

**科学研究費助成事業 研究成果報告書**

平成 29 年 6 月 28 日現在

機関番号：32703

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2014～2016

課題番号：26350942

研究課題名(和文) 虐待ハイリスク児早期発見泣き声診断ソフトの開発と舌喉頭矯正術による夜泣き改善評価

研究課題名(英文) Software development of early detection for abused high-risk children by evaluating crying sounds and improvement in night crying by correction of the glosso-larynx

研究代表者

山本 伊佐夫 (ISAO, YAMAMOTO)

神奈川県立歯科大学・大学院歯学研究科・講師

研究者番号：30277917

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,700,000円

研究成果の概要(和文)：舌喉頭偏位症いわゆる舌癒着症(ADEL)児を対象に舌喉頭矯正術(CGL)前後に啼泣音声を録音し、音声分析ソフトを用いて評価したところ、感性制御技術(ST)では感情指標(C, J, S, E)、MIMOSYS(Mind Monitoring System)では元気さの指標(M)に有意な変化が見られた。ADEL簡易診断システムを開発する上で有効であると考えられた。睡眠モニターおよびアクチグラフを用いてCGL前後のADEL児の睡眠状態を解析したところ、術後顕著な改善が見られた。

研究成果の概要(英文)：Crying sounds of children diagnosed with ADEL were recorded before and after CGL. Sound analysis software was used to evaluate the crying sounds. Sensibility Technology showed affective index improvement (C, J, S, E) and MIMOSYS Mind Monitoring System showed energy level (M) improvement. This may aid in development of a simple diagnosis system of ADEL. Children with ADEL were analyzed before and after CGL for sleep quality using PSG and Actigraph. Post-surgery results showed remarkable improvement.

研究分野：歯科法医学

キーワード：舌喉頭偏位症 舌喉頭矯正術 夜泣き 音声分析 虐待

1. 研究開始当初の背景

舌喉頭偏位症いわゆる舌癒着症 (ADEL) は、喉頭の前上方への偏位により呼吸が抑制されるため、乳児では夜泣き、疝の虫など育てにくい子の典型的症状を呈する。このような重度 ADEL 児は、虐待のハイリスクで、出生児の 5~10%は存在する。舌喉頭矯正術 (CGL) は、舌小帯とその奥のオトガイ舌筋浅層を切除する手術で、術直後から喉頭は直立し呼吸が劇的に改善し、啼泣は減少し、術後 1 ヶ月にはほとんどの声帯結節は消失する。虐待に関する研究は多いが、虐待の原因を直接的に解消するといった見地から虐待を予防する研究は見られない。ADEL に関しては、呼吸改善のメカニズム、各症状の改善度、生理的変化などの研究が行われている。ADEL 児の泣き声は、小さな・激しい・濁った・弱々しい・苦しそうなという不快な印象を与え母親に対し心理的悪影響を及ぼすが、CGL 後は大きな・澄んだ・穏やかな・元気な・楽そうなどという良好な印象を与えること、また音声スペクトラム解析によると ADEL 児の泣き声は調波構造の形成が不十分で、頻回の啼泣により声帯結節を形成しやすいことが報告されている。

2. 研究の目的

ADEL 児の CGL 前後の泣き声を、音声からストレス度やうつ病の診断に利用されている感性制御技術 (ST) などを用いて客観的に評価し、虐待ハイリスク児のスクリーニングのための簡易 ADEL 診断プログラム開発の基礎データとする。睡眠ポリグラフ (PSG)、アクチグラフを用いて CGL による夜泣きや睡眠レベルの改善を評価し、CGL の虐待予防効果を検証する。

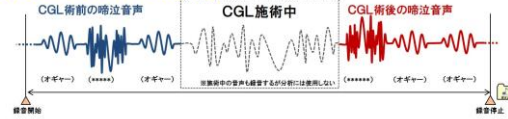
3. 研究の方法

1) CGL を希望し ADEL と診断され CGL を施行した乳児 106 名 (月齢 0~4 ヶ月、平均 1.9 ± 1.2 ヶ月) を対象とした。CGL 前後の啼泣音声は、乳児の顔から約 50cm の位置に高感度音声集音装置 (CO-100K・三研) を設置し集音し、96kHz、2ch の録音が可能でレコーダ (R-26・ローランド社製) を用い録音した。録音した音声ファイルには、啼泣音声だけでなく、手術器具の音や話し声、レーザーの機械音などが含まれる。これら目的以外のノイズを音声編集ソフト (SoundEngine Free・株式会社コードリウム) により除去し、ノイズの少ない啼泣音声を切り出し、以下の分析ツールを用いて分析した。

