

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）  
総括研究報告書

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

研究代表者 讃岐徹治 名古屋市立大学・准教授

研究要旨：診断の感度・特異度と重症度分類の臨床的意義の評価のための研究実施計画書を作成するとともに、全国135医療機関の研究参加が決まった。また研究計画変更に伴いEDCシステムの改修を終了し、症例登録を開始した。

兵頭政光・高知大学・教授  
大森孝一・京都大学・教授  
香取幸夫・東北大学・教授  
折館伸彦・横浜市立大学・教授  
西澤典子・北海道医療大学・教授  
城本修・県立広島大学・教授  
原浩貴・川崎医科大学・教授  
楯谷一郎・藤田医科大学・教授  
二藤隆春・埼玉医科大学・准教授  
上野悟・東京都健康長寿医療センター・主任研究官  
溝口兼司・北海道大学・助教  
柳田早織・北海道医療大学・講師  
大佐賀智・名古屋市立大学病院・特任助教  
中川聡史・公益財団法人神戸医療産業都市推進機構・グループリーダー

A. 研究目的

痙攣性発声障害は、声を出すために重要な内喉頭筋の不随意収縮により発話中に音声の異常をきたす原因不明で根本治療のない稀少難治性疾患である。痙攣性発声障害は指定難病の指定にいたっておらず患者は医療費や生活に多くの負担を強いられている。指定難病に至っていない要因の一つに診断基準および重症度分類の妥当性評価が行われていないことが挙げられており、本研究は痙攣性発声障害疾患レジストリを活用して、痙攣性発声障害診断基準および重症度分類の妥当性評価を行い、世界をリードする診断基準・重症度分類へ改訂作業を行うことを目的とする。

B. 研究方法

1) 疾患レジストリデータ活用のための研究デザイン・解析方法の検討。 2) 疾患レジストリを用いた診断の感度・特異度の評価。 3) 疾患レジストリを用いた重症度分類の臨床的意義の評価。 4) 診断基準及び重症度分類の改訂を柱とする。

（倫理面への配慮）倫理的精神に基づき、「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」、「個人情報保護に関する法律」、「独立行政法人等の保有する個人情報の保護に関する法律」及び関連する法令、改正法令、研究実施計画書を遵守して実施する。

C. 研究結果

診断の感度・特異度と重症度分類の臨床的意義の評価のための研究実施計画書を作成するとともに、全国135医療機関の研究参加が決まった。また研究計画変更に伴いEDC（Electronic Data Capture）システムの改修を終了し、症例登録を開始した。

D. 考察

痙攣性発声障害診断基準および重症度分類の妥当性評価可能なレジストリ基盤が完成した。

E. 結論

今後症例登録データを解析し、診断の感度・特異度の評価および重症度分類の臨床的意義の評価し改訂作業を開始する。

F. 健康危険情報  
観察研究であり、健康被害を及ぼすことは無い

G. 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.
- 6) 城本修・他. ケプストラム分析用の日本語課題文の検者内・検者間信頼性と課題文の再現性, 音声言語医学, 61(4), 315-330, 2020

7) 西澤典子：発声発語障害の基礎知識. 発声発語障害学第3版, 医学書院: pp2-41, 2021年2月

8) Kanazawa Y, Kishimoto Y, Tateya I, Ishii T, Sanuki T, Hiroshiba S, Aso T, Omori K, Nakamura K. Hyperactive sensorimotor cortex during voice perception in spasmodic dysphonia. Sci Rep. 10(1)17298 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.
- 4) 西澤典子:dysarthria の診療(総論). 第65回日本音声言語医学会総会・学術講演会 シンポジウム. 2020年10月11日 名古屋

H. 知的財産権の出願・登録状況  
(予定を含む.)

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