であった(表6, 7)。

3) 口蓋垂裂の頻度

調査総数 8,802 名のうち、口蓋垂裂は 306 名に認められ、その頻度は 3.43% であった。年齢層別では、3.5 歳児、小学生、中学生、高校生が 3.55~4.43% で、これらは 1.5 歳児、成人の 2.37% に比し高い傾向を示した。

性差は、各年齢層ともに統計学的に有意差を認めない(表8)。

表8 一般集団における口蓋垂裂の年齢層別・性別頻度

対 象	男 性			女 性			計			
	調査数	例 数	%	調査数	例 数	%	調査数	例 数	%	
幼 児	1.5 歳 児	982	27	2.75	954	19	1.99	1,936	46	2.37
	3.5 歳 児	1,055	52	4.93	999	39	3.90	2,054	91	4.43
児 童 ・ 生 徒	小 学 生	741	32	4.32	698	25	3.58	1,439	57	3.96
	中 学 生	501	27	5.39	509	17	3.34	1,010	44	4.36
	高 校 生	-	-	-	1,013	36	3.55	1,013	36	3.55
成 人		617	13	2.10	733	19	2.59	1,350	32	2.37
計		3,896	151	3.87	4,906	155	3.16	8,802	306	3.43

破裂の程度別に発現率を見ると、第1度が 2.43% で最も高く、次いで第2度が 0.67%、第3度が 0.37% の順となっており、この傾向は各年齢層ともにほぼ同様であった。性別では男女ともに第1度、第2度、第3度の順に頻度は減少している

が、第1度では、男性が 2.90%、女性が 2.06% で男性の頻度が有意に高い値を示した ($\chi^2=6.485$, $P<0.02$)。第2度、第3度では男女の間に発現率の差は認められなかった(表9)。

表9 一般集団における口蓋垂裂の破裂程度別頻度

対 象	男 性				女 性				計				
	調査数	第1度	第2度	第3度	調査数	第1度	第2度	第3度	調査数	第1度	第2度	第3度	
幼 児	1.5 歳 児	982	24 (2.44)	1 (0.10)	2 (0.20)	954	16 (1.68)	1 (0.10)	2 (0.21)	1,936	40 (2.07)	2 (0.10)	4 (0.21)
	3.5 歳 児	1,055	41 (3.89)	7 (0.66)	4 (0.38)	999	28 (2.80)	9 (0.90)	2 (0.20)	2,054	69 (3.36)	16 (0.78)	6 (0.29)
児 童 ・ 生 徒	小 学 生	741	21 (2.83)	9 (1.21)	2 (0.27)	698	17 (2.44)	7 (1.00)	1 (0.14)	1,439	38 (2.64)	16 (1.11)	3 (0.21)
	中 学 生	501	16 (3.19)	6 (1.20)	5 (1.00)	509	9 (1.77)	3 (0.59)	5 (0.98)	1,010	25 (2.48)	9 (0.89)	10 (0.99)
	高 校 生	-	-	-	-	1,013	22 (2.17)	8 (0.79)	6 (0.59)	1,013	22 (2.17)	8 (0.79)	6 (0.59)
成 人		617	11 (1.78)	2 (0.32)	0	733	9 (1.23)	6 (0.82)	4 (0.55)	1,350	20 (1.48)	8 (0.59)	4 (0.30)
計		3,896	113 (2.90)	25 (0.64)	13 (0.33)	4,906	101 (2.06)	34 (0.69)	20 (0.41)	8,802	214 (2.43)	59 (0.67)	33 (0.37)

() 内は%

4) 上顎切歯の異常の頻度

歯の異常は成人女性についてのみ調査した。733名中、上顎中・側切歯に何らかの異常の認められたものは43名で、その頻度は5.9%であった。そのうち、側切歯のみの異常が40名、中切歯のみの異常が1名、側切歯と中切歯の異常を合併するものが1名、乳歯の残存が1名であった。

異常の種類別では矮小歯、円錐歯、円壩歯などの形態の異常が31名、捻転、転位などの位置の異常が12名、欠損あるいは埋伏が2名、乳歯の残存が1名であった(但し、これらの人数は、2種の異常を合併しているもの3名を含む延数である)(表10)。

5) 舌強直症の頻度

舌強直症は小・中学生、高校生、成人の合計4,812名について調査した。このうち、舌強直症は1,169名に認められ、その頻度は24.3%であった。

年齢層別の頻度では、小・中学生、高校生が26.5~27.7%で成人の17.6%に比較して有意に高い頻度であった($x^2 > 27.200$, $P < 0.001$)。

性別発現頻度は、男性が1,859名中457名(24.6%)、女性が2,953名中712名(24.1%)で、発現率に差を認めないが、年齢層別にみると、小・中学

表10 成人女性における上顎切歯の異常

2 2 矮小歯 or 円錐歯	18 (例)
2 矮小歯 or 円錐歯	3
2 矮小歯 or 円錐歯	6
2 2 円壩歯	2
2 矮小歯 & 捻転	1
2 円錐歯 & 2 欠如 (or 埋伏)	1
2 捻転	1
2 捻転	1
2 捻転 & 1 欠如 (or 埋伏)	1
1 捻転	1
2 2 転位	2
2 転位	1
2 転位	4
CB BC 残存	1
計	43 (5.9%)

生では男性の発現率が女性に比較して有意に高く($x^2 > 4.017$, $P < 0.05$)、成人では逆に女性の発現率が男性に比較して有意に高い($x^2 = 5.115$, $P < 0.05$)(表11)。

程度による発現率は、第1度が16.8%で最も高く、次いで第2度が6.3%、第3度が1.2%の順で、この傾向は各年齢層ともに同様であった。性別では、男女ともに第1度、第2度、第3度の順に減少しているが、第3度は男性が30名(1.6%)、女性が26名(0.9%)で、男性は女性より有意に高

