

令和 6 年 5 月 22 日現在

機関番号：12601

研究種目：基盤研究(C)（一般）

研究期間：2021～2023

課題番号：21K11190

研究課題名（和文）口蓋裂患者における口蓋裂幅と言語成績の検討～音響特性評価による新規診断値の設定～

研究課題名（英文）Examination of the relationship between cleft palate width and speech outcomes in cleft palate patients: Establishing a new diagnostic value based on acoustic characteristics evaluation

研究代表者

平野 友紀子 (Hirano, Yukiko)

東京大学・医学部附属病院・言語聴覚士

研究者番号：80868795

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 2,400,000円

研究成果の概要（和文）：鼻音化率計測装置ナゾメーターを用いて鼻音化率を計測し、従来の言語聴覚士による聴覚判定と比較し、鼻咽腔閉鎖機能を評価する際の有用性について検討した。言語聴覚士による判定で鼻咽腔閉鎖機能良好と不全に分け、刺激音・文（「い」、「つ」、低圧文、高圧文）の鼻音化率の平均値と最大値について2群間で有意差があった。ROM解析では、AUC値は「つ」と高圧文のNS平均値、最大値が0.9以上であった。Cutoff値は平均値において、概ね20%台、最大値で60%から80%が有用であった。裂幅は広がるほど、鼻咽腔閉鎖機能は悪化する傾向があった。

研究成果の学術的意義や社会的意義

鼻咽腔閉鎖機能は、言語聴覚士による聴覚判定を主とし、鼻咽腔ファイバーやCTによる画像診断などで総合的に判定を行う。しかし、聴覚判定は言語聴覚士の経験に依存し定量的な数値では表すことができないこと、ファイバー検査等は侵襲が大きく、評価するのに最も重要な時期である5歳程度の患者では協力を得られないことがある。鼻音化率計測装置ナゾメーターは侵襲が少なく、定量的な数値で表すことができる装置である。この装置を用いた新規診断基準値を設定することは口蓋裂患者の言語評価に大きく寄与すると思われる。また、術前の口蓋裂幅と比較し、術前に術後の鼻咽腔閉鎖機能を予測することができ、包括的治療体系を確立できる。

研究成果の概要（英文）：The nasalization rate was measured using a nasometer, and compared with the conventional hearing assessment by speech-language-hearing therapists to examine its usefulness in evaluating velopharyngeal closure function. The speech-language-hearing therapists assessed velopharyngeal closure function and divided the subjects into those with good and those with poor function, and there was a significant difference between the two groups in the average and maximum nasalization rates for stimulus sounds and sentences (i, tsu, low-pressure sentences, and high-pressure sentences). In the ROM analysis, the AUC values for tsu and high-pressure sentences were 0.9 or higher for the average and maximum. The cutoff values were generally in the 20% range for the average, and 60% to 80% for the maximum. The wider the cleft width, the worse the velopharyngeal closure function tended to be.

研究分野：口唇口蓋裂言語

キーワード：口唇口蓋裂 鼻咽腔閉鎖機能 鼻音化率測定装置ナゾメーター 口蓋裂幅

1. 研究開始当初の背景

口唇口蓋裂患者の口蓋形成術後の成否を決定する要因の1つに、患者の言語の状態を示す言語成績がある。言語成績には大まかに分けて、「構音」と「鼻咽腔閉鎖機能」がある。「構音」は正常構音と口唇口蓋裂に特有の口蓋裂言語があり、口蓋裂言語の出現率が低いほど、言語成績良好と考えられる。

「鼻咽腔閉鎖機能」とは、軟口蓋を後上方に引き上げ、口腔と鼻腔を分離し、構音時や嚥下時に呼気や飲食物が鼻腔へ流れるのを防ぐ機能である。鼻咽腔閉鎖機能の不全の程度が重くなるほど、発話明瞭度は落ち、対人コミュニケーションに影響を及ぼす。そのため、口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能の的確な評価は、言語管理において重要な指標である。

