

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）

痙攣性発声障害に関する調査研究

平成 25 年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 兵頭 政光
平成 26 (2014) 年 3 月

目 次

・ 総括研究報告

痙攣性発声障害に関する調査研究

兵頭 政光

（資料1）痙攣性発声障害患者調査用紙（一次調査）

（資料2）痙攣性発声障害患者調査用紙（二次調査）

・ 分担研究報告

1．痙攣性発声障害の診断について 湯本英二

2．痙攣性発声障害の調査研究 久 育男

3．痙攣性発声障害に対する調査研究 大森孝一

4．北海道医療大学病院における痙攣性発声障害例の疫学的調査 西澤典子

5．痙攣性発声障害と過緊張性発声障害の鑑別診断のための舌交互反復運動の生理学的検証 城本 修

・ 研究成果の刊行に関する一覧表

・ 研究成果の刊行物・別刷

・ 研究成果の刊行物・別刷

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））
総括研究報告書

痙攣性発声障害に関する調査研究

研究代表者 兵頭政光 高知大学教育研究部医療学系臨床医学部門耳鼻咽喉科教授
研究分担者 松本宗一 高知大学教育研究部医療学系臨床医学部門耳鼻咽喉科助教
研究分担者 熊谷直子 高知大学医学部附属病院次世代医療創造センター特任助教

研究要旨

痙攣性発声障害患者数や臨床像を明らかにすることを目的として、本症の音声所見を収録したサンプルCDを作成した上で、全国の主要な耳鼻咽喉科医療機関 655 施設を対象としてアンケート方式による疫学調査を実施した。その結果、過去2年間に全国で1,081例(0.86人/10万人)の新規患者がいることが確認できた。このことから、実際の有病率は従来報告されていたよりも多いことが推測される。臨床像としては、20～40歳代の女性に多く、内転型が約93%を占めていた。症状では内転型は声の詰まりや努力性発声、外転型は失声や声が抜けるなどが特徴的であった。治療は一部の医療機関で、A型ボツリヌス毒素の内喉頭筋内注入療法や甲状軟骨形成術型などが集約的に行われていた。今後、今回の調査結果などを基にして、診断基準の作成や治療指針の確立につなげてゆきたい。

研究分担者：

松本宗一(高知大学教育研究部医療学系臨床医学部門耳鼻咽喉科・助教)

湯本英二(熊本大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科・教授)

久育男(京都府立医科大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科・教授)

大森孝一(福島県立医科大学医学部耳鼻咽喉科・教授)

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)

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)

熊谷直子(高知大学医学部附属病院次世代医療創造センター・特任助教)

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、発声時に内喉頭筋の不随意的、断続的な痙攣による発声障害をきたす。本症は内転型と外転型に分けられるが、内転型では発声時に声帯が不随意的、断続的に強く内転することで発声時の呼气流が遮断され、声が途切れ途切れになる。一方、外転型は発声時に声門が不随意的に開大して息漏れ声、声の翻転、失声を呈する。いずれにおいても通常の会話機能が著しく障害される。このため、電話での応対ができなくなったり、仕事を辞めざるを得なかったり、人との接触を避けるようになったりと、仕事や社会生活をおくる上で極めて大きな支障をきたす。

しかし、本疾患の患者実態は不明で診断基準も国内はもとより海外においても確立されていないことから、耳鼻咽喉科医においても十分に認知されておらず、心因性発声障害などと混同され、患者は複数の医療機関を転々とすることも多い。有病率について海外では人口10万人あたり約1.0人との報告があり、極めて稀少な疾患と考えられている (Castelon KE: Neuroepidemiol 2002)。国内での調査でも人口10万人あたり0.94人で、全国で約1,200人の患者がいると推定されている (山崎竜一: 音声言語. 2001)。しかし、これは一部の医療機関を対象としたアンケート調査から推計したものであり、直接痙攣性発声障害の患者数を調査したものではないことから、正確な患者実態は不明である。このようなことから、本研究は大規模な全国調査により本疾患の実態把握を行うとともに、その臨床像を明らかにすることを目的とした。

B. 研究方法

全国の主要な耳鼻咽喉科医療機関を対象として患者実態についてのアンケート調査を実施した。その際に、本疾患は稀少なことから一般の耳鼻咽喉科医では認識や臨床経験が少ないことが予想されるため、まず、調査時の参考とするために代表的な患者の音声サンプルを収録したCDを作成した。

1) 音声サンプルCDの作成

内転型痙攣性発声障害 11 例 (軽度 2 例、中等度 5 例、高度 4 例) および外転型痙攣性発声障害 2 例の代表的な音声サンプルを収録したCDを作成した。データはHTML形式として収録することで、Windows、Macintoshのい

ずれのPCでも閲覧することができるように工夫した (図1)。



図1 音声サンプルCDのメニュー画面

2) 一次アンケート調査

過去2年間に受診した痙攣性発声障害の患者数(疑い患者を含む)およびこれらの患者の年齢および性別に関するアンケート調査を平成25年12月に郵送法にて行った。アンケート用紙(資料1)は、全国の日本耳鼻咽喉科学会専門医制度認可研修施設(641施設)ならびに痙攣性発声障害患者の診療実績を有する可能性が高いその他の医療機関(14施設)の計655施設に対して、先に作成した音声サンプルCDとともに送付し、郵送にて回

答してもらった。先に述べたように本疾患患者は複数の医療機関を受診していることが多いため、全国すべての日本耳鼻咽喉科学会専門医制度認可研修施設を対象としてアンケートを実施することで、本疾患患者の多くは把握できるものと考えられる。

3) 二次アンケート調査

一次アンケート調査にて、痙攣性発声障害患者（疑い患者を含む）の受診があると回答した医療機関を対象に二次アンケート調査を行った。調査の内容は、患者の年齢・性別、病型（内転型・外転型・混合型の別）、初診・再診の別（初診の場合には初診日）、症状、症状発現から初診までの期間、初診までの他の医療機関受診の有無とその数、治療の有無（有りの場合にはその内容）、他の医療機関への紹介の有無（有りの場合には医療機関名）、痙攣性発声障害診療における診断や治療などで問題と感じている点、とした。

4) 倫理面への配慮

本研究は疫学研究に関する倫理指針（平成19年文部科学省・厚生労働省告示第1号）ヘルシンキ宣言の規定など関連する法律・省令・指針などを遵守して実施し、研究代表者および各研究分担者の所属施設の倫理審査委員会による審査及び承認を受けた。（高知大学医学部附属病院：承認番号：2013-073）アンケート調査では、患者情報は年齢および性別などに関するもののみとし、患者個人を特定しうる情報は収集しないこととした。

C. 研究結果

1) 一次アンケート調査

平成26年1月30日時点で、369施設（56.3%）より回答が得られた。過去2年間の患者数は0例（最少）～457例（最多）と施設間ではばらつきが極めて大きかった。50例以上の患者数がある施設は6施設のみであった。

患者数はのべ1,746例で、このうち確実と思われる例が1,224例であった。病型別では内転型が1,639例（うち、確実と思われる例が1,195例）、外転型が91例（同、64例）、混合型が16例（同、12例）、不明が1例であった。全1,746例のうち、病型と性別が把握できた例は1,534例あった。そこで、この1,534例を対象に解析を行った。

患者の性別は男性298例（19.4%）、女性1,236例（80.6%）で、男女比は約1:4.2と女性に多かった（表1）。病型別の患者数は内転型1,430例（93.3%）、外転型88例（5.7%）、混合型およびその他16例（1.0%）であった。病型を性別で比較すると、内転型では男女比が1:4.2であるのに対して、外転型では1:2.8であり、外転型では内転型より男性の比率が高かった。

表1 病型別・男女別の患者数

	男性	女性	合計
内転型	273	1,157	1,430
外転型	23	65	88
混合型・その他	2	14	16
合計	298	1,236	1,534

次に患者の性別と年齢が把握できた1,519例について検討をした。患者の年齢は最年少が12歳、最高齢が91歳であり、平均年齢は男性が39.0歳、女性が38.8歳であり、男女

間では差を認めなかった。年齢別でみると20歳代が30.6%と最多で、次いで30歳代が28.5%、40歳代が15.2%の順であった。すなわち20~40歳代が全体の74.3%と多くを占めていた(図2)。男女間で年齢分布には差を認めなかった。病型別

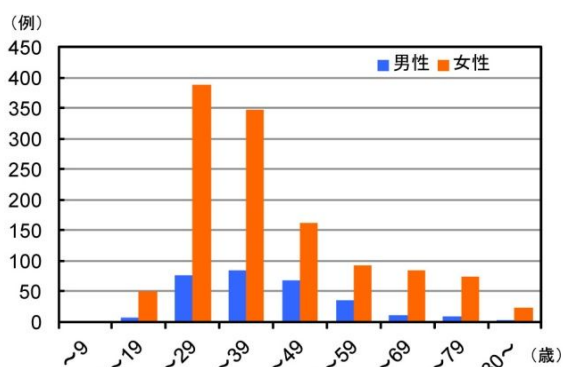


図2 患者の年齢・性別分布
 の年齢は内転型 38.6 歳、外転型 42.5 歳、混合型 36.9 歳であり、外転型の年齢がやや高かった。

2) 二次アンケート調査

平成 26 年 4 月 30 日現在、1,282 例についての 2 次アンケートの回答が得られた。一次アンケート調査で病型と性別が判明していた症例数を基にした回収率は 83.6%になる。

