

るモーラ法では、ADSD による障害の程度、経時的変化を評価するのに有用である。

⑤ADSD では甲状披裂筋の筋電図において群化放電、高振幅電位などが認められる。

⑥音響分析では ADSD 重症例では Jitter、Shimmer が高値、SNR が低値となることが多いが、軽症例では異常を示さないことが多い。

⑦内視鏡検査ではいずれにおいても器質的以上は認められないが、ADSD では声帯／仮声帯の過内転、ABSD では声帯の不随意的な外転、発声時の声門間隙を認める。

⑧機能性発声障害や本態性音声振戦との鑑別が必要である。

⑨声帯内塩酸リドカイン注射により症状の軽減を認める。

2. 音声障害の診療ガイドライン作成ワーキンググループの中で、痙攣性発声障害に対する治療法を検討した結果、以下のことが明らかとなった。

1) 治療法としては

①ADSD に対してはボツリヌス毒素の甲状披裂筋注入 (BTX) が、2 重盲検による比較試験からも有用性が証明されており、世界的に標準治療となっている。しかしながら、量や部位を含めた投与方法、適応に関してコンセンサスは得られておらず、また、BTX 後の臨床経過についても明らかではない。

②その他 ADSD に対して、選択的内喉頭筋内転枝脱神経再吻合法、甲状披裂筋摘出術、甲状軟骨形成術 II 型などの外科治療が試みられ、良好な術後音声機能が報告されているが、いずれも case series レベルでありエビデンスレベルは低い。

③ADSD に対する音声治療は効果に欠ける。

④ABSD に対して後輪状披裂筋にボツリヌス毒素を注入する方法が行われているが、その効果は限られている。

#### D. 考察

痙攣性発声障害は問診、音声所見、喉頭所

見から総合的に診断されているが、一般的に広く認知されているとは言い難く、世界的にもその診断基準は統一されていない。痙攣性発声障害を有する患者が適切に診断されるためには、今後、診断基準の作成が必要と考えられる。

また、ADSD に対して様々な治療が試みられているが、現時点でエビデンスに基づくものは BTX のみである。しかしながら、本邦ではボツリヌス毒素の喉頭筋内注入がまだ認可されていないため、甲状披裂筋摘出術、甲状軟骨形成術 II 型などが選択されることが多い。甲状軟骨形成術 II 型で用いるべくデザインされたチタンブリッジの使用も報告されているが、現時点では医療材料として認可されていない。本邦における ADSD に対する治療オプションは非常に限られたものとなっており、現存治療法の認可とともに、新規治療法の確立が期待される。

#### E. 結論

1. 痙攣性発声障害の適切な診断のために、診断基準の作成が必要である。

2. ADSD に対して BTX が標準的な治療として推奨される。本邦での認可が待たれるとともに、投与方法や投与後の経過に関しては、今後、詳細な検討が必要である。

3. ADSD/ABSD に対する治療選択肢は限られており、新規治療法の確立が期待される。

#### F. 研究発表

##### 1. 論文発表

1) 谷亜希子, 多田靖宏, 今泉光雅, 松見文晶, 大森孝一. 甲状軟骨形成術 I 型術後に挿入物を除去した症例. 喉頭 27(1):31-33, 2015.

2) 兵頭政光, 弘瀬かほり, 長尾明日香, 吉田真夏, 大森孝一, 城本修, 西澤典子, 久育男, 湯本英二. 痙攣性発声障害に関する全国疫学調査. 音声言語医学 57(1):1-6, 2016.

3) Tateya I, Omori K, Kojima H, Naito Y, Hirano S, Yamashita M, Ito J. Type II

thyroplasty changes cortical activation in patients with spasmodic dysphonia. *Auris Nasus Larynx*. 42(2):139-144, 2015.

## 2. 学会発表

- 1) 今泉光雅, 多田靖宏, 谷亜希子, 池田雅一, 仲江川雄太, 大森孝一. 術前評価にて声帯ポリープと考えられた Laryngeal myxoma の 2 例. 耳鼻咽喉科臨床学会
- 2) 多田靖宏, 谷亜希子, 仲江川雄太, 池田雅一, 鈴木亮, 川瀬友貴, 今泉光雅, 大森孝一. 声門上が癒痕狭窄した喉頭外傷の治療経験. 音声言語医学会
- 3) 谷亜希子, 多田靖宏, 仲江川雄太, 大森

孝一. Werner 症候群と診断された音声障害症例. 音声言語医学会

## G. 知的財産権の出願・登録状況（予定を含む）

1. 特許取得  
なし
2. 実用新案登録  
なし
3. その他  
なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業））  
分担研究報告書

痙攣性発声障害の診断基準および重症度分類の策定に関する研究

研究分担者 讃岐徹治 熊本大学医学部附属病院 講師

研究要旨

痙攣性発声障害患者の臨床データを収集して患者データベースを作成し、痙攣性発声障害の臨床像および音声所見を多角的かつ客観的に解析する。それをもとにして本症の診断基準および重症度分類案を作成するため、27年度末に熊本大学大学院生命科学研究部の倫理委員会において審査を実施し、28年度にデータを収集し、診断基準および重症度分類案を作成する。

A. 研究目的

痙攣性発声障害は発声器官に器質的異常や運動麻痺を認めない機能性発声障害の一つであるが、極めてまれなこともあり、国内はもとより海外においても客観的指標に基づく診断基準や治療方針が確立されておらず、適切な診断や治療を受けていない患者が少なくない。本研究では、痙攣性発声障害患者の臨床データを収集して患者データベースを作成し、痙攣性発声障害の臨床像および音声所見を多角的かつ客観的に解析し、それをもとにして本症の診断基準および重症度分類案を作成する。

B. 研究方法

2006年1月1日から現在までに熊本大学医学部附属病院耳鼻咽喉科・頭頸部外科を受診し、対象疾患に該当診断された患者の診療情報上のデータ収集

- 1) 喉頭内視鏡所見（動画所見）
- 2) 音声録音データ：長母音、1~10 数字朗読、規定文章（※）の朗読
- 3) 音声機能検査及び音声評価データ：最長発声持続時間、GRABAS 尺度、Voice Onset Time、サウンドスペクトログラム、Voice handicap index(VHI)、Voice related QOL

(V-RQOL) など

上記データを高知大学に集積し、データベース化する。

※「ある日、北風と太陽が力比べをしました。旅人のがいとうを脱がせた方が勝ちという事にきめて、まず風からはじめました」、および内転型では「むかしあるところにジャックという男の子がいました」、外転型では「本屋と花屋は通りをへだてて反対側にあります」

1. サンプル（資料・情報、研究対象者、サンプル数、選定方針と除外基準など）

1) 対象患者選定：「痙攣性発声障害」患者および、対照疾患である「過緊張性発声障害」「音声振戦症」患者

2) 予定症例数：当院で3~10例（全体で60例）

3) 電子カルテもしくは紙カルテからの診療情報

4) 過去に当院を受診した患者のデータについては必要事項が全て整っている場合は使用する。

2. 研究の侵襲性と介入の内容

喉頭内視鏡検査は、喉頭疾患の診療におい

て日常的に行われる検査であり、喉頭粘膜等への侵襲性はなく安全性は確立している。

### 3. 研究における評価項目

1) 主要評価項目：文章朗読あるいは会話時の声の途切れ、または詰まり、重症度分類においては日常会話における支障度

(倫理面への配慮)

本研究で収集されたデータを当該医療機関外に提供する際には、被験者識別コードを付して連結可能匿名化を行う。また、医学雑誌への発表等においては、被験者の秘密を保全する。

### C. 研究結果

2006年1月1日から現在までに当院耳鼻咽喉科・頭頸部外科を受診し、対象疾患に該当する診断され、甲状軟骨形成術2型を実施した患者と手術を実施しなかった患者の調査を行うため、27年度末に熊本大学大学院生命科学研究部の倫理委員会において審査を実施した。