現在、鼻咽腔閉鎖機能の評価は、言語聴覚士による音声言語の聴覚印象が広く行われている。しかし、聴覚印象のような主観的評価は、検査者の経験や個人的印象、検査語句に影響を受けるため、単独での評価は難しく、複数の評価項目を統合して評価することが一般的である。

本施設においても、口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能は、言語聴覚士による開鼻声や子音の鼻音化・弱音化、構音障害の有無などの聴覚印象による判定、口腔外科医による鼻咽腔ファイバーを用いた検査による判定、CTによる画像診断といった複数の評価項目を総合して、術後評価を行っている。しかし、鼻咽腔ファイバーは鼻咽腔閉鎖機能の判定に重要な5歳程度の患者には侵襲が大きく、協力が得られにくいこと、CTなどの評価も音声言語を評価するには動的な評価ではないことなど問題点がある。

また、臨床の場において、術後の鼻咽腔閉鎖機能をより明確に判定できる客観的な評価方法は確立しておらず、新規診断基準法の設定が望まれている。Nasometer(以下、ナゾメーター)は、開鼻声値: nasalancescore(以下、NS)が測定できる音響特性機器である。この検査は発話時の呼気鼻漏出量を定量的に計測することができるという客観性を持ち、また、侵襲が少なく、幼児でも問題なく実施できるという利点がある。近年口唇口蓋裂患者の開鼻声評価法として注目されている。今回は、このナゾメーターを用いて、従来検査方法との評価について比較検討し、口唇口蓋裂患者のより簡便でより正確性の高い鼻咽腔閉鎖機能(以下、VPC)の評価を行った。

2. 研究の目的

口蓋形成術後の言語成績の良否は、裂型、術前術後の軟口蓋の長さや動き、咽頭口蓋間距離、口蓋形成術時年齢、手術の成否、言語訓練の成否など、要因が多岐にわたる。

口蓋形成術後の評価対象となる患者は、3~5歳の低年齢児であるため、各種検査結果が曖昧となることも少なくない。鼻咽腔閉鎖機能の判定では言語聴覚士による聴覚印象が判断基準となることが多いが、より客観的な評価を加えた複合評価による裏付けが望まれる。

本研究では、聴覚印象結果に加えて、ナゾメーター検査による定量的評価と比較することで、従来法では評価しきれなかった、低年齢児口蓋裂患者の言語成績を的確に評価できる新規診断基準値を設定することを目的とする。客観的な評価に裏付けられた診断基準値の設定は、言語療法の治療効果を把握することに役立つのみならず、口蓋裂二次手術の適応基準を判定する上でも有用な指標となり、口蓋裂患者に対する包括的治療体系の確立と音声言語障害領域の発展に寄与するものと期待される。

3. 研究の方法

(1) STによるVPC判定

開鼻声と呼気鼻漏出による子音の歪みの聴覚判定は、日本コミュニケーション障害学会口蓋裂言語検査を基準とし、VPCの4段階評価を以下のように定義した。

「良好」: 開鼻声、呼気鼻漏出による子音の歪みなし、「ごく軽度不全」: 鼻漏出は認められるが、開鼻声、子音の歪みはごく軽度、「軽度不全」: 鼻漏出を認め、開鼻声、子音の歪みが中等度、「不全」: 鼻漏出を認め、重度開鼻声、子音の歪みを認めるとした。なお、この評価は口蓋裂言語経験20年以上の言語聴覚士2名が患者から直接音声を聞き、評価が一致したものを採用し、ST2名の評価が一致しない症例は除外した。VPCの判定は、ナゾメーター検査と同時にを行った。

その後、VPC良好と開鼻声の程度はごく軽度で日常生活でのコミュニケーション場面において大きな問題の起きにくいとされるごく軽度不全を良好2群、開鼻声の程度が中等度あり、日常生活でのコミュニケーションに何らかの問題が起きやすいとされる軽度不全と不全を不全2群に分類した。

