

## 論 文 要 旨

### *The 3-D Analysis of Palatal Morphology Associated with Palatalized Articulation in Patients with Unilateral Cleft Lip and Palate*

[ 口蓋化構音が発現した片側性唇顎口蓋裂患者の口蓋形態三次元分析 ]

西 久 保 舞

【序論】口蓋裂治療において、鼻咽腔閉鎖機能不全にともなう声門破裂音や咽頭摩擦音などの構音障害は重大な問題である。しかし近年、術式の改善や手術時期の早期化によって確実な鼻咽腔閉鎖機能が得られる症例が多くなった結果これらの異常構音は減少し、正常な鼻咽腔閉鎖機能を獲得した人にみられる構音障害である口蓋化構音が注目されるようになってきた。口蓋化構音は正常な歯茎破裂音が上顎前歯口蓋側歯頸部に接触・閉鎖して産生させるのに対して、舌尖が下降し舌背後方が挙上して硬口蓋後方や軟口蓋付近に接触することで産生される異常構音である。発現要因として舌異常習癖、口蓋瘻孔の存在、咬合の異常や異常口蓋形態、などが報告されているが主たる要因は不明であり、治療に苦慮することが多い。そのなかで、口蓋化構音は口蓋裂単独患者より唇顎口蓋裂患者に多く出現する、という報告が数多くみられることから、口蓋形態がその発現に重要な役割を果たしていることが指摘されている。

#### 研究1：口蓋化構音が発現した片側性唇顎口蓋裂患者の口蓋形態三次元分析

【目的】口蓋化構音発現に影響する口蓋形態の特徴を解明するために、口蓋化構音が発現した片側性唇顎口蓋裂（以下UCLP）患者の口蓋形態を三次元的に分析し、正常構音を獲得した患者と比較した。

【対象と方法】1984年4月から2005年3月までに鹿児島大学病院口腔顎顔面外科（以下当科）で一貫治療を行なったUCLP患者142名の中から1)当科で口唇形成術と一回法による口蓋形成術を施行し継続した言語治療を受けていること、2)言語評価と同時期（4～5歳）の上顎模型があること、3)確実な鼻咽腔閉鎖機能が得られていること、4)言語評価以前に構音に関する他の外科治療もしくは歯科矯正治療を受けていないこと、5)全身的な先天性疾患、精神発達遅滞や聴覚障害がないこと、6)構音障害として口蓋化構音だけが認められること、の条件を満たした12名を対象とした（P群）。対照として6)の条件を「異常構音を認めない患者」として20名を選出した（N群）。上顎模型計測には非接触型三次元形状計測装置（SURFLASER, Unisn Co., Osaka）を用い、得られた三次元画像は三次元データ解析ソフト（3D-RugleIV, Medic Engineering Co., ）にて分析した。パーソナルコンピュータで再構築した三次元画像上に基準平面（水平面）および計測基準点を設定し基準点の座標値を求めた。得られた座標値から座標図を作成するとともに、再構築画像から前頭断および矢状断面を作成し、それぞれに計測項目を定め2群間で比較した。計測値の比較・検定にはMann-Whitney U-testを用い危険率5%未満を有意とした。

【結果】口蓋化構音を有する患者の口蓋形態の特徴として以下の3つの点が明らかになった。

- (1)水平面では患側の犬歯および第一乳臼歯が有意に後方に位置し、口蓋後方部の狭小化が強かった。
- (2)前頭断面では、犬歯相当部の断面において最深点が有意に健側に位置し、口蓋前方部の非対称性が強くなっていた。
- (3)矢状断面では、口蓋中央前方部が有意に平坦で、浅くなっていた。

#### 研究2：Hotz型口蓋床の口蓋化構音発現に及ぼす影響

【目的】唇顎口蓋裂患者の治療の過程で口蓋形態を改善する手段としてHotz型口蓋床（以下Hotz床）がある。Hotz床は哺乳障害の改善のほかに顎裂・口蓋裂部の裂幅の縮小や顎・歯槽形態の誘導による顎発育の促進などの効果が認められている。しかし、Hotz床が構音に及ぼす影響については諸説あり、口蓋化構音についても見解の一致は出ていない。そこで、①Hotz床の有無と口蓋化構音発現の関連、②Hotz床の有無と口蓋化構音発現の有無に関連する口蓋形態三次元的分析、について検討した。