委員会の審査承認後、28年度にデータを収集し、診断基準および重症度分類案を作成する。

### D. 考察

痙攣性発声障害は、希少難治性疾患であるが、世界的に診断基準がないため多くの患者が診断されないで発声障害に苦しんでいることが容易に予想できる。

患者情報を元にした診断基準と重症度分類のガイドラインが作成されることで、診断が容易になると共に疾患レジストリーの構築、患者の把握、疾患の自然史、治療の実施状況、治療の評価、予後予測因子につながる。

### E. 結論

痙攣性発声障害患者の臨床データを収集して患者データベースを作成し、痙攣性発声障

害の臨床像および音声所見を多角的かつ客観的に解析する。それをもとにして本症の診断基準および重症度分類案を作成するため、27年度末に熊本大学大学院生命科学研究部の倫理委員会において審査を実施した。

### F. 研究発表

#### 1. 論文発表

1) 讃岐徹治：痙攣性発声障害：甲状軟骨形成術2型. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科 87(5):189-192, 2015.  
2) 讃岐徹治：痙攣性発声障害. JOHNS 31(9):1343-1345, 2015.  
3) Sanuki T, Yumoto E, Toya Y, Kumai Y. Voice tuning with new instruments for type II thyroplasty in the treatment of adductor spasmodic dysphonia. *Auris Nasus Larynx* (in press)

#### 2. 学会発表

1) 讃岐徹治：内転型痙攣性発声障害に対するチタンブリッジを用いた甲状軟骨形成術2型の効果の検討（医師主導治験）第27回日本喉頭科学会総会・学術講演会 東京都, 2015.4.9.  
2) Sanuki T: Voice tuning with new instruments for Type II thyroplasty in the treatment of adductor spasmodic dysphonia. *American Laryngological Association* 2015.4.23.  
3) 讃岐徹治：音声外科 up to date 第107回鹿児島耳鼻咽喉科学術集会 鹿児島市, 2015.11.5.  
4) 讃岐徹治：チタンブリッジによる甲状軟骨形成術2型 第67回日本気管食道科学会・学術講演会 福島市, 2015.11.19.  
5) 讃岐徹治：内転型痙攣性発声障害に対する甲状軟骨形成術2型の適応 第28回日本喉頭科学会総会・学術講演会 大阪市, 2016.3.4.  
6) 讃岐徹治：甲状軟骨形成2型の長期成績 第17回熊本耳鼻咽喉科臨床問題研究会, 熊本市 2016.3.12.

G. 知的財産権の出願・登録状況	なし
1. 特許取得	3. その他
なし	なし
2. 実用新案登録	

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等克服研究事業）  
分担研究報告書

音声疲労に関する実験的研究－自覚的評価と音響学的評価－

研究分担者 城本 修 県立広島大学保健福祉学部コミュニケーション障害学科 教授

研究要旨

器質的疾患の有無に関わらず、音声障害患者は、音声疲労を訴えるものが多い。しかし、その訴えは主観的であり、先行研究も少なく、わかりにくいとされてきた。本研究では、音声疲労の評価方法を、自覚的評価と客観的指標である音響分析の両側面から検討した。対象は、健常成人女性 10 名で、2 時間の音声負荷課題を実施し、実施中とさらにその後の疲労回復過程について、音声疲労の推移を検討した。さらに音声訓練によって変動が認められるか検討した。評価項目は 3 つの自覚的評価と、さまざまな録音音声の音響分析（PPQ, APQ, HNR）について分析した。評価期間は音声負荷課題を含む 3 日間で、研究対象者には自覚的評価と音声録音を、音声負荷課題中（疲労過程）は 15 分おきに、音声負荷課題後（回復過程）は 4 時間おきに実施させた。その結果、音声疲労を鋭敏に反映する発声は、自覚的にも客観的にも示す指標としては“小さく高い声”のような音声負荷発声が有効であると考えられた。

A. 研究背景と目的

音声疲労とは、声を酷使することで生じる声の疲労のことであり運動後の筋肉の疲労と類似していると言われている。Scherer ら（1987）によると、音声疲労の症状は以下の 6 つに分類できる。すなわち、①声質の変化、②声の制約（声域の縮小、努力性など）、③声のコントロール力の低下（声の高さを一定に保てない、不安定な声）、④不快感（喉頭痛、頸部痛、咳払いなど）、⑤喉頭組織の変化（炎症、腫脹など）、⑥その他（頸部の屈曲など）である。さらに彼らは、音声疲労の原因は声の乱用で、長時間に及ぶ発声や大きな声での発声、不適切な高さでの発声は、声帯同士の強い衝突や声帯組織の粘性の増加を引き起こす可能性があるとして推察している。

音声疲労の状態や回復過程を評価した先行研究には、Hunter ら（2009）の研究がある。彼らは音声疲労を主訴とする職業の代表である教師を対象に、音声負荷課題中とその後の声の回復について自覚的に評価をさせ、その経過を

追った。その自覚的評価とは、一定の発声課題を実施した際の①発声時の努力、②喉頭の不快感、③小さく高い声の出しにくさの 3 項目である。彼らは、音声負荷課題後 4～6 時間のうちに全体の 50%の回復が、12～18 時間のうちに 70%の回復が得られたと報告している。

一方、Gelfer ら（1991）は、音声疲労の音響分析による客観的な評価を試みている。音響分析では、基本周波数、Jitter、Shimmer、Signal-to-Noise Ratio (SNR) を評価項目としている。研究対象とした歌手は、一定の歌唱訓練を実施した群と全く実施しなかった群に分けて群間比較を行ったが、両群で一定の傾向を示した音響パラメータは認められず、訓練を実施しなかった群においては、歌唱時の母音の音声サンプルの Shimmer の値が減少し、逆に声質が改善傾向を示している。彼らはこれから、音声疲労を引き起こすための課題としての音読負荷課題が 1 時間と短かったことが、逆にウォーミングアップ効果になったことを問題点として提起している。

上述のように、先行研究では音声疲労を客観的に評価した研究は少なく、また音声疲労の客観的評価に成功した研究はほとんどない。しかし客観的指標は個人間比較や同一人物の変化を比較する上で非常に重要な指標となる。そこで本研究では、音声疲労の客観的評価である音響分析と自覚的評価の両側面から検討した。

## B. 研究方法

### 1. 研究協力者

広島県内の H 大学保健福祉学部在学中の学生のうち、耳鼻咽喉科医師の喉頭ファイバー検査による視診で、声帯の器質的異常や音声障害がないと判断された女性 10 名（平均年齢  $21.4 \pm 0.5$  歳）。なお、声楽やボイストレーニング、合唱部所属等の経験者はおらず、さらに音声負荷課題以外にも音声疲労をもたらすと推測される歯列矯正中の者も除外した。口頭と書面で説明を行い同意書にて同意が得た。また、研究終了時にも耳鼻咽喉科医師による喉頭ファイバー検査を再度行ったが、喉頭の器質的病変や音声障害を認めた者はいなかった。

なお、本研究は本学研究倫理委員会の承認を得て実施（承認番号：第 15HM059 号）。

### 2. 使用機器

ステレオ IC レコーダー ICD-TX650 (SONY 社)、MICROMIC THE ORIGINAL C520 (AKG 社)、Real-time Pitch (Computerized Speech Lab, Model 4500 : KAY 社)、音響分析ソフトウェア Praat (version : 6.0.05)、統計分析ソフトウェア js-STAR 2012 (release 2.0.7j)

### 3. 手続き

耳鼻咽喉科医師による喉頭視診後、日頃の音声疲労の自覚度についての質問紙に回答させた。その後、音声疲労をもたらすと考えられる音声負荷課題を実施した。音声疲労の評価は、音声訓練実施前と実施後の 2 回行った。図 1 は研究スケジュールを示している。音声疲労の評価は、音声負荷課題実施日から音声疲労が回復