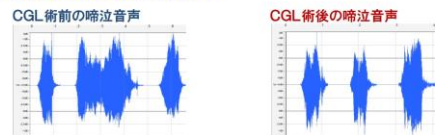
① ST は、感性制御技術 (Sensibility Technology) という音声から感情を分析するソフトウェアで 5 種類の感情指標 (C, A, J, S, E) を算出する。今回は感情ではなく 5 種類の指標として捉え、声の微妙な音色の違いを検出するために用いた。つまり、CGL 前後の啼泣音声の音色の変化を測定するための尺度として活用した。

② MIMOSYS (Mind Monitoring System) では ST の結果から元気さの指標 (M) を算出する。  
③ Praat の声質基礎的分析法では、Jitter は周期の乱れ、声の高さの揺れを、Shimmer は振幅の乱れ、声の大きさの揺れを、HNR は振動の整っている度合いを意味する。

① CGL 手術前後の音声録音する



② 音声編集ソフト (SoundEngine Free・株式会社コードリウム) を用いて、ノイズが多く含まれる箇所を除外する



- $Jitter = \frac{\sum_{i=1}^{N-1} |T_i - T_{i-1}|}{T_i}$  周期の乱れ・・・声の高さの揺れ
- $Shimmer = \frac{\sum_{i=1}^{N-1} |A_i - A_{i-1}|}{A_i}$  振幅の乱れ・・・声の大きさの揺れ
- HNR (Harmonics-to-noise ratio) 振動の整っている度合い

2) 夜泣き・睡眠障害を主訴として CGL を希望し ADEL と診断され CGL を施行した乳幼児 19 名 (1.1 歳 ± 0.6) を対象に、高感度加速度センサー内蔵の腕時計型アクチグラフ (米国 AMI 社製) を CGL 前と術後約 1 ヶ月に約 1 週間ずつ乳幼児の手首または足首に装着し、専用解析ソフト AW2 にて睡眠覚醒リズムを解析し、同時に母親に記録してもらった生活記録から啼泣時間、回数を分析した。

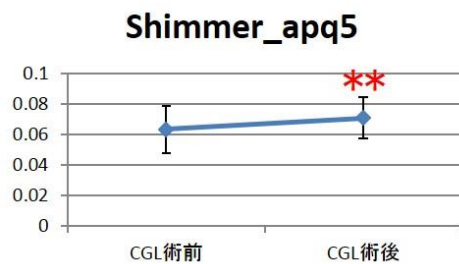
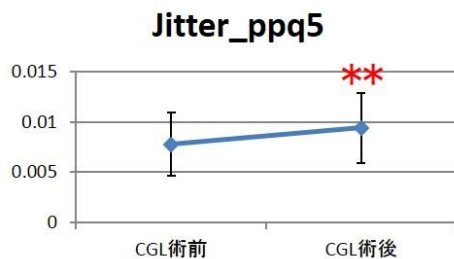
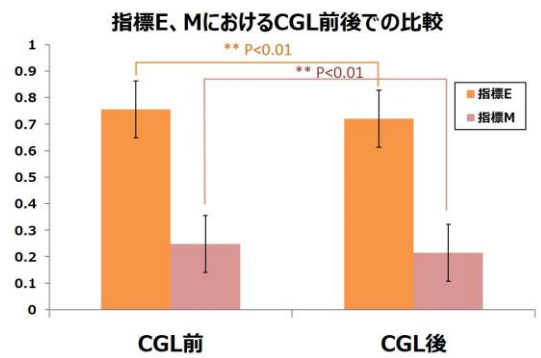
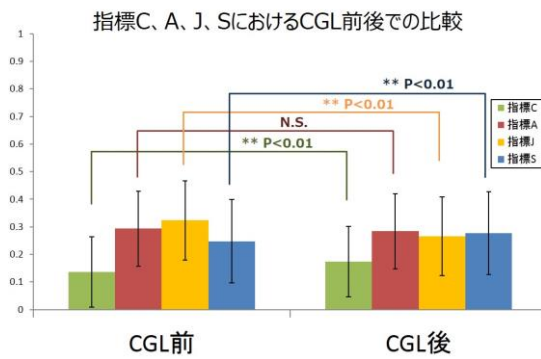
3) CGL を希望し ADEL と診断され CGL を施行した乳幼児 23 名を対象に、睡眠ポリグラフ (PSG) を装着し、CGL 前と術後約 1 ヶ月に 1 泊ずつ装着し専用解析ソフトで解析を行った。

