様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９　（共通）

科学研究費助成事業　　研究成果報告書

令和　２ 年　 ６ 月 １３ 日現在

機関番号：１３１０１
研究種目：若手研究(B)
研究期間：2015～2019
課題番号：１５Ｋ１６３５２

研究課題名（和文）二段階口蓋形成法における早期硬口蓋閉鎖の有用性：音声言語と音響特性による言語成績

研究課題名（英文）Validation of optimal timing for hard palate closure in two-stage palatoplasty

研究代表者
大湊　麗（Ominato, Rei）

新潟大学・医歯学総合病院・特任助教

研究者番号：９０６４８２８９

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費）　　3,300,000円

研究成果の概要（和文）：新潟大学顎顔面口腔外科では、1983年より二段階口蓋形成手術法を施行しており、顎発育による分析から、2010年より硬口蓋閉鎖時期を5歳半から4歳へ早期移行した。本研究では、言語機能による分析から、硬口蓋閉鎖時期の5歳半から4歳への早期移行が4歳時から6歳時における言語機能獲得に与える影響を検討した。その結果、5歳時において、鼻咽腔閉鎖機能では良好例の有意な増加、異常構音の種別では口蓋化構音の有意な減少、音響特性による検討では聴覚的な臨床データと整合する結果が示され、言語機能獲得に肯定的な影響が明らかとなった。以上より、顎発育を考慮すると、硬口蓋閉鎖時期の妥当性が示された。

研究成果の学術的意義や社会的意義
本研究成果により、二段階口蓋形成手術法の治療体系を確立していく上で重要な示唆が得られた。また、口唇口蓋裂児が正常言語を早期に獲得し、良好なコミュニケーション態度と積極的な言語活動を形成することは、子どもの豊かな感性や情緒の育成を促進する。一時的な形態と機能の回復のみならず、口唇口蓋裂児の社会性発達に多方面に関わる研究ともいえ、口唇口蓋裂の治療体系と音声言語障害領域の発展に寄与した。

研究成果の概要（英文）：We have performed two-stage palatoplasty for patients with cleft lips and palates in the Oral and Maxillofacial Surgery Clinic of Niigata University Medical and Dental Hospital since 1983. As a result of evaluating maxillary growth, we have changed the timing of hard palate closure from 5.5 years of age to 4 years of age since 2010. To validate the earlier hard palate closure in our two-stage procedure, we evaluated speech outcome at 4, 5, and 6 years of age. At 5 years of age, the cases with good velopharyngeal function increased significantly and the palatalized articulation was significantly reduced due to the earlier hard palate closure. Based on an evaluation of maxillary growth and speech outcome together, we conclude that earlier hard palate closure is reasonable for our two-stage procedure.

研究分野：音声言語障害学

キーワード：口唇口蓋裂　二段階口蓋形成手術法　言語成績

※科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。

様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９（共通）

１．研究開始当初の背景

新潟大学顎顔面口腔外科では、1983 年より二段階口蓋形成手術法を施行してきた。二段階口蓋形成手術法は、良好な顎発育とともに良好な言語機能獲得を目指した治療体系であり、軟口蓋形成術および硬口蓋閉鎖術の時期や段階、方法、連続性の課題をめぐって議論は絶えない。とりわけ、硬口蓋閉鎖術をいつ行うか、欧米では、Early hard palate closure か、Late hard palate closure か、特に着目されてきた。すなわち、硬口蓋閉鎖時期が遅いほど良好な顎発育が維持できる一方、言語機能獲得には否定的な影響が懸念されたことによる。当科では、この課題を可及的に解決すべく、顎発育による分析から、2010 年より硬口蓋閉鎖時期を 5 歳半から 4 歳へ早期移行した（図 1）。