##### ①Hotz床の有無と口蓋化構音発現の関連との解析

【対象と方法】1984年4月から2005年3月までに当科で一貫治療を行なった片側性唇顎口蓋裂患者142

名 (Hotz 床未使用患者 55 名; Hotz(-)群, 使用患者 87 名; Hotz(+群) を対象とし, 2 群間の口蓋化構音発現頻度を  $\chi^2$ -test を用いて比較した。

【結果】 Hotz(-)群では口蓋化構音発現例が 55 例中 16 例 (29.1%) にみられた。一方, Hotz(+群)では 87 例中 12 例 (13.8%) と少なく, 両群間の口蓋化構音発現頻度に有意差を認めた。

### ② Hotz 床の有無と口蓋化構音発現の有無に関連する口蓋形態三次元的分析

【対象と方法】 研究1と同じ条件で抽出した 32 例を対象とし, Hotz 床使用の有無および口蓋化構音の有無で 4 群に分類した。内訳は, Hotz(-)群のうち正常構音獲得症例 10 名 (NH(-)群), 口蓋化構音発現症例 5 名 (PH(-)群), Hotz(+群)のうち正常構音獲得症例 10 名 (NH(+群), 口蓋化構音発現症例 7 名 (PH(+群)であった。上顎模型計測は研究 1 と同様の方法で行い, 4 群間で比較した。

#### 【結果】

(1) PH(-)群は NH(-)群に比べ有意に口蓋後方部の狭小化, 口蓋前方部の非対称性, 浅化と平坦化という特徴が見られた。

(2) NH(+群) 10 例と PH(+群) 7 例の間に有意な口蓋形態の違いは認められなかった。

(3) PH(+群)では PH(-)群に見られた口蓋後方部の狭小化, 口蓋前方部の非対称性, 浅化と平坦化という口蓋形態の特徴は認められなかった。

#### 【結論と考察】

##### 1. 口蓋化構音発現に対する口蓋形態の影響について

研究 1 では口蓋化構音を有する UCLP 患者の口蓋形態を三次元的に分析し, P 群は N 群に比べて口蓋後方部が狭小化し, 口蓋前方部は非対称で平坦かつ浅い, という特徴が得られた。口蓋化構音と口蓋形態に関する従来の研究でも, 口蓋化構音を発現した症例では口蓋前方部の浅化や狭小化, というほぼ一致した見解が得られている。このことから, 口蓋形態の異常が舌と口蓋の接触様式に影響を与え, 舌を後方へ移動させ口蓋化構音を引き起こす要因となり得ることが考えられた。

##### 2. Hotz 型口蓋床が口蓋化構音発現に及ぼす影響について

過去の報告では Hotz 床と言語成績に関する評価は一定ではない。口蓋化構音に限っても, Hotz 床は乳児の舌の不規則な運動を防ぎ口蓋化構音の発現を防止する, Hotz 床の使用が口蓋を浅くし口蓋化構音発生の原因となる, など見解の一致は出ていない。しかし, 今回の結果から Hotz 床にて治療を受けた患者は有意に口蓋化構音の発現が少なく, Hotz 床は口蓋形態の異常を改善することで口蓋化構音発現の要因を取り除き口蓋化構音の発現を減少させることが伺えた。しかし, 他にも多くの発現要因が関与していることが考えられ, 口蓋化構音の予防ならびに治療を検討していくことが口蓋裂患者の構音障害の問題を解決することにつながると考えられる。

(日本口蓋裂学会雑誌, 第 32 巻第 1 号, 2007 年 掲載)

(Oral Science International, Vol. 6, 2009 年 掲載予定)

