

令和 5 年 6 月 6 日現在

機関番号：17102

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2018～2022

課題番号：18K10778

研究課題名(和文) 口蓋裂言語評価の標準化に向けた多施設共同研究

研究課題名(英文) Multi-institutional Joint Research for the Standardized Evaluation of Cleft Palate Speech

研究代表者

緒方 祐子(Ogata, Yuko)

九州大学・歯学研究院・共同研究員

研究者番号：50549912

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,400,000円

研究成果の概要(和文)：口唇口蓋裂の言語治療における評価には、評価者間/施設間での同じ指標を持った評価基準の設定が肝要である。標準化されたスピーチサンプルや方法を用いることにより口蓋裂言語の比較研究を推進することが可能となり、その結果、より質の高い治療を口蓋裂患者に提供することができる。本邦においては、口蓋裂言語に関する標準的評価法が未確立だったため、申請者らは、2018-2022年度の基盤研究(C)にて、標準的口蓋裂言語評価法(Cleft Audit Protocol for Speech-Augmented-Japanese: CAPS-A-JP)の策定を行った。

研究成果の学術的意義や社会的意義

口蓋裂患者を対象とした日本語版口蓋裂言語評価法(CAPS-A-JP:Cleft Audit Protocol for Speech-Augmented-Japanese)の策定を行なった。本評価法は、国際的に広く口蓋裂の言語療法の臨床面のみならず、研究面でも広く使われている標準的口蓋裂言語法を踏襲した日本語版の評価法である。この評価法が策定されたことにより、同じスピーチサンプルを使い、同じ評価基準で、口蓋裂患者のこぼを評価されることから、今まで難しかった評価者間/施設間で、比較検討が可能となる。このことは、本邦のさらなる質の高い口蓋裂の言語療法が提供できることが期待される。

研究成果の概要(英文)：In the assessment of cleft palate speech, it is essential to set up the criteria that have the same sample and method among evaluators/institutions. The use of a standardized assessment method will promote comparative studies of cleft palate speech. As a result, provide cleft lip and/or palate patients with higher quality treatment. Since a standardized assessment method for cleft palate speech has not been established in Japan, the applicants have developed a standardized evaluation method for cleft palate language (Cleft Audit Protocol for Speech-Augmented-Japanese: CAPS-A-JP) as Grant-in-Aid for Scientific Research(C) from 2018 to 2022.

研究分野：言語療法(口蓋裂言語)

キーワード：口唇口蓋裂 標準的口蓋裂言語評価法 聴覚判定

## 1. 研究開始当初の背景

口唇口蓋裂を伴って生まれた児は、整容上の問題や上顎の劣成長とともに咀嚼機能障害や発話障害など機能的な問題を併せ持っている。その問題が多様なことから、形成外科・口腔外科、言語、歯科、耳鼻科など多職種連携による包括的治療がなされる。多職種連携の治療での治療効果の判定は、連携チーム間で同じ指標を持った評価基準の設定や情報の共有が重要である。また、我が国における口蓋裂言語評価を顧みると、それぞれの立場で、臨床で用いる個々患者別の評価が用いられてきたが、治療成績を評価者間や施設間で比較するための標準的評価法が確立されておらず、国内外で情報を共有し治療効果を比較検討することが出来ない。しかし、海外では臨床評価とは別に、施設間あるいは多言語間で治療効果の比較が可能な標準的な検査法(Cleft Audit Protocol for Speech:CAPS-A<sup>1)</sup>, CAPS-A Americleft modification:CAPS-A-AM<sup>2)</sup>)が提案され、国際学会や国際的ジャーナルにおいて言語のアウトカムを報告する際に幅広く用いられるようになってきた。

そこで、本邦においても口蓋裂患者を対象とした言語成績を比較する標準的評価法を確立すれば、治療効果や重症度判定が可能となり、国内外での意見交換が活発となり、言語病理学のさらなる発展につながることを期待できる。

## 2. 研究の目的

前述の背景から、本邦の口蓋裂言語の発展のためには、国際的基準に呼応した評価者間または施設間で言語成績を比較検討できる標準的評価法の確立が必要である。そこで、本研究は、口蓋裂言語を専門とする国内の多施設の言語聴覚士が、本邦における口蓋裂の言語評価の見直しを図ること、また国際的基準に立ち、且つ国内での多施設での言語成績を比較検討することができる新しい言語評価法を作成し、その妥当性と信頼性を検証することを目的とした。本邦初の標準的口蓋裂言語評価法(CAPS-A-JP)を作成することにより、口蓋裂治療に関わる多職種(口腔外科医、形成外科医、耳鼻咽喉科医、小児科医、歯科医師、言語聴覚士)が情報を共有しやすくなり、治療を受ける患者やその家族にも治療効果が分かりやすくなる。

