

症例報告

Prader-Willi 症候群児の歯磨き習慣確立に
パズルを用いた 1 例林 陽佳, 山崎てるみ, 芦澤みなみ
梅津糸由子, 白瀬 敏臣, 内川 喜盛

〔論文要旨〕

Prader-Willi 症候群 (PWS) 患者は, 食生活習慣を管理することが難しく, 唾液量が少ないことから齲蝕や歯周疾患に罹患しやすいことが知られている。しかし, 個々の性格や知的能力の程度によって口腔内の状況は個人差が大きいとされ, PWS 患者に特化した具体的な歯科対応法の報告は見当たらない。われわれは, PWS のある初診時年齢 5 歳 4 か月の女兒の歯科診療を担当した。患児は口腔清掃が非常に不良で齲蝕が多く, 毎日の歯磨き習慣は身に付いていなかった。そこで, 歯磨き習慣確立を目指すために, 患児の好きなことや得意なことを取り入れることで協力度を高めることを試みた。われわれは, PWS の診断基準の補助的所見の一つである「ジグソーパズルが得意」という能力に着目した。確認のために, 実際に患児にパズルを試してもらったところ非常に得意であったため, パズルを応用したアイテムを考案し患児の歯磨き習慣の確立に取り組んだ。パズルの使用方法は, 歯を磨いた日に 1 ピースのパズルをはめることができるものとした。パズルの応用と歯磨き指導により, 患児は進んで歯磨きをするようになり, 仕上げ磨きも行ってもらおうという一連の流れが確立していった。PWS の特性を考慮し製作した歯磨き習慣確立アイテムは, PWS 患者に無理なくかつ効果的に応用できる可能性があると考えられた。

Key words : Prader-Willi 症候群, 小児歯科, 行動変容, ジグソーパズル, 口腔衛生習慣

I. 緒 言

Prader-Willi 症候群 (PWS) は第15番染色体長腕の異常による症候群で, 視床下部の機能障害を原因とするため, 満腹中枢をはじめ体温や呼吸中枢などの異常が引き起こされる。発症頻度は 1 万~1 万 5 千人に 1 人であり, 人種差はないとされている。症状は, 内分泌学的異常 (肥満・低身長・性腺機能障害・糖尿病) や神経学的異常 (筋緊張低下・性格障害・異常行動) などが挙げられる¹⁾。さらに, その臨床像は年齢に応じて変化し, IQ は多くの場合 60~70 程度である²⁾。

口腔領域においては, エナメル質形成不全, 高粘性の唾液, 唾液量が少ないことによる口腔乾燥および食

生活の管理が困難であることから, 齲蝕になりやすいことが知られている^{3,4)}。また, PWS 患者は痛覚鈍麻のため, 齲蝕が進行しても気がつきにくく重症化しやすいとされる⁵⁾。よって, 幼少期からの口腔衛生管理が重要となり, 齲蝕予防と早期治療が小児歯科の基本となる。しかし, PWS 患者は, 年齢に応じて身体的および性格的な臨床像が変化することや, 性格や知的能力の程度や症状に個人差が大きいことから, 対応には決まった方法がなく, 歯科臨床の場でどのように支援をするべきか悩むことが多い。

われわれは, 齲蝕治療の希望を主訴に来院した PWS 児を担当した。初診時は, 口腔衛生に関する保護者の意識が低く, 本人の障害特性による性格や食行

A Training Using the Jigsaw Puzzle to Motivate Brushing Teeth
in a 5-year-old Girl with Prader-Willi Syndrome
Haruka HAYASHI, Terumi YAMAZAKI, Minami ASHIZAWA,
Yuko UMEZU, Toshiomi SHIRASE, Yoshimori UCHIKAWA
日本歯科大学附属病院小児歯科 (歯科医師)

[3063]

受付 18. 8.29

採用 19. 2.28

動の管理困難のため口腔衛生習慣を身に付けることが難しい状況であった。効果的に行うには患児に合った工夫が必要であると考え、PWS 診断基準の補助所見の一つである「ジグソーパズルが異常に得意」⁶⁾という項目に着目した。今回、この特性を行動変容に取り入れ、患児の歯磨き習慣確立に取り組んだ結果、保護者と患児の変化を通じてアイテムの効果について若干の知見を得たので報告する。

なお、本研究は日本歯科大学生命歯学部倫理審査委員会（承認番号:NDU-T2015-47 2016年3月23日付）の承認を得て行った。本症例の公表については、保護者に対して口頭と書面にて説明し同意を得ている。

II. 症 例

1. 患児情報

患 児：初診時年齢5歳4か月、女兒

主 訴：むし菌がある

身体所見：身長117cm, 32kg, kaup 指数23.38 肥満、小さな手足、アーモンド様の眼裂、上唇が薄い魚様口唇、鞍鼻

生育歴：在胎週数37週、帝王切開、出生時身長／体重：47.5cm／2,326g

出生時は吸啜力が弱く、授乳は困難であった。14か月で卒乳後もコップやストローを使用した嚥下は困難で、36か月頃まで哺乳瓶で牛乳やジュースを飲んでいた。定顎や寝返りは平均よりも遅く、一人歩きは24か月であった。

