

令和5年度厚生労働行政推進調査事業費補助金  
厚生労働科学特別研究事業

口唇口蓋裂に関する実態把握、及び  
口唇口蓋裂を含めた育成医療の疾患全体の  
実態の推定を行う手法の検討のための研究

令和5年度 総括研究報告書

研究代表者 彦坂 信

令和6年(2024年) 5月

# 目次

I.	総括研究報告	---	1
	口唇口蓋裂に関する実態把握、及び口唇口蓋裂を含めた育成医療の疾患全体の実態の推定を 行う手法の検討のための研究		
	(資料1) アンケート調査用紙		
	(資料2) 自由記載内容		
II.	研究成果の刊行に関する一覧表	---	21
III.	倫理審査等報告書の写し	---	22

口唇口蓋裂に関する実態把握、及び口唇口蓋裂を含めた育成医療の疾患全体の実態の推定を行う手法の検討のための研究

研究代表者 彦坂信（国立成育医療研究センター小児外科系専門診療部形成外科診療部長）

研究要旨

口唇口蓋裂は、口唇、口蓋、上顎骨に裂を認める先天異常であり、日本では500人に1人の頻度で出生するとされる。出生後早期から概ね成人に至るまで長期間にわたり治療を要する。自立支援医療（育成医療）は、児童福祉法第4条第2項に規定する18歳までの障害児を対象に、確実に治療の効果が期待できる者に対して医療費助成を行う制度である。18歳以後にも一定の要件を満たす場合には、自立支援医療（更生医療）による医療費助成が適応される。口唇口蓋裂は代表的な自立支援医療の対象疾患であるが、18歳を超えて治療を必要とする場合があり、更生医療の対象とならなかったときには、18歳までで治療を完了できた場合とで、医療費助成の不均衡が生じているとの議論がある。

また他の自立支援医療の対象疾患についても、育成医療と更生医療の狭間にある患者が一定数いると考えられ、係る実態の把握が必要と考えられる。

本研究では、この点に関する口唇口蓋裂における実態を把握するため、治療施設に対してアンケート調査を行った。対象108施設のうち73施設から回答を得られた。治療計画については、口蓋裂二次手術については1/3程度の施設で、口唇・鼻の修正術については2/3程度の施設で、顎骨骨切り術についてはほぼ全ての施設で、18歳を超えるまで治療を行う計画が策定されていた。2022年には18歳以上の口唇口蓋裂患者に対して751件の治療が施行されていた。一方、これらの患者のうち、自立支援医療（更生医療）による医療費助成を受けているものは18%であり、大部分は育成医療の対象外となった後、自立支援医療の制度の対象外となっていた。対象外となっている理由は症状が不適格（52%）、所得が不適格（8%）、指定医がおらず手続きができない（8%）、不明（24%）などであった。口唇口蓋裂患者における、自立支援医療に係る実態の把握には、今後さらにレセプトデータなどを用いた複合的な手法により、詳細な情報を得る必要があると考えられた。

また他の自立支援医療の対象疾患についても実態調査を行うにあたり、その方法論について検討し、以下の考察を得た。施策の性質上、支援の対象可否が「病態」で評価されることから、制度を利用している者の「疾患名」を網羅的に把握することが困難と考えられた。また実施主体が市町村となっているため、1800以上ある市町村および区行政といった行政側に情報提供を求めることは現実的ではないと考えられた。今後は、自立支援医療に関わる診療科の専門家を対象とした全国規模のアンケート調査のほか、診療報酬明細書データなどを用いた探索といった調査が必要と考えられた。本課題の検討に当たっては、形成外科分野だけでなく、整形外科、歯科、小児外科、循環器外科、眼科、耳鼻咽喉科をはじめとする小児期外科系診療科と小児循環器科を含む小児内科領域の専門家集団の参集が求められると思われた。

## 【研究班の構成】

研究代表：

彦坂 信 (国立成育医療研究センター形成外科診療部長) (全体統括、ネットワーク形成)

研究分担者：

[口唇口蓋裂に関する実態調査]：

今井啓道 (東北大学医学系研究科 外科病態学講座 形成外科学分野 教授)、

上田晃一 (大阪医科薬科大学 形成外科学教室 教授)、

梅田千鶴 (大阪医科薬科大学 形成外科学教室 助教)、

杠俊介 (信州大学 学術研究院医学系 教授)

[口唇口蓋裂を含めた育成医療対象の疾患に関する実態把握手法の検討]：

竹原健二 (国立成育医療研究センター研究所政策科学研究部 部長)、

盛一享徳 (国立成育医療研究センター研究所小児慢性特定疾病情報室 室長)

## A. 研究目的

### 1. 口唇口蓋裂とは

口唇口蓋裂とは、口唇裂、口蓋裂、顎裂を伴う先天疾患の総称であり、日本では約500人に1人の頻度で出生するとされる。口唇裂では上口唇に裂を認め、整容（外見）的な課題のほか、未治療であれば飲食や言語機能に支障を生じる。口蓋裂では口蓋（口の中の天井部分）に裂を認め、口腔と鼻腔が交通しているために、飲食物や話し言葉の鼻漏出（鼻咽腔閉鎖機能不全：鼻に抜けること）による飲食・言語機能の支障を生じる。また中耳炎になりやすいといった症状や、治療後の瘢痕（きずあと）により上顎（顔の中央部分）の

成長が妨げられ中顔面低形成による整容や咬合不整（かみ合わせが乱れる）、重症では反対咬合（受け口）を生じる、といった課題がある。顎裂では上顎骨に裂を認め、歯槽骨が欠損するために同部の歯の萌出（生えること）や排列に課題を生じる。また上顎骨の部分的な欠損により、同部の上口唇や外鼻が沈下したような変形を生じる。病型（裂型）としては、以上3種の裂の組み合わせにより、口唇裂のみ、口蓋裂のみ、口唇裂と顎裂を伴った唇顎裂、口蓋裂も伴う唇顎口蓋裂などに分類される。さらに口唇裂と顎裂の位置により右側、左側、両側に分けられ、口唇裂においては裂が上口唇の全長に及ぶ完全、部分的にとどまる不完全に分類される（表1）。

表1 口唇口蓋裂の裂型・病型

裂型	病型ごとの各裂型の有無			
	口唇裂	唇顎裂	唇顎口蓋裂	口蓋裂
口唇裂	有	有	有	無
口蓋裂	無	無	有	有
顎裂	無	有	有	無

### 2. 自立支援医療とは

自立支援医療（育成医療）は児童福祉法第4条第2項に規定する18歳までの障害児を対象に、その身体障害を除去、軽減する手術などの治療によって確実に効果が期待できる者に対して医療費助成を行うものである。18歳をこえて治療を要する場合には、症状などの諸条件を満たした場合に限り、自立支援医療（更生医療）に移行して引き続き医療費助成を受けることができる。

### 3. 自立支援医療の制度における課題

口唇口蓋裂では、出生後の時期から長期間にわたり、複数回の機能回復のための治療を受けなければならない、障害児の対象を外れ育

成医療が適応とならない 18 歳を超えて、身体障害を除去軽減する治療を要することがある。そのため、18 歳を超えて治療を要するものの、障害の程度等によって更生医療には移行できない者の場合、18 歳未満で治療を終えられた者と、治療時期による医療費助成の不均衡が発生しているとの議論がある。しかし、医療費助成の対象とならなかった者がどの程度いるかを含め、口唇口蓋裂に関する知見は乏しいのが現状であり、これら知見を得るため統計的調査を行う必要がある。