症状(複数回答あり)について集計すると、内転型では声の詰まりが最も多く 76.8%の例に認められた。次いで嘔声、声の震え、声の途切れなどがそれぞれ 20~30%の例にみられた。一方、外転型では嘔声が 46.7%と最も多く、次いで声の途切れや失声が比較的多くみられた。内転型と外転型を比較すると、内転型では声の詰まりや努力性発声が特徴的な症状であり、一方、外転型では失声や声が抜ける、息がもれるなどの症状が特徴的であった。症状発現から医療機関受診までの期間は 1 カ

月~46 年と極めて幅があり、中央値は 3 年 0 カ月であった。10 年以上の罹病期間を要する患者も 5 人に 1 人(20.9%)に及んだ。

表 2 病型別の症状の頻度

症状	内転型	外転型
声の詰まり	76.8%	16.0%
嘔声	27.5%	46.7%
声のふるえ	22.0%	12.0%
声の途切れ	21.6%	24.0%
努力性発声	12.2%	1.3%
失声、声が抜ける、等	1.0%	21.3%

当該医療機関を受診するまでに、76.0%の患者は他の医療機関を過去に受診していた。中には約 20 年間に 30 以上の医療機関を受診していた患者もいた。調査期間内に医療機関を初診した患者は内転型 1,140 例、外転型 74 例、混合型 9 例の計 1,223 例であった。この中から、他の医療機関へ紹介された患者はそれぞれ 1,023 例、12 例、7 例あり、これらの患者は重複して集計されていると考えられるため、これらを除することで、調査対象とした 2 年間の新規患者数は内転型 1,012 例、外転型 62 例、混合型 7 例の合計 1,081 例ということになる。

治療では 86.3%の患者が痙攣性発声障害に対して何らかの治療を受けており、そのうち 44.2%が音声治療を、45.5%が A 型ボツリヌス毒素の内喉頭筋内注入療法を、24.1%が手術治療を受けていた。手術治療の内容としては甲状軟骨形成術型が大半を占め、一部の症例に対しては甲状披裂筋に切除術も行われていた。A 型ボツリヌス毒素の内喉頭筋内注入療法や甲状軟骨形成術型の手術治療は特定

の数施設で集約的に行われており、これらの医療機関へ患者が集中していた。

D. 考察

これまでに痙攣性発声障害に関する大規模な全国規模の疫学調査は、本邦ではもとより海外でも行われていない。そこで今回、全国の主要な耳鼻咽喉科医療機関を対象として本疾患に関する疫学調査を実施した。

Castelon ら(2002)はミュンヘン市におけるジストニアの疫学調査を行い、その中で痙攣性発声障害の有病率について、人口10万人あたり1.0人(95%信頼区間:0.4-1.5人)と報告した。また、山崎ら(2001)は全国の大学病院を対象としたアンケート調査により5年間に224例の痙攣性発声障害患者受診があったと報告した。さらに、同時期の喉頭癌、突発性難聴、顔面神経麻痺の患者数と比較することで有病率を算出すると、人口10万人あたり、喉頭癌からは0.29人、突発性難聴からは0.77人、ベル麻痺からは0.94人と推計した。

今回の調査の結果、2年間に全国の耳鼻咽喉科医療機関を受診した痙攣性発声障害患者は、疑い例を含めてのべ約1,700例余り、確実例で1,200例余りであった。病型は93.3%と大部分が内転型であり、外転型は5.7%に過ぎなかった。この結果は過去の報告と同様であり、本症は内転型が圧倒的に多いと考えてよいであろう。ただし、外転型は内転型と比較して音声障害の特徴が非典型的であり、診断の困難さが関わっている可能性はあり、今後本疾患の音声の特徴を臨床医に対して広く周知する必要があると思われる。

本症の患者は、本邦では若年の女性に多い

ことが指摘されている。山崎らは男女比が1:4.4であったとしており、今回の結果でも1:4.5とほぼ同様の結果であった。一方、海外では内転型における男女比が、Aronson らは1:1.1、Blitzer らは1:1.4であり、男女ほぼ同数かやや女性に多いと報告しており、われわれおよび山崎らの本邦での結果と大きく異なっていた。本疾患の罹患率に人種差があるのか、あるいは女性の方が音声障害を主訴として医療機関受診する機会が多いという社会的要因によるものかについては、今後の検討が必要と考える。年齢は、男性が平均39.0歳、女性が38.8歳とほとんど差はなかったが、病型別では内転型よりも外転型の方がやや年齢が高い傾向にあった。年齢分布では20~40歳代が約4分の3を占めており、比較的若年者に多いことが本疾患の特徴と言える。

一次調査結果で特筆すべきことの一つとして、100例を超える患者の診療を行っている医療機関が3施設あった。これらの医療機関はいずれも本症に対してA型ボツリヌス毒素の局所注入療法を積極的に実施している施設であった。また甲状軟骨形成術型を中心とした外科的治療を積極的に実施している数施設の医療機関にも、数十例の患者受診があった。このことは、本疾患に対して一般の医療機関で実施できる標準的な治療法がなく、特定の医療機関に患者が集中していることを示している。本疾患に対する標準的な治療法の開発と確立が望まれる。

アンケート二次調査では、患者の症状や医療機関の受診動態について検討を行った。症状は、内転型では声の詰まりを訴える患者が76.8%と最も多く認められた。また声の途切

れや努力性発声が多く認められた。声のふるえも約 20%に認められたが、アンケートの回答にもしばしば記載されていたように音声振戦症との鑑別が問題となる症状であり、痙攣性発声障害に特徴的な音声症状とは言いがたい。一方、外転型では声の詰まりや努力性発声はほとんど認められず、声の途切れ、失声、声が抜ける、息がもれるなどの症状を呈する例が多かった。また、声の翻転(声が裏返る)を呈する例もあり、外転型に特徴的な症状の一つと考えられる。このような音声の特徴の違いを認識しておくことが、本症を疑う上で重要と思われる。

罹病期間は最長で 46 年に及ぶ例もあり、10 年以上にわたる例も少なくなかった。中央値も 3 年 0 カ月であり、診断までに多くの時間を要していることが推測される。実際、76.0% の患者は過去に他の医療機関を受診しており、本症の診断の困難性をも示唆している。

さて、今回の調査を基にして、本邦における痙攣性発声障害患者数を推計してみたい。本調査の結果、重複例を除いて 2 年間に全国の医療機関を受診した新規患者数は 1,081 例であった。本症では自然治癒はほとんどないと考えられており、このことからすると実際の患者数は、その 5~10 倍(人口 10 万人当たり 4.30 人から 8.60 人)にも及ぶことが推測され、ベル麻痺の罹患数との対比から山崎らが推計した本邦における有病率(人口 10 万人当たり 0.94 人)よりはかなり多いことが考えられる。

今回の調査から明らかになったことの一つに、本症に対する認識が耳鼻咽喉科医の中でも随分と差があることが挙げられる。例えば

われわれが所属する高知県では今回、7 例の患者があった。一方、同規模ないし、より多くの人口を有する県であっても患者数が 0 名のところがあった。本疾患の罹病率に地域差はないと考えられており、このことは本疾患に対する認識が一部の地域あるいは医療機関においてまだ十分ではなく、本症の診断に至っていない患者も少なくないためと考えられる。このことからすると実際の痙攣性発声障害患者数はさらに多い可能性もある。今回の調査にあたって、われわれは痙攣性発声障害の重症度別の代表的な音声サンプルを収録した CD を作成した。この CD は本疾患に対する認識を啓発することにもつながり、「この CD を参考にして痙攣性発声障害に対する認識を高めるようにしたいと思います」などのコメントもアンケートの回答とともに寄せられており、CD を作成したことには意義があったと考えている。

治療においては音声治療、A 型ボツリヌス毒素の局所注入療法、甲状軟骨形成術型による外科的治療を受けていた患者が混在していた。中でも A 型ボツリヌス毒素の局所注入療法と外科的治療は特定の医療機関に集中していた。このことは裏を返せばどの医療機関でも実施できるような標準的な治療指針、治療法がないということでもある。今後、この点について関連する学会などが中心となり、全国規模での取り組みが望まれる。

E. 結論

痙攣性発声障害患者数や臨床像を明らかにすることを目的として、全国の主要な耳鼻咽喉科医療機関 655 施設を対象としてアンケー

ト方式による疫学調査を実施した。その結果、過去2年間に全国で1,081例(0.86人/10万人)の新規患者がいることが確認できた。このことからすると、実際の有病率は従来報告されていたよりも多いことが推測される。臨床像としては、20～40歳代の女性に多く、内転型が約93%を占めていた。症状では内転型は声の詰まりや努力性発声、外転型は失声や声が抜けるなどが特徴的であった。治療は限られた医療機関で、A型ボツリヌス毒素の内喉頭筋内注入療法や甲状軟骨形成術 型などが集約的に行われていた。今後、今回の調査結果などを基にして、診断基準の作成や治療指針の確立につなげてゆきたい。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 兵頭政光：嚥下障害，音声障害の診断・治療におけるインフォームド・コンセント（特集・耳鼻咽喉科外来におけるインフォ

ームド・コンセント）。MB ENT 163: 59-63, 2014

- 2) Nishida N, Taguchi A, Motoyoshi K, Hyodo M, et al.: Age-related changes in rat intrinsic laryngeal muscles: analysis of muscle fibers, muscle fiber proteins, and subneural apparatuses. Eur Arch Otorhinolaryngol 270; 975-984, 2013

2. 学会発表

- 1) 高橋朝妃, 土居奈央, 岩村健司, 長尾明日香, 兵頭政光: 音声外科手術例における Voice Handicap Index の変化. 第26回高知音声言語嚥下研究会. 2013(高知市)
- 2) 兵頭政光: 発声のメカニズムと障害への対応. 平成25年度日本耳鼻咽喉科学会高知県地方部会秋季学術集会. 2013(高知市)