現病歴：紹介元の歯科医院で何度か齲蝕治療を行ったが、治療への協力が得られず治療困難で当科へ紹介された。保護者は紹介元に患児にはPWSがあることを報告したが、対応に配慮はなく、治療中に歯科医師の指を咬んでしまわれてから、口を開けないなど不協力的になったという。

既往歴：生後まもなくPWSの診断を受けた。知的能力障害。現在、小児科で成長ホルモン療法とカロリーコントロールなどの食事指導を受けている。

家族歴：兄（注意欠如・多動性障害〈ADHD〉）

現 症：初診時の口腔内は下顎左側第一大臼歯を除くすべての歯に齲蝕を認めた（図1）。上顎両側第一乳臼歯には、コンポジットレジン様の修復がなされていた。乳歯歯数に不足はみられなかった。下顎左側第二乳臼歯頬側歯頸部歯肉には、白色の膿瘍を認めた。口腔清掃は不良で、歯頸部や歯間部を中心に咬合面にもプラークが付着していた。

パノラマエックス線所見：第二大臼歯までのすべての永久歯に歯数の異常は認めなかった。下顎左側第一大臼歯を除くすべての萌出している歯に齲蝕を認め、特に下顎右側第二乳臼歯、下顎左側第一乳臼歯、下顎左側第二乳臼歯の齲蝕は重度であった。上顎右側乳中切歯、上顎左側乳側切歯、下顎両側乳中切歯は歯根が吸収していた（図2）。

患児の様子：初診時、ユニットに座り、ミラーで口腔内診察を行うことができた。3 Way シリンジのエアとバキュームは Tell-Show-Do (TSD) 法で、座

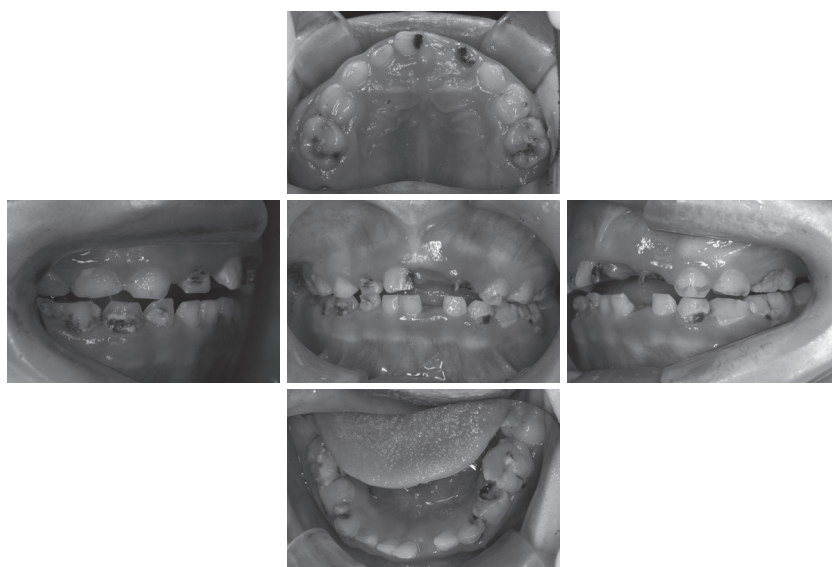


図1 初診時口腔内写真（咬合面観はミラー像）
下顎左側第一大臼歯を除くすべての歯に齲蝕を認め、口腔清掃は不良である。



図2 初診時パノラマエックス線写真

第二大臼歯までの永久歯数に不足は認めない。第三大臼歯は確認できない。下顎両側第一乳臼歯と下顎両側第二乳臼歯の咬合面には歯髄と近接する齲蝕を認めた。

位にて手で触れることができた。集中時間は短く、すぐにトレーニングの終了を要求してきた。また気に入らない道具は受け入れ困難であったが、人懐っこくコミュニケーションには意欲的であった。

口腔衛生習慣：食後に歯磨きをするなどの歯磨き習慣はなく、保護者から声を掛けて患児の気が向いたときに行っていた。歯磨きを行うときは患児自身による歯磨きが30秒程度と保護者による仕上げ磨きは1分程度であった。フッ化物含有の歯磨剤は使用していたが、デンタルフロスなど補助具の使用はなかった。患児には、過食や炊飯器からしゃもじで直接食べる、生の米や冷凍食品を凍ったまま食べてしまうなど、保護者の見ていないところでの食行動に異常があった。小児科よりカロリーコントロールとしてジュースは0 kcal

のものを摂取することや、空腹を紛らわせるためにガムを噛むことを指導されていたが、ガムに含まれる糖類の種類についての指導は受けていなかった。食事でもジュースを常飲していた。多数歯齲蝕の主な原因は、本人による歯磨きと保護者による仕上げ磨きが不十分であること、一日頻回の食事と間食および清涼飲料水の摂取と考えられた。