また、同様の問題を抱えている育成医療対象の疾患は、口唇口蓋裂に限られているとは言えず、口唇口蓋裂に絞った方策を講じた場合に不公平が生じることが予想される。そのため、口唇口蓋裂以外の育成医療対象の疾患に対しても、どのような疾患が対象として挙げられ、どれほどで 18 歳以上での治療が行われているか、同様の実態把握が必要であり、その手法も同時に検討することが求められる。これらの情報を得るためには、口唇口蓋裂を含めたすべての育成医療の対象疾患について、育成医療と更生医療の制度の狭間にある患者の実態把握が必要となる。

#### 4. 本研究の目的

本研究では、以下を目的とした。

①口唇口蓋裂における 18 歳を超えて治療を必要とした患者数などの育成医療に係る実態把握

②口唇口蓋裂以外の育成医療対象の疾患についての同様な実態把握の方法論の検討。

### B. 研究方法

#### 1. 口唇口蓋裂に関する実態調査

口唇口蓋裂に関して、育成医療制度に係る政策に必要なデータを収集するため、治療施設を対象にアンケートを実施した。収集した情報は以下の通りである。

#### ① 治療が実施される時期：

各施設における治療計画を聴取した。口唇裂、口蓋裂、顎裂の全てを伴う唇顎口蓋裂例を想定し、出生から治療終了に至るまでの各手術を施行する典型的な年齢について回答を依頼した。手術内容については、口唇裂、口蓋裂、顎裂それぞれの初回手術に加え、患者の状態により必要に応じて行われる追加の手術についても、施行する典型的な年齢について回答を依頼した。

なお、本調査ではあらゆる裂型についての治療計画を調査するために唇顎口蓋裂の場合について質問したが、他の裂型においても必要となる手術（例：口唇裂単独なら口唇裂形成手術や、口唇・鼻の修正術）が行われる時期は、唇顎口蓋裂における該当する手術と同時期である。

#### ② 患者数

2022 年 1 月～12 月に初回の手術を施行した口唇口蓋裂患者の人数を、裂型別に聴取した。ここで「初回の手術」とは、口唇口蓋裂患者にとっての初回の手術であり、例えば唇顎口蓋裂であれば口唇裂形成手術、口蓋裂単独であれば口蓋裂形成手術を指すことと定義した。

③18 歳以上で継続して身体障害を除去、軽減する治療（手術等）が必要な患者の人数（身体障害者として手帳を取得している人数、取得できない人数それぞれ）、およびその最高齢：2022 年 1 月～12 月に各施設で治療を施行した 18 歳以上の口唇口蓋裂患者の人数、治療内容を聴取した。さらにその中で、更生医療が適応となっている人数、なっていない人数を聴取した。また治療を行った患者の最高齢を聴取した。

④身体障害者手帳を取得できない（更生医療の対象とならない）事例、取得できない理由：2022 年 1 月～12 月に各施設で治療を施行した 18 歳以上の口唇口蓋裂患者のなかで、更

生医療が適応とならなかった理由を聴取した。

あわせて、育成医療が18歳よりも延長されることが望ましいかについての意見を収集した。

アンケート対象は、口唇口蓋裂診療の実績のある施設とした。口唇口蓋裂を診療する医師・歯科医師・言語聴覚士などから構成される日本口蓋裂学会に所属し、過去5年間に発表歴がある、または同学会の認定師が所属する108施設にアンケートの依頼状を送付した。

アンケート調査はオンライン回答・集計可能な専用フォームにより施行した。

## 2. 口唇口蓋裂を含めた育成医療対象の疾患に関する実態把握手法の検討

口唇口蓋裂を含めた育成医療対象の全ての疾患に関して、口唇口蓋裂と同様に関連する情報を含めて正確な実態把握を行うための手法を検討した。

★当該疾患・・・口唇口蓋裂以外で、18歳を超えて身体障害を除去、軽減する治療（手術等）が必要な疾患

- ① 当該疾患の治療が実施される時期
- ② 当該疾患がどの程度あるか、それらの患者数
- ③ 身体障害者手帳が取得できない（更生医療の対象とならない）事例、取得できない理由

班会議での検討を経て、上記実態を把握するうえで必要な調査内容、方法を検討した。

### 倫理面への配慮

本研究はヘルシンキ宣言、人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針を遵守して実施した。アンケート調査においては、国立成育医療研究センター倫理審査委員会

における中央一括審査を経て、研究者が所属する東北大学、大阪医科薬科大学、信州大学の各施設の倫理審査委員会の承認も得たうえで、実施した。

本研究では個人を特定できる情報は取得していない。データベースなどの情報は漏洩しないようにセキュリティ体制に以下の対策を行った。アンケートは、プライバシーマークを取得した業者に構築・運営を委託し、オンラインで実施した。研究目的で収集した情報は、電子データはパスワードロックしたうえで最新のウィルス対策ソフトが入ったパソコンに保管し、紙媒体での情報とあわせて鍵のかかるキャビネット内に保管した。

## C. 研究結果

### 1. 口唇口蓋裂に関する実態調査

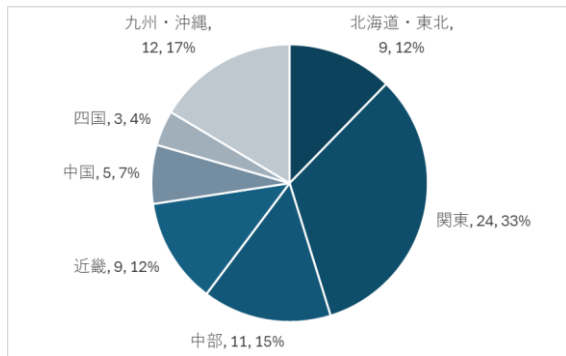
【回答数】（表2、図1）

2024年3月1日に対象108施設にアンケートの依頼状を発送し、2024年4月15日までに73施設から回答を得た。回答率は67.6%であった。地域ごとの回答率は北海道・東北で最高の90%、近畿で最低の47%であった（表2）。地域ごとの回答施設数は図1に示すとおりである。

表2 地域ごとの回答率

地域	依頼施設数	回答施設数	地域ごと回答率
北海道・東北	10	9	90.0%
関東	32	24	75.0%
中部	15	11	73.3%
近畿	19	9	47.4%
中国	9	5	55.6%
四国	4	3	75.0%
九州・沖縄	19	12	63.2%
合計	108	73	67.6%

図1 地域別の回答施設数（総数 73 施設）



\* 数字は「当該地域の回答施設数, 全国に対する%」である。

【治療が実施される時期: 初回の手術】(表 3)

口唇裂に対する初回手術は平均 3.1~5.3 ヶ月齢の間に行う方針がとられていた。

口蓋裂では、硬口蓋と軟口蓋を同時に手術する 1 段階法が 71 施設、軟口蓋を先に手術し、後に硬口蓋を手術する 2 段階法が 11 施設で行われていた。なお初回口蓋裂手術を行っていないと回答した 2 施設は集計から除外した。1 段階法の手術時年齢は平均 0.9~

1.9 歳であった。2 段階法の手術時年齢は 1 段階目手術が平均 0.6~1.3 歳、2 段階目手術が平均 2.6~3.6 歳（最高 5~6 歳）であり、1 段階法と比べると、1 段階目はより低年齢で、2 段階目はより高年齢で手術を行う方針がとられていた。口蓋裂の初回手術は 1 段階法・2 段階法ともに最も早いと 0 歳で施行されており、その一部は口唇裂の初回手術と同時に軟口蓋形成を行う方針がとられていた。

