

原 著

山口大学医学部歯科口腔外科における
口蓋形成術後の就学前言語成績
— ナゾメーター検査の有用性の検討 —

白石麻美, 梅田浩嗣, 野中 亮, 河崎啓介, 三島克章

山口大学大学院医学系研究科 歯科口腔外科学講座(歯科口腔外科) 宇部市南小串1丁目1-1 (〒755-8505)

Key words : 構音障害, 口蓋裂, 開鼻声, ナゾランス値, 鼻漏出

和文抄録

山口大学医学部附属病院歯科口腔外科において口蓋形成術後の就学前言語成績を明らかにすることを目的に, 言語評価とナゾメーター検査を行った。

対象は, 2006年8月から2017年11月の間に当科を受診し, 口蓋形成術を行った男児8名, 女児11名, 計19名とした。評価方法は, 日本コミュニケーション障害学会からの評価項目, 開鼻声の有無, 異常構音の有無とその種類, 鼻漏出の有無と併せてナゾメーター検査を行った。

結果として, 開鼻声は4例(21.1%)に認め, 異常構音は, 声門破裂音を2例(10.5%), 鼻雑音は6例(31.6%)に認めた。鼻息鏡による鼻漏出の有無(重複例を含む)は6例(31.6%)に認めた。

言語評価とナゾランス値との関連性を検討するために, それぞれのナゾランス値の平均値を比較した。開鼻声を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は54.3%と20.9%, また鼻漏出を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は40.2%と22.2%, 異常構音を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は42.4%と17.4%であった。そのなかで声門破裂音を認める症例と鼻雑音を認める症例の平均ナゾランス値はそれぞれ54.5%と38.3%であった。両者のナゾランス値には大きな差が観察された。

故に, ナゾメーター検査は口蓋裂患者の特徴的な鼻咽腔閉鎖機能や構音機能の状態をよく反映しうる有用な検査法であると考えられた。

緒 言

口唇・口蓋裂は出生約600人に1人の割合で発生する比較的発生頻度の高い体表奇形の一つである¹⁾。口唇・口蓋裂児では, 審美障害, 哺乳障害, 咀嚼障害, 言語障害がみられ¹⁾, なかでも口蓋裂児では言語障害が大きな問題となる。この言語障害を改善すべく口蓋裂児に対しては様々な術式の改良が加えられ, 適切な時期に口蓋形成術を行い, 的確な言語訓練を適応することにより, 言語成績は向上してきているが, 依然, 鼻咽腔閉鎖機能や構音機能に問題が残ることが少なくない。就学前の言語評価において, 構音障害は30~50%, 鼻咽腔閉鎖不全は5~30%にみられ, 異常構音の種類は, おもに口蓋化構音, 声門破裂音, 側音化構音が挙げられ, 頻度はそれぞれ12.9~48%, 2~32%, 2~16%とこれまで報告されてきている²⁻⁴⁾。

この言語成績の評価方法には, 日本コミュニケーション障害学会が推奨する言語成績の評価項目⁵⁾が一般的に利用されているが, 聴覚印象等に基づく主観的な評価が主体をなしているために, 評価者間によるバラツキや再現性に問題が残る。

一方でナゾメーターは, Fletcherら⁶⁾によって開

発された開鼻声を含む鼻腔共鳴異常を定量的に評価する装置で、本装置から求められるナゾランス値とは口腔と鼻腔から放射される全音響エネルギーに対する鼻腔からの音響エネルギーの百分率を求めたものである^{7, 8)}。客観的で再現性に優れ^{7, 8)}、非侵襲的な検査ではあるが、文字を読む必要があるため、適応できる年齢に制限がある。また用いられている被験文や基準値が施設によって異なる等の未解決の問題が残っている。そこで今回、当科で手術を行った口蓋裂患者を対象に就学前の時点での言語評価を、前述の日本コミュニケーション障害学会からの評価項目、開鼻声の有無、異常構音の有無とその種類、鼻漏出の有無等に基づいて行い、併せてナゾメーター検査を行い、これらの評価項目とナゾメーター検査の結果との関連性について検討した。