(2) ナゾメーターによるNSの算出

本研究ではナゾメーターは、従来のヘッドセットタイプではなく、より協力を得られやすい

ハンドルタイプの装置(PENTAX MEDICAL Nasometer KAY 6500)を使用した。刺激音・文は母音「い」、子音「つ」、低圧文「よういはおおい」、高圧文「きつつきがきをつつく」とし、これらの刺激音・文を紙に平仮名で記載して、それを3回音読させた。また、緒方らの研究¹⁾と同様に、NSには平均値と最大値を採用した。

(3) STによるVPC評価とNSの相関係数

STによるVPC評価とNS平均値、最大値について、スピアマンの順位相関を用いて、相関係数を求めた。本研究の全ての統計処理にはエクセル統計(BellCurve® for Excel)を用いた。

(4) VPC良好2群と不全2群のNSの平均値の差の検定

VPC良好2群と不全2群のNS平均値と最大値について、Mann-WhitneyのU検定を用いて2群間比較を行った。有意水準は $p < 0.01$ とし、検定はすべて両側検定とした。

(5) NS平均値と最大値のROC解析

良好2群と不全2群のNS平均値と最大値からROC曲線を描いた。そして、曲線下面積値(area under the curve;以下、AUC値)およびCutoff値を算出した。VPC良好2群と不全2群を区別するCutoff値の真陽性率(TPF)と偽陽性率(FPF)を計算し、縦軸にTPF、横軸にFPFをとった図にプロットして線で結んで表した。

(6) 術前硬口蓋後端裂幅と鼻咽腔閉鎖機能について

口蓋形成術直前の上顎歯槽模型からノギスを用いて直接計測した。裂幅の計測は右側上顎結節点と左側上顎結節点を結ぶ線分を裂幅と設定した。症例を裂幅10mm未満群と10mm以上群に分類した。従来の言語聴覚士による聴覚判定と比較検討した。

4. 研究成果

(1) 基本的データ

症例の性別、年齢、疾患名、STによるVPC判定結果、刺激音・文のNS平均値・最大値を表1に示す。良好13例、ごく軽度不全5例、軽度不全10例、不全4例であった。よって、良好2群は18例、不全2群は14例となった。

(2) NSの平均値と最大値

STによるVPC判定別のNS平均値・最大値の平均と標準偏差を表1に示す。NS平均値・最大値はVPCが不全に近いほど数値が高い傾向が見られたが、「い」のごく軽度不全と軽度不全でのNS平均値、最大値はごく軽度不全の方が高い結果となった。

(3) STによるVPC判定とNSの相関係数

STによるVPC判定とNS平均値、最大値の相関係数を表2に示す。有意水準 $P < 0.01$ で、「い」、「つ」、高圧文で強い正の相関、低圧文で正の相関が認められた。

(4) 良好2群と不全2群間のNS平均値の差の検定

良好2群と不全2群のNS平均値(図1)と最大値(図2)のグラフを示す。「い」、「つ」、低圧文、高圧文の全てのNS平均値と最大値において、有意差が認められた($P < 0.01$)。これらの結果より、ナゾメーターを用いて計測されたNS平均値、最大値は従来のSTによる判定との相関が高く、VPC評価において、ナゾメーター検査は有用な検査法と思われた。

(5) VPC評価におけるNS平均値と最大値のROC解析

各刺激音・文のNS平均値と最大値のROC解析の結果、各刺激音・文の真陽性率と偽陽性率を表3に示す。また、AUC値を表4、Cutoff値を表5に示す。AUC値は低圧文のNS平均値では0.79、他の刺激音・文では0.8以上であった。本研究で使用された刺激音・文の中でも「つ」と高圧文のNS平均値と最大値は、VPCの良好2群と不全2群を区分する予測能がより高いと示唆された。

また、Cutoff値はNS平均値では「い」は53%、「つ」は22%、低圧文は29%、高圧文は22%であった。VPC良好2群と不全2群のCutoff値は刺激音・文によって異なり、NS平均値は「い」で50%台、「つ」、低圧文、高圧文では20%台となった。一方、NS最大値では高圧文では80%台、「い」、「つ」、低圧文では60%から70%台であった。