## 論文審査の要旨

報告番号	総研第 <b>63</b> 号		学位申請者	西久保 舞
審査委員	主査	杉原 一正	学位	博士 (歯学)
	副査	原田 秀逸	副査	宮脇 正一
	副査	西 恭宏	副査	早崎 治明

The 3-D Analysis of Palatal Morphology Associated with Palatalized Articulation in Patients with Unilateral Cleft Lip and Palate

(口蓋化構音が発現した片側性唇顎口蓋裂患者の口蓋形態三次元分析)

近年、口蓋裂治療において、外科的治療進歩により十分な鼻咽腔閉鎖機能が得られるようになった結果、鼻咽腔閉鎖機能との関連が少ない口蓋化構音が注目されるようになった。口蓋化構音は舌背が挙上して口蓋後方に接触して産生される異常構音で、口蓋形態が重要な要因であると指摘されているが、発現要因は不明であり、過去の口蓋形態三次元分析において口蓋の断面形態を調べたものは少ない。また、口蓋形態に影響を与える Hotz 型口蓋床 (Hotz 床) と口蓋化構音の関連についても解明されていない。そこで本研究は、口蓋化構音の発現要因を探る目的で、口蓋化構音を発現した片側性唇顎口蓋裂患者の口蓋形態を三次元的に分析した。次いで Hotz 床の口蓋化構音発現に及ぼす影響を解明するために、Hotz 床の有無による口蓋化構音の発現頻度を分析し、さらに口蓋形態の三次元的分析を行った。

研究 1 : 口蓋化構音が発現した片側性唇顎口蓋裂患者の口蓋形態三次元分析

【対象と方法】1984 年 4 月から 2005 年 3 月までに鹿児島大学病院口腔顎顔面外科 (以下当科) で一貫治療を行なった片側性唇顎口蓋裂 (UCLP) 患者 142 名の中から、対象として口蓋化構音を有する 12 名 (P 群)、対照として異常構音を認めない 20 名 (N 群) を抽出した。上顎模型を計測し、得られた三次元画像の水平面、前頭断面、矢状断面の口蓋形態について分析した。計測値の比較・検定には Mann-Whitney U-test を用い危険率 5% 未満を有意とした。

【結果】口蓋化構音発現患者の口蓋形態において、水平面において口蓋後方が狭い、前頭断面において口蓋前方部は非対称的である、矢状断面において口蓋は平坦で浅いという 3 つの特徴がみられた。

研究 2 : Hotz 床の口蓋化構音発現に及ぼす影響

【対象と方法】研究 1 に参加した UCLP 裂患者 142 名を対象とし、Hotz 床未使用患者 55 名、使用患者 87 名の口蓋化構音発現頻度を  $\chi^2$ -test を用いて比較した。次に、研究 1 と同じ条件で抽出した UCLP 患者 32 名を Hotz 床未使用で正常構音獲得症例 10 名 (NH(-)群)、口蓋化構音発現症例 5 名 (PH(-)群)、Hotz 床使用で正常構音獲得症例 10 名 (NH(+))群)、口蓋化構音発現症例 7 名 (PH(+))群) の 4 群に分類し、研究 1 と同じ方法で口蓋形態を三次元的に分析した。計測値の比較・検定には Mann-Whitney U-test を用い危険率 5% 未満を有意とした。

【結果】口蓋化構音の発現頻度は Hotz 床未使用患者で 55 名中 16 名 (29.1%)、Hotz 床使用患者で 87 名中 12 名 (13.8%) であり、両群間に有意差を認めた。Hotz 床未使用で口蓋化構音を発現した症例には、口蓋後方の狭小化、口蓋前方部の非対称性と平坦化という口蓋形態の特徴が見られたが、Hotz 床を使用し口蓋化構音を発現した症例にこれらの特徴は見られなかった。

以上より、口蓋形態の異常により舌の後方移動が生じ口蓋化構音が発現することが示唆された。また、Hotz 床は口蓋形態の異常を改善することにより、口蓋化構音の発現を軽減させうることが示唆された。今後、口蓋形態の異常が舌と口蓋の接触様式にどのように影響を与えるかを調べるため、舌運動の評価を含めた研究が必要である。