## 3. 研究の方法

### 1) 研究参加施設

本研究は、10施設(北海道医療大学、北里大学、帝京平成大学、昭和大学、愛知学院大学、大阪保健医療大学、大阪大学、九州大学、NPO 法人ことばとリレーションシップの会ことり、鹿児島大学)により共同研究を行った。

### 2) CAPS-A-JP 策定の手続き

CAPS-A-JP の完成には、1)口蓋裂患者の音声資料(スピーチサンプル)の作成と収集、2)口蓋裂言語を専門とした言語聴覚士による聴覚判定、3)聴覚判定結果の解析、4)評価法の妥当性や信頼性の検討が必要であった。そのため、研究は、1)日本語版の音声資料作成と、評価基準や評価項目の検討、2)音声収集や評価施行に関するガイドラインの作成、3)口蓋裂患者の音声資料収集や音源を使った聴覚判定を行いながら、音声資料や評価基準などの修正、4)標準化に向けての統計的検討の過程を経て策定された。

以上の過程を経て、研究は、音声資料やガイドラインの修正を重ね、研究 1) 内容妥当性、研究 2) 基準関連妥当性、研究 3) 信頼性の統計学的検討を行なった。

#### 4. 研究成果

##### 1) 音声資料、評価法のためのガイドラインの作成について

- ・スピーチサンプル作成と評価基準や評価項目の検討

英国版 (CAPS-A<sup>1)</sup>) と米国版 (CAPS-A-AM<sup>2)</sup>) の標準的口蓋裂言語評価法を参考に、日本語版の音声資料の作成を行なった。作成した音声資料は、自由会話、数唱の自動言語や日本の口蓋裂言語の問題に対応した子音を語頭と語中に含む 24 種類の復唱課題である。音声資料作成の際、会話は、音声資料収集に関し、2 分間で子どもの発話を多く録音できるよう留意した。自動言語 (数唱) は、サ行音の弱音化を検討するため、英語による英国や米国版は 60 台 (60~69) の自動言語を使用していたが、日本語版では 30 台 (31~39) に変更した。音声資料の単語・句は、対象児が一度に容易に復唱できるサンプルとし、日本語の特徴を考慮することと、鼻咽腔閉鎖機能の影響を考え、鼻音を含まない単語・句を作成した。

- ・音声収集や評価施行に関するガイドラインの検討

ガイドライン作成に関しても、CAPS-A や CAPS-A-AM のガイドラインを参考にした。音声収集に関しては、録音環境、録音方法、指示の出し方 (発話スピードなど)、会話の引き出し方や ST の追従がヒントにならないように注意するなどのガイドラインを作成した。聴覚判定に関するガイドラインは、評価項目に沿って、評価基準の設定を行なった。開鼻声や呼気鼻漏れ、口蓋化構音などの協議を必要とする項目に関しては、モデル音源を作成し、共通理解を得ながら、ガイドラインの作成を行った。構音障害の分類に関しては、CAPS-A の分類を鑑みながら、日本での口蓋裂言語の状況を考え、分類の検討や重症度の色分けの段階づけを行った。

##### 2) 研究 1: 内容妥当性

CAPS-A-JP で測定しているものが妥当であるか? 口蓋裂患者のさまざまな言語障害を示す音声記録 (5 歳 0 か月から 6 歳 9 か月 (平均 5 歳 10 か月) の 10 例、両側性口唇口蓋裂 (BCLP): 3 名、片側性口唇口蓋裂 (UCLP): 3 名、口蓋裂単独 (CP): 4 名) を用いて、実際に策定したガイドラインに基づいて聴覚判定による評価を行った。評価の後、言語聴覚士 13 名の研究参加者間で協議を行い、各々の評価を比較し、評価ガイドラインの内容に修正を加え、評価用紙の修正を行った。その結果、ガイドラインの定義に沿って、評価者は評価尺度を正しく理解し、評価することができた。つまり、作成した評価ガイドライン、評価用紙は各評価項目が測定すべき内容を測定していると判断し、ツールは十分な内容的妥当性があると判断した。

##### 3) 研究 2: 基準関連妥当性

CAPS-A-JP によって得られた値が、既存の外部基準と高い相関を持つかどうかを検証するため、基準関連妥当性の検討を行なった。検討項目は、CAPS-A-JP での聴覚判定の開鼻声の程度と既存の評価項目 (ナゾメータ検査での開鼻声値) である。ナゾメータ検査の評価文は、口腔内圧が高い文「キツツキ ツツク」と口腔内圧が低い文「ヨウイハ オオイ」とした。CAPS-A-JP の開鼻声の 4 段階評価で、0: なしと 1: 軽度 (あり) を「開鼻声なし」、2: 中等度 (あり) と 3:

重度にありを「開鼻声あり」と2群に分けた。ナゾメータ検査は Sweeney ら<sup>3)</sup>の検討を参考に、緒方ら<sup>4)</sup>の研究データよりカットオフ値を高圧文 29.31%、低圧文 13.87%と設定し、それぞれのカットオフ値の未満値を「開鼻声なし」、カットオフ値の以上値を「開鼻声あり」と設定した。次に、口唇口蓋裂患者 40 例（年齢：4 歳 6 か月～6 歳 11 か月(平均：5 歳 8 か月)、性別：男 23 名 女 17 名、裂型：BCLP 4 例、UCLP 18 例、CP18 例)の音源を収集し、言語聴覚士 7 名にて、二重マスク検査による聴覚判定にて行い、「開鼻声なし」と「開鼻声あり」で、ふたつの評価法の感度（ナゾメータ検査の測定値により開鼻声ありと分類された音声のうち、CAPS-A-JP でも開鼻声ありと分類された音声の割合）、特異度（ナゾメータ検査の測定値により開鼻声なしと分類された音声のうち、CAPS-A-JP でも開鼻声なしと分類された音声の割合）および一致率（ナゾメータ検査の測定値による分類と CAPS-A-JP による分類が一致した音声の割合）を検討した。その結果、高圧文では感度、特異度ともに 0.73,0.71 と高値を示し、CAPS-A-JP のナゾメータ検査との基準関連妥当性は良好な結果であった。

#### 4) 研究 3:信頼性の検討

CAPS-A-JP において、測定誤差の影響の大きさを表す指標を検討するため、聴覚判定の評価者間および評価者内の評価結果の一致度の検証を行った。

まず、口蓋裂患者（年齢：4 歳 7 か月～6 歳 11 か月(平均：5 歳 10 か月)、性別：男 10 名、女 10 名、裂型：BCLP4 例、UCLP9 例、CP7 例)の音源を収集した。その音声を元に、評価者間の信頼性の検討を行い、同じ音源を用いて 2 週間後、評価者内の信頼性の検討を行った。尚、信頼性の主要な解析には、級内相関係数(ICC：Intraclass correlation coefficient)を用いた。ICC による信頼性の結果を解釈するために、CAPS-A の先行研究で参照されている Altman<sup>5)</sup>の解釈基準を用いた。

評価者間の信頼性は、評価項目の開鼻声、構音の誤り、語の音の配列の誤り以外は高い一致度を示した。ICC が低かった評価項目については、音声データに十分な数が含まれておらず、サンプル数が少なかったことが原因と考えられた。口蓋裂に特有の誤りである CSCs に関しては高い一致度を示していた。評価者間信頼性はおおむね良好と判断できる。

評価者内の信頼性は、良好もしくはとても良好であった。ICC は評価者間の信頼性の検定同様の理由(サンプルの数や偏り)で、開鼻声と鼻漏出による歪み、音節の誤りで低いまたは算出不能であった。

#### 5)まとめ

CAPS-A-JP という新しい標準的口蓋裂言語評価法を策定するため、その評価法の内容妥当性、基準関連妥当性、信頼性にて、統計学的手法を用いて検討した。その結果、内容妥当性、基準関連妥当性、信頼性すべてにおいて良好な結果が示され、CAPS-A-JP は標準的な評価法であることが確認された。

今後、CAPS-A-JP を用いることで、その評価結果はより科学的なデータとして使用できることが期待でき、海外の口蓋裂言語の分類や聴覚判定の視点を改めて鑑み、口蓋裂言語の評価法を策定できたことは、本邦の今後の口蓋裂言語の発展につながると思われる。

<参考文献>

- 1) John A, Sell D, Sweeney T, Harding-Bell A, Williams A. The cleft audit protocol for speech-augmented: A validated and reliable measure for auditing cleft speech. *Cleft Palate Craniofac J.* 2006;43(3):272-288.
- 2) Chapman KL, Baylis A, Trost-Cardamone J, et al. The Americleft Speech Project: A training and reliability study. *Cleft Palate Craniofac J.* 2016;52:93-108.
- 3) Sweeney T, Sell D. Relationship between perceptual ratings of nasality and nasometry in children/adolescents with cleft palate and/or velopharyngeal dysfunction. *Int J Lang Commun Disord.* 2008;43(3):265-282.
- 4) 緒方祐子,中村典史,窪田泰孝,他4名:ナゾメータ検査による口蓋裂患者の鼻咽腔閉鎖機能評価-鼻咽腔閉鎖機能の客観的評価基準の検討-,日口蓋誌,28:9-19,2003.
- 5) Altman DG. *Practical Statistics for Medical Research.* Boca Raton, FL: CRC Press. 1990.