対象および方法

当科では口蓋裂に対して1歳6ヵ月ごろにWardill-Kilner法に順じたpush back法による口蓋形成術を行っている。発語が増加する2歳過ぎごろより言語治療を開始し、鼻咽腔閉鎖機能を賦活化する目的に、hard blowingやsoft blowingを中心に訓練を行い、言語聴覚士とともに、言語発達を中心に構音の状況を観察していく。言語治療を行うなかで、4歳ごろまでに鼻咽腔閉鎖機能の改善が得られない場合には、発音補正装置を適応して鼻咽腔閉鎖が得られる口腔内環境下で、正常構音の獲得を目指す。発音補正装置としては、まずPalatal Lift Prosthesis: PLPを適応し、鼻咽腔閉鎖が十分に得られない場合には、先端にbulbを付与し(bulb-PLP)、内視鏡を用いて直接観察しながら鼻咽腔の完全閉鎖が得られる様にbulbの形状を調節する。構音機能に関しては、構音絵カードを用いた構音検査を行いながら系統的構音訓練を行う。一方で、鼻咽腔閉鎖機能に対しては、簡易的にはhard blowing(吹き戻しを吹く)ないしsoft blowing(コップに水をいれてストローでブクブクと吹く)と鼻息鏡を用いて鼻漏れの有無と程度を評価し、適応可能な年齢となり次第、鼻咽腔セファログラム(安静時、/a/発音時、blowing時)、そして、鼻咽腔内視鏡検査を行う。

対象は、2006年8月から2017年11月までの11年3ヵ月間に山口大学医学部附属病院歯科口腔外科を受

診した口蓋裂患者で、1才6ヵ月前後に口蓋形成術を行い、その後当科の言語外来にてフォローした患者のうち、就学前の言語評価を行った男児8名、女児11名、計19名とした。裂型別では、両側性口唇口蓋裂は男児2例、片側性口唇口蓋裂は男児3例、女児3例、口蓋裂単独は男児2例、女児6例、粘膜下口蓋裂は男児1例、女児2例であった。

評価方法は、日本コミュニケーション障害学会の「構音検査」に準じた単語検査および「口蓋裂言語検査」⁵⁾を用いて、経験を有する言語聴覚士および口腔外科医によって、開鼻声の有無、構音機能として異常構音の有無と種類を評価した。鼻咽腔閉鎖機能の評価には、母音発音時と、吹き戻し時の呼気鼻漏出の程度を外鼻孔の下にキリアン式鼻息鏡を置き、鏡に生じた曇りの度合を記録した。加えてナゾメーター検査には、KAY PENTAX社製のNasometer6450を使用し、被験文はTachimuraら⁹⁾が提案した、非鼻音による被験文「きつつきが きをつつく、すくすく そだつ、てを たたく、てがとどく(Ki-tsu-tsu-ki passage)」とし、文章全体のナゾランス値を求めた。

山口大学医学部附属病院臨床研究審査委員会の承認を受け(H23-036-5)、被検者の家族より同意を得て行われた。

結 果

対象全症例の就学前言語成績一覧を表1に示す。

1) 開鼻声の有無

開鼻声は4例(21.1%)に認めた。開鼻声を有する者のナゾランス値は46.0~62.0%であった。裂型別では、両側性口唇口蓋裂1例(50.0%)、片側性口唇口蓋裂1例(16.7%)、口蓋裂0例(0%)、粘膜下口蓋裂2例(66.7%)であった。

2) 異常構音の種類

声門破裂音を2例(10.5%)、鼻雑音は6例(31.6%)に認めた。声門破裂音を有する者のナゾランス値は47.0~62.0%、平均値は54.5%であった。裂型別では、両側性口唇口蓋裂1例(50.0%)、片側性口唇口蓋裂1例(16.7%)、口蓋裂および粘膜下口蓋裂0例(0%)であった。

鼻雑音を有する者のナゾランス値は24.0~62.0%、平均値は38.3%であった。裂型別では、両側性口唇

口蓋裂 1 例 (50.0%)、片側性口唇口蓋裂 1 例 (16.7%)、口蓋裂 2 例 (25.0%)、粘膜下口蓋裂 2 例 (66.7%) であった。

3) 鼻息鏡による鼻漏出の有無 (重複例を含む)

/a/発音時に 1 例, /i/発音時に 5 例, /u/発音時に 4 例, /o/発音時に 1 例, hard blowing (吹き戻し) 時に 1 例鼻漏出を認めた。鼻漏出を有する者の

ナゾランス値は17.0~62.0%であった。裂型別では、両側性口唇口蓋裂 1 例 (50.0%)、片側性口唇口蓋裂 2 例 (33.3%)、口蓋裂 1 例 (12.5%)、粘膜下口蓋裂 2 例 (66.7%) であった。