顎裂の初回手術については、顎裂に対して行われるあらゆる初回の手術を含み、その術式は問わないこととした。典型的には、顎裂骨移植術（上顎骨の欠損部である顎裂部の空隙に骨を移植する手術）が広く行われている。顎裂の初回手術は平均 6.3~9.9 歳で施行する方針がとられていた。最も早いと 0 歳で口唇裂の初回手術と同時に施行すると 7 施設が回答しており、歯肉骨膜弁形成術（骨移植をせずに顎裂部の歯肉粘膜と骨膜を縫合閉鎖し、後の骨新生を促す術式）を指していると考えられた。

表 3 治療計画における初回手術の時期

初回手術の手術時期		平均	標準偏差	最低	最高
口唇裂		3.1	0.8	1	6
	(ヶ月)	~			
口蓋裂		0.9	0.4	0	2
		~			
1段階法 (n=60)	(歳)	1.9	0.4	1	3
		~			
2段階法 (n=11)	2段階法の1段階目 (歳)	0.6	0.5	0	1
		~			
	2段階法の2段階目 (歳)	1.3	0.8	0	2
		~			
顎裂		2.6	1.7	0	5
		~			
	(歳)	3.6	1.9	1	6
顎裂		6.3	2.4	0	10
		~			
	(歳)	9.9	2.4	0	15

【治療が実施される時期:追加の手術】(表4、表5)

初回の手術後、必要に応じて行われる追加の手術や治療について、本研究では用語を以下のように定義した。

★「口唇・鼻の修正」:口腔前庭形成、口唇または/および外鼻の修正、鼻中隔彎曲矯正手術など鼻内の修正を含む。一般的に整容性の改善のために行われる。

★「口蓋裂二次手術」:咽頭弁形成術、咽頭後壁増大術、口蓋再形成術、瘻孔閉鎖術な

ど主に鼻咽腔閉鎖機能に関与する手術を含む。一般的に言語面での改善のために行われる。

★「顎骨骨切り術など」:上顎または/および下顎の骨切りまたは延長術、抜歯、外科的口蓋骨急速拡大、顎骨造成、インプラント埋入を含む。一般的に咬合の改善のために行われるが、上顎または/および下顎の骨切り術または延長術については、顔面の輪郭が変わることにより整容性の改善も得られる。

表4 各裂型ごとの、初回手術後に必要に応じて行われる追加の治療の有無。

裂型	各裂型ごとの、初回手術後に必要に応じて追加で行われる治療の有無				
	口唇・鼻の修正術 (整容面の改善)	口蓋裂二次手術 (言語面の改善)	言語訓練 (言語面の改善)	歯科矯正治療 (咬合の改善)	顎骨骨切り術など (咬合・整容面の改善)
口唇裂	○				
口蓋裂		○	○	○	○
顎裂				○	

\*本表に示すものは典型的な場合であり、症状に応じて○のない治療が施行されることもある。

表5 治療計画における必要に応じて行われる追加の手術の時期

必要に応じて行われる追加の手術の時期		平均	標準偏差	最低	最高	最高年齢を18歳以上としている施設数
口唇・鼻の修正術		7.9	4.7	2	18	51/73 (69.9%)
	(歳)	18.2	6.7	6	30	
口蓋裂二次手術 (咽頭弁、口蓋瘻孔閉鎖術など)		7.4	3.6	3	18	25/73 (34.2%)
	(歳)	14.9	6.1	6	30	
顎骨骨切り術など		16.2	1.4	10	18	68/73 (93.2%)
	(歳)	21.8	3.7	17	30	

口唇・鼻の修正術は平均7.9~18.2歳、口蓋裂二次手術は平均7.4~14.9歳、顎骨骨切り術などは平均16.2~21.8歳で施行する方

針が採用されていた。手術計画における施行年齢の最高を18歳以上としている施設は、口蓋裂二次手術で34%、口唇・鼻の修正術で

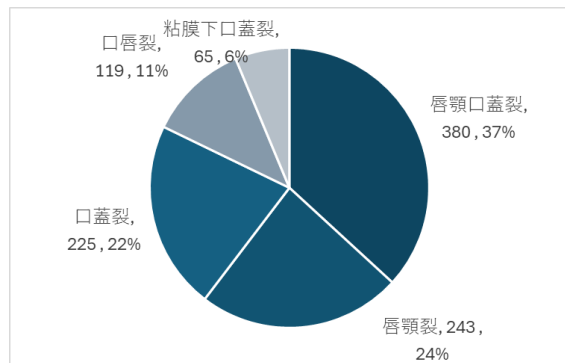


70%、顎骨骨切り術で93%を占めていた。多くの施設で18歳より高年齢まで治療計画が設定されていた。

【初回の手術を施行した患者数】(図2)

2022年1月～12月に初回の手術を施行した患者の総数は1032名であった。裂型別では、唇顎口蓋裂が37%と最多を占めていた。

図2 2022年に初回の手術を施行した患者の裂型別内訳(総数1032名)



\*数字は「当該裂型の人数、全体に対する%」である。

【18歳以上の治療例】(図3)

2022年1月～12月に何らかの治療を施行した18歳以上の口唇口蓋裂患者がいると答えた施設は55施設、いないと回答した施設は17施設、無回答が1施設であった。

いると回答のあった55施設で751件の治療が施行されていた。治療内容を分類する用語については、先述の「必要に応じて行われる追加の手術」の定義に加え、以下の用語を定義した：

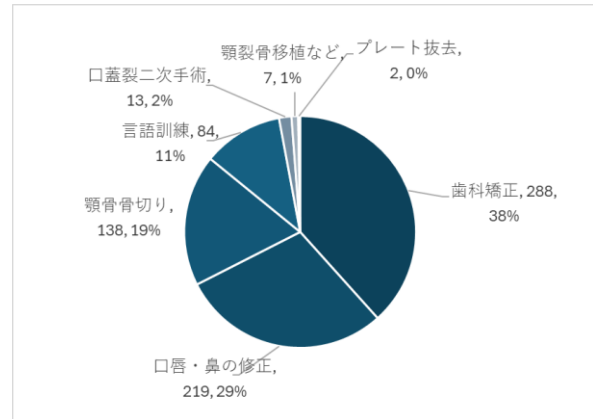
★「顎裂骨移植など」：顎裂骨移植、顎義歯、骨造成を含む

歯科矯正治療が38%と最多であり、口唇・鼻の修正術29%、顎骨骨切り術19%と続いていた。口唇・鼻の修正術については、外鼻形態の修正にとどまらず、鼻中隔彎曲手術など鼻内の手術を施行した施設が複数あった。

これら治療を施行された患者のうち最高

年齢は平均37.6歳(標準偏差19.7)歳であり、回答のあった施設全体での最高年齢は80歳であった。

図3 2022年に治療された18歳以上の患者の治療内訳(総数579件)



\*数字は「当該治療の件数、全体に対する%」である。

【更生医療の対象外の例】(図4)

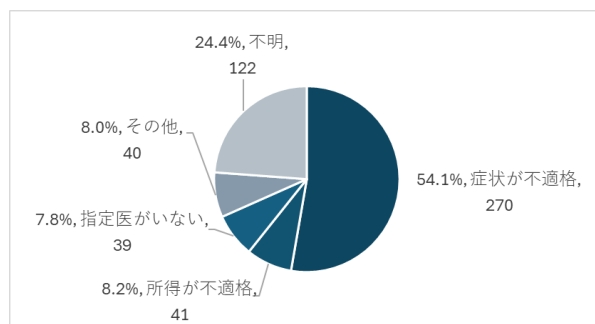
2022年1月～12月に何らかの治療を施行した18歳以上の口唇口蓋裂患者のうち、更生医療の適応の有無についての質問には608名の患者について回答が得られた。先述の18歳以上で行われた治療件数751件に対して143件の不足となるが、これは「治療件数」と「人数」の乖離であり、更生医療の有無が確認されていない、または1名に対して重複して複数の治療を行った患者がいる、といった事情が考えられた。