G. 知的所有権の出願・取得状況(予定を含む)
なし

(資料1) 痙攣性発声障害患者調査用紙(一次調査)

痙攣性発声障害患者調査用紙（一次調査）

施設名： _____

診療科： _____

記入者名： _____

過去2年間（2011年10月～2013年9月）の間に、初診および再診を含めて、貴院を受診した痙攣性発声障害患者（疑い患者を含む）数をご記入ください。
（貴院における治療の有無は問いません）

	患者数（疑い例を含む）	うち、確実例数
内転型	_____ 例	_____ 例
外転型	_____ 例	_____ 例
混合型	_____ 例	_____ 例

患者数の推定精度を上げるため、期間中に該当する患者がいなかった場合にも、「0」と記入してご返送していただきますようお願い申し上げます。

痙攣性発声障害患者（疑い患者を含む）の受診があるご回答の場合、下記に患者プロフィールをご記入ください。

	年齢	性別	タイプ（わかる範囲で結構です）
記入例	28	女	(内転)・外転・混合
1	_____	_____	内転・外転・混合
2	_____	_____	内転・外転・混合
3	_____	_____	内転・外転・混合
4	_____	_____	内転・外転・混合
5	_____	_____	内転・外転・混合
6	_____	_____	内転・外転・混合
7	_____	_____	内転・外転・混合
8	_____	_____	内転・外転・混合
9	_____	_____	内転・外転・混合
10	_____	_____	内転・外転・混合

記入欄が足りない場合には、本紙をコピーしてご記入ください。
ご協力ありがとうございました。

(資料2) 痙攣性発声障害患者調査用紙(二次調査)

痙攣性発声障害患者調査用紙（二次調査）

施設名： _____

診療科： _____

記入者名： _____

Q1

過去2年間（2011年10月～2013年9月）の間に、初診および再診を含めて、貴院を受診した痙攣性発声障害患者さん（疑い患者さんを含む）について裏面および別紙に記載をお願いします。

わかる範囲で結構ですが、本疾患の臨床像を明らかにするため、できるだけ正確な記載をお願いします。

ご参考までに先日の一次調査でご回答いただいた貴院での結果を下記に示します。

	患者数（疑い例を含む）	うち、確実例数
内転型		
外転型		
混合型（または特殊型）		

データは患者さんごとに記入をお願いします。

用紙が足りない場合にはコピーして記載して下さい。

Q2

痙攣性発声障害の診療において問題点やお困りの点があれば、下記にご記入ください。

1) 診断について

2) 治療について

3) その他

患者

- 1) 初診時の年齢： _____ 歳 性別： 男性 女性
- 2) タイプ： 内転型 外転型 その他 () 不明
- 3) 初診 / 再診： 初診 初診月：平成_____年_____月
 再診
- 4) 主な症状 (複数選択可)
 声の詰まり 声の途切れ 努力性発声
 声が出ない 嚙声 声のふるえ
 失声 その他 ()
- 5) 症状発現～初診までの期間：約 _____ 年 _____ カ月
- 6) 貴院初診までに他の医療機関受診の有無： あり なし 不明
 「あり」の場合、過去の受診医療機関数： _____ 施設 不明
- 7) 貴院での治療の有無： あり なし
 「あり」の場合の治療内容 (複数選択可)
 音声治療 ボツリヌス毒素治療
 手術 (術式：)
 その他 ()
- 8) 治療、精査目的で他院への紹介の有無： あり なし
 「あり」の場合の紹介先 ()

患者

- 1) 初診時の年齢： _____ 歳 性別： 男性 女性
- 2) タイプ： 内転型 外転型 その他 () 不明
- 3) 初診 / 再診： 初診 初診月：平成_____年_____月
 再診
- 4) 主な症状 (複数選択可)
 声の詰まり 声の途切れ 努力性発声
 声が出ない 嚙声 声のふるえ
 失声 その他 ()
- 5) 症状発現～初診までの期間：約 _____ 年 _____ カ月
- 6) 貴院初診までに他の医療機関受診の有無： あり なし 不明
 「あり」の場合、過去の受診医療機関数： _____ 施設 不明
- 7) 貴院での治療の有無： あり なし
 「あり」の場合の治療内容 (複数選択可)
 音声治療 ボツリヌス毒素治療
 手術 (術式：)
 その他 ()
- 8) 治療、精査目的で他院への紹介の有無： あり なし
 「あり」の場合の紹介先 ()

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

痙攣性発声障害の診断について

研究分担者 湯本英二 熊本大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科教授
研究協力者 讃岐徹治 熊本大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科講師

研究要旨

全国の大学病院の耳鼻咽喉科、本疾患を積極的に治療している医療機関へ痙攣性発声障害（以下SD）の診断に関してアンケート調査を行った。

今回の検討からSDの症状や所見、鑑別疾患に関してアンケート回答施設において共通した認識があることが明らかとなり、その知識は過去の報告と一致していた。これはアンケート対象が大学病院やSD患者の診察を日々行っている医療機関であったためと考えられる。一般にSDが認知され、多くのSD患者が診断されるためには、専門学会が中心となって、詳細調査をもとに診断ガイドラインの作成が必要であると考えられた。

A. 研究目的

SDの診断における重要項目は、問診、音声所見と喉頭所見の3つである。問診では、自覚症状、病悩期間、病因の有無、他のジストニアの合併、症状増悪傾向を中心に尋ねる。音声所見においては持続母音発声、音読タスク、さらに自分が苦手としている言葉を記録する。さらに低音発声、高音発声、大声発声などを行い、症状の軽減増悪の度合いも観察することが重要とされている(讃岐徹治, 一色信彦 2005)。我々は、上記の重要項目に追加して、症状の軽い患者においては、日常会話を録音して持参してもらう工夫や過緊張性発声障害と鑑別するために音声治療を積極的に取り入れている(讃岐徹治 2009; 讃岐徹治 2012; 讃岐徹治, 一色信彦 2005)。しかしながら症例の中には診断に苦労することもたびたびある。

そこで全国の大学病院の耳鼻咽喉科、本疾患を積極的に治療している医療機関へSDの診断に関してアンケート調査を行い、SDの症状の特徴と診断について考察することとした。

B. 目的と方法

SD患者を診察、治療した担当医師の方々に記入してもらうアンケート方式をとった。全国81施設の大学病院耳鼻咽喉科と過去5年間にSDに関して研究報告を行った耳鼻咽喉科のある10医療機関、計91施設に自由記述形式のアンケートを送付した。検討項目は、過去1年間のSD患者数、内転型SDと外転型SDの診断における重要項目である問診、音声所見、喉頭所見のなかで重要な所見、また鑑別すべき疾患と鑑別診断の方法について最も重要と考える3つについて返答してもらい項目別に検討した。

C. 結果

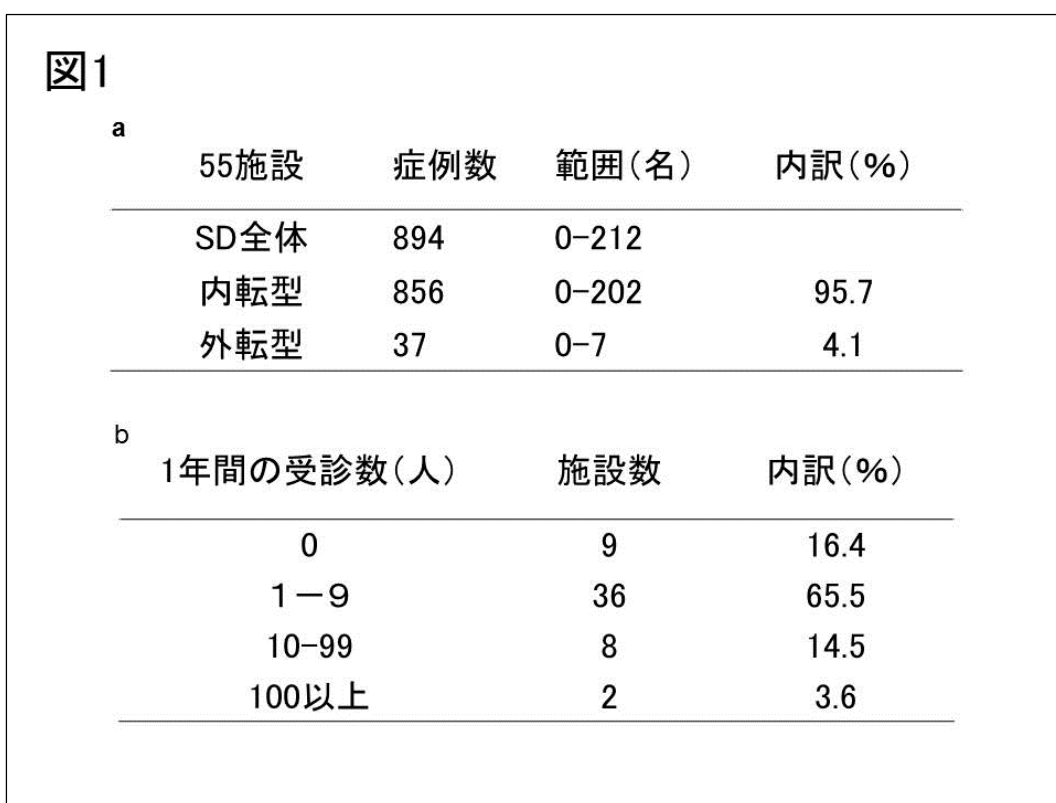
アンケートは平成 25 年 10 月末の郵送にて送付し、平成 26 年 2 月 1 日までに返信が得られた 55 施設分（回答率 60.4%）を集計対象とした。