統計学的分析は、いずれもマイクロソフト・エクセル 2013 分析ツールの対応ある t 検定を使用し、5% を有意水準とした。

尚、本研究は神奈川歯科大学倫理審査委員会の承認後、母親に対し十分説明した後、全て同意を得てから行った。

4. 研究成果

1) 音声分析の結果、CGL 施術前の啼泣音声と CGL 施術後の啼泣音声で、ST および MIMOSYS を用いて導出された 6 つの特徴量の平均値を t 検定により検証した結果、5 つの特徴量に有意な差が認められた。指標 C :  $t(1921) = -6.448$ , ( $p < 0.01$ )、指標 J :  $t(1921) = 8.136$ , ( $p < 0.01$ )、指標 S :  $t(1921) = -4.429$ , ( $p < 0.01$ )、指標 E :  $t(1921) = 7.046$ , ( $p < 0.01$ )、指標 M :  $t(1921) = 3.447$ , ( $p < 0.01$ )。また指標 Jitter (ppq5) :  $t(1921) = -3.1383$ , ( $p < 0.01$ )、指標 Shimmer (apq5) :  $t(1921) = -3.3613$ , ( $p < 0.01$ ) に高度な有意差が認められた。



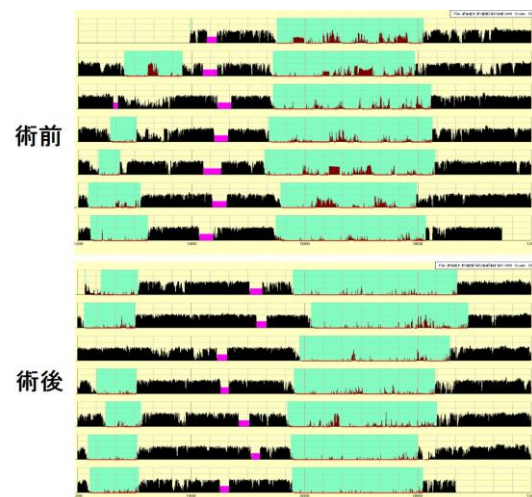
CGLによる舌喉頭の偏位により、啼泣音声に変化することが示唆された。CGLによる音声変化に対して、分析ツールST、MIMOSYSおよびJitter、Shimmerが有効であることが示唆された。ADEL簡易診断システムを開発していく上で、指標C、J、S、E、MさらにJitter、Shimmerが有効であると考えられた。

2) アクチグラフによる解析の結果、CGL後、Sleep Efficiency (睡眠効率) ( $p < 0.001$ )、Longest Sleep Episodes (最長の継続睡眠時間) ( $p < 0.05$ ) は有意に増加し、Sleep Latency (入眠潜時) ( $p < 0.05$ )、Activity Index (体

動活動指数) (0-0) ( $p < 0.01$ )、Sleep Fragmentation (睡眠分断指数) ( $p < 0.001$ )、Wake after Sleep Onset (入眠後の覚醒時間) ( $p < 0.05$ )、Long Wake Episodes (睡眠中5分以上の覚醒回数) ( $p < 0.05$ )、Longest Wake Episodes (最長の覚醒時間) ( $p < 0.05$ ) は有意に減少した。