更生医療の対象となっていたものは109名(18%)、対象外であったものは499名(82.1%)であった。更生医療が対象外となった499名について、その理由は複数回答含め512件あり、「症状要件の不適合」が最多の54%であった。その症状は、口唇外鼻の変形で審美面・整容面での症状に限られる(13施設)、機能障害が軽微である(8施設)などと回答されていた。ほかに、「所得要件が不適合」8%、「更生医療の認定をできる指定医

が施設にいない」8%と続いていた。

その他の理由8%には、「市民税非課税世帯の方以外は、高額療養費制度の上限額と同じなので、医療費としてのメリットがないため」「歯科矯正治療の動的治療が完了しており、高額な医療費がかからないため」といった治制度上の理由のほか、「障害者と認定されたくない」「手続きが煩雑で申請を希望しない」といった患者側の心理社会的な理由によるものが認められた。

図4 更生医療が対象外であった理由内訳(総数 499 名、512 件)



\*注釈は「全体に対する%、理由、件数」である。

【育成医療の延長に関する意見】(表6)

仮に育成医療の対象年齢の引き上げが可能であった場合、何歳までの引き上げが望ましいかについては、平均23.5歳(標準偏差7.0)との回答であった。その理由としては、顔面の発育が完了してから術前矯正・顎骨骨切り術を施行すると18歳を過ぎるとの意見が30件と最多であった。次いで、大学卒業まで治療を要する、また治療を希望することが多いためとの意見が17件と続いていた。そのほか、高校～大学頃は部活動、受験や進学、新しい交友関係などで慌ただしく、入院を要する治療ができなかったり、育成医療と更生医療のはざまにあると手続きに対応できない(5件)、18歳では高校卒業までをカバーしきれない(2件)といった意見があっ

た。

表6 育成医療の対象年齢の引き上げを求める理由

理由	回答数 (重複あり)
術前矯正・顎骨骨切り術が18歳を過ぎるため	30
大学卒業まで	17
高校～大学頃はあわただしい	5
治療終了後にさらなる治療を希望することがあるため	2
高校卒業まで	2
外鼻修正術が18歳を超えるため	2
歯科矯正の終了まで	1
顎骨骨切り術後に口蓋裂二次手術が必要	1

2. 口唇口蓋裂を含めた育成医療対象の疾患に関する実態把握手法の検討

令和3年度福祉行政報告例において、育成医療に係る公費負担の支払決定実人員数が、23,290人と公表されている。このため少なくとも1年間に約23,000人程度の18歳未満患者が育成医療を利用したことが分かった。また医科および調剤のみだがレセプト件数も公表されており、令和3年度は70,446件(入院、入院外、訪問看護)の公費負担が生じたことが分かった。

福祉行政報告例では、助成対象となった症例の原疾患は報告されないため、どのような疾患が対象となり得るのかは不明であるが、障害種別の実員数が報告されており、入院では、最も支給実員数が多い障害種別は、「肢体不自由」(24.0%)であり、次いで「音声・言語・そしゃく機能障害」(21.3%)、「内臓障害：心臓機能障害」(18.9%)、「内臓障害：その他(先天性食道閉鎖、先天性腸閉鎖、停留精巣など)」(17.2%)、「視覚障害」(10.0%)の順であった。入院外では「音声・言語・そしゃく機能障害」(55.6%)が最も多く、次いで「肢体不自由」(20.0%)、「内臓障害：その他」(8.4%)、「内臓障害：心臓機能障害」(5.8%)、「視覚障害」(5.1%)の順であった。

公費負担額でみると、公費負担総額に対す

る割合が多い障害種別は、入院では「肢体不自由」(27.6%)であり、次いで「内臓障害:心臓機能障害」(27.4%)、「内臓障害:その他」(16.0%)、「音声・言語・そしゃく機能障害」(14.9%)、「視覚障害」(5.6%)の順であり、入院外では「音声・言語・そしゃく機能障害」(63.5%)が最も多く、次いで「肢体不自由」(15.2%)、「内臓障害:心臓機能障害」(7.4%)、「内臓障害:その他」(3.4%)、「内臓障害:腎機能障害」(3.4%)であった。

## D. 考察

### 1. 口唇口蓋裂における関する実態調査

#### 【回答施設】

全体の回答率は68%であり、回答期限が2ヶ月間程度であったことを考えると、妥当な結果と考えられた。アンケートには各施設における治療計画の入力が必須となっていたため、回答施設は出生時から成人に至るまでの一貫した治療計画をもっている施設にほぼ限られていたと考えられる。このような口唇口蓋裂を積極的に診療する high volume center が回答施設であったことを考えても、対象108施設に対する回答率68%は妥当な結果と考えられた。

地域ごとの回答率は近畿・中部で50%弱であるが、他の地域では60-90%であり、概ね日本全国の口唇口蓋裂を診療する主たる施設の実態や意向を反映していると考えられた。

#### 【治療が実施される時期】

本調査では、各施設における治療計画を聴取したため、実際に治療が行われた年齢とは異なる点に注意が必要である。

初回の手術時年齢については、おおむね従来の知見と合致している。なお、いくつかの施設では、口蓋形成術の1段階法と2段階法を患者の状態に応じて使い分けるなど複数

の治療計画を採用していたが、本調査ではアンケートの仕様からこのような情報を十分にくみ取することは難しかった。

必要に応じて行われる追加の手術については、治療時期の範囲の最高齢を18歳以上としている施設数が、口唇・鼻の修正術については69.9%、口蓋裂二次手術は34.2%、顎骨骨切り術などは93.2%を占め、多くの施設で、育成医療が対象外となる18歳以上まで治療が続く計画が採用されていた。

#### 【患者数】

本来は各施設に通院する口唇口蓋裂患者の総数が求められるところであるが、これは短期間でのアンケート調査では情報収集が不可能と考えられた。そこで2022年1月～12月に初回の手術を施行した口唇口蓋裂患者の人数を調査した。口唇口蓋裂はほぼ全員が0～1歳で初回の手術を要することから、2022年の1年間に手術した患者数＝この期間に新規に発生した口唇口蓋裂患者数と理解できると考えた。

なお、一般的にいわれている日本における口唇口蓋裂の出生率500人に1人をあてはめると、2022年の出生数約77万人(厚生労働省令和4年(2022)人口動態統計月報年計(概数)の概況より)からは1540人となり、本調査での患者数1032名は、その2/3程度が申告されていることになる。

レセプト情報などから手術件数を調べれば、より正確な患者数がわかると考えられる。また他の世代の患者数の情報も求められる。患者数の把握は今後の課題である。

#### 【18歳以上の治療例】

2022年1月～12月の間に、対象施設73施設のうち75%にあたる55施設で、18歳以上の口唇口蓋裂患者に対する治療が751件行われていた。なお、2022年は新型コロナウイルス感染症の影響により、手術件数が大幅に

制限されていた施設が多く、例年よりも件数は大幅に少なかったと考えられる。

治療内容で最多の 38% を占める歯科矯正のうち一部は、18% を占める顎骨骨切り術の術前および術後治療を含むと考えられた。一般的に下顎の成長は 17 歳前後まで続き、男性では 18 歳以後も下顎の成長が続く場合がある。それまでは上下顎の咬合関係は変化する可能性がある。顔面発育が完了し最終的な咬合の様式が明らかとなるまでは、歯科矯正の動的処置が続いたり、顎骨骨切り術を待機することが多い。本調査では、これらの治療が 18 歳以後に多く行われていることが明らかになった。

