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

客観的診断評価項目の開発と長期療養状況の全国調査

研究分担者 兵頭政光 高知大学・教授

研究要旨：難病克服のため患者数、患者分布の把握、その他疾患に関するデータ収集が可能なレジストリを用い、客観的診断評価項目の開発、疾患レジストリを用いた客観的診断評価項目の有効性検証、長期療状況の全国調査、痙攣性発声障害の診断基準および重症度分類を用いた診療ガイドライン作成研究を実施する。

A. 研究目的

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) 客観的診断評価項目の開発

疾患レジストリで収集している GRBAS 尺度（聴覚心理的評価）とモーラ法が診断基準に活用出来る可能性が見いだされ、各評価項目を専門家により再評価を行い、基準値設定を行う。

2) 疾患レジストリを用いた客観的診断項目の有効性検証

客観的診断評価項目とした GRBAS 尺度およびモーラ法の有用性検証を目的として、疾患レジストリに登録されたデータを用い登録項目ごとの感度と特異度を導き出し、診断基準改定を行う。

3) 長期療状況の全国調査

疾患レジストリに登録された患者の病歴および治療状況ならびにレジストリ研究へ協力を得ている医療機関に対する長期療状況の全国調査を行い、指定難病指定を目指す。疾患レジストリに登録された患者の病歴および治療状況ならびにレジストリ研究へ協力を得ている医療機関に対する長期療状況の全国調査を行い、指定難病指定を目指す。

4) 痙攣性発声障害の診断基準および重症度分類を用いた診療ガイドライン作成
開発項目 1) ,2) から客観診断基準を開発し、診断基準及び重症度分類を改定とともに 3) の調査結果を踏まえ、学会公認の診療ガイドライン作成を目指す。

（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」、「個人情報の保護に関する法律」、「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

痙攣性発声障害の客観的診断評価項目の開発を目的倒して臨床試験計画を作成し、中央倫理審査が終了した。痙攣性発声障害の客観的診断評価項目の開発を目的として臨床試験した。客観的診断評価項目とした GRBAS 尺度およびモーラ法の有用性検証を目的として、疾患レジストリに登録されたデータを用い登録項目ごとの感度と特異度を導き出した。

また痙攣性発声障害の長期療養のニーズを調査するため WEB 形式のアンケートを作成し、レジストリ研究へ協力を得ている医療機関と患者会に調査依頼し結果集計を実施した。

また痙攣性発声障害の治療状況を調査するため、レジストリ研究へ協力を得ている医療機関に調査依頼し結果集計を実施した。

令和4年度作成した痙攣性発声障害 診断基準および重症度分類改訂版を基に診療の手引を作成した。今後日本音声言語医学会と日本喉頭科学会が共同して音声障害診療ガイドライン作成（研究分担者の原浩貴が作成委員長）の痙攣性発声障害項に掲載する予定である。

D. 考察

痙攣性発声障害の客観的診断評価項目の決定を行い、痙攣性発声障害診療手引きを作成した。しかし治療法選択に重症度分類が反映されていないことが明らかとなった。そこで疾患レジストリ研究参加施設内で多くの患者に対して治療を実施している医療機関を中心に治療実態とその効果について調査が必要である。

E. 結論

痙攣性発声障害診療手引きの作成により、全国に良質かつ適切な医療の確保を目指した診療提供体制の構築に寄与することが見込まれる。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 兵頭政光：痙攣性発声障害に対するボツリヌス治療－耳鼻咽喉科から；ボツリヌス治療の新しい展開－各診療科と脳神経内科とのクロストーク。脳神経内科，99(1)：109-113，2023.
- 2) Iwamura K, Isaki M, Uchiyama C, Nomura K, Tanimoto A, Kuroiwa H, Kozono M, Iwashita Y, Iwamura J, Hyodo M: Questionnaire survey on the conceptual framework, optimal evaluation, and support measures for children's language disorders in Japan using the Delphi method. Laryngoscope Investigative Otolaryngol 8 (3): 763-774, 2023.

2. 学会発表

- 1) Hyodo M, Nagao A, Doi N, Nakahira M: A Series of Clinical Studies on Spasmodic Dysphonia in Japan. 11th Edition - World Congress on Nursing Education & Practice. San Diego California USA, 2023.11.6-7.
- 2) 香川咲良, 中平真矢, 前田 優, 兵頭政光: 当科の痙攣性発声障害例における診断基準適合性について。第68回日本音声言語医学会総会・学術講演会, 倉敷市2023.10.5-6.

G. 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