い値を示した($\chi^2=5.333$, $P<0.05$)。第1度, 第2度では男女の間に頻度の差は認められなかった

表 11 一般集団における舌強直症の年齢層別・性別頻度

対 象	男 性			女 性			計		
	調査数	例 数	%	調査数	例 数	%	調査数	例 数	%
幼 児 1.5 歳 児 3.5 歳 児	-	-	-	-	-	-	-	-	-
児 童 ・ 生 徒 小 学 生 中 学 生 高 校 生	741	217	29.3	698	165	23.6	1,439	382	26.5
	501	147	29.3	509	121	23.8	1,010	268	26.5
	-	-	-	1,013	281	27.7	1,013	281	27.7
成 人	617	93	15.1	733	145	19.8	1,350	238	17.6
計	1,859	457	24.6	2,953	712	24.1	4,812	1,169	24.3

表 12 一般集団における舌強直症の程度別頻度

対 象	男 性				女 性				計			
	調査数	第1度	第2度	第3度	調査数	第1度	第2度	第3度	調査数	第1度	第2度	第3度
幼 児 1.5 歳 児 3.5 歳 児	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	-
児 童 ・ 生 徒 小 学 生 中 学 生 高 校 生	741	144 (19.4)	56 (7.6)	17 (2.3)	698	132 (18.9)	31 (4.4)	2 (0.3)	1,439	276 (19.2)	87 (6.0)	19 (1.3)
	501	108 (21.6)	32 (6.4)	7 (1.4)	509	80 (15.7)	37 (7.3)	4 (0.8)	1,010	188 (18.6)	69 (6.8)	11 (1.1)
	-	-	-	-	1,013	207 (20.4)	64 (6.3)	10 (1.0)	1,013	207 (20.4)	64 (6.3)	10 (1.0)
成 人	617	53 (8.6)	34 (5.5)	6 (1.0)	733	85 (11.6)	50 (6.8)	10 (1.4)	1,350	138 (10.2)	84 (6.2)	16 (1.2)
計	1,859	305 (16.4)	122 (6.6)	30 (1.6)	2,953	504 (17.1)	182 (6.2)	26 (0.9)	4,812	809 (16.8)	304 (6.3)	56 (1.2)

() 内は%

考 察

1. 研究対象について

対象とした唇・顎・口蓋裂患児の母親は、最近2年1カ月間に当科を受診した唇・顎・口蓋裂患児に同伴し、著者が直接診査し得た193名とした。

今回対象とした母親の患児の症型は、表1に示した如くで、一般の報告にみられる本症患児の症型分布に比し、唇(顎)裂単独の占める割合が少なく、口蓋裂、粘膜下口蓋裂の占める割合が比較的高くなっている。しかも粘膜下口蓋裂は口蓋裂

群72名中24名(33.3%)と多かったが、これらは言語障害を主訴に当院言語治療室を受診した患者の口腔内診査の結果発見されたものがほとんどである。

粘膜下口蓋裂が口蓋裂群中に占める割合について、Porterfield¹⁹⁾は3.6%, Gylling and Soivio²⁰⁾は5.8%, Crikelair²¹⁾は4.3%, 藤田ら²²⁾は14.2%の値を報告しており、著者の結果と比較して著明な差を示している。これは、口蓋裂を対象とした言語治療室が設置されており、当科との有機的な連携のもとに唇・顎・口蓋裂患者の総合治

療を推進しつつある²³⁾本院の特徴によるものと考えられる。

この点について、小林²⁾は施設によって受診患者に差のあることを挙げ、讚井³⁾は自験例の統計より、同一施設でも各奇形の種類は手術の有無、居住地など、いくつかの要因によって変動することを指摘しており、施設によって受診する患者の種類が異なることは避けられず、今回のような一施設での調査では止むを得ないものと考えられる。

また、一般集団として、各年齢層別頻度をも調査することを目的に、幼児・児童・生徒・成人各々を対象として選択した。

すなわち、幼児としては、新潟市H保健所に来所した1.5歳児、3.5歳児を、児童・生徒としては、県内各地の小学校4校、中学校3校、女子高校1校を、また、成人としては、新潟市内の一大学の男子学生および上述したH保健所の妊産婦検診に受診した女性をとり、その総数は8,802名であった。

しかし、1.5歳児、3.5歳児、妊産婦の保健所受診は自由意志によっており、H保健所における歯科受診率は約50~60%にすぎないという。また、高校、大学は各一校のみの調査であった。

このように、今回一般集団として選択した対象には、種々なる制限が生じたが、可及的普遍的な値を得るために、本研究では、調査対象数を増す様に努めると同時に、調査者を著者一人に限定し、全て同一基準に従って診断し、その欠を補った。

2. 一般集団の研究結果について

1) 唇・顎・口蓋裂の頻度

調査総数8,802名のうち、唇・顎・口蓋裂は20名、0.23%に認められた。

症型別では、唇(顎)裂8名、唇(顎)口蓋裂4名、口蓋裂5名、粘膜下口蓋裂3名であった。

年齢層別頻度では、小学生は0.35%、中学生は0.49%で、1.5歳児、3.5歳児、高校生の0.15~0.24%に比し高かったが、統計学的には有意差は認めなかった。

性別発現頻度は、男性は0.23%、女性が0.22%

で差を認めなかった。

本邦における唇・顎・口蓋裂の発生頻度は0.118~0.319%と各報告者^{2,4,24~31)}の調査対象、調査人数により差が認められる。一般には0.2%前後とされており、著者の今回の結果もほぼ日本人の平均的傾向を示すものと考えられる。