29% を占める口唇・鼻の修正術は、大部分が整容面での改善を目的としたものと考えられた。18 歳以後で大学や社会に入り、新たな対人関係の中で生活する過程で、口唇外鼻の変形に対する訴えを改めて生じることは、臨床現場でも時に経験される。また治療方針として、顎骨骨切り術が完了して「土台」となる顔面骨の位置が定まってから、「家屋」に相当する軟部組織である口唇外鼻の修正術が行われることが多い。18 歳以後で口唇・鼻の修正術が多く行われている背景には、このような理由があると考えられる。

さらに、18 歳以上で行われる口唇・鼻の修正術については、鼻中隔彎曲矯正手術などの鼻内の手術を施行している施設が複数あった。これらの手術は 15 歳以後の鼻中隔の成長完了をまって行われる。口唇口蓋裂では鼻中隔彎曲が高率に認められ、鼻閉の訴えを生じる。鼻内の手術の目的は、整容面の改善にとどまず、これら機能的な問題を改善するものである。

そのほか、言語機能の改善を目的とした口蓋裂二次手術 (2%) や言語訓練 (11%) が施行されており、機能的な改善を目的とした治療が 18 歳以後も継続して行われていた。治療の最高齢は 80 歳であった。本研究の主

旨からは本来は「一貫した治療で継続して診療する中で行われた治療」に限定して調査し、「治療がいったん終了後に、改めて訴えを生じて再診し治療に至った」例は除外するべきであった。本調査においてはこの 2 者を分けて調査しておらず、この点の情報が十分には得られていない。

#### 【更生医療の対象外の例】

2022 年に治療された 18 歳以上の口唇口蓋裂患者のうち、更生医療の適応の有無について回答が得られた 608 名では、499 名 (82%) が更生医療の対象外であった。その理由は、53% が症状の要件を満たしていない、8% が所得の要件を満たしていない、7% が施設に指定医がいなかったため手続きができないためであった。

#### 【育成医療の延長に関する意見】

育成医療の対象年齢については延長を求める意見が多く、平均 23.5 歳までの延長が望ましいとの結果であった。術前矯正とそれに続く顎骨骨切りがしばしば 18 歳を超えることは、かねてから口唇口蓋裂の治療提供者の間で指摘されてきた。一貫した治療計画のなかで位置づけられた、咀嚼という機能面での改善を目的とした治療である点で、検討を要すると考えられた。

そのほかの意見としては、「最高で 19 歳の高校を卒業するまでは全員を対象とすべき」、「社会人になる前までが望ましい」といった、機能面とは直接にはかかわらない理由が多かった。その中で、「複数回の治療を必要とする口唇口蓋裂では、18 歳になるまでに治療を完遂するために、長期休暇を治療で使ひ学業に支障をきたしている」といった、患児が学校や社会のなかで健全に成長・発育していくうえで看過できない影響があると感じさせる理由が認められた。

## 2. 口唇口蓋裂以外の育成医療対象の疾患についての同様な実態把握の方法論の検討

福祉行政報告例から得られた知見をもとに、自立支援医療（育成医療等）の実態を把握する上での課題として以下の点が考えられた。

施策の性質上、支援の対象可否が「病態」で評価されることから、制度を利用している者の「疾患名」を網羅的に把握することが難しいと思われた。他の医療費助成制度、例えば難病対策などでは、支援対象となる「疾患名」を国が定めていることから、制度を利用している者の状況も比較的想像しやすい。一方、自立支援医療では対象者がどのような原疾患を有しているか、どのような疾患を持つ者が制度を利用しているのか、全体像を把握している者がいないため、制度の対象となる可能性のある「疾患名」を網羅的に知る必要があると考えられた。

自立支援医療の実施主体が市町村となっていることから、行政側に協力を求めて状況を把握するのは限界がある。自立支援医療の申請様式には、疾病名を記載する欄が設けられている場合が多いと思われるが、疾病名については国は報告を求めておらず、福祉行政報告例では把握する事ができない。都道府県等が市町村から疾病名の報告を受けていない場合は、1,800以上の市町村および障害福祉行政を担う区行政まで確認が必要となる。更に行政側も必ずしも情報提供ができるとも限らないことから、行政側に情報提供を求めることは現実的ではないと思われた。

このような状況において、自立支援医療の実施状況を補足するには、①自立支援医療を申請する可能性のある診療科の専門家に対し全国規模のアンケート調査を行い医療者側から情報を取得する、②診療報酬明細書（レセプト）データを利用し網羅的に情報を探索する、という二つの方法が考えられた。

①の全国規模のアンケート調査については、本研究班による口唇口蓋裂を対象とした調査手法が応用できる事が期待される。

レセプトデータを用いた検証において、最も有益な検討対象となるデータベースはNDBである。NDBはわが国の医療行為で生じる診療報酬明細書のデータのほぼ全てを網羅しているため、医療行為の網羅的検索が行える可能性が高い。更に2022年4月より公費負担者番号の提供が認められたことから、育成医療等の公費負担を利用した医療行為を抽出することが可能となった。以上より、NDB等のレセプトデータの解析を試みることは有益であると考えられた。一方で、NDBデータの取得には時間がかかること、電子化されたレセプト情報がそのまま抽出されてくることから、非常に取扱いが難しいこと、などの課題もあることから、東京大学が保有するTheBDや株式会社JMDCが保有するJMDC claims databaseなど、規模が小さいが解析を行いやすい加工済レセプトデータベースを並行して分析するべきであると思われた。

いずれにしても、各領域の専門家からの助言が必須であることから、本課題の検討に当たっては、形成外科分野だけでなく、整形外科、歯科、小児外科、循環器外科、眼科、耳鼻咽喉科をはじめとする小児期外科系診療科と小児循環器科を含む小児内科領域の専門家集団の参集が求められると思われた。

## E. 結論

本研究により、口唇口蓋裂について、多くの治療施設が育成医療の対象年齢を超える18歳以後も治療を継続する計画を採用していることがわかり、実際に18歳以上の口唇口蓋裂患者に対して多くの治療が実施されていたことがわかった。今後は、レセプトデータなどを用いた多角的な手法により、より詳細かつ正確な実態の把握が必要と考えら

れた。また口唇口蓋裂以外の育成医療の対象疾患についても、同様な現状の把握が必要と考えられた。

## F. 健康危険情報

該当なし。

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

なし。

### 2. 学会発表

なし。

## H. 知的財産権の出願・登録状況

### 1. 特許取得

なし

### 2. 実用新案登録

なし

### 3. その他

なし

## (資料1) アンケート調査用紙

- この研究に参加することを同意いたします。
- 注記：一度アンケートサイトから抜けると、再度アクセスいただいた際には続きからの入力ができず、最初からの回答となってしまいます。あらかじめ郵送しましたアンケート全文をご参照いただき、情報をお手元にご用意のうえ、ご回答いただけますようお願いいたします。

① 貴施設の治療計画（プロトコル）において、以下の各手術を行うタイミングをお答えください。同時に複数手術を行う場合には、「同時」のボックスに☑を入れてください。

### 注記

- ・治療計画は、唇顎口蓋裂において、成人前後で経過観察を終了するまでの、典型的な場合についてお答えください。
- ・口唇裂形成術の前に口唇縫合術（lip adhesion など）を行っている場合には、口唇裂形成術の時期をご記入ください。
- ・口唇裂初回手術時に軟口蓋形成を同時に行い、後に硬口蓋の形成術を行う場合には、口蓋裂手術は二段階法としてご記入ください。「口唇裂初回手術」と「口蓋裂初回手術 二段階法の1回目」の「同時」にチェックを入れて、「口蓋裂初回手術 二段階法の2回目」についてもご記入ください。
- ・口唇外鼻形成術＋歯肉骨膜弁形成術を同時施行なら、口唇裂初回手術と顎裂初回手術の両方の「同時」に☑を入れてください。
- ・両側口唇裂の口唇形成術を片側ずつ2回に分けて行う場合には1回目の手術の時期をご記入ください。
- ・口唇裂初回手術で外鼻形成を行わず、後に外鼻の初回手術を行う場合などは、「その他」にご記載ください。
- ・貴施設にて特定の手術を施行されていないなどのご事情がございましたら、手術年齢・月齢に「999」とご入力をお願いします。