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計1件（うち査読付論文 1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 Ogata Yuko	4. 巻 61
2. 論文標題 Significance of Standardized Speech Evaluation and QOL Evaluation of Patient-Reported Outcome for Patients with Cleft Lip and/or Palate	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 The Japan Journal of Logopedics and Phoniatrics	6. 最初と最後の頁 309 ~ 314
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.5112/jjlp.61.309	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16件（うち招待講演 13件 / うち国際学会 2件）

1. 発表者名 Takei Y
2. 発表標題 Developing a Japanese outcome tool for cleft palate speech: CAPS-A-JP. Panel: Where are we on the journey towards excellence in perceptual cleft speech assessment?
3. 学会等名 14thInternational Congress of Cleft Lip, Palate & Related Craniofacial Anomalies:CLEFT22（招待講演）（国際学会）
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 Ogata Y, Fujiwara Y, Suzuki K, Yamashita Y, Imai S, Tezuka M, Sugiyama C, Takei Y, Imamura A, Sato A, Hayakawa T, Hasegawa S, Mizuto Y
2. 発表標題 The development and validation of a Japanese outcome tool for the perceptual assessment of speech in cleft palate patients
3. 学会等名 14thInternational Congress of Cleft Lip, Palate & Related Craniofacial Anomalies:CLEFT22（国際学会）
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 杉山千尋
2. 発表標題 CAPS-A-JPの有効活用と今後の展望-口蓋裂言語の音声表記の提案-
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術集会（招待講演）
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 手塚征宏
2. 発表標題 CAPS-A-JP (口蓋裂標準的言語評価法) における内容妥当性, 基準関連妥当性, 信頼性の検討
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術集会 (招待講演)
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 CAPS-A-JP (日本語版標準的口蓋裂言語評価法) 策定への道のり
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術集会 (招待講演)
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 藤原百合
2. 発表標題 なぜCAPS-A-JPが必要か?-臨床評価との違い-
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術集会 (招待講演)
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 口蓋裂患者における口蓋化構音の言語療法
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術集会 (招待講演)
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 標準的言語評価表策定の意義と言語評価 WG の活動概要
3. 学会等名 第46回日本口蓋裂学会・学術総会（招待講演）
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 標準的言語評価表策定の意義と言語評価WGの活動概要
3. 学会等名 日本口蓋裂学会（招待講演）
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 鼻咽腔閉鎖機能不全がQOLに及ぼす影響－標準的口蓋裂言語評価と患者側の自己評価－
3. 学会等名 第43回日本口蓋裂学会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 多職種で共有しやすい標準的言語評価と治療を受ける側の自覚的評価の導入
3. 学会等名 第64回日本音声言語医学会（招待講演）
4. 発表年 2019年



1. 発表者名 今井智子
2. 発表標題 口蓋裂言語治療の最終目標
3. 学会等名 第64回日本口腔外科学会総会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 藤原百合
2. 発表標題 JapanCleft委員会口蓋裂言語評価ワーキンググループ活動報告
3. 学会等名 第42回日本口蓋裂学会学術集会（招待講演）
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 緒方祐子
2. 発表標題 口蓋裂言語評価の標準化に向けた多施設研究
3. 学会等名 第42回日本口蓋裂学会学術集会（招待講演）
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 杉山千尋
2. 発表標題 Asia-Pacific 圏における口蓋裂言語評価の現状
3. 学会等名 第 42 回日本口蓋裂学会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 早川 統子
2. 発表標題 アメリカ人 SLP による CAPS-A-AM 基準での日本語音声の評価-開鼻声 と構音障害
3. 学会等名 第 42 回日本口蓋裂学会
4. 発表年 2018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	光安 岳志  (Mitsuyasu Takeshi)  (00380519)	九州大学・大学病院・講師   (17102)	
研究分担者	藤原 百合  (Fujiwara Yuri)  (40346515)	大阪保健医療大学・言語聴覚専攻科・客員教授   (34449)	
研究分担者	中村 誠司  (Nakamura Seiji)  (60189040)	九州大学・歯学研究院・教授   (17102)	

	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
研究協力者	武井 良子  (Takei Yoshiko)		

## 6. 研究組織（つづき）

	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
研究協力者	杉山 千尋  (Sugiyama Chihiro)		
研究協力者	手塚 征宏  (Tezuka Masahiro)		
研究協力者	佐藤 亜紀子  (Sato Akiko)		
研究協力者	廣瀬 将行  (Hirose Masayuki)		
研究協力者	今井 智子  (Imai Satoko)		
研究協力者	鈴木 恵子  (Suzuki Keiko)		
研究協力者	山下 夕香里  (Yamashita Yukari)		
研究協力者	今村 亜子  (Imamura Ako)		

6. 研究組織（つづき）

	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
研究協力者	長谷川 幸代  (Hasegawa Sachiyo)		
研究協力者	早川 統子  (Hayakawa Toko)		
研究協力者	水戸 陽子  (Mizuto Yoko)		

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