

特集2 ディサースリアの治療の重要論文を読む：EBM の時代

エビデンスに基づいたディサースリアの 診療ガイドライン：鼻咽腔閉鎖機能の治療 Evidence-Based Practice Guidelines for Dysarthria : Management of Velopharyngeal Function

Academy of Neurologic Communication Disorders and Sciences: Writing Committee for
Practice Guidelines in Dysarthria:

Kathryn M. Yorkston, Ph.D., BC-NCD

Department of Rehabilitation Medicine, University of Washington, Seattle, Washington

Kristie Spencer, M.S.

Department of Speech and Hearing Sciences, University of Washington, Seattle, Washington

Joseph Duffy, Ph.D., BC-NCD

Division of Speech Pathology, Department of Neurology, Mayo Clinic, Rochester, Minnesota

David Beukelman, Ph.D.

Department of Special Education and Communication Disorders, University of Nebraska, Lincoln, Nebraska

Lee Ann Golper, Ph.D., BC-NCD

Department of Hearing and Speech Sciences, Vanderbilt-Bill Wilkerson Center, Nashville, Tennessee

Robert Miller, Ph.D., BC-NCD

Department of Rehabilitation Medicine, Veterans' Administration Puget Sound Health System, Seattle, Washington

Edythe Strand, Ph.D., BC-NCD

Division of Speech Pathology, Department of Neurology, Mayo Clinic, Rochester, Minnesota

Marsha Sullivan, M.A.

Munroe-Meyer Institute for Genetics and Rehabilitation, University of Nebraska-Omaha, Omaha, Nebraska

(Journal of Medical Speech-Language Pathology, 9(4) : 257-274, 2001 より抄訳)

抄訳▶

訳：森 隆志

Takashi Mori

Academy of Neurologic Communication Disorders and Sciences (ANCDS) は、ディサースリアのある人を治療する言語聴覚士のためのエビデンスに基づいた診療ガイドラインを開発するために委員会を設立した。このガイドラインは、研究文献と専門家の意見の両方を基に、ディサースリアにおける鼻咽腔の管理の問題を対象とする。電子デー

タベース (PsychINFO, MEDLINE, CINAHL) の検索および関連する本のハンドサーチにより、補装具、手術、および運動のカテゴリーで 33 件の介入研究が存在した。これらのエビデンスの質の要約を、変性性および安定/回復性ディサースリアの両方における鼻咽腔閉鎖不全の対応に関する臨床的意思決定のフローチャートとともに提供する。また、軟口蓋挙上装置は、ディサースリアのある人におい

総合南東北病院 口腔外科 摂食嚥下リハビリテーションセンター

[連絡先] 森 隆志：総合南東北病院 口腔外科 摂食嚥下リハビリテーションセンター (〒963-8563 福島県郡山市八山田 7-115)

TEL : 024-934-5322 FAX : 024-934-5358 E-mail : tmori0117@yahoo.co.jp

て有効である。軟口蓋が弛緩し、咽頭側壁運動があり、口腔構音機能と呼吸の支持性が良好で、病気の経過が安定していると良い適応となる。

背景

ディサースリアは、神経学的な発話障害の一種で、脱力、痙性、運動失調、硬直、およびさまざまな不随意運動（たとえば、ジストニア、振戦）などの病態生理の結果として、音声・構音の強さ、速度、範囲、タイミング、または正確さの異常が特徴として反映される。これまで多くの評価アプローチと治療テクニックが報告されているが、いくつかは妥当性や有用性に疑問があるものもある。ディサースリア診療ガイドライン作成委員会は、ANCDsにより、言語聴覚士のためのエビデンスに基づく診療ガイドラインの作成を行っており、本稿ではディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全についてレビューする。長年、口蓋裂およびディサースリアにおける“velopharyngeal disorders”を説明するために、多くの用語が使用されてきた。これらの用語には、鼻咽腔機能障害、鼻咽腔閉鎖不全などが含まれる。Kuehn は、鼻咽腔閉鎖機能障害（velopharyngeal impairment）という用語を使用することを提案している¹⁾。