2. 診断・治療方針

初診時の診断と治療方針を表1に示す。患児の歯科治療への協力度は行動変容を用いたトレーニングで向上する可能性があったが、齲蝕の治療を早急に進める必要があった。そのため、全身麻酔下での集中治療と外来でのトレーニングを並行して行うことを提案した。受診時には、歯科用の道具に慣れるためのトレーニングと、患児と保護者に対する歯磨き指導を行うことで、歯科受診時における協力度向上と口腔ケアに対する意識の改善を目標とした。一方、自宅では、食後や就寝前に歯磨きを行うなど規則正しい歯磨き習慣の確立をゴールに設定した。

3. 臨床経過

全身麻酔下での歯科治療予約日まで約3か月あったため、外来で2回のトレーニングと歯磨き指導から開始した。全身麻酔下で齲蝕治療を行うにあたり、医科主治医に対話し留意点を確認した。その結果、暦齢に

表1 初診時診断・治療方針

治療方針	修復処置	修復処置	修復処置	修復処置	拔牙		拔牙	修復処置	修復処置	修復処置	
診断	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	交換期乳歯		慢性化膿性根尖性歯周炎	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	
	E	D	C	B	A		B	C	D	E	
	E	D	C	B	A	A	B	C	D	E	6
診断	慢性化膿性根尖性歯周炎	慢性潰瘍性歯髄炎	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	交換期乳歯	交換期乳歯	齲蝕症第2度	齲蝕症第2度	慢性化膿性根尖性歯周炎	慢性化膿性根尖性歯周炎	健全
治療方針	拔牙	歯内療法・修復処置	修復処置	修復処置	拔牙	拔牙	修復処置	修復処置	拔牙	拔牙	

全顎：単純性歯肉炎

初診時の診断と治療方針。治療は全身麻酔下で行ったため、その時に再度精査を行って治療した。

表2 診療の経過

	初診 1回目	2回目	3回目	4回目	5回目	6回目	7回目	8回目	9回目	10回目	11回目	12回目
初診からの 日数		38日後	120日後	176日後	199日後	239日後	283日後	318日後	359日後	402日後	443日後	462日後
診療内容	医療面接 診察・診断 治療方針説明 トレーニング 仕上げ磨き 指導	トレーニング 本人磨きと 仕上げ磨き 指導	トレーニング 本人磨きと 仕上げ磨き 指導	全身麻酔 下による 歯科処置	機械的 歯面清掃 本人磨き と仕上げ 磨き指導	間食指導 も加えた	616 予防 填塞	616 予防 填塞			にて 根尖性 歯周炎→ 治療の トレーニング	にて 治療の トレーニング
PCRの変化			80.7%		31.2%		25.0%	36.8%		34.2%		
出血点の変化			自宅でのバズル応用開始		75.0%		55.0%	52.6%		49.0%		

PCR : Plaque Control Record

初診時から行った毎回の診療内容。口腔清掃状況を確認し始めてから受診時にはPCRと出血点で評価を行った。

対し2歳程度の発達の遅れがあるため、対応や理解の程度に配慮が必要であることと、肥満患者に準じて呼吸抑制や薬剤の使用量に注意するなど麻酔使用時の注意を指示された。

初診からの診療の経過を表2に示す。全身麻酔での齲蝕治療後、外来では歯科の専門器具を用いた機械的歯面清掃などの予防管理を行うことができるようにトレーニングを開始した。歯磨き指導は本人と保護者に行い、適切な歯磨き方法の習得に取り組んだ。しかし、歯磨きの必要性を理解することが難しい患児にとって、伝えるだけでは動機づけには不十分であり、歯科受診時に歯磨き練習を行っても自宅での歯磨きには結びつかない状況であった。一方、保護者は患児が歯磨きを嫌がることを負担に感じており、歯磨き習慣が確立しない要因の一つにもなっていた。そこで、本人には自宅での歯磨きを少しでも能動的に楽しんでもらうきっかけになるように、保護者にとっては精神的負担の軽減になるように、口頭指導のみではなくアイテムの導入を検討した。

歯磨き習慣確立のためのパズルの応用：PWSの診断基準の補助的所見の「ジグソーパズルが異常に得意」という項目に着目した。そこで、実際に3～4ピースからなるジグソーパズルを患児に行わせたところ、容易に完成させることができた。大人が一つのピースをはめるのに10秒程度かかるころ、患児は1、2秒程度で行うことができた。そして、周囲からの称賛に患児は満足げな表情をしていた。その結果から、患児が興味を示すパズルを自宅での歯磨き状況の確認アイテムとして応用することにした。完成形のパズルは1日1ピースで1か月に1つの作品を作ることで一区切りとし、歯磨き状況を確認するために受診時に完成させ

