

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
 分担研究報告書

痙攣性発声障害疾患レジストリを利用した診断基準及び重症度分類の妥当性評価と改訂に関する研究

研究分担者 兵頭政光 高知大学・教授

研究要旨：2017年に作成した痙攣性発声障害の診断基準及び重症度分類に、痙攣性発声障害と確定している患者および鑑別疾患患者を適用して、その妥当性を評価した。その結果、現在の診断基準及び重症度分類は概ね妥当であることが確認できた。但し、鑑別疾患の症例数が少ないため、症例をふやしてさらに検討する必要がある。また、外転型に対しては適切でない項目もあり、一部修正が必要と考えられた。

A. 研究目的

われわれがする。その結果を、診断基準疾患レジストリを活用した診断基準および重症度分類の妥当性評価と対比し、診断基準・重症度分類の改訂作業へ反映させる。

B. 研究方法

高知大学医学部附属病院を受診した痙攣性発声障害患者および痙攣性発声障害に対するA型ボツリヌストキシン治療の医師主導治験（BOISS Study）の被験患者、計36例（内転型32例、外転型4例）を対象とした。いずれも、ボツリヌストキシン治療を受けて、その反応性から、痙攣性発声障害との確定診断が得られている。また対照として、音声振戦症患者5名も対象とした。対象患者に対し初診時または後方視的に現在の診断基準および重症度分類を適用した。

（倫理面への配慮）

本研究を実施するに際し、患者の臨床データや検査データの収集と解析に際しては、高知大学医学部倫理委員会の審査を受け、承認を得ている（承認番号：2020-55）。本研究で収集した患者の臨床データや検査データは、氏名やIDなどを連結可能匿名化して保管する。た、その解析に際してもデータ管理を厳重に行い、患者の個人情報保護には細心の注意を払う。

C. 研究結果

内転型32名中31名（97%）が診断基準の確実例に該当し、1例（3%）が疑い例に該当した。音声振戦症は1例が疑い例に該当し、4例は確実例、疑い例のいずれにも該当しなかった。以上より、現在の診断基準は感度100%、特異度80%となった。重症度分類を痙攣性発声障害患者に適用すると、重症例が26例、中等症例が6例、軽症例は認めなかった。外転型は4例すべてが診断基準に該当した。

D. 考察

現在の診断基準および重症度分類は、痙攣性発声障害の診断において、診断感度は高く臨床的に有用であることが確認できた。重症度分類では治療対象となる患者は、すべて中等症以上となり、重症度分類もおおむね妥当と考えられた。

一方、2. 参考となる所見の2)高音での発声、発話時には音声症状が軽減ないし消失する 3)笑い声、泣き声、囁き声、裏声、歌声では主症状が軽減あるいは消失する、は内転型にみられる所見であり、外転型には該当しないことから、この部分についての修正が必要と考えられた。

なお、鑑別疾患の症例がまだ少なく、特異度については十分な評価が現時点では難しい。さらに症例を集積して検討する必要がある。そのためにも本研究で行う疾患レジストリが大きく寄与するものと期待できる。

E. 結論

現在公開している痙攣性発声障害の診断基準及び重症度分類は概ね妥当であることが確認できた。但し、鑑別疾患の症例数が少ないため、症例をふやしてさらに検討する必要がある。また、外転型に対しては適切でない項目もあり、一部修正が必要と考えられた。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 兵頭政光：変性疾患-痙攣性発声障害の診断基準と治療. Annual Review 神経2020 229-235, 2020
- 2) 兵頭政光：喉頭ジストニア(痙攣性発声障害). CLINICAL NEUROSCIENCE ジストニアupdate-診療ガイドライン2018を超えて 38(9)：1122-1124, 2020.
- 3) 兵頭政光：臨床研究支援センターの役割-地方大学における医師主導治験の支援を中心に-. 日本外科学会雑誌 121(5)：554-556, 2020.
- 4) Hyodo N, Hisa Y, Nishizawa N, Omori K, Shiromoto O, Yumoto E, Sanuki T, Nagao A, Hirose K, Kobayashi T, Asano K, Sakaguchi M: The prevalence and clinical features of spasmodic dysphonia: A review of epidemiological surveys conducted in Japan. ANL 48: 179-184, 2021.
- 5) Hyodo M, Nagao A, Asano K, Sakaguchi M, Mizoguchi K, Omori K, Tada Y, Hatakeyama H, Oridate N, Naito K, Iwata Y, Shinomiya H, Hara H, Sanuki T, Yumoto E: Botulinum toxin injection into the intrinsic laryngeal muscles to treat spasmodic dysphonia: A multicenter, placebo-controlled, randomized, double-blinded, parallel-group comparison/open-label clinical trial. Eur J Neurol, 2020.

2. 学会発表

- 1) 前田 優, 長尾明日香, 兵頭政光: 保育士の声帯結節7例の臨床的検討. 第40回日本耳鼻咽喉科学会高知県地方部会学術講演会. 高知県高知市, 2020. 7. 19.
- 2) 前田 優, 長尾明日香, 兵頭政光: 当科における痙攣性発声障害治療の現状. 第46回四国四県地方部会連合学会. 高知県高知市, 2020. 12. 6.
- 3) 弘瀬かほり, 長尾明日香, 兵頭政光: 当科における喉頭肉芽腫の臨床的検討. 第33回日本喉頭科学会総会ならびに学術講演会. web開催, 2021. 3. 5~26.

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