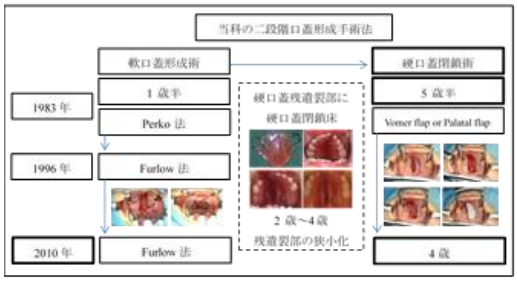

図 1．当科の二段階口蓋形成手術法

２．研究の目的

本研究では、硬口蓋閉鎖時期の 5 歳半から 4 歳への早期移行が 4 歳時から 6 歳時における言語機能獲得に与える影響を検討し、当科の二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の妥当性について明らかにすることとした。なお、音声言語領域では、言語機能を検証するための言語評価方法は重要な課題であり、(1) 音声言語の聴覚判定による分析から検討した。さらに、聴覚的な臨床データを裏付けるため、(2) 音響特性（ナゾメーター）による分析から再検討した。

３．研究の方法

(1) 音声言語の聴覚判定による分析

対象は、当科の二段階口蓋形成手術法において、軟口蓋形成術を Furlow 法により 1 歳半で施行し、硬口蓋閉鎖術を 4 歳で施行した症例、片側唇顎口蓋裂 24 例（男児 14 例、女児 10 例）（以下、早期群）とし、比較対照は、同様の管理下で硬口蓋閉鎖術を 5 歳半で施行した症例、片側唇顎口蓋裂 60 例（男児 34 例、女児 26 例）（以下、晩期群）とした。口唇形成術は Cronin 法により、早期群では平均 6.2 か月時に、晩期群では平均 6.5 か月時に、軟口蓋形成術は Furlow 法により、早期群では平均 18.5 か月時に、晩期群では平均 18.7 か月時に施行していた。また、硬口蓋閉鎖床は、早期群（24 例中 18 例（75%）に常時装着を確認）では平均 32.1 か月時に、晩期群（60 例中 50 例（80%）で常時装着を確認）では平均 31.5 か月時に装着し、両群はこの段階まで同様の管理下にあった。硬口蓋閉鎖術のみは、早期群では平均 51.3 か月時に、晩期群では平均 67.2 か月時に施行していた。なお、各々の手術治療は、時期を異にして 3 名の熟練した口腔外科医が従事し、個々の症例の手術は各時期に担当した 1 名が行った。

言語治療は、全例に対して 1 歳時より 3 か月ごとの言語管理（定期観察および児や保護者への間接指導）を開始し、およそ 4 歳時より児の発達程度や言語獲得の状態に応じて鼻咽腔閉鎖機能や構音の直接指導を行った。評価時期の 4 歳時から 6 歳時において、発音補助装置による補綴的治療を要した症例は、早期群では 1 例（4%）、晩期群では 3 例（5%）であった。

言語機能は、4 歳時から 6 歳時における鼻咽腔閉鎖機能と構音（異常構音の有無、種別、子音数）を評価した。4 歳時から 6 歳時の評価時期は個々の症例の誕生日前後 1 か月以内とし、くわえて硬口蓋閉鎖術前および術後の評価を示した。硬口蓋閉鎖術前の評価時期は手術の 1～2 週前とし、早期群では平均 4 歳 3 か月時（術前平均 6 日）に、晩期群では平均 5 歳 7 か月時（術前平均 11 日）に施行していた。硬口蓋閉鎖術後の評価時期は手術から約 1 か月後（退院後 2～3 週）とし、早期群では平均 4 歳 4 か月時（術後平均 33 日）に、晩期群では平均 5 歳 8 か月時（術後平均 43 日）に施行していた。なお、各々の言語管理は時期を異にして 3 名の熟練した言語聴覚士が従事し、個々の症例の評価は各時期に担当した 1 名が行った。その診療録の記載内容を下記の評価基準に従って詳細に分析し、本研究の資料とした。

鼻咽腔閉鎖機能の評価は、日本コミュニケーション障害学会口蓋裂言語検査を参考に、良好、ごく軽度不全、軽度不全、不全の 4 段階で判定した。良好は開鼻声、呼気鼻漏出による子音の歪みをみとめないもの、ごく軽度不全は鼻漏出がみられるものの開鼻声、子音の歪みはごく軽度であるもの、軽度不全は鼻漏出がみられ中等度の開鼻声、子音の歪みをみとめるもの、不全は重度の開鼻声、子音の歪みをみとめるものとした。