する 2 日後までの計 3 日間行った。評価スケジュールの詳細は、1 日目は音声負荷課題中とそれ以降 4 時間おきに、2 日目と 3 日目は起床後から就寝前まで 4 時間おきに評価を行わせた (図 2)。

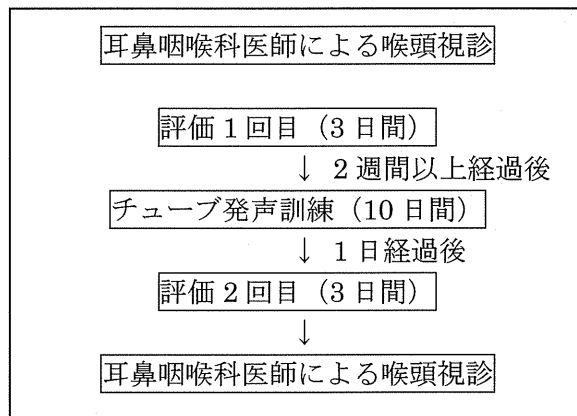


図 1 研究スケジュール

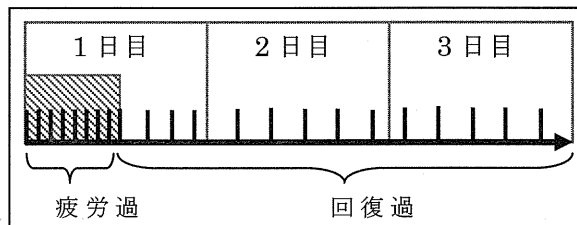


図 2 評価スケジュール

図 1 の評価 1 回目、2 回目の 3 日間を図式化したものである。網掛け部分は音声負荷課題を、下部の矢印に対し垂直に伸びた線は音声疲労の評価を示している。

### 4. 日頃の音声疲労の自覚に関する質問紙 (日本語版 VFI)

1 回目の音声負荷課題を実施する前に、日頃協力者が音声疲労をどの程度自覚しているかを確認するため、音声疲労の質問紙に回答させた。この質問紙は、Nanjundeswaran ら (2014) の Vocal Fatigue Index (VFI) を日本語に翻訳し、原版の 19 項目のうち上位 16 項目を抜粋したものをを用いた。各項目に対し 0~4 で回答させ、各項目の得点及び合計点が高いほど音声疲労が重度であることを表す。さらに上記の質問項目に加え、1 日の声の平均使用量に関する質問

問した。

### 1) 音声負荷課題

音声負荷課題とは音声疲労を引き起こすための課題で、声の大きさが常時 80dB 以上となるよう Real-time Pitch でモニターしながら、2 時間の音読を行わせた。音読教材は『外郎売り』を使用した。音声負荷課題中の声の大きさは、教師が教室内で話す声の大きさは 80dB であるという McCabe ら (2002)<sup>2)</sup> の報告に基づき設定した。音声負荷課題の時間は、Gelfer ら (1991) の研究で 1 時間では逆にウォーミングアップ効果をもたらす可能性が推測されたこと、Titze ら (2007) の研究で教師の 1 日の声の使用時間は平均で約 2 時間であったことに基づき設定した。音読教材については、川和 (1988) が構音操作の練習教材として取り上げており、協力者全員が既知でないと思われる文章を選択した。

### 2) 音声録音

対象者には、予め配布した IC レコーダーに、音響分析で用いる音声サンプルを録音させた。発声課題は Hunter ら (2008)<sup>8)</sup> の指標を参考に、以下の 5 つを設定した。

- ① 出しやすい高さで、できるだけ小さい声で 5 秒間 /i-/ と発声
- ② 出しやすい大きさで、できるだけ高い声で 5 秒間 /i-/ と発声
- ③ できるだけ小さく高い声で 5 秒間 /i-/ と発声
- ④ 出しやすい声の高さ及び大きさで、/a-i-u-e-o-/ と各 3 秒間ずつ発声
- ⑤ できるだけ小さい声で、出しやすい高さから滑らかに高くなるよう /i-/ と発声

以上の発声課題を、音声負荷課題中は 15 分おき、音声負荷課題後は 4 時間おきに行わせ、その音声を IC レコーダーに録音するように指示した。なお、録音時の IC レコーダーと口唇間の距離は 10cm とし、毎回の録音及び録音中一定になるようにさせた。

### 3) 音声疲労の自覚的評価

2) の音声録音時の発声を判断基準として自

覚的評価を行わせた。評価項目は Hunter ら (2008) の提唱する項目を日本語に訳したものである。

- ① 発声時の努力 (speaking effort levels : EFFT)
- ② 喉頭の不快感 (laryngeal discomfort levels : DISC)
- ③ 小さく高い声の出しにくさ (inability to produce soft voice : IPSV)

これら 3 項目について、0~10 (数字が大きいほど、努力や不快感、声の出しにくさが大きいことを示す) で評価させた。

### 4) 音声疲労の客観的評価

2) で録音させた音声を、音響分析ソフト Praat を用いて音響分析し、基本周波数 (Hz)、Pitch Perturbation Quotient (PPQ, %), Amplitude Perturbation Quotient (APQ, %) , Harmonic-to-Noise Ratio (HNR, dB) を求めた。

### 5. 結果の処理

自覚的評価については、評価項目毎に協力者全員の同時間における評価値を平均し、グラフ化した。

録音音声の音響分析については、発声課題①~③は発声開始 2 秒後の 1 秒間を、④は /i-/ の発声開始 1 秒後の 1 秒間を、⑤は発声時間全体を分析の対象とした。また、発声課題①、③、⑤の課題内容に含まれる“小さい声”に関しては、話声位よりも小さい声である 70dB 以下と定義し、録音音声の較正值が 70dB を超える音声は分析対象から除外した。さらに、PPQ、APQ の単位は%であるため、統計分析ソフト js-STAR を用いて角変換を行い、求められた数値をグラフ化した。

## C. 研究結果

### 1. 日本語版 VFI

協力者全員の 16 項目の平均合計点は 10.1 点で、Nanjundeswaran ら (2014)<sup>9)</sup> の先行研究における健常者平均  $6.6 \pm 6.5$  点の範囲内であり、音声障害者の平均  $31.4 \pm 15.3$  点よりも低かった。



また、1日の声の使用量は、Titzeら(2007)<sup>7)</sup>が述べた、教師の1日の声の平均使用時間である約2時間を上回る者はいなかった。

## 2. 評価

音声負荷課題開始から同時間経過後における協力者10名分のデータを、評価項目毎に平均し、それぞれグラフ化した。音声訓練前の平均値を丸(●)で示しその近似直線あるいは高次多項式による近似曲線を破線で、音声訓練後の平均値を四角(□)で示しその近似直線あるいは高次多項式による近似曲線を実線で示した。なお、以後この近似直線あるいは近似曲線のことを、疲労直線あるいは疲労曲線と呼ぶ。

### 1) 自覚的評価

図3~5は、各自覚評価項目の、同時間における協力者全員の評価値の平均を示したもので、疲労過程と回復過程に分けて示した。

#### ① 発声時の努力：EFFT

図3は、EFFTについて示したものである。疲労過程では、訓練前に比し訓練後の疲労直線の方が、時間経過に伴う上昇率が低くなった。一方、回復過程では訓練前、訓練後ともにばらつきが大きく、一定の傾向は認められなかった。

#### ② 喉頭の不快感：DISC

図4は、DISCについて示したものである。疲労過程では、訓練前に比し訓練後の疲労直線の方が、時間経過に伴う上昇率が低くなった。一方、回復過程では訓練前、訓練後ともにばらつきが大きく、一定の傾向は認められなかった。