以上のAUC値とCutoff値より、NS平均値では「つ」と高圧文の20%台、NS最大値で「つ」の60%台、高圧文の80%台がVPC良好2群と不全2群をより正確に分ける目安になると考えられた。

表3 刺激音・文の平均値と最大値の真陽性率と偽陽性率

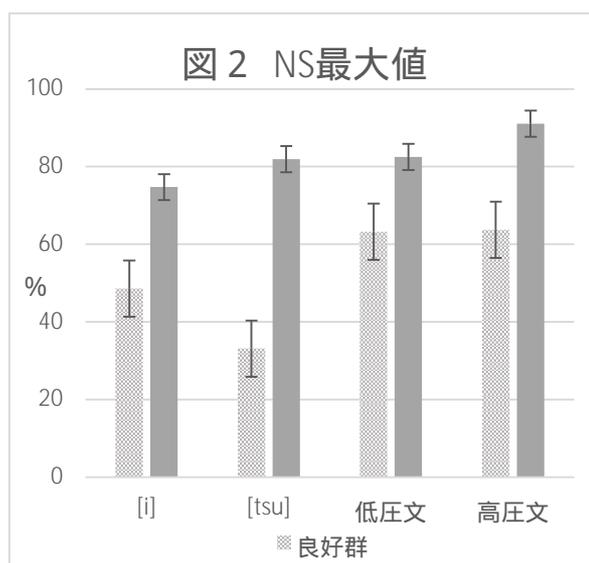
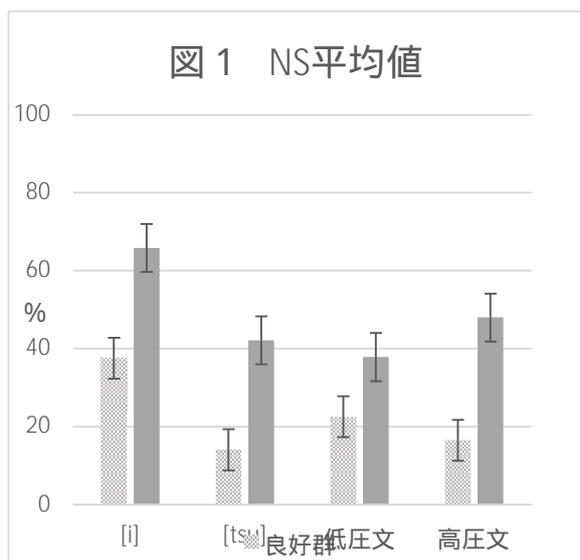
		真陽性率	偽陽性率
い	NS平均値	0.77	0.21
	NS最大値	0.72	0.21
つ	NS平均値	0.88	0.14
	NS最大値	1	0.14
高圧文	NS平均値	0.88	0.07
	NS最大値	0.83	0.14
低圧文	NS平均値	0.72	0.21
	NS最大値	0.83	0.14

表4 刺激音・文のNS平均値と最大値のACU値

	い	つ	低圧文	高圧文
NS平均値	0.84	0.92	0.79	0.96
NS最大値	0.8	0.97	0.8	0.91

表5 刺激音・文のNS平均値と最大値のCutoff値 (%)

	い	つ	低圧文	高圧文
NS平均値	53	22	29	22
NS最大値	65	62	75	84



5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計4件（うち査読付論文 4件/うち国際共著 0件/うちオープンアクセス 0件）

1. 著者名 西條英人	4. 巻 68
2. 論文標題 顎裂部骨移植と咬合管理	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 日本口腔外科学会雑誌	6. 最初と最後の頁 328-341
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 西條英人	4. 巻 27
2. 論文標題 【最新の口唇裂・口蓋裂の治療を理解し、小児歯科医としての関わりを考える】口唇裂・口蓋裂における初期治療	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 小児歯科臨床	6. 最初と最後の頁 12-22
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 平野友紀子、高橋路子、西條英人、大久保和美、内野夏子、柏木美樹、成田理香、谷口明紗子、星和人	4. 巻 40
2. 論文標題 鼻咽腔閉鎖機能評価における鼻音化率測定装置ナゾメーターの有用性について	5. 発行年 2024年
3. 雑誌名 日本口蓋裂学会	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 西條英人	4. 巻 33
2. 論文標題 唇顎口蓋裂の総合治療	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 小児口腔外科	6. 最初と最後の頁 1-24
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計12件（うち招待講演 0件 / うち国際学会 0件）