構音の評価は、日本音声言語医学会新版構音検査を参考に、音節、単語、文章、会話を総合的に調査し、異常構音の有無、種別、子音数で判定した。異常構音の種別は声門破裂音、口蓋化構音、咽頭破裂音、咽頭摩擦音、鼻咽腔構音、側音化構音、その他（ハ行音に近い音への誤り）とし、置換型などの未熟構音は正常構音に含めた（同一症例内で重複あり）。異常構音の子音数は主要な 13 子音の誤り音数を算出した。

統計処理はカイ二乗検定、t 検定を用い、有意水準は 5%とした。

（2）音響特性（ナゾメーター）による分析

対象は、上記の早期群のうち各時期の評価資料が整った 14 例（以下、早期群）とし、比較対照は、上記の晩期群のうち同じく評価資料が整った 17 例（以下、晩期群）とした。

評価項目は 4 歳時から 6 歳時のナゾメーター（Kay Pentax 社製 NasometerⅡ6450®，Kay Elemetric, Lincoln Park, NJ）による Nasalance score（母音、文章、高圧文および低圧文の平均値）（母音のみ 2 回、文章、高圧文および低圧文は 1 回、音読もしくは復唱）とした。

統計処理は t 検定を用い、有意水準は 5%とした。

４．研究成果

（1）音声言語の聴覚判定による検討

分析の結果、硬口蓋閉鎖時期の 5 歳半から 4 歳への早期移行が 4 歳時から 6 歳時における言語機能獲得に与える影響として有意差をもって示されたのは、5 歳時において、鼻咽腔閉鎖機能での良好例の増加（図 2）と異常構音の種別での口蓋化構音の減少（図 3）であった。早期群での言語機能獲得を促した最大の要因は硬口蓋閉鎖術であり、硬口蓋閉鎖床の撤去により口腔内圧の上昇による鼻咽腔閉鎖機能の賦活化が早期に得られたためと推察された。また、口蓋化構音の減少は、晩期群では硬口蓋閉鎖床の装着下で直接指導を開始せざるをえないのに対して、早期群では硬口蓋閉鎖術後の正常な口腔内環境による構音の学習が促進されたためと推察された。ただし、有意差をもって示されたのは異常構音の種別のみで、異常構音の有無、子音数では改善の傾向はみられたものの有意差は示されなかった。この点について、4 歳前半の児の発達程度では最大限の協力下にあっても直接指導の効果が十分でないことも多く、5 歳近くまで児の発達を待ったほうが有効、もしくは待たざるをえないといった臨床的な事情や、硬口蓋閉鎖術後の鼻咽腔閉鎖機能の安定から正常言語獲得に至るまで約 1 年の言語治療を要するため、直接指導の途中段階にあるために 5 歳時の評価には十分に反映されなかった可能性が推察された。したがって、いわゆる Late hard palate closure の範囲にある硬口蓋閉鎖時期の 5 歳半から 4 歳への早期移行は、言語機能獲得年齢を考慮すると鼻咽腔閉鎖機能および構音の獲得そのものに大きな影響を与えることは難しいようであったが、肯定的な影響が示された。

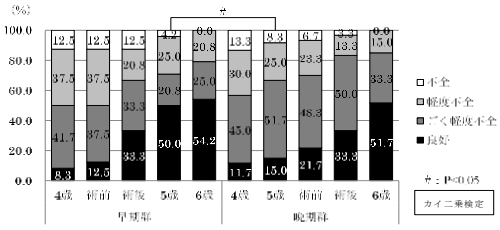

図 2．鼻咽腔閉鎖機能

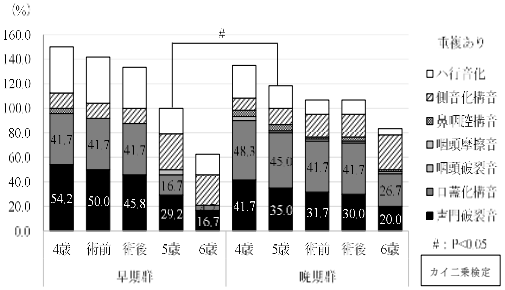

図 3．異常構音の種別

（2）音響特性（ナゾメーター）による検討

分析の結果、5 歳時において、文章および高圧文の Nasalance score で早期群と晩期群の閉鎖床撤去時の間に有意差がみられた（図 4、5）。閉鎖床の装着時では有意差はみられないものの同様の傾向がみられ、閉鎖床の管理下では完全には開鼻声や呼気鼻漏出、子音の歪みといった受動的な影響は免れず、音声言語の聴覚判定において、軽度の開鼻声や呼気鼻漏出による子音の歪みが影響し、鼻咽腔閉鎖機能良好例とごく軽度不全例の判定に影響を与えたものと推察された。一方で、早期群と晩期群の閉鎖床装着時の間に有意差がみられなかったことは、閉鎖床を一定年齢から常時装着した症例では閉鎖床が有効に機能していたことが示された。したがって、聴覚的な臨床データと整合し、音響特性による分析でも肯定的な影響が示された。