#### ③ 小さく高い声の出しにくさ：IPSV

図5は、IPSVについて示したものである。疲労過程では他の評価項目同様、訓練後の疲労直線の方が、時間経過に伴う上昇率が低くなった。また、音声負荷課題開始前の平均評価値は、特に訓練前で他の項目に比し高い傾向を示した。回復過程では、訓練後の疲労曲線の方が低い、ばらつきは大きく一定の傾向は認められなかった。

### 2) 音響分析

図6は発声課題⑤の最高基本周波数の、同時間における協力者全員の平均値を示している。図7~9は、PPQ、APQ、HNRについて発声課題③について、同時間における協力者全員の平均値を示している。いずれも疲労過程と回復過程に分けて示した。なお、音響分析の再検査信頼性は決定係数 $R^2=0.9993$ であり、極めて高い信頼性を示した。

#### ① 最高基本周波数

図6は、発声課題⑤の、同時間における協力者全員の最高基本周波数の平均値をグラフ化したものである。疲労過程では、訓練後の疲労曲線の方が低い傾向を示したが、回復過程では一定の傾向は認められなかった。

#### ② PPQ

図7は、発声課題③におけるPPQの平均値を、それぞれ角変換しグラフ化したものである。疲労過程では、音声訓練後の疲労曲線の方が、時間経過に伴う変動も小さく、PPQ値も低い傾向を示した。他の発声課題は、訓練前、訓練後とも値の変動は小さく、訓練前後の差異は認められなかった。また、回復過程ではどの発声課題においても一定の傾向は認められなかった。

#### ③ APQ

図8は、発声課題③におけるAPQの平均値を、それぞれ角変換しグラフ化したものである。疲労過程では、発声課題①と③においては訓練後の疲労直線の方が時間経過に伴う変動が小さく、上昇率も低い傾向を示した。また、回復過程ではばらつきが大きいものもあり、どの発声課題においても一定の傾向は認められなかった。

#### ④ HNR

図9は、発声課題③におけるHNRの平均値をグラフ化したものである。疲労過程では、訓練後の疲労直線の方が時間経過に伴う変動が小さく、HNR値も高い傾向を示した。発声課題①においても、訓練後の疲労曲線の方がやや高い傾向を示した。また、回復過程ではどの発声課題においても一定の傾向は認められなかった。

た。

### 3) 自覚的評価と音響分析の結果のまとめ

疲労過程では、全ての自覚的評価項目において、訓練後の方が疲労直線の時間経過に伴う上昇率が低い傾向を示した。音響分析では、発声課題によっては訓練後の PPQ, APQ は低く、HNR は高い傾向を示した。PPQ と APQ が安定

して低値を、HNR が高値をとる傾向を示した発声課題は③であった。最高基本周波数は訓練後の方が低い結果となった。

回復過程では、IPSV の平均評価値は訓練後の方が低い結果となったが、他の自覚的評価及び音響分析において、訓練前と訓練後に差異が認められたものはなかった。

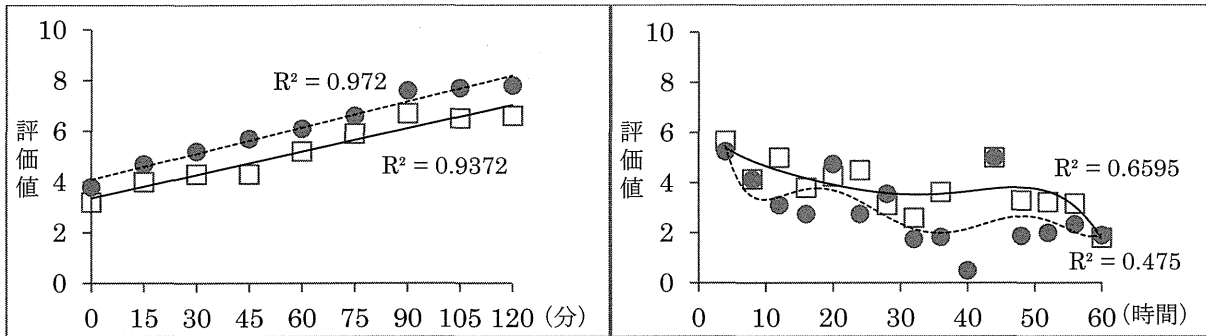


図3 発声時の努力 (EFFT)

左は疲労過程，右は回復過程における散布図で，縦軸は EFFT に関する平均評価値を，横軸は時間経過を示している。訓練前の平均評価値を丸 (●) で示しその近似直線を破線で，訓練後の平均評価値を四角 (□) で示しその近似直線を実線で示した。R<sup>2</sup> は決定係数を示している。

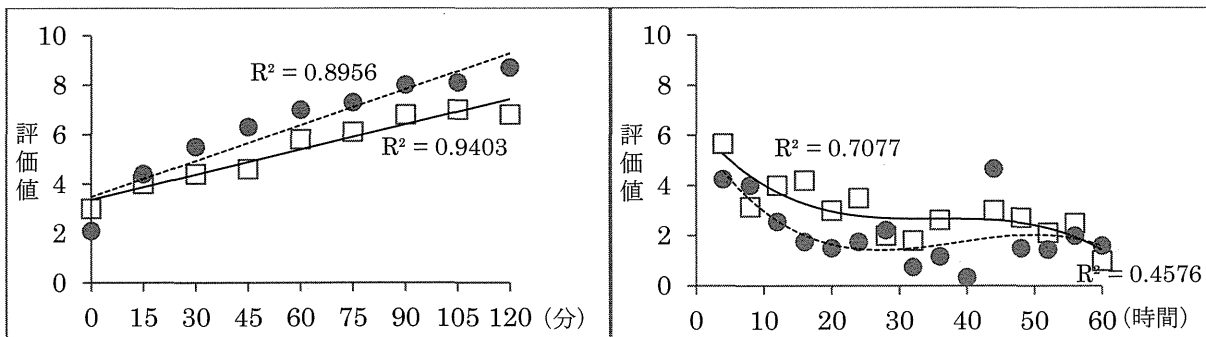


図4 喉頭の不快感 (DISC)

縦軸は DISC に関する平均評価値を，横軸は時間経過を示した散布図

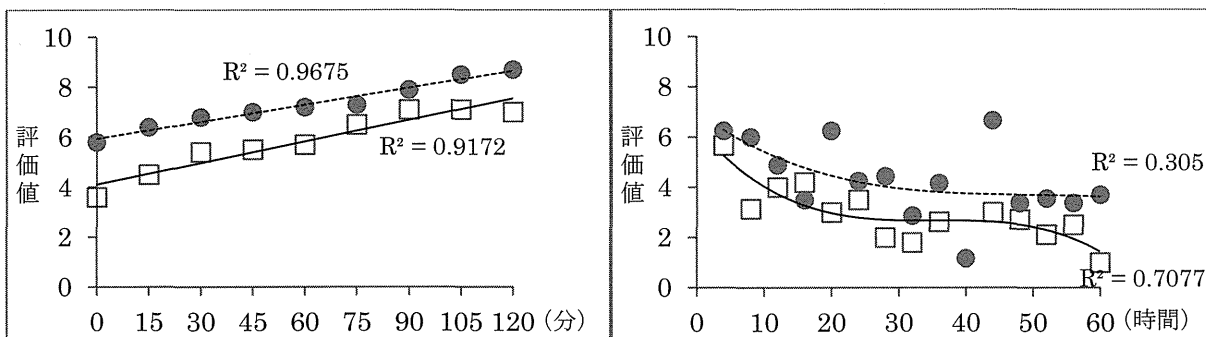


図5 小さく高い声の出しにくさ (IPSV)