アンケート集計結果を以下に示す。

1. SD の過去 1 年間外来患者数

アンケート回答施設における過去 1 年間の SD 患者総数は 894 例であった。内転

型 SD が 856 例（95.7%）、外転型 SD が 37 例（4.1%）であった（図 1a）。さらに 1 年間の受診患者数を 0 とした施設が 9 施設あり 55 施設中 16.4%であり、全て大学病院であった。一方受診患者数 100 名を超える施設は 2 施設であった（図 1b）。



2. 内転型 SD を診断する上での問診、音声所見、喉頭所見の特徴を示す（図 2a）。問診で多数なものは、「声の症状」、続いて「緊張（電話、仕事）での悪化」、さらに「症状の発現に関連する行動や言葉の有無」であった。音声所見の特徴は、「声の

途切れ」が最も多く、続いて「声の詰まり」、さらに「声の震え」であった。喉頭所見に関して「声帯の過内転」が最も多く、続いて「仮声帯の過内転」、「安静時正常（器質的異常はない）」であった。

図 2 痙攣性発声障害の特徴

A:内転型				B:外転型			
問診(146回答数、51施設)				問診(106回答数、45施設)			
声の症状	44	30.1	86.3	声が抜ける	18	16.8	40.0
緊張(電話、仕事)での悪化	21	14.4	41.2	声が出ない	10	9.3	22.2
症状発現に関連する行動や言葉の有無	15	10.3	29.4	声が途切れるか	8	7.5	17.8
病悩期間	13	8.9	25.5	症状発現に関連する行動や言葉の有無	7	6.5	15.6
歌唱、笑い声での軽減	9	6.2	17.6	自覚症状	7	6.5	15.6
発症時のイベントの有無	9	6.2	17.6	その他	56	52.3	124.4
その他	35	24.0	68.6				
音声所見(146回答、52施設)				音声所見(109回答、47施設)			
途切れ	32	21.9	61.5	会話中の急な無声化	36	33.0	76.6
声の詰まり	26	17.8	50.0	氣息性の嚙声	22	20.2	46.8
声の震え	22	15.1	42.3	発声時途中での声の抜け	9	8.3	19.1
努力性発声	18	12.3	34.6	声の途切れ	7	6.4	14.9
高音発声で症状が消失	16	11.0	30.8	息が漏れる	6	5.5	12.8
その他	32	21.9	61.5	その他	29	26.6	61.7
喉頭所見(139回答数、52施設)				喉頭所見(74回答数、41施設)			
声帯の過内転	34	24.5	65.4	両側声帯の不随な外転	26	35.1	63.4
仮声帯の過内転	21	15.1	40.4	発声時の声門間隙	16	21.6	39.0
安静時正常(器質的な異常はない)	21	15.1	40.4	器質的異常なし	10	13.5	24.4
披裂部過内転	12	8.6	23.1	発声時の不自然な声門の開大	9	12.2	22.0
声帯前後径の短縮	11	7.9	21.2	声帯麻痺なし	5	6.8	12.2
その他	40	28.8	76.9	その他	8	10.8	19.5

3. 外転型 SD を診断する上で問診、音声所見、喉頭所見の特徴を示す(図 2b)。問診で多数なものは、「声が抜ける」であった。続いて「声が出ない」。さらに「声が途切れる」であった。音声所見に関して回答数上位の特徴は、「会話中の急な無声化」、「氣息性の嚙声」、「発声時途中での声の抜け」であった。また喉頭所見の特徴は、「両側声帯の不随な外転」で、続いて「発声時の声門間隙」、さらに「器質的異常なし」であった。

4. 鑑別すべき疾患と鑑別診断の工夫に関するアンケート結果を図 3 に示す。鑑別すべき疾患に関して上位となった疾患は「過緊張性発声障害」、同数で「機能性発声障害(心因性発声障害も含む)」、次に「音声振戦症」であった。これらの鑑別方法について最も多い回答は、「音声所見、苦手な言葉や裏声発声などをいろいろ行うなどの丁寧な問診」であった。続いて「音声治療」、「声帯内リドカイン注射で症状の軽減を確認する」が上位を占めた。

図 3 鑑別すべき疾患と鑑別方法

鑑別が必要な疾患 (131回答数、51施設)	回答数	(%:全回答)	(%:施設)
過緊張性発声障害	40	30.5	78.4
機能性発声障害(心因)	40	30.5	78.4
本態性振戦	37	28.2	72.5
吃音	6	4.6	11.8
神経筋疾患	3	2.3	5.9
その他	7	5.3	13.7

鑑別診断の工夫 (90回答数、41施設)	回答数	(%:全回答)	(%:施設)
丁寧な問診(音声所見、苦手な言葉、裏声発声)	25	27.8	61.0
音声治療	24	26.7	58.5
声帯内キシロカイン注射	11	12.2	26.8
裏声発声	8	8.9	19.5
経過観察(発症早期)	6	6.7	14.6
他科コンサルト	6	6.7	14.6
その他	10	11.1	24.4

D. 考察

SD は、喉頭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り、発声時に内喉頭筋の不随意的、断続的な痙攣による発声障害をきたす疾患である。

SD の有病率について、これまで本格的な調査研究はされていない。山崎は、2001 年に大学病院に対して過去 5 年間の SD 患者のアンケート調査を行い、45 施設から回答を得た(山崎竜一 2001)。結果、過去 5 年間の外来患者総数は 224 名であった。同時に他の疾患の罹病率から SD の罹病率を算定し人口 10 万人あたり 0.94 人と報告した。また山崎の調査では、1 施設当たりの患者数は 1.7 症例 / 年間であった。本研究では過去 1 年間の SD 患者総数は 894 症例、1 施設当たりの患者数に算定すると約 16.3 症例 / 年間であり、山崎の報告より 9.6 倍多い結果が得られた。我が国において SD は

疾患として認知され医療機関を受診する患者数は以前より増加傾向にあることがわかる。

しかし本調査で受診患者数を 0 と回答した施設が 9(16.4%)あり、まだ潜在的な患者が多数存在することが予想された。

SD は内転型と外転型に大きく分類されている。内訳は過去に内転型 SD が 80 - 95%程度で外転型 SD が 5—10%前後と報告されている(Berke 2000; Ludlow 2009; Sulica 2004)。今回の調査では内転型が 95.7%、外転型が 4.1%で過去の報告にほぼ一致していた。

本アンケート調査より内転型 SD を診断する上で、問診で重要なものは、“声の症状”、“緊張(電話、仕事)での悪化”、“症状の発現に関連する行動や言葉の有無”であった。音声所見に関しては、“声の途切れ”が最も多く、続いて“声の詰まり”、さらに“声の震え”であった。喉頭所見に関しては、“声帯の過内転”、“

仮声帯の過内転”、”安静時正常（器質的異常はない）”であった。これらは、過去に述べられてきた内転型 SD の特徴とほぼ一致していた(Ludlow, et al. 2008; 讃岐徹治 2012; 讃岐徹治, 一色信彦 2005)。

外転型 SD は SD 全体の 4.1%と非常に少なく、各項目への回答率（75 - 82%）が低かった。外転型 SD については、治療経験数の多い医療機関へ詳細な調査を行った結果をもとに症状の特徴や診断について検討した方がよいと考える。

診断基準については、米国に嚙声のガイドラインがあるが SD に関しての記載はほとんどない(Schwartz, et al. 2009)。本邦では、帝京大学千葉総合医療センターから診断基準（帝京千葉案）が報告されている(石毛美代子 2012)。内転型 SD に関する本調査結果と比較してみると、帝京千葉案の中の必要項目、指示項目は今回のアンケート結果とすべて一致していた。除外項目については、アンケートで上位 3 つに上がった鑑別すべき疾患が含まれていた。帝京千葉案はさらに全身性ジストニアや発声発語器官に運動異常を副作用として生じる薬物の服用を除外項目にあげていた。アンケート調査では、全身症状が出現する疾患は鑑別すべき疾患として上位に上がってこ

なかったが、診断基準やガイドラインを考える上では、症状類似疾患だけでなく、除外疾患は項目としてあげる必要があると考えられた。

E . 研究発表（学会発表・講演および論文） 学会発表

- 1) Sanuki T, Yumoto E: Effects of type II thyroplasty for adductor spasmodic dysphonia. 20th World Congress of the International Federation of Oto-Rhino- Laryngological Societies (IFOS) 2013.6.1-5 Korea.
- 2) Sanuki T, Yumoto E, Kodama N: Quality of life before and after type II thyroplasty for adductor spasmodic dysphonia. 29th World Congress of the IALP 2013.8.25-29 Italy.
- 3) 讃岐徹治、湯本英二: 甲状軟骨形成術 2 型用甲状軟骨開大スパーサーの開発. 26 回西日本音声外科研究会. 2014.1.11 香川.

論文発表

- 1) Sanuki T, Yumoto E, Kodama N, Minoda R, Kumai Y: Long-term Voice Handicap Index after type II thyroplasty using titanium bridges for adductor spasmodic dysphonia. *Auris Nasus Larynx* 41(3) 285-289, 2014.

