

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。旅人のがいとつ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

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他

なし