縦軸は IPSV に関する平均評価値を，横軸は時間経過を示した散布図

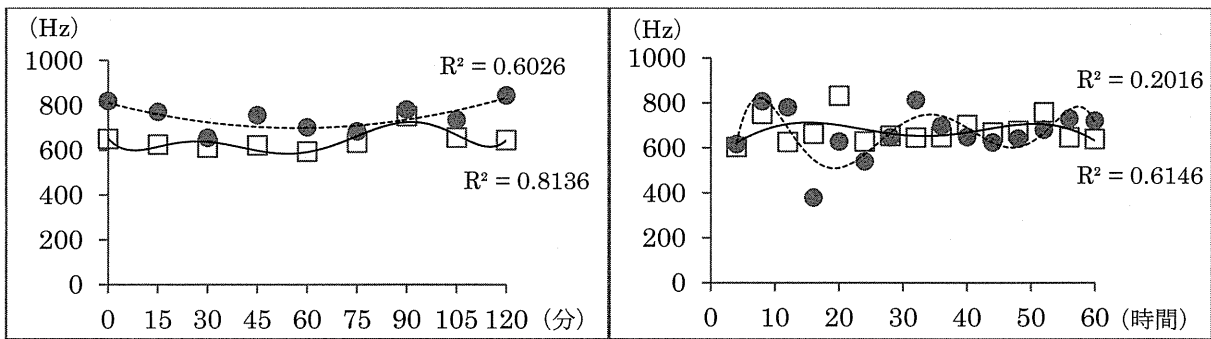


図6 最高基本周波数 発声課題⑤“小さい声で滑らかに高く”

縦軸は発声課題⑤の際の最高基本周波数の値を、横軸は時間経過を示した散布図

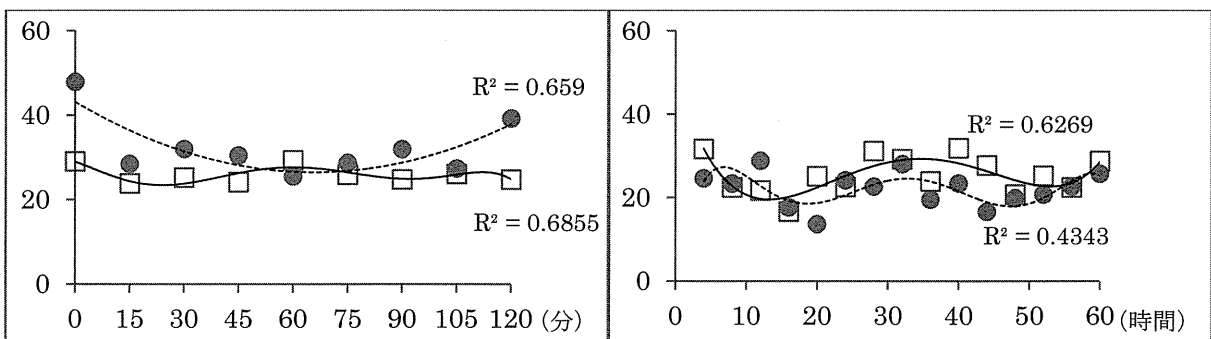


図7 PPQ 発声課題③“小さく高い声”

縦軸は発声課題③の際のPPQの平均値を角変換（上限値2）した値を、横軸は時間経過を示した散布図

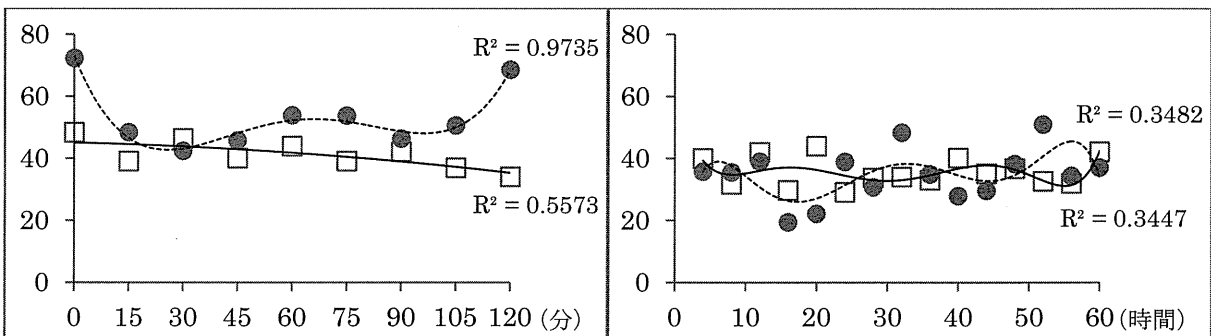


図8 APQ 発声課題③“小さく高い声”

縦軸は発声課題③の際のAPQの平均値を角変換（上限値9）した値を、横軸は時間経過を示した散布図

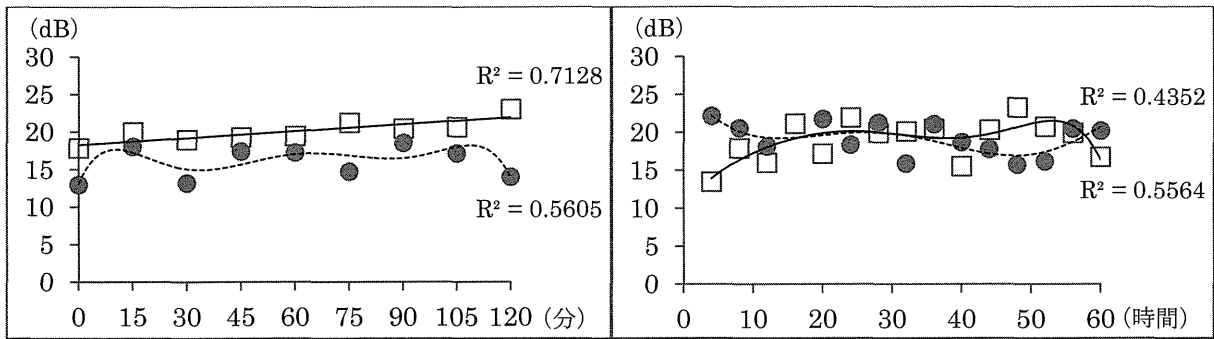


図9 発声課題③“小さく高い声”

縦軸は発声課題③の際の HNR の値の平均値を、横軸は時間経過を示した散布図

#### D. 考察

疲労過程では、自覚的評価項目のいずれも訓練後の方が、時間経過に伴う上昇率が低い傾向を示した。また音響分析でも、発声課題③の PPQ, APQ は訓練後の方が低い傾向を、HNR は高い傾向を示した。Scherer ら (1987)<sup>1)</sup> が提唱した音声疲労の分類には、①声質の変化、②発声時努力などを含む声の制約、③声のコントロール力の低下、④喉頭痛、頸部痛などを含む不快感がある。今回用いた自覚的評価の EFFT は彼らが提唱した音声疲労の症状②と、DISC は症状④と、IPSV は症状②や③と関係が深いと考えられる。したがって、疲労過程においては訓練後の方が自覚的な音声疲労の程度は低いと推測された。また、音響分析の PPQ, APQ は周波数や振幅の揺らぎを、HNR は雑音成分に対する調波成分の大きさを示しており、PPQ, APQ, HNR は症状①や③と関連していると考えられる。したがって、音響分析からも疲労過程においては、音声訓練の効果があつたと考えられる。最高基本周波数については、訓練前の方が高い傾向を示し、さらに訓練前、訓練後ともに時間経過に伴う一定の変化は認められなかった。Scherer ら (1987)<sup>1)</sup> の音声疲労の症状には、②声域の縮小を含む声の制約が挙げられている。音声疲労に伴い、最高基本周波数も低下すると予想されたが、本研究ではそのような変化は認められなかった。その要因として、最高基本周波数は発声課題⑤の録音音声进行分析しており、