エビデンスの検証手順

まず、専門家のグループ（執筆委員会）を招集し、ガイドラインの基礎となる仮定、適切な臨床的質問、および評価する文献の範囲を定義した。次に文献検索を行い、関連する論文を収集し、介入研究のエビデンスの質を評価した。この結果に基づき研究文献と執筆委員会の専門家の意見をまとめたテクニカルレポートを作成した。さらに、専門家の意見を募集し、推奨事項の作成、レビュー、修正をしたのちにガイドラインを発表した。

文献検索と専門家の意見の検討

データベースは PsychINFO, MEDLINE, CINAHL を使用した。最初の検索は、dysarthria と velopharyngeal, dysarthria と hyper-nasality, dysarthria と resonance など、dysarthria という用語と対になるキーワードで行われた。その後、velopharyngeal, hypernasality, resonance などの用語と speech, treatment という用語を組み合わせで検索を行った。証拠資料も探した。電子検索に加えて、ディサースリア分野の関連編集書籍や論部のハンドサーチを行った。この結果、1,042 の文献を収集し、さらに絞り込んだ。エビデンスの強さを評価した。介入に関する文献で

表 1 種々の介入の報告数と症例数の合計

期間	補綴	手術	運動	合計
< 1970	3 (12)	3 (9)		6 (21)
1970 年代	8 (77)	3 (18)	1 (1)	12 (96)
1980 年代	6 (63)	1 (1)		7 (64)
1990 年～2000 年 7 月	4 (34)	2 (6)	1 (2)	7 (42)
合計	21 (186)	9 (35)	2 (3)	33 (224)

() は症例の数

発見されたエビデンスの質を、執筆委員会の専門家の意見とともに技術報告書に要約した。この報告書の草稿は、より多くの専門家評価委員に提供された。専門家の意見は慎重に検討され、技術報告書の修正に使用された。最終的に、ガイドラインは技術報告書の形で配布され、ANCDs (<http://www.duq.edu/ancds/>) と ASHA (<http://www.asha.org/>) のウェブサイトで発表された。

介入研究のエビデンス

介入研究を、補綴、外科、運動の 3 つのカテゴリーに分類した。補綴的介入には、軟口蓋挙上装置、口蓋の補綴が含まれた。外科的介入には、咽頭フラップ手術が含まれた。また、軟口蓋挙上装置や持続的陽圧呼吸療法（CPAP 療法）による抵抗運動も行われた。表 1 は、30 年以上にわたって研究論文で報告された鼻咽腔閉鎖不全に対する介入の種類をまとめたものである。最も多かったのは補綴の対応で 21 件（全体の 61%）、次いで外科手術が 9 件（全体の 27%）、運動療法が 2 件（全体の 6%）であった。症例数、被験者数で比較すると、軟口蓋挙上装置が圧倒的に多く、被験者の 83%（224 例中 186 例）に上った。また、16% の被験者が咽頭弁移植術を受けていた。しかし、1990 年以降、咽頭弁移植術は 2 例しか報告されていない。これらの研究を評価した結果、ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全に対する外科的治療や運動の有効性を評価するのに十分なエビデンスはなかった。また、以下の手技の有効性を裏付けるエビデンスが存在しなかった：プッシング法、ブローイング法、吸啜法、ボール、笛、ろうそく、綿毛、粉、紙、泡、ストローなどを使用して気流の制御と修正を促す作業、長期のアイシング、筋肉の挿入点への圧迫、ゆっくりとした不規則なストロークとブラッシング、脱感作などの抑制技術。

補綴介入の効果に関するエビデンス

今回レビューした研究では、被験者の特徴について包括

的なものから最小限のものまでさまざまな記述があった。鼻咽腔閉鎖不全に対する介入は、外傷性脳損傷、脳血管障害、脳性まひ患者において最も多く研究され、運動ニューロン疾患も含まれていた。ディサースリアのタイプが特定されている場合（37%の論文で特定されている）、ほとんどのケースで弛緩が構成要素となっていた。2番目に多いタイプのディサースリアは、弛緩性／痙性混合型ディサースリアであった。