口唇裂初回手術（\_\_から\_\_ヶ月） 同時

口蓋裂初回手術

一段階法（\_\_から\_\_歳） 同時

二段階法の1回目（2回目の情報もお答えください）（\_\_から\_\_歳） 同時

二段階法の2回目（\_\_から\_\_歳） 同時

顎裂初回手術（骨移植、歯肉骨膜弁形成など）（\_\_から\_\_歳） 同時

口唇外鼻の修正術（必要な場合）（\_\_から\_\_歳）

口蓋裂二次手術（咽頭弁、咽頭後壁増大術など）（必要な場合）（\_\_から\_\_歳）

顎骨骨切り術（必要な場合）（\_\_から\_\_歳）

貴施設の治療計画（プロトコル）において、その他の手術を行う場合、手術名と行うタイミング、必ず行うか、必要に応じて行うかをお答えください。

その他（ ）（必ず行う手術 必要な場合に行う手術（修正術など）（\_\_から\_\_歳）

その他（ ）（必ず行う手術 必要な場合に行う手術（修正術など）（\_\_から\_\_歳）

その他（ ）（必ず行う手術 必要な場合に行う手術（修正術など）（\_\_から\_\_歳）

② 貴施設において、2022年1月～12月に、口唇口蓋裂（すべての裂型を含む）の患者さんに対して行った初回の手術について、その患者さんの裂型と人数をお答えください。「初回手術」とは貴施設での初回手術ではなく、その患者さんにとっての初回の手術であるかどうかでご回答ください（例：唇顎口蓋裂であれば0歳の口唇裂初回手術をカウントし、後の口蓋裂初回手術はカウントしない。他院で既に、その患児にとっての初回の手術が行われている場合にはカウントしない）。

唇顎口蓋裂（口唇裂+口蓋裂+顎裂）（\_\_人）

唇顎裂（口唇裂+顎裂）（\_\_人）

口唇裂単独（\_\_人）

口蓋裂単独（\_\_人）

粘膜下口蓋裂（\_\_人）

③ 貴施設において、2022年1月～12月に、18歳以上で口唇口蓋裂に関連するなんらかの治療を行った患者さんの数、治療内容をお答えください。

いない

いる

いる場合の治療内容

顎骨骨切り術（\_\_人）

歯科矯正治療（\_\_人）

言語訓練（\_\_人）

その他（\_\_）（\_\_人）

その他（\_\_）（\_\_人）

その他（\_\_）（\_\_人）

④ ③の患者さんのうち、最も年齢が高い方の年齢をお答えください。

\*途切れずに継続して経過観察通院していて、その流れのなかで手術した患者さんについてお答えください。一連の治療が終了と判断されいったん終診・定期的通院が終了した患者さんが、久しぶりに再診されて治療を行った場合や、他院で治療終了でいったんは終診となった患者さんが貴院を初診されて治療を行った場合は、回答対象から除外してください。

（\_\_）歳

⑤ ③の患者さんのうち、身体障害者手帳を取得して更生医療を適用されている患者さんの数をお答えください。



( 人)

- ⑥ ③の患者さんのうち、更生医療が適用されていない患者さんの数をお答えください。

( 人)

- ⑦ ⑥の理由（更生医療の対象とならない、または取得できない理由）

症状が更生医療の条件を満たさない\*

所得制限が更生医療の条件を満たさない\*\*

更生医療の指定医がおらず書類を作成できない。

その他 ( )

不明

\*口唇口蓋裂に関する更生医療の条件：身体障害者福祉法第4条に規定する身体障害者で、その障害を除去・軽減する手術等（歯科矯正を含む）の治療によって確実に効果が期待できる者であること（例：唇顎口蓋裂に起因した音声・言語機能障害を伴う者であって鼻咽腔閉鎖機能不全に対する手術以外に歯科矯正が必要な者 → 歯科矯正）。

\*\*更生医療における所得制限：医療保険の世帯単位で、市町村民税所得割額が23万5千円以上の者については対象外

- ⑧ 口唇口蓋裂において、育成医療の対象年齢が延長されるなどの施策が考えられますが、どのように思われますか？また最低何歳までの延長が必要と思われますか？自由にご意見をお書きください。

最低 ( ) 歳までの延長が必要。

その理由 ( )

ご意見 ( )

- ⑨ 最後に、貴施設のお名前と所在地をお答えください。なお、厚生労働省への報告は、各ご施設からの回答全体を集計しますので、貴施設からのご回答が特定されることはありません。

施設名 ( )

所在地 ( 都道府県で) 回答をお願いします)

アンケートは以上です。ご協力いただき、誠にありがとうございました。

## (資料2) 自由記載内容

### 育成医療の何歳までの延長が望ましいかに関する理由 (73 施設中 59 施設から回答あり)

- 顎骨骨切りが成長終了後に行われるため、術後矯正の終了までを認定するためには 20 歳が適切と考える。
- 顎矯正手術は大学生になってからのことが多く、その術後矯正歯科治療や、顎矯正手術後に外鼻修正手術を施行する可能性が高いから
- 歯科矯正治療が長引くため
- 顎骨骨切り術は大学生で行う患者もいるため
- 歯科矯正治療等の治療方針転換などで 18 歳を超えて治療が必要となる可能性があるため。
- 口唇鼻修正術や顎矯正手術は、成長が終了しないと、手術が行うことができません。従って、成長終了までは延長されるべきではないかと感じております。
- 大学在学中に骨切り手術を行うこともあり、社会人として自立するまでであっても良いと思うため
- 高校や大学は人間関係を構築したり進路を決めたりと忙しく、受験・就職活動があると手術の時期の判断が難しいと思います。
- 顎骨骨切り手術は、術後の後戻りを回避するには下顎の成長が完全に終了するのを待つ必要があり、また、長期間の歯科矯正治療と並行するため特に男児ではしばしば二十歳を超える。また、やはり成長終了後に行う、肋軟骨移植などを用いる鼻の最終手術も適応となる児の場合、受験や部活動のある高校生のうちに両方の手術を受ける事はスケジュール的にも難しい事から、鼻を高校生のうちに、顎は高校卒業後に行うケースが多い。
- 顎骨骨切りまで対応できたらいいと思ったので。
- 口唇口蓋裂の一貫治療としては、顎変形症の手術、顎裂の欠損歯のインプラント補綴など、成人期にかかるまでの治療が必要だから。
- 唇顎口蓋裂に伴う上顎低形成により外科矯正治療が適応となる症例はまだ散見されます。そういった患者さんが実際に手術を受けられるのは、身体成長および社会的観点から高校卒業後となることがほとんどであるため。
- 不正咬合に対する顎骨骨切り術を行う場合、下顎の成長完了を待ち、矯正治療を完了してから手術を行うと 18 歳を超えることがある。術後の矯正治療の完遂までが一連の治療と捉えられるが、そこまでを育成医療の対象とするなら、22 歳ころまでが妥当と考える。
- 大学卒業までに治療を完遂させたい患者が多い。
- 顎矯正手術を 18 歳以降にすることもあり、その後の外鼻修正なども遅くなる可能性があるため。
- 大学在学中に希望があれば修正できるとよいと考える
- 大学生の学生の間でも気軽に修正術を受けられてもよいのではないかと思います
- その辺りまで必要な治療が終わらないから
- 男性の場合、顎骨の成長発育が 20 歳くらいまで続くことがある。 ②社会人になることの多い年齢である。
- 唇顎口蓋裂で一貫治療を順調に行ったとしても、唇顎口蓋裂に起因する顎変形症の手術時期は 20 歳ごろになることは十分にあり得ます。20 歳で手術を行なったとしても術後矯正、