発声には“小さい声”という負荷がかっている。最高基本周波数を測定するのに、この課題が適切であったかどうかは、今後検討していく必要があると考えられた。また、“高い声”を発声するには、多少の心理的抵抗があると推測される。一方、回復過程においては、自覚的評価のうち、訓練後の疲労曲線の方が低い傾向を示したのは IPSV のみで、他の評価項目には訓練前後で差異は認められず、IPSV に関しても、ばらつきが大きいと判断された。また音響分析のうち、訓練前後で差異が認められたものはなかった。したがって、回復過程には訓練効果が現れなかったと考えられる。

図5に示した IPSV のグラフのように、音声負荷課題開始前の平均評価値は、特に訓練前で、他の評価項目に比し高い傾向を示した。このことから、“小さく高い声”は、音声疲労の状態になっていなくても、もともと対象者にとって出しにくい声であったと推測できる。実際に、その“小さく高い声”で発声させたのが発声課題③である。今回、疲労過程において、PPQ, APQ, HNR の値が、訓練前に比し訓練後に良好な傾向を示したのは、全発声課題のうち課題③のみであった。また、今回実施させた発声課題①～④のうち、最も負荷のかかる発声は、課題③であると考えるのが妥当であろう。したがって、発声課題③の“小さく高い声”のようにより負荷の大きい発声は、音声疲労を鋭敏に反映し、音声疲労の感度が高いと考えられる。反対に、発声

課題④の“出しやすい声”すなわち通常の発声のように負荷が小さいと推測できる課題では、訓練前後や時間経過に伴う変化が小さかった。

Gelfer ら (1991) <sup>4)</sup> の先行研究でも、“快適な高さで比較的弱い声”と指示した発声の音声で音響分析を行ったが、一貫した傾向を示した指標はなかった。以上から、通常発声やそれに近い負荷の小さい発声では音声疲労の影響が現れにくく、負荷の大きい発声をした際に音声疲労の症状は現れると考えられる。音声疲労の有無や程度を言及するには、本研究で行った発声課題では課題③のような負荷発声を用いることが有効ではないかと推察される。

Hunter ら (2009) <sup>3)</sup> の研究では、音声負荷課題後は 2 時間おきに自覚的評価をさせている。その結果、音声疲労からの 50%回復は 4-6 時間後に、70%回復は 12-18 時間後に生じると報告している。50%回復の様子を追跡するには、評価を 2 時間おきと、本研究よりも頻回に行う必要があるかもしれない。評価の頻度については、協力者の負担も考慮しつつ、今後の課題として検討する必要がある。

今回の研究では、疲労過程・回復過程の両過程において、評価値が協力者間で大きく異なる場合があった。たとえば、音声負荷課題を行う前から IPSV が高値の者がいる一方、評価値が 1 や 2 と低値の者もいた。回復過程においても、評価値が比較的高いままの者もいれば、音声負荷課題実施日の夜には、課題開始前の評価値まで回復している者もいた。このように、疲労の感じ方や捉え方は人により異なっており、またそれこそが疲労の特徴と考えることもできるだろう。また訓練後、訓練前に比し評価値が低い傾向を示した者や、「今回の方が疲れなかった」と自由記述した者がいることから、訓練を行うことで心理的に疲労を感じにくくなったことも考えられる。心理的な疲労の程度と、器質的・機能的な疲労の程度が異なっている場合もあると推測できる。これらのことから、疲労の評価には自覚的評価だけでなく、音響分析の

ような客観的な評価指標を用いることも重要であると言える。

## E. 結論

“小さく高い声”のような音声負荷発声は音声疲労の感度が高いと考えられ、今後、自覚的評価と音響分析の両側面から、痙攣性発声障害などの神経疾患、声帯接結などの器質的疾患、および声帯に器質的疾患のない機能的発声障害などを対象にさらに音声疲労の検討を行う必要がある。

**謝辞：**本研究は県立広島大学保健福祉学部コミュニケーション障害学科の伊藤愛氏との共同研究であり、この一部は氏の卒業論文として公表された。

## 文献

- 1) R. C. Sherer, I. R. Titze, et al.: Vocal fatigue in trained and an untrained voice user. T. Bear, C. Sasaki, K. Harris eds., *Laryngeal Function Phonation and Respiration*. Boston, Little, Brown and Company, 533-555, 1987
- 2) D. J. McCabe, I. R. Titze: Chant therapy for treating vocal fatigue among public school teachers: A preliminary study. *American Journal of Speech- Language Pathology*, 11: 356-369, 2002
- 3) E. J. Hunter, I. R. Titze: Quantifying vocal fatigue recovery: Dynamic vocal recovery trajectories after a vocal loading exercise. *Ann Otol Rhinol Laryngeal*. 118(6): 449-460, 2009
- 4) M. P. Gelfer, M. L. Andrews, C. P. Schmidt: Effects of prolonged loud reading on selected measures of vocal function in trained and untrained singers. *Journal of Voice*, 5(2): 158-167. 1991
- 5) C. Nanjundeswaran, B. H. Jacobson, et al.: Vocal fatigue index (VFI): development and validation. *Journal of Voice*, 29(4): 433-440. 2015
- 6) 川和孝：日本語の発声レッスン改訂新版・一般編。東京，新水社。169-190. 1988
- 7) I. R. Titze, E. J. Hunter, J. G. Švec: Voicing and

silence periods in daily and weekly vocalizations of teachers. Acoustical Society of America, 121(1): 469-478, 2007

- 8) E. J. Hunter: General statistics of the NCVS self-administered vocal rating (SAVRa). The National Center for Voice & Speech. (pdf). 2008 <[http://www.ncvs.org/research\\_techbriefs.html](http://www.ncvs.org/research_techbriefs.html)>

#### F. 研究発表

##### 1. 論文発表

- 1) 奥田 晶史, 玉井 ふみ, 城本 修: 学童における声の音響パラメータの検討. 音声言語医学 56(2),166-170, 2015.
- 2) 眞田真里絵, 城本修, 眞田友明, 泉恵得: 児童の頭声発声と胸声発声との比較による音響学的・生理学的一考察. 声楽発声研究 6:13-20, 2015.

#### 2. 学会発表

- 1) 伊藤 愛, 土師知行, 城本 修: 音声疲労の予防訓練としてのチューブ発声法の意義ー自覚的評価と音響分析を用いた検討ー. 第17回日本言語聴覚学会, 京都, 2016.6.10-11

#### G. 知的財産権の出願・登録状況

##### 1. 特許取得

なし

##### 2. 実用新案登録

なし

##### 3. その他

なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業））  
分担研究報告書

内転型痙攣性発声障害における音読時の音響特徴に関する検討

分担研究者 西澤典子 北海道医療大学心理科学部言語聴覚療法学科 教授  
研究協力者 柳田早織 北海道医療大学心理科学部言語聴覚療法学科助教  
溝口兼司 北海道大学大学院医学研究科耳鼻咽喉科・頭頸部外科 医員

**研究要旨**

内転型痙攣性発声障害の音声症状を、聴覚心理的評価と音響分析により明らかにすることを目的として検討を行った。

【対象と方法】対象は2014年2月から2015年3月までに北海道医療大学病院を受診し、内転型痙攣性発声障害と診断された8例（全て女性、31-56歳）と、健常女性5例（全例とも21歳）である。有響音の連続からなる発話課題を用意し、音声の基本周波数の変化、周期性、有響音の途絶等について検討した。【結果】内転型痙攣性発声障害では、音読時に急激なピッチ変動がみられ（ $p < 0.01$ ）、非周期的な振動をもつ要素が増加し（ $p < 0.01$ ）、その持続時間は100ms以上の長いものも観察され、音声途絶数が増加していた（ $p < 0.01$ ）。【考察】内転型痙攣性発声障害でみられる声のつまりや途切れなどの音声症状は、音響分析によりある程度定量的に評価できる可能性が示された。異常を示すパラメータの単純な頻度だけでなく、その持続時間の検討を行うことで、重症度判定のツールとして役立つ可能性が考えられる。