本研究は口蓋化構音の発現と口蓋形態および Hotz 床との関連を分析したものであり、口蓋の断面形態について新たな知見が得られ、3 つの口蓋形態の特徴が口蓋化構音の発現に関与することが示された。また Hotz 床の使用が口蓋化構音の発現を軽減させうる可能性を示しており、今後の臨床への応用が期待される。よって本研究は学位論文として十分な価値を有するものと判定した。

## 最終試験の結果の要旨

報告番号	総研第 63 号		学位申請者	西久保 舞
審査委員	主査	杉原 一正	学位	博士(歯学)
	副査	原田 秀逸	副査	宮脇 正一
	副査	西 恭宏	副査	早崎 治明

主査および副査の5名は、平成21年2月27日、学位申請者西久保舞君に面接し、学位申請論文の内容について説明を求めると共に、関連事項について試問を行った。具体的には、以下のよう  
な質疑応答がなされ、いずれについても満足すべき回答を得ることができた。

質問1) 口蓋化構音の程度は計測できないか?もし計測できるのであれば、口蓋化構音と口蓋形態との  
関連がさらに明確になるのではないか?

(回答1) 口蓋化構音の程度は、構音評価の際に、単語、単音節、文章、会話において、どれくらいの  
頻度で口蓋化構音が出現するかによって示すことができるかもしれない。また、口蓋化の重症度はこ  
の他に被刺激の有無で口蓋化がみられるかによって分類される。本研究では一音でも口蓋化構音がみ  
られた場合を口蓋化構音ありと判定して対象として抽出した。今後口蓋化構音の発現状況などの違い  
によって口蓋形態を分析することを検討したい。

質問2) 舌の後方が挙上するという異常運動は、口蓋形態の異常があるために始めから生じているのか、  
それとも形態異常の中で動こうとすることによって得られる誤学習なのか?

(回答2) 口蓋化構音は口蓋裂の異常構音の中で発現が最も遅いことから、誤学習と考えられている。  
口蓋形成術以前からある舌が後方へ移動する習癖が術後も残っているという報告もみられるが、明確  
な見解はない。

質問3) 舌の大きさは、異常な運動(後方移動)に関係ないか?舌が大きいことで運動障害がおこり、  
口蓋化構音が発現するとはいけないか?

(回答3) 先行研究では舌運動と舌の大きさとの関連を評価したものはない。上顎歯列の狭窄や歯牙の  
口蓋側転位によって舌運動が阻害され、舌が後方移動することが示唆された報告もあることから、舌  
自体が大きいことにより、咬合や口蓋形態の影響を強く受けることも予想される。今後、舌の大きさ  
や口蓋形態に対する相対的な大きさを評価することを検討したい。

質問4) 構音評価は3名が行ったということだが、3名がおのおのの評価したのか?それともある一定基  
準を作ってそれに基づいて評価したのか?おのおのの評価したのであれば一致率はどうかであったか?

(回答4) 構音評価は構音評価表を用いて3名それぞれが評価し、3名のコンセンサスが得られたものを対象として抽出した。従って本研究での口蓋化構音の判定結果はすべて一致している。