4) ナゾメーター検査

全患者のナゾランス値は 9~62% であった。20% 未満が 8 例, 20% 以上 40% 未満が 5 例, 40% 以上

表 1 就学前言語評価一覧

症例 No.	病名	性別	手術時年齢	開鼻声の有無	異常構音の種類	鼻漏出の有無 (母音発語, 吹き戻し時の鼻息鏡のくもり)	ナゾランス値 (%)	検査時年齢
1	口蓋裂	M	1 歳 6 か月	-	-	-	9	6 歳 0 か月
2	口蓋裂	F	1 歳 6 か月	-	-	-	18	6 歳 0 か月
3	口蓋裂	F	1 歳 7 か月	-	-	-	42	6 歳 1 か月
4	両側性口唇口蓋裂	M	1 歳 3 か月	+	声門破裂音	/a/	62	7 歳 9 か月
5	口蓋裂	M	1 歳 5 か月	-	-	-	10	6 歳 1 か月
6	粘膜下口蓋裂	F	5 歳 6 か月	+	鼻雑音	/i/	62	5 歳 10 か月
7	口蓋裂	F	1 歳 6 か月	-	-	-	14	6 歳 7 か月
8	右側口唇口蓋裂	M	1 歳 5 か月	-	-	/i/, /u/, /o/	24	5 歳 11 か月
9	左側口唇口蓋裂	F	1 歳 4 か月	+	声門破裂音	-	47	7 歳 3 か月
10	口蓋裂	F	1 歳 3 か月	-	鼻雑音	/i/, /u/	30	6 歳 9 か月
11	左側口唇口蓋裂	F	1 歳 5 か月	-	-	/i/, /u/, hard blowing	17	6 歳 8 か月
12	口蓋裂	F	1 歳 3 か月	-	-	-	12	7 歳 2 か月
13	両側性口唇口蓋裂	M	1 歳 4 か月	-	鼻雑音	-	44	6 歳 9 か月
14	粘膜下口蓋裂	F	1 歳 9 か月	+	鼻雑音	/i/, /u/	46	5 歳 0 か月
15	左側口唇口蓋裂	F	1 歳 4 か月	-	-	-	20	4 歳 11 か月
16	口蓋裂	F	1 歳 7 か月	-	鼻雑音	-	24	5 歳 4 か月
17	右側口唇口蓋裂	M	1 歳 3 か月	-	鼻雑音	-	24	5 歳 10 か月
18	左側口唇裂、 粘膜下口蓋裂	M	1 歳 3 か月	-	-	-	14	4 歳 9 か月
19	左側唇顎口蓋裂	M	1 歳 7 か月	-	-	-	11	5 歳 3 か月

症例ごとの手術時年齢, 開鼻声の有無, 異常構音の有無と種類, 鼻漏出の有無, ナゾランス値, 検査時年齢を示す。

60%未満が4例, 60%以上80%未満が2例であった。裂型別では, 両側性口唇口蓋裂は44.0~62.0%, 片側性口唇口蓋裂は11.0~47.0%, 口蓋裂は9.0~42.0%, 粘膜下口蓋裂は14.0~62.0%であった。

考 察

口蓋裂治療において, 正常な鼻咽腔閉鎖機能の獲得と正常な構音機能の獲得が, 良好な言語成績を得るためには必要不可欠である。今回, 当科における口蓋裂治療の成績を明らかにする目的に就学前の言語成績を検討した結果, 当科における就学前の口蓋裂患者の異常構音は42.1%にみられ, 過去の報告では30~50%²⁻⁴⁾と類似した結果であった。異常構音の種類は, 声門破裂音が10.5%, 鼻雑音が31.6%であった。過去の報告で主な異常構音は, 口蓋化構音が12.9~48%, 声門破裂音が2~32%, 側音化構音が2~16%であり²⁻⁴⁾, 他には鼻咽腔構音や咽頭摩擦音³⁾, 置換や歪み⁴⁾, 鼻雑音は24.1%¹⁰⁾との報告もある。過去の報告では, 鼻咽腔閉鎖機能として開鼻声, 鼻漏出, 視診から総合的に判断して鼻咽腔閉鎖機能を評価しているものが多く, その結果は, 軽度不良から不良が5~30%²⁻⁴⁾であったと報告されている。そのなかでも, 開鼻声は2.1~17.2%^{2, 10)}, 鼻漏出は34.5%¹⁰⁾にみられ, 当科における口蓋裂患者の調査では開鼻声は21.1%, 鼻漏出は31.6%であり, 過去の報告と類似した結果であった。