1. 発表者名 柏木美樹, 成田理香, 平野友紀子, 高橋路子, 丸岡亮, 内野夏子, 岡安麻里, 未永英之, 大久保和美, 西條英人, 星和人
2. 発表標題 唇顎口蓋裂患者に対し顎裂部骨移植術と上顎骨切り術を同時に行った1例
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 峯岸至保, 大久保和美, 岡安麻里, 内野夏子, 松林幸枝, 丸岡亮, 宇賀凜, 西條英人, 星和人
2. 発表標題 片側性唇顎口蓋裂児における二段階口蓋形成手術法が歯槽形態に及ぼす影響
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 西條英人
2. 発表標題 口蓋裂・口蓋裂の外科的矯正治療を再考する
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 西條英人
2. 発表標題 口唇口蓋裂治療における小児歯科医の役割
3. 学会等名 日本小児歯科科学会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 西條英人
2. 発表標題 咬合構築を目指した、口唇口蓋裂治療
3. 学会等名 顎顔面補綴学会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 平野友紀子、高橋路子、西條英人、大久保和美、岡安麻里、成田理香、内野夏子、丸岡亮、柏木美樹、谷口明紗子、星和人
2. 発表標題 過去10年間に東大病院口唇口蓋裂センター言語外来を受診した口唇口蓋裂患者の臨床統計
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 柏木美樹、成田理香、青木絵里香、久保田恵吾、谷口明紗子、平野友紀子、高橋路子、末永英之、西條英人、星和人
2. 発表標題 当科における13トリソミー・18トリソミーを有する口唇口蓋裂患者への取り組み
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 平野友紀子、高橋路子、西條英人、大久保和美、成田理香、内野夏子、柏木美樹、谷口明紗子、星和人
2. 発表標題 鼻音化率測定装置ナゾメーターを用いた鼻咽腔閉鎖機能の診断基準について
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 成田理香、西條英人、柏木美樹、谷口明紗子、高橋路子、平野友紀子、松林幸枝、丸岡亮、内野夏子、大久保和美、星和人
2. 発表標題 東京大学医学部附属病院口唇口蓋裂センターにおける口唇口蓋裂患者の実態調査
3. 学会等名 日本口蓋裂学会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 埜藤奈美、高橋路子、松本竜弥、齋藤陽子
2. 発表標題 岐阜県地区内の幼児教育機関における発音不明瞭等の心配事を抱える児の支援
3. 学会等名 日本言語聴覚学会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 大島早智、成田理香、柏木美樹、西條英人、星和人
2. 発表標題 口蓋形成術を施行した慢性免疫血小板減少症を合併する口唇口蓋裂患児の1例
3. 学会等名 小児口腔外科
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 田中里桜、柏木美樹、成田理香、青木絵里香、榎原安侑子、川崎秀人、西條英人、星和人
2. 発表標題 心疾患、消化器疾患を合併した口唇口蓋裂児に対し厳重な周術期管理を要した口唇形成術の1例
3. 学会等名 小児口腔外科
4. 発表年 2023年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	高橋 路子 (Takahashi Michiko) (80869123)	東京大学・医学部附属病院・言語聴覚士 (12601)	
研究分担者	星 和人 (Hoshi Kazuto) (30344451)	東京大学・医学部附属病院・教授 (12601)	
研究分担者	西條 英人 (Saijyo Hideto) (80372390)	東京大学・医学部附属病院・准教授 (12601)	
研究分担者	大久保 和美 (Ohkubo Kazumi) (10396715)	東京大学・医学部附属病院・講師 (12601)	

7. 科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕 計0件

8. 本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関
---------	---------