介入研究

アウトカムに心理的な尺度を用いるケースがあるが、使用した尺度の心理測定の妥当性についてのデータを提供している研究は約20%であった。いくつかの研究では、軟口蓋の引き上げの有無による発話の適切さの測定値の比較が行われている。これは、内的妥当性（すなわち、軟口蓋挙上結果の変化に関連している）の強力な証拠となり得る。一般的に、軟口蓋挙上装置の装着によるリスクや合併症は軽微なものだった。いくつかの研究では、歯のシフトまたは軟組織への損傷がリスクであると示唆されている。軟口蓋挙上装置における最も一般的な合併症は、初期不快感、嚥下抑制不能、および補綴物の保持困難、音声の変化であった。

介入研究の結果

軟口蓋の挙上は肯定的な結果が多かった。Bedwinekが報告した25例では、76%の確率で治療が成功したと判断されていた²⁾。最も一般的な結果は、明瞭度の改善、音声明瞭度の改善、過緊張の緩和、および音声のための楽な呼吸であった。軟口蓋挙上装置の装着は、軟口蓋が弛緩しており、鼻咽腔壁の動きが良好な場合に最良の結果が得られると報告されていた。軟口蓋挙上装置を装着した対象グループの研究では、軟口蓋挙上装置と鼻咽腔閉鎖機能の回復の間に強い関連性は認められなかった³⁾。

臨床的意思決定

以下に、ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全の対応に関する臨床的意思決定フローの概要を示す。これは、先に検討したエビデンスから導き出された結論と、発表された文献や専門家の意見から導き出されたものである。図1は、ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全の管理に関する臨床的意思決定のフローチャートである。

フローにおける評価項目

構音の鼻咽腔閉鎖不全に関連する評価項目は鼻腔共鳴の状態、鼻腔閉鎖時と非閉鎖時の明瞭度、圧力子音、発話努力、呼吸あたりの音節数、共鳴の違い、安静時および動作時の鼻咽腔、舌筋力、咬合、咽頭反射、嚥下能力および唾液、粘膜下裂の徴候である。鼻咽腔の機器検査は、ビデオ超音波検査、鼻内視鏡検査、空気力学的評価（圧力－流量）、音響評価などが含まれる。また、発話速度の変化、努力性のレベルの変更、鼻腔の気流のモニタリング、構音運動を抑制し、音声の精度を高めるといった行動的介入による評価が可能である。

軟口蓋挙上装置の装着時期

中等度の重症例における軟口蓋挙上装置の装着実施時期については、専門家の間でも意見が分かれている。鼻咽腔の治療が他の領域の機能を向上させるかどうか（例えば、呼吸への負担を軽減する）、鼻咽腔閉鎖機能が他の領域の治療に優先するか、発す速度や努力を修正することで利益を得られるかどうかを判断するために、他の機能要素の相対の重症度を含むいくつかの要因を考慮する必要がある⁴⁾。

行動的介入

ディサースリアの治療に際し、さまざまな行動的介入が推奨されているが、エビデンスや専門家の意見からの指針はほとんどない。発話パターンの修正方法として力を入れたり⁵⁾、速度を落としたり^{6,7)}することが含まれる。

フィードバック

バイオフィードバックの技術は、ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全に使用することが提案されている。話者によっては、鼻腔内の空気の流れや鼻腔の過敏性を減らす努力の際に、鏡、鼻腔流量トランスデューサー、鼻内視鏡からのフィードバックが有効な場合がある⁸⁾。また、軟性内視鏡、光ファイバー経鼻咽頭鏡、鼻腔流量計も利用可能である。

進行性ディサースリアの対応

進行性ディサースリアにおける軟口蓋挙上装着が適応となる対象と不適応となる対象の特性を示している。より良い候補とは、疾患の進行速度が遅く、認知、記憶、判断に問題がないものである。