解析項目	術前	術後	p
1 Sleep Efficiency	O-O 睡眠効率(%)	89.5 93.5	<0.001
2 Sleep Latency	Down 入眠潜時(分)	9.1 6.7	<0.05
3 Activity Index	24h 体動活動指数	68.4 65.9	0.07
4 Activity Index	O-O 体動活動指数	44.3 36.9	<0.01
5 Sleep Fragmentatio	O-O 睡眠分断指数	1.68 1.07	<0.001
6 Wake after Sleep Onset	O-O 入眠後の覚醒時間(分)	50.6 31.8	<0.05
7 Long Wake Episodes	O-O 睡眠中5分以上覚醒回数	2.4 1.7	<0.05
8 Longest Wake Episodes	O-O 最長の覚醒時間(分)	14.3 10.5	<0.05
9 Longest Sleep Episodes	O-O 最長の継続睡眠時間(分)	102.4 125.6	<0.05

夜泣き、眠りの浅い1歳2ヶ月男児のアクチグラフ解析の1例を下図に示す。術前は、水色のベッド時間帯に毎晩長い中途覚醒(赤色活動量)が頻繁に見られたが、術後中途覚醒の時間、活動量および回数は減少した。



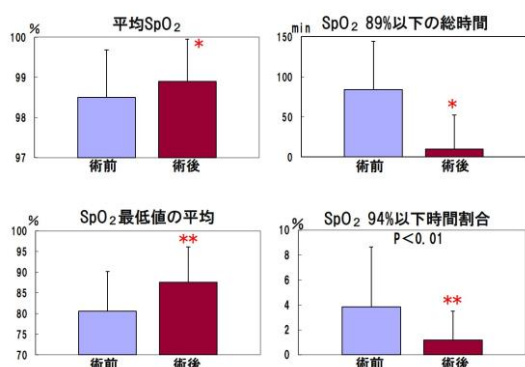
啼泣時間および回数についてCGL前後を比較したところ、1日の総啼泣回数では術前 $5.2 \pm 3.4$ から術後 $2.6 \pm 2.2$ へ減少し( $p < 0.05$ )、1晩の夜間啼泣回数は $3.1 \pm 2.1$ から $1.5 \pm 1.9$ へ減少した( $p < 0.05$ )。また1日の総啼泣時間は $0.61$ 時間 $\pm 0.45$ から $0.22 \pm 0.17$ へ( $p < 0.05$ )、1晩の夜間啼泣時間は $0.46 \pm 0.36$ から $0.17 \pm 0.13$ へ( $p < 0.05$ )、最長啼泣時間は $0.36 \pm 0.23$ から $0.27 \pm 0.19$ へ( $p = 0.07$ )、1回の平均啼泣時間は $0.12 \pm 0.10$ から $0.10 \pm 0.07$ へ( $p < 0.05$ )、いずれも減少した。

CGLによりADEL乳幼児の夜泣き、啼泣および睡眠障害が改善することが示された。

3) PSGの結果、CGL後、動脈血酸素飽和度( $SpO_2$ )の平均( $p < 0.05$ )、 $SpO_2$ 最低値の平均( $p < 0.05$ )、 $SpO_2 89\%$ 以下の総時間( $p < 0.01$ )、 $SpO_2 95\%$ 以下時間の割合( $p < 0.01$ )に改善が見られた。脈拍数は有意な改善は見られな

った。

長時間モニターの結果、ADEL 児に慢性の低酸素傾向がみられ、また術後 SpO<sub>2</sub> が顕著に上昇したことから、CGL は呼吸状態を改善し睡眠を改善することが示唆された。



## 5. 主な発表論文等

(研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線)

[雑誌論文] (計 5 件)