一方、今回の調査では、小学生と中学生の各々の頻度は0.35%、0.49%と従来の報告に比較して高い値を示した。

この点について、調査対象数の不足、調査地域の特性などが考えられるが、遺伝的要因調査などが行われていないため、その原因については明らかでない。

また、調査対象による差について、小林²⁾は、本症患者は胎生期又は生後間もなく死亡するものが多く、従って、本症の頻度は死産児、流産児に最も高く、新生児がこれに次ぎ、小学生になればかなり低くなると述べている。流産児中の本症の出現率がきわめて高いことは、Krausら³²⁾も指摘している通りである。

小学生の頻度では、穴沢³³⁾は0.047%と著しく低い値を報告しているのに対し、金城³⁴⁾は0.21%と出生児にほぼ等しい値を報告している。これは、近年の乳児死亡率の著明な減少³⁵⁾と関連し、1941年の穴沢³³⁾の調査報告に比較して、1968年の金城³⁴⁾および今回の著者の調査結果との間に差が認められるのは当然で、最近は出生児における頻度と年長者の頻度との間には大きな差はないものと考えられる。

2) 粘膜下口蓋裂の頻度

一般集団における粘膜下口蓋裂の発生頻度を調査するにあたり、著者はCalnan¹⁸⁾の定義に従い、明らかな三徴候を有する典型例のみを抽出した。その結果、調査総数8,802名のうち、粘膜下口蓋裂は3名に認められ、その頻度は0.034%(1:2,934)であった。

年齢層別にみると、3.5歳児に2名(1:1,027)、中学生に1名(1:1,010)認められた。

性別では全て女性であった。

口蓋裂患者の中に粘膜下口蓋裂が占める割合は、先にも述べた如く、3.6~14.2%の値^{19~22)}が

挙げられている。しかし、一般集団中に占める頻度については Stewart ら³⁶⁾の報告をみるにすぎない。それによると、Denver の15の学校、児童、生徒 10,836人のうち、粘膜下口蓋裂は9人に認められ、その頻度は1:1,200であったという。この値は、著者の年齢層別発生頻度と比較して大差を示していない。

これらの調査にあたって、そもそも、粘膜下口蓋裂とはどういうものまで含めるか、その病態像についても種々論議されている。

Calnan¹⁸⁾は、粘膜下口蓋裂の診断について、①口蓋垂裂、②軟口蓋正中部の筋層の断裂、③硬口蓋後縁正中部のくさび状骨欠損、の三徴候を挙げている。一方、Crikelair ら²¹⁾は、粘膜下口蓋裂の臨床像は Calnan の述べている如く、明解に定義できるものばかりではなく、種々な variety が認められると述べ、また、Kaplan³⁷⁾は三徴候をもつ粘膜下口蓋裂を“Classic Submucous Cleft Palate” (Classic SMCP) と呼ぶのに対し、明らかな三徴候はないが、筋肉の位置異常(口蓋筋が硬口蓋の上へはいり込んでいる)のあるものを“Occult Submucous Cleft Palate” (Occult SMCP) と名づけ、確定診断は手術によらねばならないと述べている。また Croft ら³⁸⁾、Lewin ら³⁹⁾は鼻咽腔鏡によって“Occult SMCP”の存在を明らかにできることを報告している。一方、木村⁴⁰⁾は粘膜下口蓋裂と誤診しやすい鼻咽腔閉鎖不全症を指摘し、仮性口蓋裂と命名している。

著者の臨床経験でも言語障害を主訴として当院へ来院した粘膜下口蓋裂群には、明らかな三徴候を有するものだけでなく、手術によって確定しうる Kaplan³⁷⁾のいう“Occult SMCP”に相当するものも多数含まれていた事も事実である。

しかし、一般集団における診査にあたっては、“Occult SMCP”まで含めることは困難で、かえって誤差を大きくする危険性がある。このような観点に立って著者は、今回の調査では典型的な三徴候を有するもののみを対象とした。この点について、先に一般集団の頻度を報告している Stewart らは、三徴候のうち二徴候をもつものを本

症と診断している。

粘膜下口蓋裂の性差は、本研究では、全て女性であったが、例数が3名と少なく、そのまま性差と断定するには問題が残る。Stewart らの9名では、男性3名、女性6名であったという。

一方、今回の調査期間中に機能障害を主訴に当科を受診し、粘膜下口蓋裂と診断された30名について性差をみると、男性15名、女性15名で、性差は認められなかった。

この点について、粘膜下口蓋裂について先人の報告から、その対象症例の性差をみると、Beeden⁴¹⁾は男性8名、女性10名、Calnan¹⁸⁾は男性5名、女性13名、Gylling and Soivio²⁰⁾は男性43名、女性34名、Stewart ら⁴²⁾は男性29名、女性21名、Weatherley-White ら⁴³⁾は男性34名、女性27名、藤田ら²²⁾は男性12名、女性16名と明らかな性差を認めるものは少なく、著者と同様の傾向を示しているものが多い。これは、口蓋裂例が女性に有意に多いとする一般的傾向と明らかに異なる所見であり、粘膜下口蓋裂のもつ裂奇形の意義について一つの示唆を与えるものと考えられる。

3) 口蓋垂裂の頻度

口蓋垂裂は3.43%に認められたが、1.5歳児、成人は3.5歳児、小・中学生、高校生に比し低い傾向を示した。

性差は、各年齢層ともに認められず、破裂の程度別の発現率は、第1度が2.43%と最も高く、次いで第2度が0.67%、第3度が0.37%の順で、この傾向は各年齢層ともにほぼ同様であった。

一般集団における口蓋垂裂の頻度を調査した報告^{10,16,17,42,44~62)}は多く、しかもその発現頻度は各報告者により差が見られ、これらは調査方法や、異常形態が微小で判定基準が一定化しにくいことなどが原因をなすものと考えられる(表13, 14)。

また、一方では、発生頻度に地域差や人種差による変動が挙げられており、これらの関与も否定できない。すなわち、Shapiro ら⁶²⁾は、口蓋垂裂の頻度は American Indian ≒ Japanese > Caucasian > Negro の順であると示し、一般には、