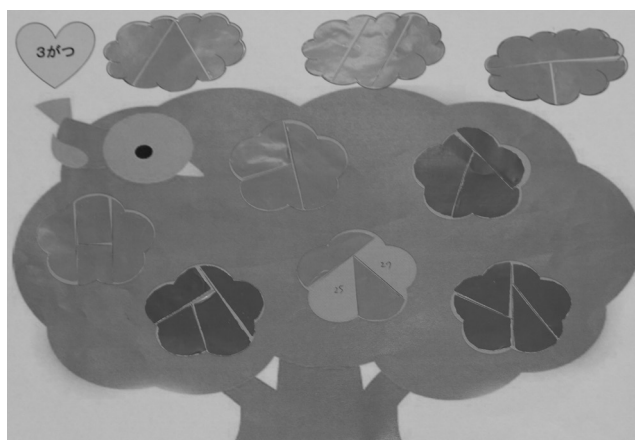


図3 シール式パズル

数日かけて一つの花や雲が完成し、全体は1か月かけて完成するパズルとした。

たパズルを持参してもらうことにした。1か月の日数は28～30日でその月によりピースの数が異なることと、保護者に毎月購入してもらうことは経済的に負担をかけることから、われわれがオリジナルパズルを製作した。パズル導入後は患児の指先の動きや興味の持ち方を観察しながら、工夫と改良を重ねた(図3～5)。来院時には、保護者に良かった点や悪かった点を質問し、保護者と患児が自宅でより使用しやすいように改善をしていった。第一段階では、数日毎に小さな作品が完成していくシールタイプのパズルにしていたが、患児にとってはパズルのパーツをすぐに見つけることができてもシールをはがす行為が難しかった(図3)。さらに、シールが薄いためパーツの紛失もみられた。そこで一つひとつのパーツを大きく分厚くしたはめ込み式のパズルに改良した。このはめ込み式は、容易にはめ込むことができるため、自分で行うことの欲求が強い患児に適していた(図4)。切り口を複雑化して難易度を上げるなど、患児が飽きずに楽しめるよう数

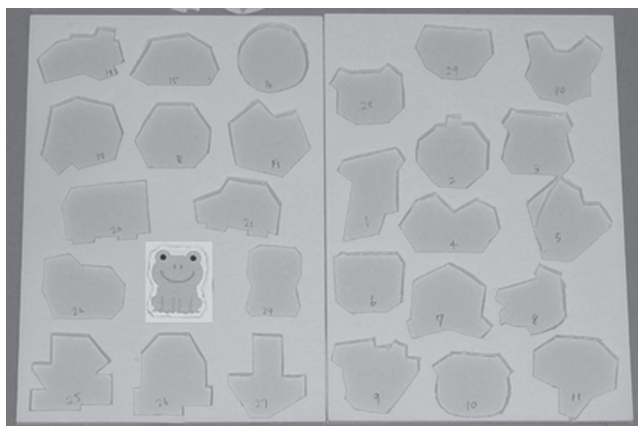


図4-1 はめ込み式パズル

厚みを持たせた台紙のシルエットに合う場所を選んでのはめ込むタイプのパズルとした。



図4-2 はめ込み式パズルに取り組む患児
患児は数秒でピースをはめ込むことができた。

回改良をした(図5)。

自宅での歯磨きの実施については保護者が確認し、終了後に患児に一つのピースを渡した。また、来院時にパズルを持参してもらうことで、われわれも自宅での歯磨き状況の確認が可能になった。同時に、実際の歯磨き状況の確認を外来受診時に評価する必要があったため、その指標には Plaque Control Record (PCR) と機械的歯面清掃時の歯肉の出血点を用いた。PCRとは、歯の各面に付着したプラークを指標とする評価法で、プラークが歯面の1/3以上付着している場合にPCR陽性として評価をした。出血点は通常、ポケットプローブを歯肉溝に挿入して出血した場合に炎症があるとして評価をする。しかし、患児は鋭利な道具の使用が困難であったことから、機械的歯面清掃時に歯肉から出血した場合を出血点陽性として評価した。パズルの応用前のPCRは80.7%であったが、パズルの応用を開始してから約4か月で31.2%に減少し