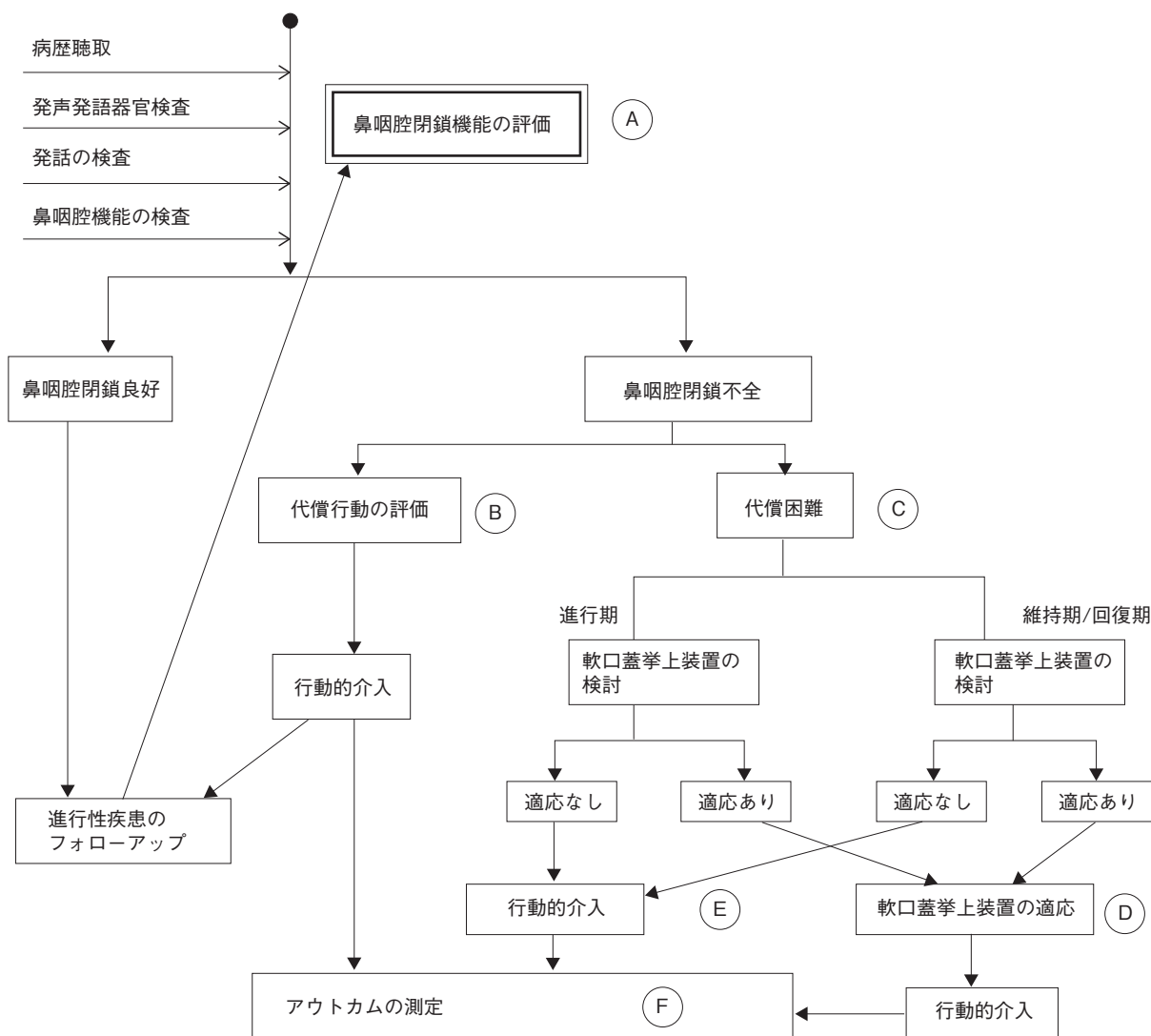


図1 ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全の管理に関する臨床的意思決定のフローチャート

急速に発話機能が改善する人は、補綴を用いた介入なしに良好な機能がすぐに戻る可能性があるため、一般的には良い適応候補者とはみなされない。以下に、軟口蓋垂挙上装置を構築するために取られる典型的な手順を示す⁹⁾話者の歯と歯茎をチェックし、必要な修復を完了させる。次に矯正用バンドやアクリルリッジを選択した歯に固定する(オプション)。咽頭反射が亢進している者には、口腔内の脱感作プログラムを開始する¹⁰⁾。上顎弓の印象型をとり、リフトのリテーナー(硬口蓋を覆う部分)を作製し、後方に伸びるワイヤループをリフトの後方部分のアンカーとして使用する。リフトの後方部分は、個々のスピーカーのニーズと許容範囲に合わせてカスタマイズされる。補綴歯科医と言語聴覚士がフォローアップのための診察を行う。

外科的介入

鼻咽腔フラップ形成術は、一般的には、行動療法などを試みて失敗した場合にのみ検討される。

結果の測定

ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖機能の評価に使用される結果測定の例を以下に挙げる。すなわち、レントゲン写真、身体検査結果、空気力学的測定、発声時間、音声サブシステムによる重症度評価、肺機能検査、鼻音の知覚的变化、調音における知覚的变化、音声の知覚的变化、明瞭度の知覚的变化、努力の減少、仕事への復帰、疲れない話し方、自信、自尊心の報告、生活の質が向上したとの報告である。

まとめ

ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全の対応に関連する専門的レビューの結果、以下のことが示唆された。

1. 補綴治療，特に軟口蓋挙上装置は，特定のディサースリアの発話機能改善と関連する。
2. 外科的介入は，他の全ての介入が失敗した場合を除き，一般に考慮されない。現在，一般的なディサースリアの人に対して外科的介入を推奨するには，十分な証拠がない。
3. ディサースリアにおける鼻咽腔閉鎖不全の治療としての運動療法は，少数の症例で報告されているが，エビデンスが非常に少ないため，現時点ではその使用について推奨することはできない。

文 献

- 1) Kuehn DP, Moller KT : Speech and language issues in the cleft palate population : The state of the art. *The Cleft Palate Craniofacial Journal*, 37(4) : 348-383, 2002.
- 2) Bedwinek AP, O'Brian RL : A patient selection profile for the use of speech prosthesis in adult disorders. *Journal of Communication Disorders*, 18(3) : 169-182, 1985.