F . 知的財産権の出願・登録状況 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

痙攣性発声障害の調査研究

研究分担者 久 育男 京都府立医科大学医学部耳鼻咽喉科・頭頸部外科学教室教授

研究要旨

本邦における痙攣性発声障害の実態把握と臨床像を明らかにする目的で、京都府立医科大学耳鼻咽喉科において痙攣性発声障害の診断のもと治療を行なった 3 症例について検討を加えた。2 症例は内転型痙攣性発声障害、1 症例は外転型痙攣性発声障害であった。

内転型の 1 例は音声訓練を短期間行った後、手術を施行、改善をみたが、1 例は音声訓練ののち、受診が途絶えた。外転型は音声訓練を長期行い、日常生活で困難のない程度に改善を認めた。

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的発声障害であるが、診断基準が定まっていないこともあり全国的な有病率などの実態は不明である。本研究は大規模な全国調査により本邦における臨床像を把握することを目的としている。

B．研究方法

2011 年 10 月から 2013 年 9 月に京都府立医科大学附属病院耳鼻咽喉科を受診した音声障害症例のうち、痙攣性発声障害確定診断の 3 例を対象とした。これらについて詳細な病歴採取、内転型・外転型のタイプ、当院で行った治療とその後の経過について検討した。

C．研究成果

当院で経験した 3 症例のうち 2 症例は内転型痙攣性発声障害、1 症例は外転型痙攣性発声障害であった。これら 3 症例について詳述する。

症例 1) 62 歳男性、内転型痙攣性発声障害

1 年ほど前から発声障害を自覚した。近医耳鼻咽喉科を 3,4 件受診したが異常なしとされていた。前医大学病院で当院受診を勧められ紹介受診となった。

妻の疾患および死去とともに 2 年前からうつ病あり、内服加療を受けていた。

初診時、声帯麻痺を認めなかったが声帯の過内転があり、胸声発声を続けると徐々に過声帯も内転する所見を認めた。G2R2S2 の嚙声を認めた。頭声では比較的良好な発声で、声帯は全長にわたり観察可能で G0 であった。人前での会話、電話での会話、歌唱に不都合を感じる度合いが強かった。

内視鏡所見、音声所見から内転型痙攣性発声障害を疑い除外診断として過緊張性発声障害を考慮し、言語聴覚士による音声訓練を行った。3 ヶ月の音声訓練でも改善を認めなかったため、患者同意のもと、甲状軟骨形成術 II 型を施行した。術後は人前での会話、歌唱

についてはほぼ自覚的に不都合を感じない程度となったが、電話での会話には声の詰まりが残存したため音声訓練を継続している。

症例 2) 18 歳女性、内転型痙攣性発声障害

6 年前から声のどに詰まるという自覚があった。日常生活の声を使う場面で症状は増悪し、アルバイトを始めてから症状が顕著に増悪したため受診した。

統合失調症で内服加療中、唇裂術後であった。

初診時両側披裂部の経度振戦を認めしたが、声帯麻痺は認めなかったが、声の詰まりと声の震えが強く見られた。上記診断のもと音声訓練を開始したが、改善を認めないまま 3 回目の受診以降受診が途絶えたため、その後の経過は不明である。

症例 3) 80 歳女性、外転型痙攣性発声障害

3 年前から声の出しにくさを自覚した。徐々に増悪するため前医総合病院耳鼻咽喉科を受診したさいに外転型痙攣性発声障害を疑われ当院に紹介受診となった。当院受診時の主訴は「しゃべっていると息苦しくなってくる」であった。起声は良いが 1 秒以内に声帯が外転し G3B2A2 の氣息性嘔声となった。復唱で症状は顕著となった。

特徴的な音声と発声時の声帯運動、神経内科的疾患の除外により上記確定診断とした。音声訓練を開始し、3 ヶ月で日常会話での改善を認めた。特定の相手との会話や歌唱については症状が残存したが、それ以上の治療継続を希望せず終了とした。

D. 考察

痙攣性発声障害は内転型においては特徴的な音声所見を呈するが、過緊張性発声障害との鑑別が困難であること、診断基準が定まっていないこともあり一般的な耳鼻咽喉科医の認知度はそれほど高くないことを指摘されることが多い。本検討でも症例 1 で特に異常を指摘されず多くの医療機関を受診したのちに当院受診となった。いずれの症例も診断確定までに 1 年以上を要していた。

外転型はさらに認知度が低く、現時点では有効とされる治療法の確立もなされていないため、本研究による全国規模の調査に基づいた本疾患に対する対応を進めていくことが重要である。

E. 結論

当院において加療した痙攣性発声障害 3 例について検討した。内転型 2 例、外転型 1 例を経験し、いずれも音声治療を行い若干の改善を見た。内転型 1 例は手術治療を行いさらなる改善を見た。

全国的な調査により、本疾患の認知度の上昇ならびに治療法の確立が期待される。

F. 研究発表

なし

G. 知的財産権の出願・登録状況

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

痙攣性発声障害に対する調査研究

研究分担者 大森孝一 福島県立医科大学医学部耳鼻咽喉科教授
研究協力者 多田靖宏 福島県立医科大学医学部耳鼻咽喉科講師
谷亜希子 福島県立医科大学医学部耳鼻咽喉科助教

研究要旨

当科における痙攣性発声障害または当疾患が疑われる症例は 2 年間で 8 例であった。全症例とも女性、内転型であった。今後、二次調査を進め臨床像や病態の把握を進める予定である。

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ひとつで、発声時の声の途切れや詰まり、失声などの病態を呈する。分類として発語中に声帯の過内転が起こり声が途切れる内転型、逆に発語中に声帯が外転して氣息になる外転型があり、その混合型も存在するといわれている。一般的には内転型が多いとされ、女性に多い傾向にある。本疾患の患者実態や病態は不明な部分が多く、治療法も確立されていないのが実情である。本研究では本疾患の患者実態並びに臨床像を明らかにするため、一時調査として痙攣性発声障害ならびにそれを疑う患者の有無、その患者の年齢・性別・主症状などに関するアンケートを実施している。

B．研究方法

アンケート調査に基づき、2011 年 10 月～2013 年 9 月までの 2 年間に痙攣性発声障害または痙攣性発声障害疑いと判断された症例を調査した。患者年齢、性別、主訴、病悩期間、

治療経過について確認し、高知大学へ報告を行った。

C．研究成果

アンケートの結果、調査期間中に当院において痙攣性発声障害ならびにそれを疑う患者は 8 例で全例が内転型で外転型はなかった。全て女性で、年齢は 20 歳代～70 歳代であった。主症状は声が出にくい、声が震えるが多かった。

当院で声の異常を自覚し患者が受診された場合、詳細な問診を行い、その上で喉頭内視鏡検査、ストロボスコーピー、聴覚印象評価、音響分析、空気力学的検査などを行い喉頭および音声の評価を行っている。声の出にくさや震えを訴えて受診した場合は、心因的な要因も念頭において詳細な問診聴取と喉頭所見の確認を行うように心がけ、心因性発声障害との鑑別を行っている。痙攣性発声障害を疑う場合は、音声訓練を行いその効果の有無を確認して、無効な症例に関しては患者の希望によってボツリヌス注射や甲状軟骨形成術

などの治療選択を勧めるようにしている。

以下に症例の提示を行う。

症例 1：48 歳女性。職業、学校教員。20 歳代のころから声が出しづらい、詰まって震える症状があり、人前で話すときに症状の増悪を自覚していた。30 歳代のころ他院にて言語リハビリを行ったが症状の改善はなく放置していた。2012 年難聴の自覚があり他院耳鼻咽喉科で加療を行った際に声の震えを指摘され精査加療目的に当科紹介となった。初診時の喉頭内視鏡検査では発声時の披裂、仮声帯の過内転を認め発声時に声門の観察は困難であった。途切れるような、絞り出すような努力性の発声であった。音声訓練としてあくび・ため息法、リップトリル、チューブ発声などのリラクゼーションを促す方法を選択した。4 回の音声訓練を行うも症状の改善は乏しく、痙攣性発声障害と判断した。治療について相談したところ、本人よりボツリヌス注入の希望があり、他院へ紹介とし左右声帯へのボツリヌス声帯注入術を施行され、一時的な症状改善が得られた。注入直後の副作用として誤嚥、失声が出現するも症状の改善があるため 4 回繰り返し施行した。現在も当院にて経過観察を行っている。

症例 2：29 歳女性。販売員。23 歳の時に結婚式場での司会を務めた後から声の震え、声の出しづらさを自覚した。25 歳の時に販売業に転職し「いらっしゃいませ」「ありがとうございました」が言いづらいつ感じようになった。2013 年他院耳鼻咽喉科を受診した。喉頭に器質的疾患は認めず精査目的に当院に紹介となっている。声の震えとともに不眠を自覚し心療内科を受診したが、異常ないと判断さ

れた。その後も気分が落ち込んだり心身状態が安定しないとくに声が詰まり、特に「は」「え」の音が出しづらいつ自覚している。症状は日によって変化する。初診時の喉頭所見は振戦様の動きを認めるが過緊張はなく声帯の可動性も良好であった。機能性発声障害と判断され痙攣性発声障害も鑑別として考えられた。音声訓練としてハミング法を中心に施行したが著明な改善は得られなかったが、経過中に心身状態の安定を自覚するにつれ声の震えが改善し、日常生活には支障を来さなくなった。経過より診断は痙攣性発声障害ではなく機能性発声障害であると判断して、初診から 5 か月後に診察終了となった。

D. 考察

痙攣性発声障害は本邦では女性に多いと報告されており、当科の症例も 8 例すべてが女性であった。また、病型は 90% 以上が内転型と報告されており、当科の症例も同様の結果であった。痙攣性発声障害とは機能性発声障害に分類されるが、心因性との鑑別も難しく治療に難渋する症例も多い。今回の症例 2 では当初痙攣性発声障害も鑑別として挙げていたが結果的には心因性の要因が大きいと判断した。

痙攣性発声障害の患者は社会的な活動を制限されていることが多く心理的にも負担を抱えている。診断は適切な診断と本疾患の認知を広めることで、病態の把握や治療法の確立が進む可能性があると考えられる。

E. 結論

痙攣性発声障害について調査を行い、これまでの報告と同様、女性、内転型の症例が多

かった。今後、二次調査を進め臨床像や病態について調査を行う予定である。

F．研究発表

論文発表

- 1) 多田靖宏、谷 亜希子、大森孝一：局所麻酔下の喉頭内視鏡手術 .喉頭. 25(2): 66-69 , 2013.
- 2) 大森孝一：喉頭手術 . JOHNS. 29(7) : 1171-1174, 2013.