表 13 本邦における口蓋垂裂の頻度

報告者 (年代)	対 象	調 査 人 数			性別頻度%		破裂程度別頻度 %			
		男	女	計	男	女	第1度	第2度	第3度	計
一丸 (1926)	長崎市, 小学校	4,748	4,738	9,486	7.08	6.52	3.18	2.19	1.89	6.80
原田 (1931)	函館市, 小学校	3,973	3,701	7,674	10.2	8.9	6.7	2.2	0.5	9.6
	アイヌ人	90	121	211	22.3	17.3	14.7	3.3	1.4	19.9
	アイヌ人	-	-	-	-	-	-	-	-	25.4
	九大看護婦	-	111	111	-	5.9	4.3	0	0	5.9
永井 (1932)	今治市, 小学校	2,451	2,552	5,003	5.7	4.2	3.78	0.90	0.28	4.9
西 (1933)	熊本市, 学童	9,325	8,422	17,747	0.2	0.1	-	-	-	0.1
西山 (1934)	名古屋, 陸軍	2,500	-	2,500	13.96	-	12.64	1.00	0.32	13.96
小泉 (1937)	金大外来患者	6,101	3,466	9,567	1.18	1.29	-	-	-	1.22
志村 (1942)	名古屋	3,567	-	3,567	8.77	-	5.4	2.6	0.7	8.77
吉岡 (1954)	新潟加茂市 小学生~高校生	3,741	2,959	6,700	1.34	1.42	1.0	0.2	0.1	1.38
望月ら (1961)	岩手県 小・中学生	2,373	2,353	4,726	9.93	9.65	7.76	1.59	0.43	9.78
著者 (1981)	新潟県 幼児~成人	3,896	4,906	8,802	3.87	3.16	2.43	0.67	0.37	3.43

黄色人種が最も高率で、次いで白人、最も低率なのは黒人であるとされている。また Červenka⁶¹⁾や Shapiro⁶²⁾は、Chippewa Indians の調査で、Indian の混血の程度が高くなるほど口蓋垂裂の頻度が高くなると報告している。

一方、口蓋垂裂は、年齢によって発現頻度に差があるとするもの^{16,17,45,46,49,50,52,63)}と、差を認めないとするもの^{47,55,56,60)}が見られる。著者の結果では、1.5歳児、成人で低い傾向を示したが、このうち、1.5歳児については、口蓋垂が非常に小さいことや体動などから口蓋垂裂を見逃した可能性も否定できない。

性差については、差がないとするものが多いが、男性に多いとするものも見られる。

口蓋垂裂の程度による発現頻度の差については、著者と同様に程度が重くなるにつれ頻度が減少するものが多い(表13, 14)。

4) 上顎切歯の異常の頻度

成人女性733名のうち、上顎中・側切歯に何らかの異常の認められたものは43名(5.9%)で、そのうち、41名は側切歯に異常をもつものであった。

異常の種類別では、矮小歯、円錐歯、円壱歯などの形態の異常が31名(4.2%)で最も多く、これ

らは全て側切歯に見られ、次いで位置の異常が12名、数の異常が2名、乳歯の残存が1名の順であった。

上顎側切歯に退化傾向の見られることは、藤田⁶⁴⁾をはじめ、多くの人々によって指摘されており、その変化は形態的に矮小歯、円錐歯、円壱歯などを生ずると同時に、さらに先失性欠如として表われるという。このように形態的な退化傾向を示す側切歯の本邦における出現率は、馬⁶⁵⁾は2.2%、住谷⁶⁶⁾は6.21%と報告し、今回の調査による出現率4.2%は、調査数が少ない難点はあるにしても、ほぼ本邦における一般的傾向に合致するものと思われる。

5) 舌強直症の頻度

1.5歳児、3.5歳児を除く小学生から成人までの4,812名における調査では、舌強直症は1,169名(24.3%)に認められ、年齢層別では、小・中学生、高校生に比し成人の頻度は低率であった。

舌強直症の程度による発現率は、第1度が圧倒的に高く、16.8%、次いで第2度6.3%、第3度1.2%の順で、この傾向は各年齢層ともに同様であった。性別では、第3度で男性が女性より高率であったが、第1度、第2度では差を認めなかった。

表 14 人種別口蓋垂裂の頻度

報 告 者 (年代)	対 象	調 査 人 数			性別頻度%		破裂程度別頻度 %				
		男	女	計	男	女	B	C	D	計	
<Caucasian>											
Meskin ら (1964)	Minnesota, U.S.A.	patients	810	1,054	1,864	1.61	1.13	1.18	0.11	0.05	1.34
		students	4,713	3,124	7,837	1.53	1.38	1.20	0.19	0.08	1.47
Tolarová ら (1967)	Prague, Czechoslovakia	adults (18~21歳)	349	840	1,189						1.43
		children (3~6歳)	582	499	1,081	4.29	3.41				3.89
Grewe and McCombie (1971)	British Columbia, Canada	children (13~17歳)	379	397	776	4.48	3.53				3.99
Stewart ら (1971)	Denver, Colorado, U.S.A.	school children			10,836						1.02
Lindemann (1977)	Copenhagen, Denmark	patients (0~70歳)	1,217	1,515	2,732	1.64	0.73	0.99	0.11	0.04	1.13
Chosack and Eidelman (1978)	Israel	school children (6~18歳)	35,449	34,910	70,359	0.47*	0.41*	-			0.04*
<Negro>											
Schaumann ら (1970)	Washington, U.S.A.	adult patients + children	446	510	956	0.45	0.59				0.52
Richardson (1970)	Tennessee, U.S.A.	students	1,477	1,842	3,319	0.271	0.271				0.271
<Mongoloid>											
Grewe and McCombie (1971)	British Columbia, Canada (Chinese)	children (13~17歳)	82	109	191	8.54	5.50				6.81
Jarvis and Gorlin (1972)	Baffin Zone, Canada (Eskimos)		780	791	1,571	8.5	8.6	4.39	2.55	1.65	8.59
Heathcote (1974)	Inuit, Canada	adults+children (0~30歳)	137	160	297	4.38	3.13	3.37	0.34	0	3.70
<American Indian>											
Jaffe and Blanc (1970)	New Mexico, U.S.A. (Navajo Indians)	school children	455	489	944	13	10	6.88	3.71	0.63	11
Červenka ら (1970)	Minnesota, U.S.A. (Chippewa Indians)	school children			605			7.27	2.98		10.25
Shapiro ら (1971)	New Mexico, U.S.A. (Navajo Indians)	school children			959						18.8