保定治療等を行うと 25 歳くらいまで経過してしまうことも考えられるために最低 25 歳までの延長が必要と考えます。

- 18 歳以降でも骨切り手術のほか、外鼻、口唇修正等の手術の必要性があるため。 社会人前（学生時）に手術を終了させるためには、対象年齢は少なくとも 22 歳までは延長しても良いのではと思います。
- 現行で特に問題がなかったため。
- 顎矯正手術は成長終了後に行う手術であり、高 3～大学生がほとんどである。25 才までになれば、顎矯正手術とその後のプレート除去や口唇鼻修正術もほぼカバーできる。
- 18 歳以降は保険治療が受けられないと勘違いされている方が予想以上に多い印象です。自施設では鼻閉を主訴に耳鼻科を受診され、その後に合同手術を行うケースがありますが、患者さん自身は唇裂に関わる治療は終わったと思われるようです。
- 育成医療は本質的には児童の医療扶助制度であるため、就学期間が終了（通常の大学を卒業年齢）したら、他の制度で治療を受けるべきと考えるため。
- 本邦の口蓋裂治療は地域差、施設差が非常に大きい。さらに口蓋形成術後の症状も千差万別であり絶対的な治療方針が存在せず、担当医の力量にも左右されやすい現実がある。その結果、現状に対する不満を持ち治療終了後に他の治療法を知る場合がある。また十分な治療が行われずに治療終了とされた患者も一定数存在している。しかし直接生命予後にかかわるわけではないので、就業年齢に達している患者は受診困難となることがあるため余裕を持たせた適応が望ましいと考える。
- 骨切り手術も対象とするなら。
- 大学卒業まで
- 顎欠損（歯の先天性欠如）に対してインプラント補綴を計画する場合は、顎発育終了後に咬合の評価を行う必要があるため。
- 大学卒業まで治療を継続する可能性があるため
- 18 歳以上で行う治療は顎骨骨切りと鼻中隔矯正術などの鼻内手術を伴う外鼻形成術であり、それらは年齢に上限を設けることは難しいと考えます。患者さんやご家族の都合や矯正歯科の進み具合でさまざまです。なので、何歳までと区切ることはできないと考えます。しかし、あえて設けるなら、30 歳くらいまででしょうか。私の少ない経験ですが、27 歳の骨切り患者さんが最高齢でしたので。
- 現状では、満 18 歳になった時点で育成医療の対象から外れることとなっている。市町村の判断で、18 歳であっても高校生であれば育成医療を適応してもらえるばあいもあるが、確実ではない。高校卒業までの育成医療適応を担保するために 19 歳までは必要と考えるが、顎矯正治療などは大学生のうちに手術を行うこともあり、20 歳までは適用してもよいのではないかと考えます。
- 大学生のうちは比較的治療に割く時間を確保することができるため、大学卒業まで延長が望ましいと考える。
- 50 歳以上で口唇外鼻修正術を希望する例外的な患者さんを除けば、多くの患者さんの治療は 20 歳位で完了していることが多い。現状の 18 歳では、高校卒業後の進学や就職に関するスケジュールがタイトであり、患者さんやその家族の負担が大きいと思える状況が散見される。20 歳までの延長が可能になれば、治療計画に余裕を持たせることができ、多く

のメリットがあるのではないかと考える。

- 顎変形症に対する治療が 18 歳までには完了しない場合が多くあると考えます。顎変形症の手術が 18 歳を超えて行われることも（調査対象年度内にはありませんでしたが）しばしば経験します。20 歳までで十分であるとも言えませんが。
- 一般的に社会人として独立するまで、すなわち 4 年生大学が終了するまで延長して頂きたい。口唇口蓋裂に関連して必要な修正術や上顎劣成長に対する外科的矯正手術は、成長過程にある 18 歳では、まだ手術適応年齢に満たない場合がある。さらに言語治療は、社会人として独立するまでは必要な治療である。
- 外鼻変形の修正を、20 歳を超えて行う患者もいるため。
- 多くの方が就職して社会に出る年齢、一連の治療がひとまず完遂できる年齢までの延長が望ましいのではないのでしょうか。
- 大学生までとする
- 当院は歯科矯正治療を外部に委託しており、更生医療の診断書作成には関わっているが、一連の治療が完了するまでは育成医療の継続が望ましい。また 2022 年は新型コロナの影響があつて顎骨骨切り術症例がなかったが、当院で行ったり外部に依頼することがあり、18 歳を超える症例も多く、同様に育成医療の継続が望まれる。
- 顎骨骨切り術は成長が止まってから行うことが通常ですので、18 歳を過ぎてしまう事があるため。
- 成人し、社会生活を営み、自立した段階で本疾患による機能的・審美的障害の改善を望むことが少なくない
- 大学進学中に治療を希望されたり、男性の場合骨格的な成長が遅れて生じることがあるため
- 顎骨骨切り術を施行するにあたり延長を必要とする場合がある。
- 成長終了後に顎離断術が必要だが、手術までの治療が長引くことがあり、矯正動的治療が育成医療でカバーできないケースが生じているため。また、永久歯列完成までの期間が長くかかったりして、本格矯正治療開始時期が遅くなり、育成医療適応期間中に保定管理まで治療が進まない患者がいるため。
- 2022 年で当科で最も高い年齢は 23 歳であり、また大学卒業（6 年制も含む）までと考えると 24 歳までの延長が必要十分であると考えます。
- 顎骨形成術、外鼻形成術などは上下骨成長が終了するとされる 18 歳以降に手術することが推奨されるため
- 18 歳は受験があり、手術したくてもできない患者がいるため
- 学生のうちに治療を希望する症例が多いため
- 進学にて加療が中断する事なくフォローする為。また、骨切に関して、成長を待つと男子では育成の対象年齢を過ぎてしまいますので、園長が望ましい。
- 社会人になる前（大学卒業前）に治療が終了した方が良いと考えます。
- 高校卒業前後の時期が治療に適しているものの、誕生日や留年の有無によっては既に 18 歳以上になっている患児が散見されるから。
- 術前矯正の終了時期が 18 歳を超え、顎矯正手術が 20 歳を超えてしまうことが多いため。顎矯正後に最終的な口唇鼻修正を行うため。

- ご本人が学校を卒業して就職するまでは修手術などの可能性は十分にあり得ると思います。また就職してからも周囲から言われて治療を希望されるケースもあると思われるので30歳程度までは延長しても良いのではないかと思います。育成という言葉からは十分に成人しているので上限が高すぎるかもしれませんが個々人の社会的、家庭的環境を考慮する必要もあると思います。
- 18歳までに歯科矯正治療が終了しない場合や、顔面発育状態によっては18歳以降でも治療が必要になるから（歯科矯正治療、顎骨骨切り手術など）
- 骨格性成長が終了（女子なら15歳、男子17歳くらい）になって歯科矯正（第二期）治療は開始可能になる。その次点で初めて顎骨骨切り術をとまうか否かの判断が可能になるため、顎骨骨切り手術ならびに歯科矯正治療（平均3-4年程度）の医療費が育成医療の対象にならないことが多い。鼻口唇修正や顎骨骨切り手術も18歳の夏休み等の長期休みを利用せざるを得ず、進学就職の妨げになることが多い。そのため、大学卒業相当年齢までの延長が好ましいと思います。
- 歯科矯正の終了まで、育成医療が必要と考えるから。
- 高校3年生は4月1日時点では全員17歳であるが、誕生日を迎えた人から18歳になる。少なくとも高校3年生までは育成医療が使えるようにしてもらいたい。
- 顎成長終了後に顎骨骨切りを行います。上顎骨前方移動による開鼻声悪化のため、その後咽頭弁移植術が必要になることがあるため