- 3) Witt PD, Roxelle AA, Marsh JL, Marty-Grame, et al : Do palatal lift prostheses stimulate velopharyngealneuromuscular activity? *The Cleft Palate Craniofacial Journal*, 32(4) : 469-475, 1995.
- 4) Netsell R, Rosenbek JC : *Treating the dysarthrias. Speech and Language Evaluation in Neurology : Adult Disorders*. New York : Grune & Stratton, 1985.
- 5) Liss JM, Kuehn DP, Hinkle KP : Direct training of velopharyngeal musculature. *Journal of Medical Speech-Language Pathology*, 2(3) : 243-251, 1994.
- 6) Yorkston KM, Beukelman D : Ataxic dysarthria : Treatment sequences based on intelligibility and prosodic considerations. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 46 : 398-404, 1981.
- 7) Yorkston KM, Beukelman DR, Strand EA, et al : *Management of motor speech disorders in children and adults*. Austin, TX : Pro-Ed, 1999.
- 8) Rosenbek JC, LaPointe LL : The dysarthrias: Description, diagnosis, and treatment. In Johns D (Ed), *Clinical Management of Neurogenic Communication Disorders*. Boston : Little Brown, pp97-152, 1985.
- 9) Yorkston KM, Beukelman DR, Strand EA, et al : *Management of motor speech disorders in children and adults*. Austin, TX : Pro-Ed, 1999.
- 10) Daniel B : A soft palate desensitization procedure for patients requiring palatal lift prostheses. *Journal of Prosthetic Dentistry*, 48 : 565-566, 1982.