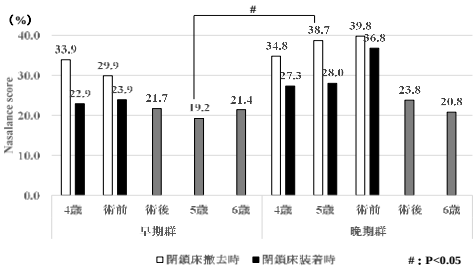

図 4．Nasalance score（文章）

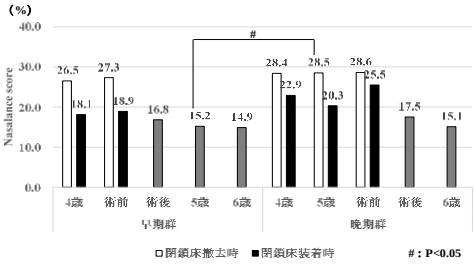

図 5．Nasalance score（高圧文）

以上より、音声言語の聴覚判定と音響特性（ナゾメーター）による分析を統合し、顎発育を考慮すると、当科の二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の妥当性が確認された。

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　4件）

１．著者名 大湊麗，小野和宏，児玉泰光，小山貴寛，飯田明彦，永田昌毅，高木律男	４．巻 48
２．論文標題 二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の検討－ナゾメーターによる分析－	５．発行年 2018年
３．雑誌名 新潟歯学会雑誌	６．最初と最後の頁 17-21
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 オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 大湊麗，小野和宏，飯田明彦，児玉泰光，小山貴寛，永田昌毅，高木律男	４．巻 42
２．論文標題 二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の検討－言語機能による分析－	５．発行年 2017年
３．雑誌名 日本口蓋裂学会雑誌	６．最初と最後の頁 201-207
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 オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 大湊麗，小林孝憲，児玉泰光，小山貴寛，五十嵐友樹，飯田明彦，小野和宏，永田昌毅，高木律男	４．巻 41
２．論文標題 粘膜下口蓋裂の臨床統計的検討－第2報：言語成績－	５．発行年 2016年
３．雑誌名 日本口蓋裂学会雑誌	６．最初と最後の頁 173-180
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 オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

１．著者名 大湊麗、小林孝憲、児玉泰光、小山貴寛、五十嵐友樹、飯田明彦、小野和宏、永田昌毅、高木律男	４．巻 41
２．論文標題 粘膜下口蓋裂の臨床統計的検討－第1報：診断と病態－	５．発行年 2016年
３．雑誌名 日本口蓋裂学会雑誌	６．最初と最後の頁 24-30
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 オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

〔学会発表〕　計16件（うち招待講演　3件／うち国際学会　0件）

1．発表者名 大湊麗，小野和宏，児玉泰光，結城龍太郎，山田茜，Andrea Rei Estscio Salazar，永井孝宏，渡部桃子，小山貴寛，飯田明彦，永田昌毅，高木律男
2．発表標題 二段階口蓋形成手術法における構音発達過程の検討
3．学会等名 第42回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4．発表年 2018年

1．発表者名 大湊麗，小野和宏，結城龍太郎，Andrea Rei Estscio Salazar，永井孝宏，渡部桃子，山田茜，飯田明彦，永田昌毅，高木律男
2．発表標題 二段階口蓋形成手術法における言語症状をもたらす影響要因の形態的検討
3．学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4．発表年 2019年

1．発表者名 高木律男，児玉泰光，大湊麗，飯田明彦，小野和宏
2．発表標題 口蓋形成術後に鼻咽腔閉鎖機能不全が残遺した症例への対応
3．学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会（招待講演）
4．発表年 2019年