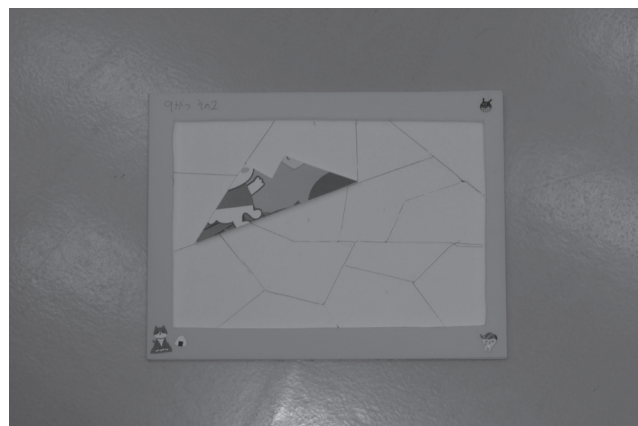


図5-1 はめ込み式パズル2

はめ込み式パズルを改良し、一つのピースを大きく切り口を複雑化した。

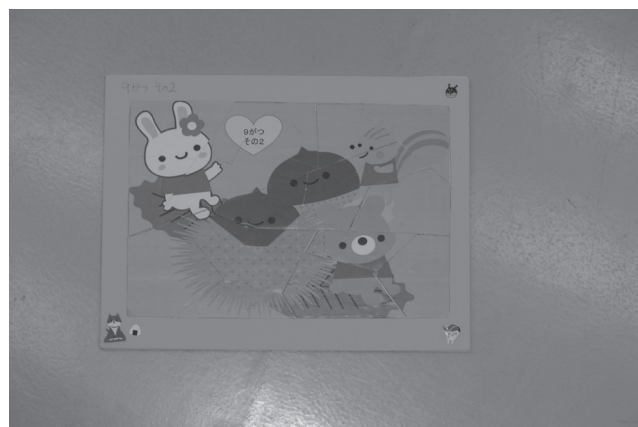


図5-2 はめ込み式パズル2完成図
半月で1枚の作品が完成するタイプのパズルとした。

た(表2, 図6, 7)。パズルの応用開始から約6か月後には25.0%に減少した(図8)。出血点も75.0%から55.0%へと大幅な減少を認め、歯肉の炎症は改善の傾向を示した。

患児の年齢や知的能力の程度から、仕上げ磨きが必要であることを保護者に説明し、来院時には必ず保護者にも歯磨き指導を行った。プラークの染め出しを行い、実際の口腔清掃状況を目視化することで、保護者が仕上げ磨きの必要性を感じられるように指導を続けた。自宅でのパズル使用と外来での保護者に対する歯磨き指導の結果、約半年で歯磨きを行うことは習慣化し、患児が自分磨きをした後に保護者が磨くという一連の流れが確立した。患児はパズルを完成させようと積極的に毎日の歯磨きをするようになっていった。その結果、歯磨きをさせることに労力を費やしていた保護者の負担は軽減された様子であった。次第に「ここを磨くのが難しいがどうしたらよいか」など

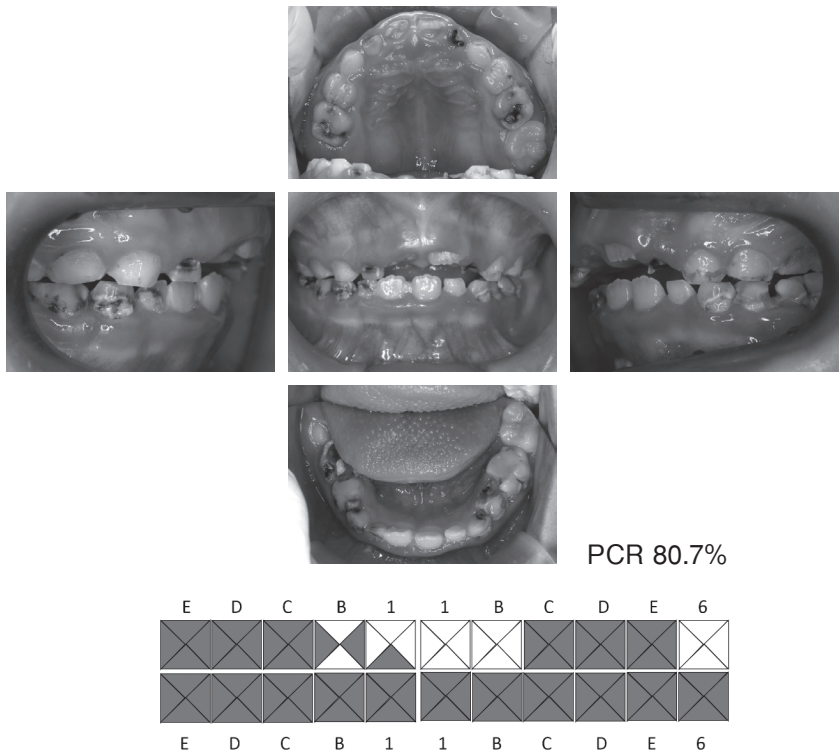


図 6 パズル開始前口腔内状況（咬合面観はミラー像）

初診から120日後の口腔内写真。2回の歯磨き指導実践後であるが、清掃は不良であった。食渣の停滞は齲窩や歯面全体に認められた。
PCR：Plaque Control Record