- ① 向井 将, 佐藤真澄, 中路美和子, 田口京子, 福地芳子, 永野純子, 伊藤多佳子, 中川貴美子, 山本伊佐夫: CGL・EVO 後の児の吸啜と母親の授乳感ならびに乳房の変化(第一報). 日本舌癒着症学会誌, 20, 6-10, 2014. (査読有)
- ② 福地芳子, 向井 将, 佐藤真澄, 中路美和子, 田口京子, 永野純子, 山本 静, 伊藤多佳子, 山本伊佐夫: 舌圧と新生児の吸啜. 日本舌癒着症学会誌, 20, 11-14, 2014. (査読有)
- ③ S. Mitsuyoshi, Development of Verbal Analysis Pathophysiology, Econophysics, Sociophysics & Other Multidisciplinary Sciences Journal, 5, 11-16, 2015(査読有)
- ④ S. Tokuno, Y. Omiya, S. Shinohara, M. Nakamura, N. Hagiwara, S. Mitsuyoshi, Psychological impact of Kumamoto earthquake by voice analysis using a smart phone application, Neuroscience 2016, San Diego, 2016(査読有)
- ⑤ N. Hagiwara, Y. Omiya, S. Shinohara, M. Nakamura, H. Yasunaga, M. Higuchi, S. Mitsuyoshi, S. Tokuno, Validity of the Mind Monitoring System as a Mental Health Indicator, 16th International Conference on Bioinformatics and BioEngineering, 2016(査読有)

[学会発表] (計 8 件)

- ① 山本伊佐夫, 中川貴美子, 大平 寛, 山田良広: 舌喉頭矯正術による夜泣き改善と虐待予防. 第 4 回日本小児診療他職種研究会, 小倉, 2015.7.19
- ② 山本伊佐夫, 鎌倉尚史, 中川貴美子, 大平 寛, 山田良広: 舌喉頭矯正術による啼泣, 抱き癖の改善と虐待予防. 第 7 回日本子ども虐待医学会学術集会, 浦安, 2015.8.1
- ③ 山本伊佐夫, 中川貴美子, 宮川康一, 坂本揺子, 大平 寛, 山田良広, 向井 将: 舌喉頭矯正術の低周波数測定による改善評価の試み. 第 27 回日本舌癒着症学会, 横浜, 2015.10.25
- ④ 大宮康宏, 山本伊佐夫, 中村光晃, 篠原修二, 光吉俊二, 徳野慎一, 中川貴美子, 福地芳子, 向井 将: CGL 前後の乳幼児啼泣音声の分析. 第 27 回日本舌癒着症学会, 横浜, 2015.10.25.
- ⑤ 山本伊佐夫, 大宮康宏, 徳野慎一, 光吉俊二, 中川貴美子, 大平 寛, 鎌倉尚史, 山口市恵, 宮川康一, 山田良広: 舌喉頭矯正術前後の乳児啼泣音声の分析. 第 100 次日本法医学会学術全国集会, 東京, 2016.6.15
- ⑥ 山本伊佐夫, 大宮康宏, 徳野慎一, 光吉俊二, 鎌倉尚史, 中川貴美子, 大平寛, 山口市恵, 宮川康一, 山田良広: 舌喉頭矯正術前後の乳児啼泣音声分析. 第 8 回日本子ども虐待医学会学術集会, 福岡, 2016.7.23
- ⑦ 大宮康宏, 山本伊佐夫, 中村光晃, 篠原修二, 光吉俊二, 徳野慎一, 中川貴美子, 福地芳子, 向井 将: CGL 前後の乳幼児啼泣音声の分析 (続報). 第 28 回日本舌癒着症学会, 横浜, 2016.11.3
- ⑧ Yamamoto I, Omiya Y, Tokuno S, Mitsuyoshi S, Nakagawa K, Ohhira H, Kamakura N, Yamaguchi R, Yamada Y, Hasegawa I, Susumu Mukai : Comparative analysis of babies' cries before and after CGL procedure, using Sensitivity Technology software. 43th International Society of Life information Science, Tokyo, 2017.3.8

[図書] (計 0 件)

[産業財産権]

- 出願状況 (計 0 件)
- 取得状況 (計 0 件)

[その他]

ホームページ等 なし

6. 研究組織

(1) 研究代表者

山本 伊佐夫 (YAMAMOTO Isao)  
神奈川県立歯科大学・大学院歯学研究科・講師  
研究者番号：30277917

(2) 研究分担者

なし

(3) 連携研究者

光吉 俊二 (MITSUYOSHI Syunji)  
東京大学・医学部附属病院・特任講師  
研究者番号：30570262

中川貴美子 (NAKAGAWA Kimiko)  
神奈川県立歯科大学・大学院歯学研究科・特任  
講師  
研究者番号：10534034

(4) 研究協力者

大宮康宏 (OMIYA Yasuhiro)