1．発表者名 結城龍太郎，児玉泰光，Andrea Rei Estscio Salazar，大湊麗，永井孝宏，渡部桃子，山田茜，市川佳弥，丹原惇，飯田明彦，小野和宏，齋藤功，高木律男
2．発表標題 二段階口蓋形成法施行片側性唇顎口蓋裂患児の咬合評価．第1報
3．学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4．発表年 2019年

１．発表者名 Andrea Rei Estscio Salazar，児玉泰光，結城龍太郎，大湊麗，永井孝宏，渡部桃子，山田茜，市川佳弥，丹原惇，飯田明彦，小野和宏，齋藤功，高木律男
２．発表標題 二段階口蓋形成法施行施行片側性唇顎口蓋裂患児の咬合評価．第2報
３．学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会
４．発表年 2019年

１．発表者名 児玉泰光，結城龍太郎，Andrea Rei Estscio Salazar，大湊麗，永井孝宏，渡部桃子，山田茜，市川佳弥，丹原惇，飯田明彦，小野和宏，齋藤功，高木律男
２．発表標題 二段階口蓋形成法施行施行片側性唇顎口蓋裂患児の咬合評価．第3報
３．学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会
４．発表年 2019年

１．発表者名 大湊麗，児玉泰光，新美奏恵，永田昌毅，小野和宏，高木律男
２．発表標題 舌小帯付着異常の臨床統計的検討
３．学会等名 第30回日本小児口腔外科学会総会・学術集会
４．発表年 2018年

１．発表者名 大湊麗，児玉泰光，小山貴寛，池田順行，小野和宏，永田昌毅，高木律男
２．発表標題 機能性構音障害の臨床統計的検討
３．学会等名 第29回日本小児口腔外科学会総会・学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 児玉泰光，大湊麗，高木律男
２．発表標題 口蓋形成術と音声言語の連携と工夫：新潟大学医歯学総合病院におけるチーム医療の現状と課題
３．学会等名 第42回日本口蓋裂学会総会・学術集会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 大湊麗，小野和宏，児玉泰光，小山貴寛，五十嵐友樹，小林孝憲，飯田明彦，永田昌毅，高木律男
２．発表標題 二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の検討－言語機能による分析－
３．学会等名 第49回新潟歯学会第1回例会
４．発表年 2016年

１．発表者名 大湊麗，小野和宏，飯田明彦，児玉泰光，小山貴寛，永田昌毅，高木律男
２．発表標題 二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の検討－ナゾメーターによる分析－
３．学会等名 第41回日本口蓋裂学会総会・学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 大湊麗，高木律男
２．発表標題 長期結果からみた各チーム医療の現状と展望：口蓋形成2回法（言語分野）
３．学会等名 第41回日本口蓋裂学会総会・学術集会（招待講演）
４．発表年 2017年

１．発表者名 大湊麗，児玉泰光，五十嵐友樹，深井真澄，渡部桃子，永井孝宏，小山貴寛，永田昌毅，小林孝憲，飯田明彦，小野和宏，高木律男
２．発表標題 鼻咽腔閉鎖機能不全への対応．青年期咽頭弁形成術症例の長期言語成績から
３．学会等名 第39回日本口蓋裂学会総会・学術集会
４．発表年 2015年

１．発表者名 大湊麗，小野和宏，児玉泰光，小山貴寛，五十嵐友樹，小林孝憲，飯田明彦，永田昌毅，高木律男
２．発表標題 二段階口蓋形成手術法における硬口蓋閉鎖時期の検討－言語機能による分析－
３．学会等名 第40回日本口蓋裂学会総会・学術集会
４．発表年 2016年

１．発表者名 大湊麗，小野和宏，児玉泰光，飯田明彦，高木律男
２．発表標題 兄姉が口蓋裂で弟妹が非口蓋裂のきょうだいにみられた異常構音の改善経過
３．学会等名 第64回日本音声言語医学会総会・学術講演会
４．発表年 2019年

１．発表者名 大湊麗，児玉泰光，新美奏恵，永田昌毅，小野和宏，高木律男
２．発表標題 舌小帯付着異常の臨床統計的検討
３．学会等名 第108回関東形成外科学会新潟地方会
４．発表年 2019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