**A. 研究目的**

痙攣性発声障害は、近年広く知られるようになり、外来を訪れる患者数が増加している。本疾患はその特徴的な音声症状から診断は熟練した臨床家が行えば比較的容易とされるものの、施設ごとの診断基準や評価法が必ずしも統一されているとは言えず、確定診断は内視鏡所見、音声所見を総合して、定性的な情報から経験的に行わざるをえない。また、音声症状が誘発される場面や苦手とする言葉が患者によって多様であり、重症度評価に苦慮することがある。研究者らは、統制された発話課題を用いた、聴覚心理的測定と、音響分析により内転型痙攣性発声障害の音声症状を定量化し、その特徴を検討した。

**B. 研究方法**

対象は2014年2月から2015年3月までに

当院を受診し、内転型痙攣性発声障害と診断された8例（全て女性、31-56歳）と、健常女性5例（全例とも21歳）とした。分析対象とした発話課題は、有声音を多く含んだ2文（「1. 雨がやんだら海にもぐろう。」「2. あの山の上には青い屋根の家がある。」）の音読とした。

音響分析の方法はEdgarら<sup>1)</sup>による先行研究に準じた。それぞれの音読課題を時間軸上で10msごとの時間窓に区切り、窓ごとに基本周波数（F0）を算出した。各文について、①50ms区間毎のF0変化量（Number of frequency shift）、②F0検出不能な区間数と持続時間（Number and duration of aperiodic segments）、③音声途絶の回数（Number of phonatory breaks）、の3項目について検討した。音響分析ソフトはPraatを用いた。



C. 結果 (図 1-4)

1. 50ms 区間ごとの F0 変化量 (図 1、図 2)

10ms ずつの時間窓を連続する 5 個ずつ (50ms) のグループに分け、50ms 区間に属する 5 個の 10ms 時間窓における F0 と、区間の平均値との差(F0 変化量)を 10ms 時間窓ごとに算出し検討した。

図 1 に課題ごとの F0 変化量の平均値を疾患群と健常群で比較した。疾患群では F0 変化量が大きく、健常者でみられる「抑揚の範囲」を超えた急激なピッチ変動がみられた。50ms 区間の F0 変化量を 10ms 時間窓ごとに計算し、健常者の変化量を 2SD 以上逸脱した区間の数を症例別に検討した。(図 2) その結果、F0 の変動は、「逸脱の頻度」と「逸脱の程度」の両側面から評価しなければならないことがわかった。たとえば、全区間に占める逸脱の頻度は、症例 2、4、7 で 37%と同様であったが、その内訳をみると、健常者の値から 10SD 以上逸脱した回数は、症例 7 で 6 回と最も高く、症例 2 で 3 回、症例 4 で 1 回となっていた。

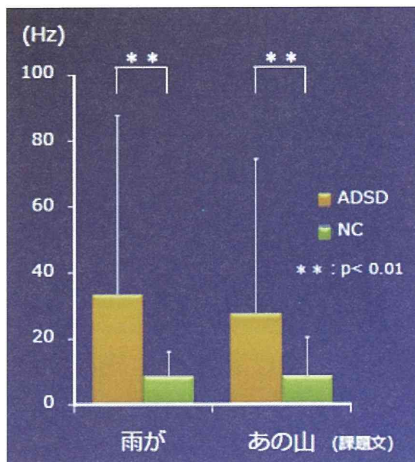


図 1. 課題ごとの F0 変化量

課題文全体を連続する 50ms の区間に分け、10ms 窓ごとに算出された F0 値と区間の平均との差を課題ごとに検討した。内転型痙攣性発声障害:疾患群の平均+SD NC:健常群の平均+SD

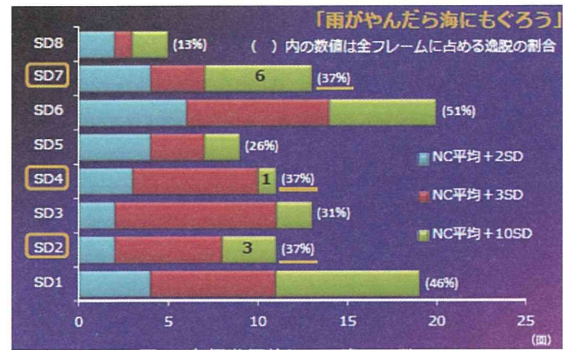


図 2. 正常な抑揚の範囲を超えた F0 逸脱の頻度と程度

課題文で健常群の平均を 2SD 以上逸脱した 50ms 区間の出現頻度と逸脱の程度を症例ごとに示した。

2. F0 検出不能区間数と持続時間

本研究では、課題文の F0 検出を Praat の自動解析によって行った。その結果、特に疾患群において、有響音の連続で構成された課題文の中に、聴覚的には有響音と知覚されてもソフトウェアによる F0 の検出ができない区間が出現した。F0 検出不能な区間の出現回数と持続時間の平均値を課題文ごとに示した。(図 3、4)

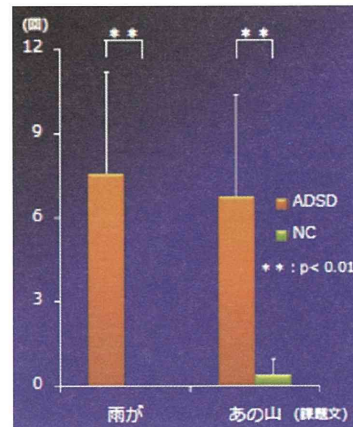


図 3. F0 検出不能区間数

聴覚的には有響音に聞こえても PRAAT 自動解析によって F0 の検出ができなかった区間の数を課題ごとに平均値で示した。内転型痙攣性発声障害:疾患群の平均+SD NC:健常群の平均+SD

本研究に用いた課題文は、有響音の連続か



らなり、健常群の発話においては、F0 検出不能の区間はほとんど見られなかったが、疾患群においては、課題文 1 で平均 7.6 回 44.4 秒、課題文 2 で 6.8 回 47.5 秒で、健常群と比較して有意差を認めた。

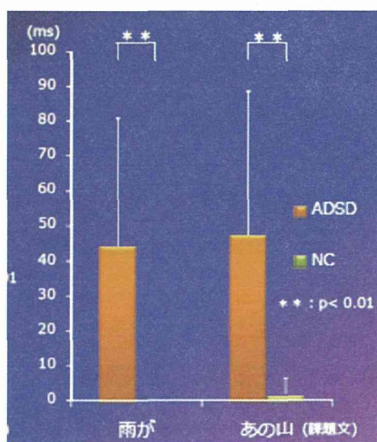


図 4. F0 検出不能区間の持続時間

聴覚的には有響音に聞こえても Praat 自動解析によって F0 の検出ができなかった区間の持続時間を課題ごとに平均値で示した。内転型痙攣性発声障害:疾患群の平均+SD NC:健常群の平均+SD

疾患群について F0 検出不能区間の回数と持続時間を症例ごとに検討した (図 5)。

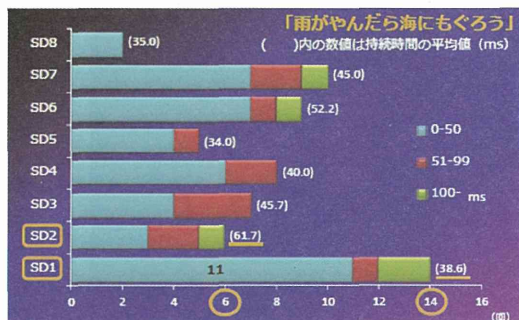


図 5. F0 検出不能区間の出現回数と持続時間

課題文 1 について、F0 が検出できなかった区間の出現回数と平均持続時間を症例ごとに比較した。

症例 1 では頻度は 14 回と 8 例中最多であったものの、持続時間が 50 ミリ秒以内

と短いものが半数以上を占めており、持続時間の合計は 38.6 ミリ秒であった。一方、症例 2 では、頻度は 6 回と少なかったものの、平均持続時間は 61.7 ミリ秒と 8 例中最長であった。F0 検出不能区間についても、出現回数が多いものが必ずしも持続時間が長いとはいえなかった。