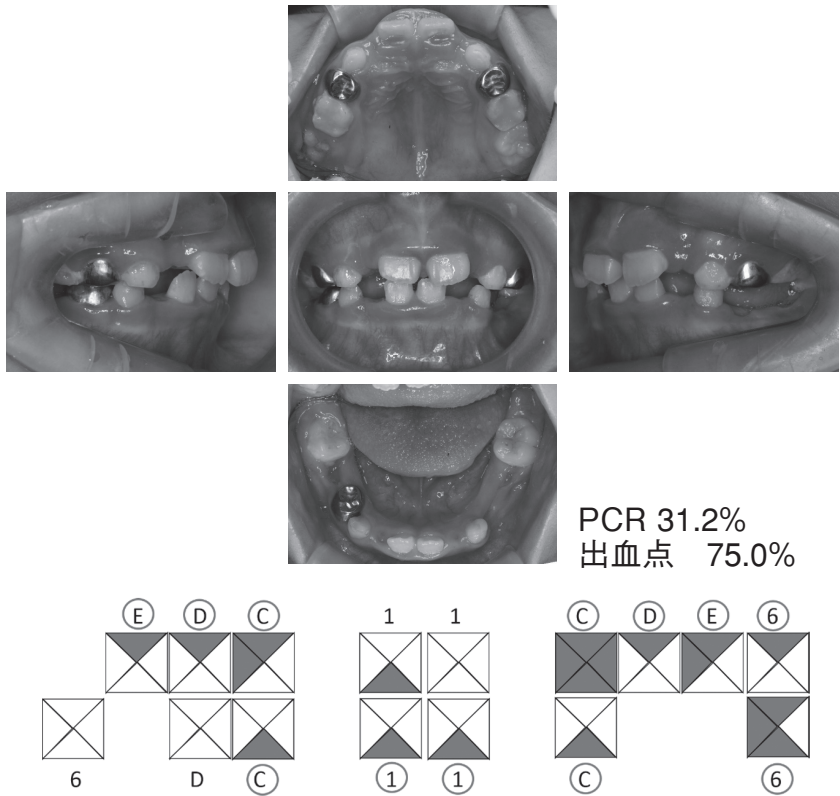


図 7 パズル開始約 4 か月後口腔内状況（咬合面観はミラー像）

初診から199日後。齲蝕治療終了から24日後の口腔内写真。PCRは大幅に改善したが上顎乳臼歯部唇側や歯頸部を中心にプラークの付着が目立った。プラークの付着部位と出血点はほぼ一致していた。
PCR：Plaque Control Record

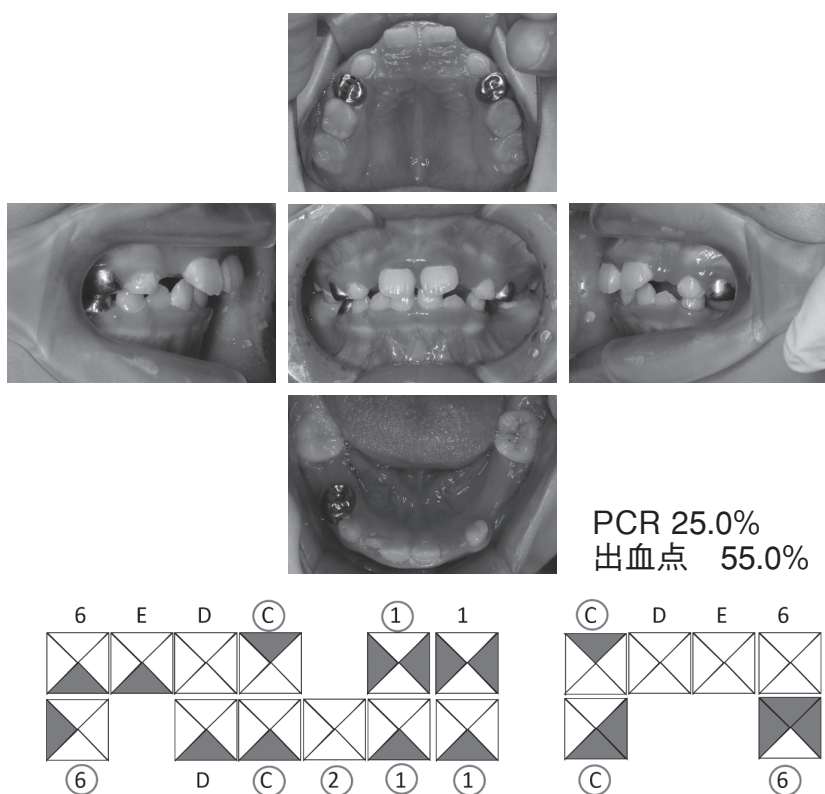


図8 パズル開始約6か月後口腔内状況（咬合面観はミラー像）

初診から283日後の口腔内写真。PCRと出血点は大幅な改善を認めた。歯頸部にプラークの付着を認めた。

PCR: Plaque Control Record

能動的な質問もみられるようになった。カロリーコントロールに関しては、体重管理のために有用である0 kcalのジュースには酸蝕のリスクがある。ガムの種類や摂取頻度によっては齲蝕の要因になる。そこで、保護者のモチベーション向上を受けて食生活の指導も行った。齲蝕リスクの低い代用甘味料の選び方や間食の時間をできるだけ決め摂取間隔をあけることなどを指導した結果、齲蝕を防ぎたいという保護者の意識はより高くなっていった。