*Type B は例数に入れていない。

一般集団における舌強直症の頻度を調査した報告をみると、深田ら⁶⁷⁾は幼稚園児、小・中学生、高校生、大学生の総数 3,789 名を調査し、そのうち、2.3%に舌小帯異常症をみたとして述べている。また、望月ら¹⁷⁾は、小・中学生 2,792 名を調査し、舌強直症は 17.35%にみられたと報告している。しかし、舌強直症の判定基準は各報告者により異なり、報告者間の発現率を単純に比較することは適当でない。

今回、著者は望月ら¹⁷⁾の基準に準じ、非常に軽度の舌強直症をも含めた。その結果、舌強直症の頻度は 24.3%と高率を示した。

年齢層別では、小・中学生、高校生の群に高く、成人では低率であったが、これは主として第 1 度における頻度の減少によるものと考えられる。

舌強直症の年齢的關係については、深田ら⁶⁷⁾は年齢が進むにつれて多少発現頻度が少なくなるよ

うであると述べているが、望月ら¹⁷⁾は年齢別発現率に規則性は認められなかったとしている。

舌強直症の程度による発現率は、第 1 度が圧倒的に高く、次いで第 2 度、第 3 度の順であったが、この傾向は望月ら¹⁷⁾の報告でも同様である。

3. 唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連について

唇・顎・口蓋裂の発症に関与すると考えられる種々なる因子の中で、特に遺伝因子の解明は再発予防の上から重要であるばかりでなく、患者や家族にとっても強い関心もたれている事項である。従って、著者は、この遺伝因子の一端を解明することを目的に、唇・顎・口蓋裂の microform と考えられている口蓋垂裂について、本症患者の母親を精査し、同時に、他の微小奇形として上顎切歯の異常、舌強直症についても調査を行い、一般集団中の成人女性と比較し、唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連について検索した(表15)。

表 15 唇・顎・口蓋裂患児の母親と成人女性における口腔内微小奇形の頻度

口腔内微小奇形の種類	唇・顎・口蓋裂患児の母親			成人女性 (733例)	
	計 (193例)	患児の症型			
		唇(顎)裂 (24例)	唇(顎)口蓋裂 (97例)		口蓋裂(+粘膜下口蓋裂) (72例)
口蓋垂裂	4(2.07)	0	3	1	19 (2.59)
上顎切歯の異常	9(4.7)	1	5	3	43 (5.9)
舌強直症	24(12.4)	3	11	10	145 (19.8)

() 内は%

唇・顎・口蓋裂と微小奇形との関連については、緒言でも述べた如く、多くの報告がある。

今回の調査結果では、口蓋垂裂の頻度は、本症患児の母親 193 名中では 2.07%、唇(顎)裂を除く口蓋裂を有する患児の母親 169 名中では 2.37% で、これらは成人女性 733 名中における頻度 2.59% に比し有意な差はなかった。これは、口蓋垂裂が本症の microform であるという説を裏づけるものではない。

一方、粘膜下口蓋裂に口蓋垂裂が高頻度に合併する事実^{18~22,36,41}から、口蓋垂裂の存在は隠れた裂奇形を疑わせる一つの指標となると考えられる点で重要である。しかし、口蓋垂裂を全て唇・顎・口蓋裂の microform と考える事には問題があり、むしろ、口蓋垂裂の大多数(特に第1度に相当するもの)は、口蓋垂の形態の多様性を示すものと考えたい。

また、上顎切歯の異常の頻度は、本症患児の母親 193 名中では 4.7%、口蓋裂、粘膜下口蓋裂を除く唇(顎)裂を有する患児の母親 121 名中では 4.9% で、これらは、成人女性 733 名中における頻度 5.9% に比して有意な差を認めなかった。

唇・顎・口蓋裂患児に歯の異常が高頻度に出現することは大橋⁶⁸の報告でも明らかであり、また、極く軽度の不完全唇裂に歯の異常を見ることもよく経験される。今回の調査において、患児の母親における歯の異常の発現頻度が対照のそれと比較して差を認めなかったことは、唇・顎・口蓋

裂患者にみられる切歯の異常は破裂部位と関連する問題であることを裏づけたものと言えよう。

この点について Woolf ら⁴¹も、先に述べた如く、家系調査を行い、上顎側切歯の異常は、唇・顎・口蓋裂の microform ではないと述べている。

舌強直症は、前述の口蓋垂裂や上顎切歯の異常の如く、唇・顎・口蓋裂の microform と考えられているわけではない。しかし、唇・顎・口蓋裂患者の合併奇形として好発する^{69~71}ことは古くより知られている。そこで、本症患児の母親における舌強直症の頻度と対照とを比較した。その結果、患児の母親における舌強直症の頻度は 12.4% と対照とした成人女性の頻度 19.8% より低く ($\chi^2 = 5.526$, $P < 0.02$)、唇・顎・口蓋裂患児の母親に特に好発するという所見はみられなかった。

以上、患児に最も関連が深い母親について口腔内微小奇形を調査した結果は、いずれも対照とした成人女性の発生頻度と比較して、同等もしくは低値で、唇・顎・口蓋裂との関連を示唆する所見は得られなかった。