ナゾメーター検査では, 鼻漏出の程度を数値化し, 客観的に評価でき, また非侵襲的に実施できる。問題点としては, 口蓋部に口腔鼻腔瘻孔が残っている場合は, その瘻孔からの鼻漏出を合わせてカウントしてしまう点と, 明確な基準値がなく, 施設ごとに用いられている被験文や基準値が異なる点である。すなわち, 日本語を対象とした共通の被験文がなく, またナゾランス値の共通の確立された基準値や正常値がないことが問題として残っている。緒方ら⁷⁾は, 口唇口蓋裂患児において, 鼻咽腔閉鎖良好群は母音および低圧文の平均ナゾランス値が20%以下ならびに低圧文の最大値が60%以下であることが有用な指標となり, 鼻咽腔閉鎖機能不良群は低圧文および高圧文におけるナゾランス値の平均値が40%以上, 高圧文の最大値が80%以上になると報告した。相馬ら⁸⁾は, 口唇口蓋裂患児において, 検査音「シ」を用い

てナゾランス値の評価基準値が50%未満とすることが鼻咽腔閉鎖不全の評価の指標になると述べている。Tachimuraら⁹⁾は, 健常成人における被験文(Ki-tsu-tsu-ki passage)のナゾランス値の平均値は $9.12 \pm 3.9\%$, さらにTachimuraら¹¹⁾は, PLPを使用している口蓋裂患児において, 同様の被験文で, ナゾランス値の平均値はPLP使用下で17.3%, PLP未使用で33.5%であり, 健常成人よりナゾランス値が高いと述べている。Mishimaら¹²⁾は, Ki-tsu-tsu-ki passageから得られるナゾランス値の平均値は男性 $10.3 \pm 5.8\%$, 女性 $15.6 \pm 8.4\%$ であったと報告している。これをもとに, 当科ではおおよそ20%未満を“正常”と判断している。

今回, 開鼻声の有無, 異常構音の有無とその種類, 鼻漏出の有無とナゾランス値との関連性を検討する目的に, それぞれのナゾランス値の平均値を求め, 比較した。開鼻声を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は54.3%と20.9%, また鼻漏出を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は40.2%と22.2%であり, ナゾメーター検査は鼻咽腔閉鎖機能に直結する症状である鼻腔共鳴と鼻漏出の程度を計る装置であるが故の結果と考える。また, 異常構音を認める症例と認めない症例の平均ナゾランス値は42.4%と17.4%であり, そのなかで声門破裂音を認める症例と鼻雑音を認める症例の平均ナゾランス値はそれぞれ54.5%と38.3%であり, 異常構音の有無, 特に鼻雑音の有無でナゾランス値に大きな差が観察され, ナゾメーター検査は口蓋裂術後患者の構音評価の支援に役立つ可能性を有すると考えられる。

KummerとNeale¹³⁾は, 鼻雑音は鼻咽腔閉鎖部位において, 十分な閉鎖が得られていない空隙部分で呼気が通過する際に生じる雑音と述べており, 平野¹⁴⁾は鼻雑音が鼻咽腔閉鎖不全に起因した代償構音の一つと述べている。今回, 鼻雑音を有する患者のナゾランス値は, 24~62%と全例が20%以上であった。鼻雑音があれば, ナゾランス値は上昇するという過去の報告¹⁵⁾と一致しており, 聴覚印象では聞き取りにくいことが少ない鼻雑音を, ナゾメーター検査を用いることで検出の補助となる可能性が考えられた。

顎顔面の成長に伴い, 鼻咽腔閉鎖機能に変化が生じること, 特にアデノイドの退縮に伴う鼻咽腔閉鎖

不全の出現が以前より指摘されているが¹⁶⁾、いわゆる鼻咽腔閉鎖機能のボーダーライン症例は、要注意と考えられる。今回の結果を踏まえ、当科では特にナゾランス値20%を超える症例では、経年的な鼻咽腔閉鎖機能の変化をナゾメーター検査を用いてフォローすることが有用であると考えている。

結 語

当科の口蓋裂患者における就学前の言語成績とナゾメーター検査の結果から、鼻咽腔閉鎖機能と異常構音、特に鼻雑音の有無の評価にナゾメーター検査が有用であると考えられ、また成長に伴う鼻咽腔閉鎖機能の評価に対しても有用な検査と考えられた。