学会発表・講演

1) 大森孝一：＜講演＞ 喉頭疾患の診断と治療：最新の話題．愛知県耳鼻咽喉科医会三河地区研修会．平成 25 年 4 月 20 日，岡崎市．

2) 大森孝一：＜講演＞ 喉頭疾患の外科治療：再生医療を含めて．第 15 回音声・嚥下・呼吸の談話会．平成 26 年 1 月 23 日，東京都．

G．知的財産権の出願・登録状況

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

北海道医療大学病院における痙攣性発声障害例の疫学的調査

研究分担者 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

【方法】2011年4月から2013年5月までに北海道医療大学院を受診し、痙攣性発声障害と診断された42例（内転型37，外転型4，混合型1）について、疫学的検討を行った。

【結果】30歳代までの若年発症例が半数以上を占め、発症から半年以内の発症初期に受診した例が3割であった。患者の大半は、接客業やテレホンオペレーターなど頻繁に声を使う職業に従事していた。

【考察と結論】痙攣性発声障害の病態を解明するためには、就業環境や情動の影響が症状を修飾しうる可能性、ならびに本疾患が声門閉鎖/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いた多面的な評価が必要である。

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、疫学的実態は完全に解明されているとは言えず、治療効果の判定についても標準化されたものはない。そこで、単一施設において、直近2年間で痙攣性発声障害と診断された症例について、初診時から治療経過までを含めた縦断的検討を行った。

B. 研究方法

対象：2011年4月から2013年5月までに北海道医療大学病院音声言語外来を受診し、

痙攣性発声障害と診断された42例を対象とした。診断は音声専門外来を担当する専門医と言語聴覚士の合議によって行われ、場合によっては数カ月の観察期間を置いて慎重に行われた。内訳は、内転型37例(男性9名 女性28名)、外転型4例(すべて女性)、混合型1例(女性)であった。

調査項目：初診時年齢、職業、主訴、病悩期間。

C. 結果

1. 初診時年齢・職業（図1,2）：初診時年齢は、20代で最も多く、30代までの若年例が半数以上を占めた。また、職業については、9割近くの患者が声を頻繁に使用する環境にあった。その内訳は、レジ業務を含めた接客

業が半数近くにのぼり、テレフォンオペレーターなど電話業務を主とする者も多く含まれていた。

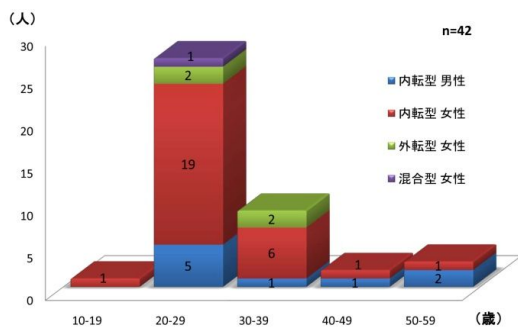


図1. 初診年齢

職業的によく声を使う

36名

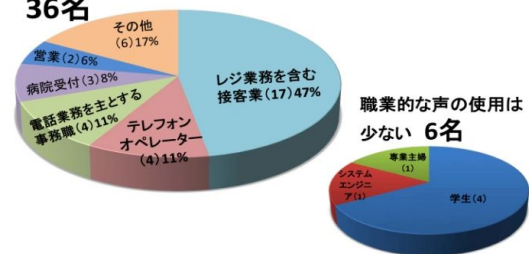


図2. 職業

2. 主訴 (図3) : 「出ない」との訴えが最も多く、内転型の音声特徴である「ふるえる」「つまる」「途切れる」の訴えは、外転型や混合型では見られなかった。

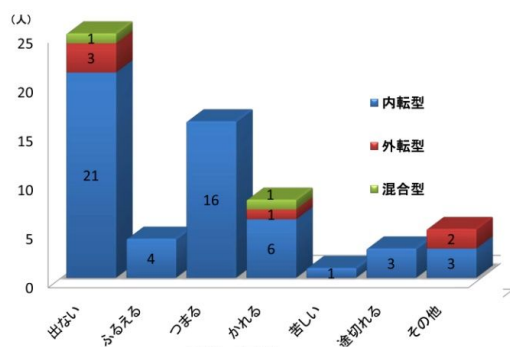


図3. 主訴

3. 病悩期間 (図4) : 初診までの病悩期間は、音声症状の自覚から1年以上経過する例が半数以上を占めた。一方、発症後、半年以内に

受診したものが13例にのぼった。発症後早期に受診したこれらの症例については、機能的音声障害との鑑別が必要であるため、少なくとも3ヵ月間の追跡ののち、症状の完成固定を確認して診断を確定している。

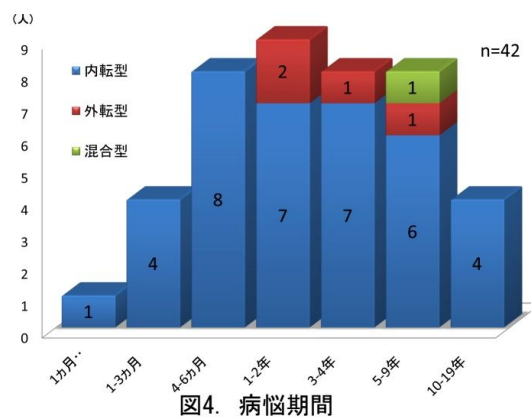


図4. 病悩期間

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、機能的音声障害や音声振戦症などの鑑別診断が困難であることも多い。

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痙攣性音声障害症例42例の疫学を調査したものである。

患者の年齢性別分布については、20-30歳の女性に多い疾患であるとの過去の報告に

一致した。加えて、本疾患を発症する患者の職業がレジ業務、テレホンオペレーターなど、発声を業として行っているものに多いことが示された。統計としては示していないが、臨床上ではこれらの患者について業務場面で症状が増悪するとの訴えをしばしば経験する。これはジストニアの特徴である動作特異性・場面特異性に一致すると推察される。患者は業務場面と日常場面の症状変動から、心因や詐病を疑われて苦悩し、場合によっては心療内科等で長期の治療を施される場合もあることに留意が必要と考える。

痙攣性発声障害患者の主訴は、つまり、ふるえ、途切れなどが代表的なものとされる。本研究においてもこれら代表的な訴えは多くみられた。一方、最も多かったのは「声が出ない」という訴えであった。その他に含まれるものについては、分類が難しい多様な訴えが含まれている。患者の自覚症について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いたさらに詳細な調査が必要と考える。

初診までの病悩期間では、音声症状の自覚から1年以上の症例が多数を占めた。特に5年以上にわたるものが12例あり、これらの多くは病悩期間において適切な診断や治療方法を示されずにきたものである。一方、発症後半年以内という非常に早い時期に音声専門外来を受診する症例が13例に上っている。これは、臨床家のみならず、患者の自助グループ等がインターネットなどを通じて、本疾患に関する啓発活動を積極的に行った成果で

はないかと考えられ、本疾患に関する情報が徐々に普及していることを伺わせる。

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、機能性音声障害や音声振戦症などとの鑑別診断が困難であることも多い。この事情は、本疾患の疫学的把握の遅れにつながり、近年多施設で行われるようになってきた内喉頭筋へのボツリヌス毒素注射や音声外科手術などの効果判定を困難にしている。本疾患の病態を解明するためには、就業環境や情動の影響が症状を修飾しうる可能性、ならびに本疾患が声門閉鎖/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、大規模かつ統制された方法で行うことが必要である。

F. 研究発表

1. 論文発表 なし

2. 学会発表

- 1) 柳田早織, 葛西聡子, 西澤典子, 目須田康: 当院における2年間の痙攣性発声障害例の疫学的調査. 第58回日本音声言語医学会. 2013年10月17-18日, 高知市
- 2) Yanagida S, Nishizawa N: Voice onset time for the word-Initial voiceless consonant /t/ in spasmodic dysphonia –A comparison with normal controls-. 29th World Congress of International Association of Logopedics and

Phoniatics, Aug. 25-23, 2013, Torino Italy.