#### その他意見（73施設中14施設から回答あり）

- 口唇口蓋裂の患者たち、そのご家族が安心して適切な治療が受けられる環境づくりに貢献できれば幸いです。
- 近年の治療成績の向上により顎変形症手術まで必要な症例は減少傾向であるため、適応年齢を拡大しても財政負担は大きくないのではないかと。
- 民法上の成人が18歳ですので、育成医療の対象は18歳未満で妥当と思います
- 育成医療が適応となっている他の疾患との整合性も重要と考えます。特に、出生時からの一連の治療をどこまでと捉えるか、またそのうちのどこまでを育成医療の対象とするかは検討が必要と考えます。口唇口蓋裂で高年齢で行う治療は、整容性など社会参画を助ける意味合いが強いものが含まれているためです。
- 18歳まで（概ね高校生までに）口唇口蓋裂治療を完結するのは困難であると考えますので、育成医療の対象年齢の延長は賛成です。
- 育成医療は18歳まででいいと思いますが、18の数値が入力できませんでした。
- 成長終了までまってから、外科的矯正治療を行う患者がいること、また、外科的矯正治療（上顎骨骨切り）後に鼻咽腔閉鎖機能不全が生じ、手術が必要になるケースもあるため。
- 育成医療は18歳までを基本とし、患者さんの治療状況を見ながら、歯列矯正や術式を限定して数年に一度、たとえば、3年毎に延長を検討していく体制が良いかと思います。身障者手帳も数年毎に延長をしていました。治療に行っていないのに手帳だけ延長を希望する患者さんがいたりしましたので、なるべくならば発行しないで済めばと思います。また、県や市町村をまたいでも簡単に利用できる体制もあった方が良く考えます。
- あまり延長などの必要性は感じたことはありませんでした。

- 治療が終了するまで
- 外科矯正の実施が18歳以降であることがほとんどであり、術前矯正に難渋する場合、20代後半になる場合も少なくない。
- 口唇鼻修正をどこまで医療制度でカバーするか否かについては判断が難しいと思いますが、顎矯正後に鼻の変形をきたすことも少なくないことから、（顎矯正後の）口唇鼻修正を（回数など）条件付きでカバーしていただけるといいかと思います。

## 研究成果の刊行に関する一覧表

該当なし

西暦 2024年02月08日

## 研究実施許可書

研究責任者 彦坂 信 殿

国立成育医療研究センター 理事長  
五十嵐 隆

貴殿から申請のあった研究について下記の通り通知します。

受付番号	2023-212
研究課題名	【中央一括審査】18歳以上で治療を必要とする口唇口蓋裂患者に関する実態把握のための研究
審査事項	<input checked="" type="checkbox"/> 研究等の実施の適否 <input type="checkbox"/> 研究等継続の適否 <input type="checkbox"/> 重篤な有害事象 <input type="checkbox"/> 研究に関する変更 <input type="checkbox"/> 倫理的妥当性・科学的合理性を損なう事実報告 <input type="checkbox"/> 研究の実施の適正性・研究結果の信頼を損なう事実報告 <input type="checkbox"/> その他
判定	<input checked="" type="checkbox"/> 許可 <input type="checkbox"/> 不許可
備考	(不許可の場合の理由等)



研究責任者  
形成外科学・教授 上田 晃一殿

大阪医科薬科大学  
学長 佐野 浩一  
(押印省略)

## 決 定 通 知 書

以下のとおり、通知いたします。

試験番号	2023-207	
研究課題	18歳以上で治療を必要とする口唇口蓋裂患者に関する実態把握のための研究	
研究責任者	形成外科学	教授 上田 晃一
適用倫理指針	人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針	
審査内容	<input checked="" type="checkbox"/> 研究実施計画書の新規申請 <input type="checkbox"/> 研究実施計画書の変更 <input type="checkbox"/> 研究期間の延長 (延長期間:      年    月    日まで) <input type="checkbox"/> 研究者の変更 ( <input type="checkbox"/> 追加 <input type="checkbox"/> 削除 <input type="checkbox"/> 変更) <input type="checkbox"/> 研究実施内容に関する変更 変更点: <input type="checkbox"/> その他の変更 変更点:	
判定	委員会名	医学研究専門部会 (旧臨床・疫学研究専門部会)
	判定日	2024年 02月 14日
	判 定	承認
実施許可 研究期間	2024年02月14日～2025年03月31日	
備考	審査方法：多機関共同研究一括審査 審査日：2024年1月25日 審査機関：国立成育医療研究センター 倫理審査委員会 研究代表者：国立成育医療研究センター 小児外科系専門診療部形成外科 医長 彦坂 信	

西暦2024年2月22日

## 研究実施許可通知書

## 研究責任（代表）者

医学系研究科 形成外科学分野 教授  
今井 啓道 殿

## 研究実施機関の長

東北大学大学院医学系研究科長

許可申請のあった件についての結果を、下記のとおり通知いたします。

## 記

研究番号*1	
研究課題	18歳以上で治療を必要とする口唇口蓋裂患者に関する実態把握のための研究
許可申請事項	<input checked="" type="checkbox"/> 審査結果通知書（2024年1月25日付）のとおり <input type="checkbox"/> その他（ ）
審査を依頼した倫理審査委員会	<input type="checkbox"/> 「内部設置」倫理審査委員会*2 <input checked="" type="checkbox"/> 「外部設置」倫理審査委員会
許可区分	<input type="checkbox"/> 会議等による審査（許可日：西暦 年 月 日） <input checked="" type="checkbox"/> 書面による確認 <input type="checkbox"/> その他（ ）
許可結果	<input checked="" type="checkbox"/> 実施を許可 <input type="checkbox"/> 不許可 <input type="checkbox"/> その他（ ）
「許可」以外の 場合の理由等	
備考*3	

\*1：研究登録を行った場合はJRCT番号又はUMIN番号を記載する。新規申請時は記載不要。

\*2：内部設置倫理審査委員会とは、東北大学大学院医学系研究科倫理委員会、東北大学病院臨床研究倫理委員会、東北大学歯学研究科研究倫理委員会、東北大学東北メディカル・メガバンク機構倫理委員会を指す。

\*3：意見以外の研究責任者への連絡事項がある場合には、記載すること。

注）本書式は、研究機関の長が作成し、研究責任者に提出する。

# 研究実施許可通知書

(一括審査)

令和6年2月27日

責任者

医学部 医学科形成再建外科学 教授  
杠 俊介 殿

信州大学医学部長  
奥山 隆平



承認番号 2023-148  
審査倫理委員会名 国立成育医療研究センター倫理審査委員会  
研究課題番号 2023-1513 (2023-212)  
研究課題名 18歳以上で治療を必要とする口唇口蓋裂患者に関する実態把握のための研究  
研究責任者 医学部 医学科形成再建外科学 教授 杠 俊介

上記研究計画に関する倫理審査結果を受け、実施について  
下記のとおり決定しましたので通知いたします。

記

判定	<input checked="" type="checkbox"/> 許可 <input type="checkbox"/> 不許可