Ⅲ. 考 察

PWS患者は年齢を追うごとに頑固でこだわりの強さが顕著になることや、ものの考え方に独特の偏りがあるため、歯科領域においては加齢とともに不協力となるケースも珍しくなく歯科的支援は難しい。村松ら⁷⁾は、PWS患者を1歳6か月から成人に至るまで経過を追った結果、幼児期には問題行動が認められなかったが、学童期や思春期で問題行動が顕著になり、治療に抑制具や全身麻酔が必要となった1例を報告している。蕭ら⁸⁾は10歳5か月のPWS患児の口腔内の特徴を詳細に報告しており、この症例の患児も知的能力障害のため通常下での歯科治療が困難で、全身麻酔

下で治療を行っていた。本症例は初診時年齢5歳4か月であった。よって、問題行動がみられる可能性のある学童期に入る前に保護者と患児は正しい口腔衛生習慣を確立することが重要である。本症例では、初診時すでに進行した多数の齲蝕を認めたが、PWS患者であっても適切な時期に効果的な歯科介入がなされることで、齲蝕はある程度コントロールすることができるといわれている⁹⁾。トレーニングで痛みのない機械的歯面清掃ができるようになって、痛みの伴う処置に対するトレーニングを進めるためには、ある程度の知的理解度がないと難しい。さらに、痛みまたは不快の経験は、それまで積み重ねてきたトレーニングの成果や術者との関係性を壊してしまう可能性もある。よって、早期に小児歯科医が介入し、適切な口腔衛生指導と口腔管理を行うことで、治療に移行することなくメンテナンスを定期的に継続することが患者のみならず保護者にとって最も精神的負担のない方法であると考えられる。

本症例において、まず初めに取り組む課題は自宅での歯磨きの習慣づけと考えた。しかし問題点は、患児に口頭指導は伝わりにくいということであった。そこで参考にしたのが、障害特性を活かした行動変容法で

ある。例えば、自閉スペクトラム症患者では、聴覚情報処理よりも視覚情報処理が優位であるため、視覚情報を活かした TEACCH プログラムが有用であることが広く知られている^{10,11)}。前原ら¹²⁾は歯磨き行動の確立に TEACCH プログラムを応用した視覚支援を取り入れ、その日の目標（実施予定）内容をパターン化するツールとして、絵カードを繰り返し使用したことでパターンを学習することができたと報告している。視覚的刺激によって広汎性発達障害者の意識の変化や行動の変容につながったとする報告¹³⁾もなされている。これらを参考にして、PWS 患者においても得意な能力を応用する行動変容法を検討した。「ジグソーパズルが異常に得意であること」は、そのメカニズムは明らかになっていないが、前田ら¹⁴⁾の報告では PWS 患者は視覚弁別能力が優れているとして研究がされている。さらに、Carlo Semenza ら¹⁵⁾は、PWS 患者は、視覚的に認知したものを空間的にイメージして、そのイメージを与えられた空間にマッピングする能力が長けていると述べている。このような特異な能力によってジグソーパズルで類いまれな能力を発揮すると考えられている。患児もパズルが得意であり、自宅では裏返して行うこともあるという。われわれがパズルの絵を見て場所を探すのに対し、患児はピースの形を瞬間で捉えて組み立てていた。これは、PWS 患者はパズルを組み立てる際に形状を活用して組み立てる傾向にあるという Brian ら¹⁶⁾の報告と類似しており、興味深い行動である。われわれはパズルをアイテムとして使用したが、トークンエコノミー法と類似の手法の一種であり、目に見える目標を作ることにより患児は目標達成のために努力したと考えられる。

パズルは患児にとって、周囲の驚きや称賛から自信を持てる分野であり、得意になれるアイテムであった。また、「歯磨きをした」という結果をパズルで組み立てて視覚化することで、小さな成功体験が積み重なり達成感を生み出した。周囲に褒められて自己肯定感が満たされたことも、行動変容に有益に働いたと考えられる。その結果、歯磨きに意欲的に取り組むようになった。また、綾部ら¹⁷⁾は、PWS 患者は「こだわりが強い」、「プライドが高い」気質であり、突発的な変化に対応することが苦手であると述べている。そのため、ルーチン化することが大切であるといわれている。本症例では「歯を磨く」から「パズルのピースをはめる」という行動をルーチン化したことが、口腔衛生習慣の確

立をサポートしたと考えられた。

PWS 患者の性格的特性と同様に、患児にもこだわりの強い性格が垣間見えることが増えた。実際、治療が必要になったときには途端に不協力となり、次第に歯科受診そのものにも抵抗を示すようになってきた。対応法は PWS 患者の臨床症状の変化とともに変えていく必要があり、今後も患児の成長に合わせて見直していくことが課題である。

IV. 結 論

「ジグソーパズルが得意」という PWS の特性を考慮し製作したパズル型の口腔衛生習慣改善アイテムは、PWS 児に無理なくかつ効果的に応用できた。アイテムは、個々の障害特性を考慮して応用されることでより効果が上がり、歯科的支援の一助になることが示唆された。