なし

G . 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

2 実用新案登録

なし

1 特許取得

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

痙攣性発声障害と過緊張性発声障害の鑑別診断のための
舌交互反復運動の生理学的検証

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

痙攣性発声障害か過緊張性発声障害であるかの鑑別診断は、病歴や音声所見および喉頭所見を総合的に判断して診断するが、実際には判断に迷う症例が多い。本研究では、過緊張性発声障害患者に多く認められる外喉頭筋の筋緊張に着目し、その生理的指標として舌交互反復運動を生理学的に検討し、健常者と比較した。精神的ストレスの指標には STCL (Stress Tolerance Check List) (ストレス耐性チェックリスト) を用い、身体の生理的緊張の指標には脈波計を用い、外喉頭筋の筋緊張の計測には舌骨上筋の表面筋電図を用い、母音発声、発声を伴う舌交互反復運動と発声を伴わない舌交互反復運動の筋活動を計測した。その結果、舌骨上筋の表面筋電図では、母音発声時の舌交互反復運動の舌骨上筋の筋活動には過緊張性発声障害患者群と健常者群で差がないものの、過緊張性発声障害患者では、健常者と比較して舌の左右反復運動時に発声の有無により筋緊張に差があることが示された。さらに、舌交互反復運動の反復回数では、過緊張性発声障害患者において反復回数が少なくなることから、反復運動回数が鑑別に有用であることが示唆された。

A. はじめに

先行研究によれば、緊張や不安により自律神経システムが発声時の外喉頭筋に影響し、持続的な不安や緊張が過緊張性発声障害を引き起こすとされている (1,2)。一方、痙攣性発声障害は喉頭に限局された喉頭ジストニアと定義されるが、音声所見や喉頭所見は両者に共通する部分が多い。痙攣性発声障害か過緊張性発声障害であるかの鑑別診断は、病歴や音声所見および喉頭所見を総合的に判断して診断されるが、実際には判断に迷う症例が多い。本研究では、過緊張性発声障害患者に多く認められる外喉頭筋の筋緊張に着目し、そ

の生理的指標として舌交互反復運動を検討し、健常者と比較し鑑別有用性について検証した。

B. 方法

1) 研究協力者

文書にて同意を得た本学に所属する 1~4 年生の健常成人男性 5 名 (平均年齢 20 ± 1.2 歳)、健常女性 8 名 (平均年齢 23 ± 8.1 歳)、本学クリニックに通院している男性発声障害患者 2 名 (平均年齢 31.5 ± 7.8 歳)、女性発声障害患者 4 名 (平均年齢 31.3 ± 7 歳)。

2) 発声障害患者の基本情報

男性：

- 38 歳:過緊張性発声障害，
両側声帯溝症，嚙声度 G3
27 歳:過緊張性発声障害，他院より
痙攣性発声障害疑いで紹介，
片側声帯溝症，嚙声度 G3

女性：

- 35 歳:過緊張性発声障害，
片側声帯溝症，嚙声度 G1
25 歳:過緊張性発声障害，他院より
痙攣性発声障害疑いで紹介，
嚙声度 G1
26 歳:過緊張性発声障害，他院より
痙攣性発声障害疑いで紹介，嚙声
度 G1
40 歳:過緊張性発声障害，痙攣性発声
障害疑いで他院より紹介，
嚙声度 G3

3) 使用機器

表面筋電図：電極(Ambu Blue Sensor M-00-S/25)，アルコール綿，解析ソフト(Power Lab7.0)

脈波計：加速度脈波測定システム(アルテット，形式：PDU-M100)

ビデオカメラ：デジタルビデオカメラレコーダー(型名：HDR-CX590V)

4) 手続き

課題前：

研究協力者を，ビデオカメラの前に用意した椅子に座らせ，心理アセスメント STCL へ記入させた

課題の説明

表面筋電図の貼付

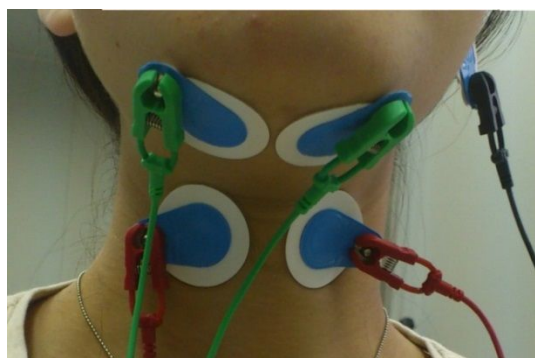


図 1 . 表面筋電図貼付の様子

貼付前に，アルコール綿で皮膚を清拭し，上写真のように基準電極を左耳垂に装着し，舌骨上筋群としてオトガイ舌骨筋付近と舌骨下筋群として胸骨舌骨筋付近の左右 2 ヲ所に装着した．

また，舌交互反復運動課題で反復運動回数を計測するために，両口角に赤のポイントシールを貼り，ビデオカメラにて録画し運動回数を計測した．

舌骨上筋群の最大平均値の計測

「舌を口の天井に思いきりつけてください」と指示を出し，舌骨上筋群の最大筋力を計測した．最大筋力で約 6 秒間保持させ，その後 1 分間休憩を採り，計 3 回繰り返し，最大筋力の平均値を求めた．

課題：

課題（脈波 1 分間計測）→2 分休憩（脈波 1 分間計測）これを計 5 回繰り返した．

5 母音発声

実験者が別室から，口頭で指示を出した後，
/a:/, /i:/, /u:/, /e:/, /o:/ の順で約 3 秒間発声させた．

舌交互反復運動

反復運動は 4 タイプに分類し、それぞれ約 10 秒間施行させた。

- ・左右交互反復運動（発声有）
- ・左右交互反復運動（発声無）
- ・前後交互反復運動（発声有）
- ・前後交互反復運動（発声無）

5 母音発声，舌の前後反復運動（発声有・無），舌の左右反復運動（発声有・無）の計 5 課題は，脈波 1 分間計測の間に実験者がランダムに口頭で指示を出し施行させた。

5) 結果の処理

【筋電図】オトガイ舌骨筋（舌骨上筋群）と胸骨舌骨筋（舌骨下筋群）の表面筋電図を Power Lab7.0 で波形の平均振幅を求めた。計算式： $\{(各課題の上筋値)/(上筋の最大平均)\} * 100$ を用いて，舌骨上筋群の最大随意収縮時筋活動量に対する割合で示す 100%MVC とした。

【測定値】

母音：1 秒間。

舌反復運動課題：発声ありの場合は音声開始 1 秒後からの 5 秒間，発声なしの場合は舌骨上筋群・舌骨下筋群の両方が活動開始した 1 秒後からの 5 秒間を抽出した。

舌反復運動回数：前後反復運動では，口唇よりも前方まで突出しているもの，口腔内まで戻っているもの，左右反復運動では口角に舌が付いているものをそれぞれ 1 回として数え，1 秒率として算出した。

C. 結果

【脈波：LF/HF 値】

課題の繰り返しによる主効果には有意傾向が認められた $[F(4,75) = 2.492, p=0.0525]$ が，下位検定では特定の繰り返し測定間での有意差は認められなかった。

【ストレス耐性度チェックリスト STCL】

ストレス耐性度得点において，群による主効果がみられたため $[F(3,56)=3.397, p<0.05]$ ，下位検定を行った結果，健常女性と患者男性において 5%水準で有意差がみられた。しかし，心理アセスメント判定基準では，すべての群においてストレス耐性は中等度以上とされ，ストレスへの耐性は標準であるとみなされた。

【母音発声時の舌骨上筋の筋活動】

母音発声時の舌骨上筋の筋緊張には，各群間に有意差はみられなかった $[F(3,56) = 1.323, p=0.2876]$ 。

【舌骨上筋の筋活動】

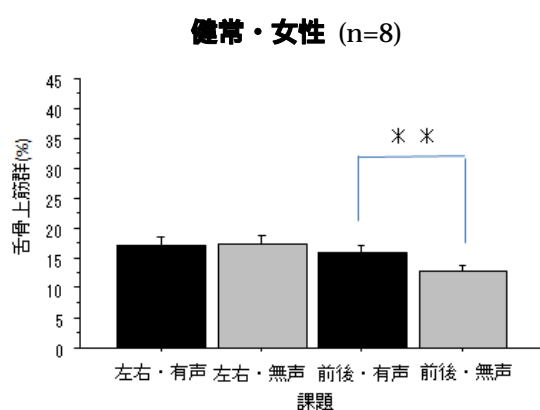
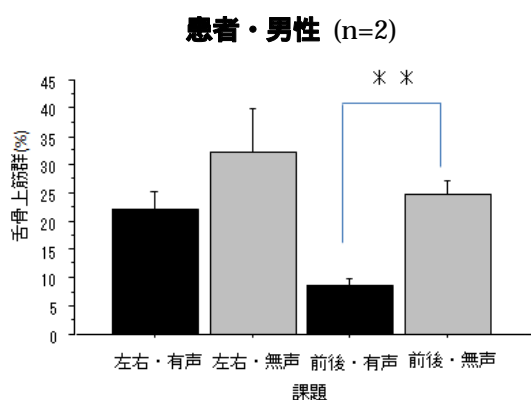
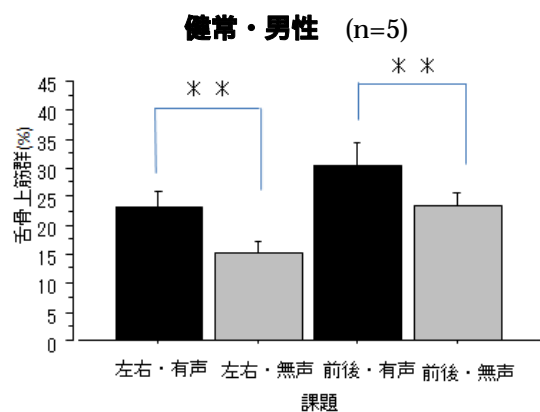
健常群と患者群を比較した結果，発声を伴う左右反復運動では群による主効果は認められなかった $[F(1,18)=0.018, p=0.8934]$ 。しかし，発声を伴わない左右反復運動では，群による主効果が認められ $[F(1,18)=12.472, p<0.01]$ ，下位検定を行った結果，患者群のほうが健常群に比べ有意に筋緊張が高かった。

また，発声を伴う前後反復運動では群による主効果が認められたが $[F(1,18)=5.831, p<0.05]$ ，下位検定を行った結果，健常群と患者群に有意な差は認められなかった。

発声を伴わない前後反復運動では，群によ

る主効果は認められなかった[F(1,18)= 2.456, p=1.206] .

各群内の課題による筋緊張の違いを図 2 に示す .