しかし、今回の研究は、患児の血族すべてを調査したものでもなく、また、対象症例が少ないということもあって、その関連性についてはさらに多方面からの検索が必要であろう。

特に、口蓋垂裂についてみると、粘膜下口蓋裂では口蓋垂裂を伴うことが多いこと、および、今回の調査で第3度とした口蓋垂基部にまで及ぶ破裂をも単に口蓋垂の形態の多様性と結論しうるか

など、その病態の本態についてさらに発生学的、形態学的、病理学的な面からの検討が必要である。

しかも、これは、口蓋垂裂にとどまらず、粘膜下口蓋裂にもいえることで、その本態、口蓋裂との異同について今後解明されねばならない問題の多いことが指摘できる。

結 語

唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連を調査し、本症の発症原因の解明の一助とすることを目的に、昭和54年6月から同56年6月までの2年1カ月間に新潟大学歯学部附属病院第二口腔外科を受診した唇・顎・口蓋裂患児に同伴し、著者が直接診査し得た193名の母親の口腔内微小奇形を調査した。口腔内微小奇形としては、口蓋垂裂、上顎切歯の異常、舌強直症をとった。

また、一般集団として、新潟市内および県内の幼児、児童・生徒、成人の総数8,802名を対象とし、粘膜下口蓋裂を含む唇・顎・口蓋裂の発生頻度および口腔内微小奇形を著者が直接面接する方法で調査した。

1. 唇・顎・口蓋裂患児の母親における口腔内微小奇形の頻度

1) 口蓋垂裂は、患児の母親193名中4名に認められ、その頻度は2.07%、唇(顎)裂単独を除く口蓋裂を有する患児の母親169名中の頻度は2.37%であった。

2) 上顎切歯の異常は、193名中9名に認められ、その頻度は4.7%、口蓋裂、粘膜下口蓋裂を除く唇(顎)裂を有する患児の母親121名中の頻度は4.9%であった。

3) 舌強直症は、193名中24名に認められ、その頻度は12.4%であった。

2. 一般集団中の唇・顎・口蓋裂および口腔内微小奇形の頻度

1) 唇・顎・口蓋裂の頻度は8,802名中20名、0.23%であった。その内訳は、唇(顎)裂8名、唇(顎)口蓋裂4名、口蓋裂5名、粘膜下口蓋裂3名であった。

年齢層別頻度は、小・中学生が0.35～0.49%

で、1.5歳児、3.5歳児、高校生の0.15～0.24%に比し高い傾向を示したが、統計学的には有意差はなかった。

性別発現頻度は、男性は3,896名中9名、0.23%、女性は4,906名中11名、0.22%で差を認めなかった。

2) 典型的な三徴候を有する粘膜下口蓋裂は8,802名中3名に認められ、その頻度は1:2,934(0.034%)であった。

年齢層別にみると、3.5歳児に2名で、その頻度は1:1,027(0.097%)、中学生に1名で、その頻度は1:1,010(0.099%)であった。

性別では、全て女性であった。

3) 口蓋垂裂の頻度は、8,802名中306名、3.43%であった。

年齢層別では、3.5歳児、小・中学生、高校生は3.55～4.43%で、1.5歳児、成人の2.37%に比し高い傾向を示した。

性差は各年齢層ともになく、破裂の程度別発現率は程度が重症になるにつれ、減少する傾向を示した。

4) 上顎切歯の異常は成人女性733名について調査し、何らかの異常の認められたものは43名、5.9%であった。

異常の種類では、側切歯の形態異常(矮小歯、円錐歯、円嚙歯)が最も多かった。

5) 舌強直症は1.5歳児、3.5歳児を除く4,812名について調査し、その頻度は1,169名、24.3%であった。

年齢層別では、成人が17.6%で、小・中学生、高校生の26.5～27.7%に比し有意に低率であった。

性別発現頻度は、男性24.6%、女性24.1%で差を認めず、舌強直症の程度別発現率は、程度が重症になるにつれ減少する傾向を示した。

3. 唇・顎・口蓋裂と口腔内微小奇形との関連について

1) 口蓋垂裂について

唇・顎・口蓋裂患児の母親193名中における口蓋垂裂の頻度は2.07%、口蓋裂を有する患児の母親169名中では2.37%で、これらは対照とした成

人女性 733 名中における頻度 2.59%と比較して統計学的に有意差を認めなかった。

2) 上顎切歯の異常について

唇・顎・口蓋裂患児の母親 193 名中における上顎切歯の異常の頻度は 4.7%, 唇(顎)裂を有する患児の母親 121 名中では 4.9%で, これらは対照とした成人女性 733 名中における頻度 5.9%と比較して統計学的に有意な差を認めなかった。

3) 舌強直症について

唇・顎・口蓋裂患児の母親 193 名中における舌強直症の頻度は 12.4%で, 対照とした成人女性 733 名中における頻度 19.8%と比較して低率であった。

4) 以上の結果を総括すると, 唇・顎・口蓋裂患児の母親にみられた口腔内微小奇形の頻度は, 対照とした成人女性における頻度に比し, いずれも同等もしくは低値を示し, 今回の調査項目については, 唇・顎・口蓋裂との間に積極的な関連性を見出すことはできなかった。

稿を終わるにあたり, 終始御懇篤なる御指導, 御校閲を賜りました恩師大橋 靖教授に深甚なる謝意を表します。また, 御教示および御校閲を賜りました本学予防歯科学教室堀井欣一教授に心より感謝いたします。さらに, 本研究の資料の収集にあたり, 御援助いただいた本学予防歯科学教室, 教室員各位ならびに新潟市東保健所衛生士貴船悦子氏に感謝いたします。なお, 本研究は一部文部省科学研究費(課題番号448352)の補助を受けました。附記して感謝の意を表します。