本論文の要旨は、第33回日本障害者歯科学会学術大会（2016年10月1日、さいたま市）においてポスター発表、第14回口腔ケア学会学術大会（2017年4月22日、宜野湾市）において口頭発表いたしました。

研究の助成はありません。

利益相反に関する開示事項はありません。

文 献

- 1) 厚生労働省. “193 プラダー・ウィリ症候群” <https://www.mhlw.go.jp/file/06-Seisakujouhou-10900000-Kenkoukyoku/0000101221.pdf> (参照2018-07-03)
- 2) 永井敏郎. Prader-willi 症候群の自然歴. 日児誌 1999; 103: 2-5.
- 3) Ronnau Saeves, Janne E. Reseland, Britt-Mari Kuam, et al. Saliva in Prader-Willi syndrome: Quantitative and qualitative characteristics. Arch Oral Biol 2012; 57: 1335-1341.
- 4) 陳 亮宏, 兵 行忠, 飯塚忠彦, 他. Prader-willi 症候群の 1 例, 口腔顎顔面所見について. 日口腔外会誌 1985; 31 (6): 1513-1517.
- 5) 長谷川知子. プラダーウィリー症候群. 第 6 刷. 東京: 講談社, 2015.
- 6) Meral Gunay-Aygun, Stuart Schwartz, Shauna Heeger, et al. The changing purpose of Prader-Willi syndrome clinical diagnostic criteria and proposed revised criteria. Pediatrics 2001; 108 (5):

e92.

- 7) 村松健司, 楊 秀慶, 鈴木淳子, 他. 長期間におよぶ口腔管理を行ってきた Prader-Willi 症候群患者の 1 例. 小児歯誌 2013 ; 51 : 396-401.
- 8) 蕭 思郁, 深尾 正, 紅露正利, 他. Prader-willi 症候群の一例について. 小児歯誌 1989 ; 27 (3) : 700-707.
- 9) G.A. Scardia, G. Fuca, P. Messina. Oral diseases in a patient affected with Prader-Willi syndrome. Eur J Paediatr Dent 2007 ; 2 : 96-99.
- 10) 新澤伸子. TEACCH のコミュニケーション・カリキュラムに基づく ASD 児のコミュニケーションのアセスメントと指導. コミュニケーション障害 2017 ; 34 (3) : 130-134.
- 11) 佐々木正美. 自閉症療育—TEACCH モデルの世界的潮流—. 脳と発達 2007 ; 39 : 99-103.
- 12) 前原朝子, 荻田みさと, 稲田久美子, 他. 自閉症児に対する視覚支援の 1 例—歯磨き行動の確立を目指して—. 障歯誌 2015 ; 36 : 637-642.
- 13) 斉藤恵子, 石田淳造. 思春期広汎性発達障害患者の看護 段階的目標にトークンエコノミーを用いた 1 事例. 日精看会誌 2010 ; 53 (2) : 252-256.
- 14) 前田貴記, 斎藤文恵, 田中葉子, 他. プラダー・ウィリ症候群で認められる特異な視覚認知能力について. 認知リハ 2003 ; 2003 : 160-165.
- 15) Carlo Semenzaa, Riccardo Pignatti, Laura Bertella, et al. Genetics and mathematics : Evidence from Prader-Willi syndrome. Neuropsychologia 2008 ; 46 : 206-212.
- 16) Brian NV, Georgene LT, Robert MH, et al. Strategies and correlates of jigsaw puzzle and visuospatial performance by persons with Prader-Willi syndrome. Am J Ment Retard 2008 ; 113 : 343-355.
- 17) 綾部匡之, 永井敏郎. プラダー・ウィリ症候群をも

つ子どもたちへの関わり方. 小児保健研 2016 ; 75 (3) : 312-317.

[Summary]

Persons with Prader-Willi syndrome (PWS) are more prone to caries and periodontal disease because of difficulty in maintaining a proper diet and poor saliva production. However, no specific effective method to change dental behaviors in persons with PWS has been established because of differences in personality and intellectual functioning. A 5-year-old girl with PWS was admitted to our hospital. Several of her teeth, except her mandibular permanent left first molar, were carious ; her brushing habit was irregular and oral hygiene was poor. To improve her oral hygiene habits, we planned to apply her interests and talents to dental situations. We found that she was good at jigsaw puzzles, one of the diagnostic features of PWS, and focused on this point. She showed talent in solving jigsaw puzzles. She enjoyed the activity ; hence, we prepared original puzzles and gave them in her daily life. She were given a new piece of the puzzle when she properly brushed her teeth. By using the puzzle as positive reinforcement, she was encouraged to brush her teeth every day, and also allowed her guardians to do it for her. Our results show that an exercise related to PWS behaviors such as puzzle solving can improve brushing habits and the oral hygiene of persons with PWS comfortably and effectively.

[Key words]

Prader-Willi syndrome, pediatric dentistry, behavior modification, jigsaw puzzles, oral hygiene habit