患者・女性 (n=4)

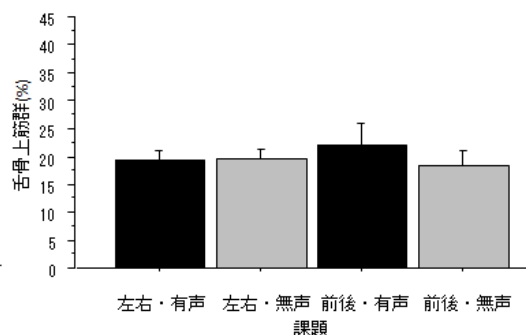


図 2 . 舌交互反復運動における

舌骨上筋群の筋活動量 ** p<0.01

縦軸は舌骨上筋群の筋活動量を%で示し、

横軸は各課題内容を示している .

【反復運動回数】

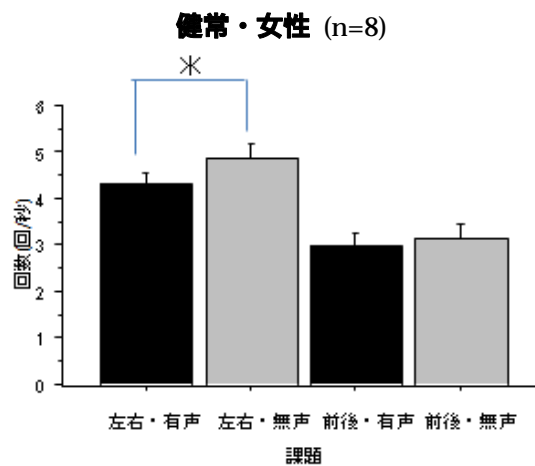
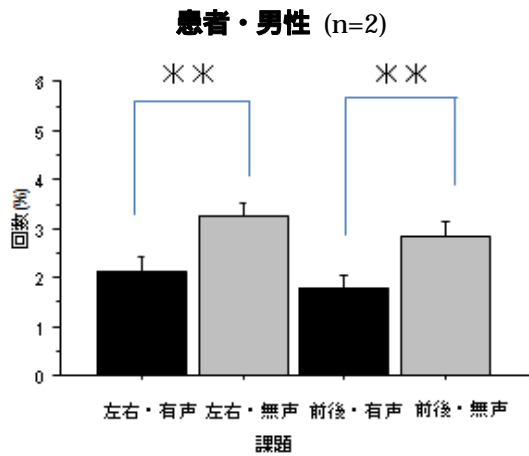
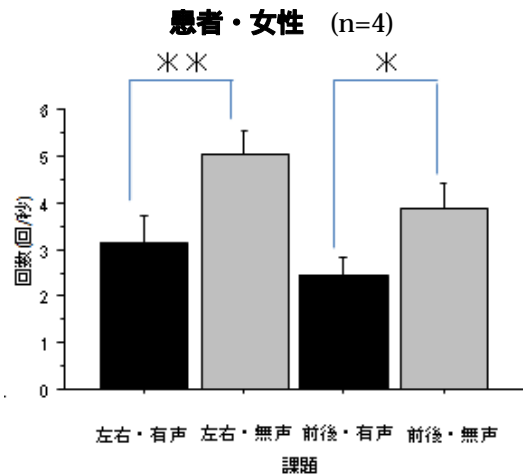
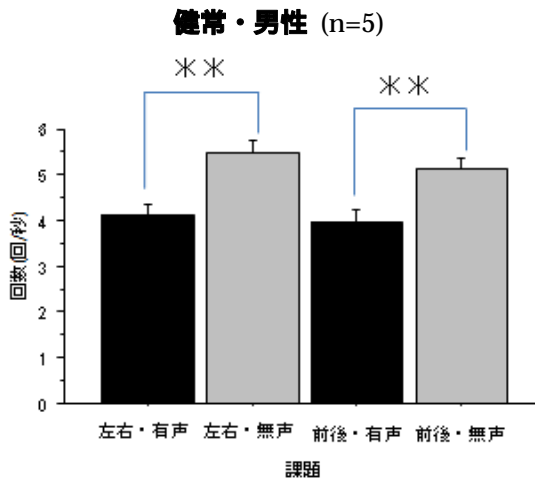
健常群と患者群を比較した結果、発声を伴う左右反復運動では、群による主効果が認められ[F(1,18)=16.775, p<0.01], 下位検定を行った結果、健常群の方が患者群に比べ有意に回数が多かった.

発声を伴わない左右反復運動では、群による主効果が認められたが [F(1,18)=6.877, p<0.05], 下位検定を行った結果、健常群と患者群に有意な差は認められなかった.

発声を伴う前後反復運動では、群による主効果が認められ[F(1,18)=15.876, p<0.01], 下位検定の結果、健常群の方が患者群に比べ有意に回数が多かった .

発声を伴わない前後反復運動では、群による主効果は認められなかつ [F(1,18)=3.841, p=0.536].

各群内の課題による舌の反復運動回数の違いを図 3 に示す .



**図3 . 舌交互反復運動時における
反復運動回数 ** p<0.01**

縦軸は舌交互反復運動時の運動回数の
1 秒率を示し、横軸は各課題を示す。

舌の反復運動回数では、健常男性では、図3に示すように課題による主効果がみられたため $[F(3,14)=12.152, p<0.01]$ 、下位検定を行った結果、左右反復運動、前後反復運動どちらにおいても発声を伴う反復運動は有意に回数が少なかった。

患者男性では、図3に示すように課題による主効果がみられたため $[F(3,5)=39.655, p<0.01]$ 、下位検定を行った結果、健常男性と同様に左右反復運動、前後反復運動どちらにおいても発声を伴う反復運動は有意に回数が少なかった。

健常女性では、図3に示すように課題による主効果がみられたため $[F(3,23)=23.106, p<0.01]$ 、下位検定を行った結果、左右反復運動において発声を伴う反復運動は有意に回数が少なかった。

患者女性では、図3に示すように課題による主効果がみられたため $[F(3,11)=5.268,$

p<0.01]，下位検定を行った結果，左右反復運動，前後反復運動ともに発声を伴う反復運動は有意に回数が少なかった。

D. 考察

実験開始前に実施したストレス耐性度，母音発声時の舌骨上筋の筋緊張は群間差がなく，舌交互反復運動を行う前の2条件に関しては同じであったと考えられる。

舌交互反復運動時の舌骨上筋の筋緊張は，健常群と患者群を舌交互反復運動の課題ごとと比較すると，発声を伴わない左右反復運動でのみ，患者群は有意に筋緊張が高くなっていった。つまり，過緊張性発声障害患者では，健常者に比較して発声を伴わない舌交互反復運動時でさえ舌骨上筋群の筋緊張が高いということが示唆された。

舌交互反復運動回数については，健常群と患者群を舌交互反復運動の課題ごとで比較をすると，発声を伴う左右反復運動，前後反復運動において患者群よりも健常者群で有意に回数が増加した。つまり，過緊張性発声障害患者は，舌反復運動回数が健常者に比べて少なく，特に発声を伴う反復運動についてその差が明らかになると考えられる。したがって，過緊張性発声障害患者では，舌の交互反復運動速度が健常者よりも遅くなるので，回数による鑑別可能性が示唆される。

発声時に過緊張の認められる発声障害患者に舌の左右交互反復運動を無声と有声で行った場合，運動速度に乖離が認められることがあるとされている³⁾。つまり，発声を伴う舌の交互反復運動を行うと舌根部が発声に伴い緊張するため運動速度が発声しない場合に比

べ遅くなると考えられる³⁾ことから，発声の有無で回数が増加したことは，これを立証していると考えられる。

以上のことから，舌交互反復運動時の舌骨上筋群の表面筋電図の計測により，健常者群と過緊張性発声障害の鑑別の可能性が示唆された。さらに，舌交互反復運動の運動回数でも，発声の有無による比較では健常者も過緊張性発声障害患者も同様の傾向を示すものの，過緊張性発声障害患者においては明らかに回数が減少することから，舌の反復運動回数が鑑別に有用であることが示唆された。

今回の検証では，痙攣性発声障害患者についての検討は行っていない。今後，痙攣性発声障害患者においても検討する必要がある。

E. 結論

舌の交互反復運動時の舌骨上筋群の表面筋電図の計測は，過緊張性発声障害の鑑別に役立つ可能性が考えられる。さらに，舌交互反復運動の反復回数では，過緊張性発声障害患者において反復回数が少なくなることから，反復運動回数が鑑別に有用であることが示唆された。

したがって，健常者と過緊張性発声障害患者を鑑別するためには，表面筋電図による舌骨上筋群の舌交互反復運動時の筋緊張の計測と反復運動回数の計測が有用であることが示唆された。今後，痙攣性発声障害患者についても検証が必要である。

F. 謝辞

本研究は，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))「痙攣性発声障害に関する調査研究」の一部として行われ、実験に際して本学保健福祉学部コミュニケーション障害学科卒業生高橋美香さんにデータ収集と解析にご協力いただいた。ここに深謝する。

G. 文献

- 1) Dietrich, M et al. : Psychobiological Framework of Stress and Voice , Emotion in the human voice(Izdebski, K ed.) vol.2.pp.159 - 178 ,2008
- 2) Dietrich, M : The Effects of Stress Reactivity on Extralaryngeal Muscle Tension in Vocally Normal Participants as A Function of Personality , Unpublished dissertation,

University of Pittsburgh, 2008

- 3) 廣瀬筆肇 監修，城本修，小池三奈子ほか：ST のための音声障害診療マニュアル，東京，インテルナ出版，73 - 75，2009

H. 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

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書籍名	出版社名	出版地	出版年	ページ
なし							

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
兵頭政光	嚥下障害，音声障害の診断・治療におけるインフォームド・コンセント	MB ENT	163	59-63	2014
Sanuki T, Yumoto E, Kodama N, Minoda R, Kumai Y	Long-term Voice Handicap Index after type II thyroplasty using titanium bridges for adductor spasmodic dysphonia.	Auris Nasus Larynx	41(3)	285-289	2014