本論文の要旨は昭和56年6月12日, 第35回日本口腔科学会総会, 昭和56年11月21日, 昭和56年度新潟歯学会第1回例会において発表した。

文 献

- 1) Fogh-Andersen, P.: Inheritance of hare-lip and cleft palate. Arnold Busck, Copenhagen, 1942.
- 2) 小林八州男: 兔唇・口蓋裂の遺伝学的研究. 人遺誌, **3**: 73-107, 1958.
- 3) 讚井善治: 口唇裂・口蓋裂の臨床統計的ならびに遺伝学的研究. 人遺誌, **7**: 194-233, 1962.
- 4) 黒住静之, 他: 兔唇・口蓋裂の遺伝. 人遺誌, **8**: 120-127, 1963.
- 5) 赤坂庸子: 唇, 顎, 口蓋裂の成因に関する統計学的ならびに細胞遺伝学的研究. 人遺誌, **15**: 35-96, 1970.
- 6) 後藤敏郎編: 兔唇・口蓋裂の治療. 24-32頁. 金原出版, 東京・京都, 1966.
- 7) Drillien, C. M., et al.: The causes and natural history of cleft lip and palate. P. 76-89, E. & S. Livingston LTD., Edinburgh & London, 1966.
- 8) Tolarová, M.: Microforms of cleft lip and / or cleft palate. Acta. Chir. Plast., **11**: 96-107, 1969.
- 9) Fukuhara, T. and Saito, S.: Possible carrier status of hereditary cleft palate with cleft lip; report of cases. Bull. Tokyo. Med. Dent. Univ., **10**: 333-337, 1963.
- 10) 志村彦八: 懸壘垂披裂症ノ遺伝的意義ニ関スル一考察, 日耳鼻, **48**: 49-56, 1942.
- 11) Meskin, L. H., et al.: Abnormal morphology of the soft palate: II the genetics of cleft uvula. Cleft Palate J., **3**: 40-45, 1965.
- 12) Meskin, L. H., et al.: Cleft uvula - a microform of cleft palate. Acta. Chir. Scand., **8**: 91-96, 1966.
- 13) Pashayan, H. and Fraser, F. C.: Nostril asymmetry not a microform of cleft lip. Cleft Palate J., **8**: 185-188, 1971.
- 14) Woolf, C. M., et al.: Lateral incisor anomalies. microforms of cleft lip and palate?. Plast. Reconstr. Surg., **35**: 543-547, 1965.
- 15) Niswander, J. D.: Laminographic X-ray studies in families with cleft lip and cleft palate. Arch. Oral. Biol., **13**: 1019-1022, 1968.
- 16) Chosack, A. and Eidelman, E.: Cleft uvula: prevalence and genetics. Cleft Palate J., **15**: 63-67, 1978.
- 17) 望月重己, 他: 岩手県下3地域における口蓋垂裂および舌強直症の統計学的観察, ならびに両症の関連性について. 口病誌, **28**: 296-

- 302, 1961.
- 18) Calnan, J.: Submucous cleft palate. *Br. J. Plast. Surg.*, **6**: 264-282, 1954.
- 19) Porterfield, H. W. and Trabue, J. C.: Submucous cleft palate. *Plast. Reconstr. Surg.*, **35**: 45-50, 1965.
- 20) Gylling, U. and Soivio, A. I.: Submucous cleft palate: surgical treatment and results. *Acta. Chir. Scand.*, **129**: 282-287, 1965.
- 21) Crikelair, G. F., et al.: The surgical treatment of Submucous cleft palate. *Plast. Reconstr. Surg.*, **45**: 58-65, 1970.
- 22) 藤田 靖, 他: 当教室における粘膜下口蓋裂28例の検討. *日口外誌*, **26**: 1250-1256, 1980.
- 23) 大橋 靖: 唇顎口蓋裂患者の総合治療に関する研究. *口科誌*, **29**: 531-548, 1980.
- 24) 田中俊彦: 口唇・顎・口蓋裂の臨床遺伝学的ならびに疫学的研究. *人遺誌*, **16**: 278-308, 1972.
- 25) 大塚 基: 兔唇・口蓋裂の臨床疫学的研究. *日耳鼻*, **78**: 345-358, 1975.
- 26) 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.
- 27) 疋田善夫: 長崎市に於ける兔唇並に口蓋裂の発生頻度. *長崎医学会誌*, **28**: 1371-1375, 1953.
- 28) 筒井英夫, 他: 兔唇口蓋裂の一般住民に於ける分布頻度に就て. *口科誌*, **1**: 75(会), 1952.
- 29) Neel, J. V.: A study of major congenital defects in Japanese infants. *Am. J. Hum. Genet.*, **10**: 398-445, 1958.
- 30) 鈴木雅州, 他: 新生児奇形の統計的観察. *臨婦産*, **20**: 199-202, 1966.
- 31) 安達悦之, 他: 宮崎県における先天性体表奇形発生および治療の現況, *形成外科*, **20**: 511-512(会), 1977.
- 32) Kraus, B. S., et al.: Malformations associated with cleft lip and palate in human embryos and fetuses. *Am. J. Obstet. Gynecol.*, **86**: 321-328, 1963.
- 33) 穴沢順一: 兔唇及び口蓋裂ノ遺伝. *慶応医学*, **21**: 711-776, 1941.
- 34) 金城一史: 沖縄地方における口唇裂ならびに口蓋裂に関する研究. *鹿大医誌*, **20**: 691-715, 1968.
- 35) 厚生統計協会: 第2編 人口動態と生命表. 厚生の指標(臨時増刊), **27**(9): 71-74, 1980.
- 36) Stewart, J. M., et al.: Submucous cleft palate: prevalence in A school population. *Cleft Palate J.*, **9**: 246-250, 1972.
- 37) Kaplan, E. N.: The occult submucous cleft palate. *Cleft Palate J.*, **12**: 356-368, 1975.
- 38) Croft, C. B., et al.: The occult submucous cleft palate and musculus uvulae. *Cleft Palate J.*, **15**: 150-154, 1978.
- 39) Lewin, M. L., et al.: Velopharyngeal insufficiency due to hypoplasia of the musculus uvulae and occult submucous cleft palate. *Plast. Reconstr. Surg.*, **65**: 585-591, 1980.
- 40) 木村 照: 口蓋裂を伴わない鼻咽腔閉鎖不全症32症例の治療経験—非口蓋裂と仮性口蓋裂の実態—.*耳鼻臨床*, **70**: 597-621, 1977.
- 41) Beeden, A. G.: The bifid uvula. *J. Laryngol. Otol.*, **86**: 815-819, 1972.
- 42) Stewart, J. M., et al.: Submucous cleft palate. *Birth Defects*, **7**: 64-66, 1971.
- 43) Weatherley-White, R. C., et al.: Submucous cleft palate: its incidence, natural history, and indications for treatment. *Plast. Reconstr. Surg.*, **49**: 297-304, 1972.
- 44) 一丸怒吉: 学校児童懸壅垂披裂症に就て. *学校衛生*, **6**: 243-251, 1926.
- 45) 原田雄吉: 懸壅垂披裂症ニ就テノ統計的観察. *日耳鼻*, **36**: 837-853, 1931.
- 46) 永井穎一: 学令児童の懸壅垂披裂に関する知見. *耳喉*, **5**: 631-635, 1932.
- 47) 西 才蔵: 九州(熊本)児童ノ耳鼻咽喉ノ形態並ニ疾患診査成績. *日耳鼻*, **39**: 1593-1601, 1933.
- 48) 西山喩義: 懸壅垂の形態とその疾患に就て(懸壅垂披裂と懸壅垂炎). *口病誌*, **8**: 81-93, 1934.
- 49) 小泉貞介: 懸壅垂披裂ノ統計的観察. *日耳鼻*, **43**: 673-674(会), 1937.
- 50) 吉岡敏雄: 口蓋垂披裂に関する統計的観察—小・中・高校生についての調査—*臨歯*, **26**:

- 15-18, 1954.
- 51) Tolarová, M., et al.: The distribution of characters considered to be microforms of cleft lip and / or palate in a population of normal 18-21 year old subjects. *Acta. Chir. Plast.*, **9**: 1-14, 1967.
- 52) Tolarová, M., et al.: Distribution of signs considered as microforms of lip and / or palate clefts in normal population of 3 to 6 year old individuals. *Acta. Chir. Plast.*, **9**: 184-194, 1967.
- 53) Jaffe, B. F. and De Blanc, G. B.: Cleft palate, left lip, and cleft uvula in Navajo Indians: incidence and otorhinolaryngologic problems. *Cleft Palate J.*, **7**: 300-305, 1970.
- 54) Meskin, L. H., et al.: Abnormal morphology of the soft palate: the prevalence of cleft uvula. *Cleft Palate J.*, **1**: 342-346, 1964.
- 55) Grewe, J. M. and McCombie, F.: Prevalence of cleft uvula in British Columbia. *Angle. Orthod.*, **41**, 336-339, 1971.
- 56) Lindeman, G., et al.: Prevalence of cleft uvula among 2,732 Danes. *Cleft Palate J.*, **14**, 226-229, 1977.
- 57) Schaumann, B. F., et al.: Minor craniofacial anomalies among a Negro population. 1. prevalence of cleft uvula, commissural lip pits, preauricular pits, torus palatinus, and torus mandibularis. *Oral. Surg.*, **29**: 566-575, 1970.
- 58) Richardson, E. R.: Cleft uvula: incidence in Negroes. *Cleft Palate J.*, **7**: 669-672, 1970.
- 59) Jarvis, A. and Gorlin, R. J.: Minor orofacial abnormalities in an Eskimo population. *Oral. Surg.*, **33**: 417-427, 1972.
- 60) Heathcote, G. M.: The prevalence of cleft uvula in an Inuit population. *Am. J. Phys. Anthropol.*, **41**: 433-437, 1974.
- 61) Červenka, J. and Shapiro, B. L.: Cleft uvula in Chippewa Indians: prevalence and genetics. *Hum. Biol.*, **42**: 47-52, 1970.
- 62) Shapiro, B. L., et al.: Cleft uvula: a microform of facial clefts and its genetic basis. *Birth Defects*, **7**: 80-82, 1971.
- 63) 渡辺次雄: 乳幼児ニ於ケル口蓋垂披裂ノ遺伝的観察(其一). *日耳鼻*, **49**: 657(会), 1943.
- 64) 藤田恒太郎: 人における歯の異常. *口病誌*, **25**: 97-106, 1958.
- 65) 馬 朝茂: 日本人の歯における形態的及び数的異常の統計的観察. *歯誌*, **6**: 248-256, 1949.
- 66) 住谷 靖: 日本人における歯の異常の統計的観察. *人類誌*, **67**: 215-233, 1959.
- 67) 深田英朗, 他: 舌小帯異常について, 第一報 統計的研究. *日矯歯誌*, **19**: 157-158, 1960.
- 68) 大橋 靖: 唇・顎・口蓋裂患者の歯数ならびに萌出の異常と顎破裂の部位に関する臨床統計的研究. *口科誌*, **13**: 401-422, 1964.
- 69) 西 正勝: 唇・顎・口蓋裂ならびに顔裂患者の統計的観察. *日口外誌*, **5**: 157-161, 1959.
- 70) 西 正勝: わが教室における口蓋形成手術後の遠隔成績について. *日口外誌*, **6**: 192-195, 1960.
- 71) 増山弥太郎: 兔唇口蓋裂患者の統計的観察. *阪大歯誌*, **2**: 123-126, 1957.