引用文献

- 1) 白砂兼光, 古郷幹彦, 他. 口腔外科学, 第4版. 医歯薬出版株式会社. 東京 2020 ; 64.
- 2) 鈴木恵子, 岡部早苗, 弓削明子, 池本繁弘, 他. 粘膜移植粘膜弁法による口蓋形成術後の言語成績. 日口蓋誌 2012 ; 37 : 197-202.
- 3) 曾我部いづみ, 三古谷忠, 澁川統代子, 今井智子, 他. 二段階口蓋形成手術を施行した唇顎口蓋裂症例の言語成績 - 4歳時および5歳時の評価 -. 日口蓋誌 2014 ; 39 : 7-16.
- 4) 三河内章子, 竹内真理子, 益岡 弘, 野瀬謙介, 他. 口蓋裂術後の構音習得と5歳児言語成績. 日口蓋誌 2017 ; 42 : 1-6.
- 5) 加藤正子, 峪 道代, 大平章子, 北野市子, 他. 口蓋裂言語検査 (言語臨床用), 第1版. 日本コミュニケーション障害学会. 東京 2007.
- 6) Fletcher S G, Bishop M E. Measurement of nasality with tonar. *Cleft Palate J* 1970 ; 7 : 610-621.
- 7) 緒方祐子, 中村典史, 窪田泰孝, 他. ナゾメーター検査による口蓋裂患者の鼻咽腔機能評価 - 鼻咽腔閉鎖機能の客観的評価基準の検討 -. 日口蓋誌 2003 ; 28 : 9-19.
- 8) 相馬裕子, 平井恵美子, 堀部晴司, 堀部智子, 他. 口唇口蓋裂児の鼻咽腔閉鎖不全に対するナゾメーター検査による評価. 小児耳鼻咽喉科 2018 ; 39 : 320-326.
- 9) Tachimura T, Mori C, Hirata S, Wada T. Nasalance score variation in normal adult Japanese speakers of Mid-West Japanese dialect. *Cleft Palate Craniofac J* 2000 ; 37 : 463-467.
- 10) 平野友紀子, 高橋路子, 西條英人, 大久保和美, 他. 片側性唇顎口蓋裂患者の術前硬口蓋後端裂幅と術後言語機能との関連. 日口蓋誌 2020 ; 45 : 197-202.
- 11) Tachimura T, Kotani Y, Wada T. Nasalance scores in wearers of a palatal lift prosthesis in comparison with normative data for Japanese. *Cleft Palate Craniofac J* 2004 ; 41 : 315-319.
- 12) Mishima K, Sugii A, Yamada T, Imura H, et al. Dialectal and gender differences in nasalance scores in a Japanese population. *J Craniomaxillofac Surg* 2008 ; 36 : 8-10.
- 13) Kummer A W, Neale H W. Changes in articulation and resonance after tongue flap closure of palatal fistulas : Case reports. *Cleft Palate J* 1989 ; 26 : 51-55.
- 14) 平野 実. 口蓋裂音声の音声学的研究. 耳鼻咽喉科臨床 1963 ; 56 : 124-168.
- 15) 舘村 卓, 平田創一郎, 福本雅美, 和田 健. 境界線上の鼻咽腔閉鎖不全状態における内視鏡所見とnasalance scoreの乖離 - Palatal Lift Prosthesis (パラタルリフト) 作成過程に伴うnasalance scoreの変化 -. 音声言語医学 1999 ; 40 : 107-113.
- 16) 宮崎 正, 他. 口蓋裂 - その基礎と臨床 -, 第1版. 医歯薬出版株式会社. 東京 1982 ; 87.

Preschool Speech Outcomes after Palatoplasty of Patients — Examination of the Usefulness of Nasometry—

Mami SHIRAISHI, Hirotsugu UMEDA,
Ryo NONAKA, Keisuke KAWASAKI and
Katsuaki MISHIMA

Department of Oral and Maxillofacial (Department of Oral and Maxillofacial), Yamaguchi University Graduate School of Medicine, 1-1-1 Minami Kogushi, Ube, Yamaguchi 755-8505, Japan

SUMMARY

To determine pre-school speech outcomes after palatoplasty in the Oral and Maxillofacial Surgery Department of Yamaguchi University Hospital, we performed speech evaluation and nasometry examination.

As subjects, 8 boys and 11 girls with cleft palate who visited our department from August 2006 to

November 2017 and underwent palatoplasty were included. Nasometry was performed with assessment of the presence or absence of hypernasality and nasal emission, and the presence or absence and type of abnormal articulation.

Four patients (21.1%) showed hypernasality, and among abnormal articulations, glottal stop and nasopharyngeal snort were observed in 2 (10.5%) and 6 (31.6%) patients, respectively. Six patients (31.6%) had nasal emission. Mean nasalance scores were 54.3% and 20.9% for patients with and without hypernasality, 40.2% and 22.2% for patients with and without nasal emission, and 42.4% and 17.4% for patients with and without abnormal articulations. Among the patients with abnormal articulations, mean nasalance scores were 54.5% for patients with glottal stop and 38.3% for patients with nasopharyngeal snort.

Thus, nasometry can be considered as a useful examination to reflect nasopharyngeal closure function and articulatory function in patients with cleft palate after palatoplasty.