### 3. 音声途絶の回数

有響音の連続からなる課題文 1、2 の音読において、健常群では Praat の自動解析で音声途絶 (voice break) と判定される区間は認められなかったが、疾患群においては、全例で音声途絶し無音となる区間が検出された。図 6 に課題文 1 における音声途絶の回数と持続時間を症例ごとに示した。音声途絶区間の出現回数は個人差があるが、F0 の逸脱や検出不能区間が多く観察された症例 1、6、7 で多い傾向にあった。



図 6. 疾患群における音声途絶区間出現回数

課題文 1 について、音声途絶区間の出現回数を症例ごとに比較した。

### D. 考察

痙攣性発声障害は、内喉頭筋を中心とする発声関連筋が発声協調を逸脱した非合目的緊張を反復することによって起こる発声の障害である。本疾患の症状は近年局所性ジストニアとして説明されることが多いが、運

動制御系のどこに障害があるのかは特定されていない。また、声の詰まり、震え、途切れなどを発話において反復するという特徴的な音声症状から、診断は比較的容易とされるものの、疾患の本態について神経病理学的な解明が不完全であり、確定的な診断基準がないため、機能性音声障害など他の発声行動の異常との鑑別や、重症度分類について、診断基準が確立していない。

### 1. 内転型痙攣性発声障害症例の発話の音響的特徴

本研究は、単一の医療施設において、専門外来を担当する音声専門医と言語聴覚士の合議によって診断された内転型痙攣性発声障害症例 8 例について、有響音の連続からなる発話課題を設定し、その音響的特徴を分析ソフト Praat の自動解析機能を使ってどの程度抽出できるかを検討したものである。その結果、以下が明らかとなった。

- 1) 健常群における 50ms 区間での F0 変動域を「正常な抑揚範囲」と考えると、疾患群ではこれを逸脱した変動が全例に観察された。
- 2) 自動解析によって F0 の抽出ができない区間、あるいは音声途絶する区間は、健常群ではほとんど認められなかったが、疾患群では全例に認められた。
- 3) 正常な抑揚範囲を逸脱する F0 変動、F0 抽出不能区間の回数が多い症例では、音声途絶の回数も多い傾向にあった。
- 4) 正常な抑揚範囲を逸脱する F0 変動、F0 抽出不能区間を症例ごとに検討すると、出現回数と持続時間は必ずしも一致しなかった。

以上から、内転型痙攣性発声障害患者の発話においては、有響音の連続する発話課題において、声の高さの不自然な変動や周期性の逸脱、さらに音声の途絶などが特徴的に出現することが明らかとなった。しかし、その出現頻度や持続時間には個人差があった。これらの音響的特徴の背景には、喉頭筋における発声調節の破綻に起因する声帯振動の規則性の異常が背景にあることは容易に想像で

きる。しかし、その病態の詳細を明らかにするためには、実験音声学的手法を用いた喉頭調節、声帯振動、音響の多元的な解析が必要となる。この領域の研究は、痙攣性発声障害についてはほとんど報告されておらず、今後の課題である。

### 2. 音響的特徴と発話の聴覚的印象

讃岐ら<sup>2)</sup>は、痙攣性発声障害を多く診療する専門機関へのアンケート調査から、本疾患の音声所見の特徴として、途切れ、声のつまり、声の震え、努力性発声、高音発声での症状消失などを報告している。Edagr ら<sup>1)</sup>は、外転型を含む痙攣性発声障害について、その聴覚的印象を voice break と tremor と考え、課題文の音響分析結果と関連付けることを試みた。

本研究において明らかにされた音響特徴が、発話の聴覚的印象にどのように影響するかについては、分析に用いた発話サンプルの聴覚的印象を表現する適切な形容詞を特定し、これを数値化したうえで、音響特徴との関係を検討することが課題であろう。発声障害の重症度は、さまざまな要因に影響されるが、結局患者自身の発話の困難度を総合的に示すものでなくてはならないと考える。今回示された、痙攣性発声障害の音響特徴の多面性、多様性から、その重症度分類を合理的に策定するには、音響的変数と他覚的な聴覚印象の関連のみならず、自覚的な重症度や、音響以外の発声・発話機能の評価と関連付けた検討が必要となるかもしれない。

### 3. 音響分析ソフトによる自動解析の限界

今回用いた分析ソフト Praat をはじめ、声の評価に広く用いられている音響分析ソフトウェアは、「基本周波数の抽出」をその解析の基本に置いて、雑音成分比やゆらぎを算出している。この方法は、周期性がある程度保たれ、連続的な基本周波数の抽出が可能である音声を対象とすることを前提としている。一方、今回分析の対象としたような、周波数の変動が大きく、周期性が持続的に確保

されない音声については、特に周期逸脱が起こる場合に分析の信用性が著しく低下する。これら、「もともと周期性を前提としがたい音声」について、自動解析の限界を認識し、光学的、電気生理学的な声帯振動のモニタを含めたさらに精密な検討を行っていくことが必要と考えられる。

#### E. 結論

痙攣性発声障害は、その特徴的な音声症状から、診断は比較的容易とされるものの、疾患の本態について神経病理学的な解明が不完全であり、確定的な診断基準がないため、機能性音声障害や本態性音声振戦症などとの鑑別診断が困難であることも多い。本疾患でみられる声のつまりや途切れなどの音声症状は、音響分析によりある程度定量的に評価できる可能性が示された。異常を示すパラメータの単純な頻度だけでなく、その持続時間の検討を行うことで、重症度判定のツールとして役立つ可能性が考えられる。本疾患の病態を解明するためには、本疾患が声門閉鎖／開大の調節障害による「音声」の障害にとどまらず、呼吸や韻律調節を含めた「発話」の障害を引き起こす可能性を念頭に置き、多角的な視点からの評価を統制された方法で行うことが必要である。

#### 参考文献

- 1) Edgar JD, Sapienza CM, Bidus K et al. : Acoustic measures of symptoms in abductor spasmodic dysphonia. *J Voice*, 15:362-372, 2011
- 2) 讃岐徹治, 湯本英二: 痙攣性発声障害の診断-アンケート調査による検討-. *喉頭*, 26: 81-85, 2014

#### F. 研究発表

##### 1. 論文発表

- 1) Yanagida S, Nishizawa N, Mizoguchi K, Hatakeyama H and Fukuda S: Voice Onset Time for the Word-Initial Voiceless Consonant /t/ in Japanese Spasmodic Dysphonia - A Comparison with Normal Controls -. *J Voice* 29(4): 450-454, 2015

##### 2. 学会発表

- 1) 柳田早織, 西澤典子, 畠山博充, 溝口兼司: 内転型痙攣性発声障害における音読時の音響特徴に関する検討. *音声言語医学*, 名古屋市, 2015.10.15~16.
- 2) 柳田早織, 熊田政信, 浅野健人: 痙攣性発声障害の診断および治療の現状と問題点 (シンポジウム 8「痙攣性発声障害」). *日本ボツリヌス治療学会第2回学術大会*, 東京都, 2015.10.2~3.
- 3) 溝口兼司, 畠山博充, 柳田早織, 西澤典子, 福田諭: 内転型痙攣性発声障害に対する甲状軟骨形成術Ⅱ型施行例における, 自覚的非改善症例の検討. *日本喉頭科学会総会・学術講演会*, 大阪市, 2016.3.3~4.

#### G. 知的所有権の出願・取得状況 (予定を含む)

##### 1 特許取得

なし

##### 2 実用新案登録

なし

##### 3 その他

なし

#### IV. 研究成果の刊行に関する一覧表