質問5) 計測基準点 T、T' はどのようにして決めたか？また、再現性はあるか？

(回答5) 計測基準点 T、T' は三次元データ解析ソフトを用い、上顎結節の最後方部を前頭断・矢状断面から三次元的に評価して特定したため、再現性はあるといえる。

質問6) 模型計測に関する予備試験は行ったのか？行ったとすればその結果はどうだったか？

(回答6) 模型計測の予備試験として、計測基準点の特定を1か月おきに5回測定したところ、その誤差は0.06mm以下であった。

質問7) 対象がすべて乳歯列期であるので、咬合の評価で Angle 分類は使うべきではない。Terminal Plane と表現すべきでないか？

(回答7) ご指摘の通り、Angle の不正咬合の分類を削除し、Terminal Plane へ訂正する。

質問8) 今回新たに得られた知見は何か？そして今後その知見を臨床に生かしていくためにはどうしたらよいか？

(回答8) 新しい知見は、口蓋化構音を有する患者の口蓋形態は、前頭断面において口蓋前方部は非対称的で、矢状断面において口蓋は平坦で浅いという特徴が得られたことと、Hotz 床を用いると口蓋形態の改善が得られ、口蓋化構音の発現が少なくなったということである。今後は、これらの口蓋形態の異常を抑えるために、Hotz 床の使用により術後の口蓋形態の影響を少なくする、上顎の成長に配慮した口蓋形成術の術式を用いる、早期の歯科矯正治療により口蓋形態を整える、などを臨床面に生かしていくことが望まれる。

質問9) 1981年から2005年までの長期間の中から対象は抽出されているが、各々の症例で手術術式を含めた治療背景に違いは生じていないか？

(回答9) 1987年以前と以降の口唇口蓋裂患者には、Hotz 床使用の有無という大きな違いがあるが、術者はある程度限られており、手術術式には大きな違いはないといえる。

質問10) 前頭断、矢状断において、計測基準点 C、C'、D、D' の垂直的な高さが異なると思われるが、それゆえに非対称性が生じているのではないか？

(回答10) ご指摘の通り垂直的な高さに違いは生じるので、非対称性は垂直・水平両方のズレが原因となっていると考える。

質問11) 矯正治療によって上顎形態が改善されても口蓋化構音は残るのか？患者の成長に伴ってどのように克服されていくものなのか？

(回答11) 口蓋形態の異常は口蓋化構音の大きな要因となっているが、舌の誤学習の改善がなければ口蓋化構音の消失は得られないと思われる。従って、併せて舌運動促進、舌の悪習癖の除去など積極的な構音訓練を行う必要がある。

質問12) 口蓋化構音はいつ頃から発現するか？

(回答 1 2) 口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖機能獲得後に生じ、他の構音障害に比べて遅れて発現すると言われている。

質問 1 3) Hotz 床が口蓋化構音を軽減させる機構は何か？

(回答 1 3) Hotz 床の装着が舌の破裂部への陥入を防ぐ、顎裂や口蓋破裂の幅を縮小させることで口蓋形成術後の上顎狭窄が軽減し、口蓋後方部の狭小化や口蓋前方部の非対称性・浅化を予防することなどにより舌の異常運動が抑えられ、口蓋化構音が軽減するのであると考える。

質問 1 4) Hotz 床の効果は口蓋形成術後も継続すると考えてよいのか？

(回答 1 4) Hotz 床の口蓋形態に対する影響は、4 歳くらいまで継続する、と述べられている報告もある。

質問 1 5) 口蓋化構音発現に影響する 3 つの口蓋形態の異常の中で、どれが最も口蓋化構音発現に関わっていると考えるか？また、それを改善すれば口蓋化構音が消失すると考えるか？

(回答 1 5) 先行研究でも述べられているが、口蓋前方部が浅く平坦であるという口蓋形態の特徴が最も関わっていると考える。口蓋前方部の浅化を改善すれば舌尖部が接触しやすくなるため、口蓋化構音の発現を軽減することができると思われる。

質問 1 6) 健常者の口蓋化構音の出現率はどのくらいか？

(回答 1 6) 健常者の口蓋化構音の出現率は、当科では調査していない。文献的には口蓋裂患者の 30% 未満という報告がある。

質問 1 7) 今回の研究で Hotz 床が口蓋化構音を改善すると述べているが、全く逆の意見もある。この違いは何によって生じているのか？

(回答 1 7) 鼻咽腔閉鎖機能の評価方法、Hotz 床の管理法、術式の違いによる口蓋形態の違いが考えられるが、実際の原因は明確ではない。

質問 1 8) 口蓋化構音の要因と考えられる項目を 5 つ挙げているが、発現要因について重み付けをしたらどうか？

(回答 1 8) 口蓋化構音の要因として舌の習癖、口蓋瘻孔、咬合の異常、鼻咽腔閉鎖不全、口蓋形態の異常について先行研究が報告されているが、いずれも口蓋化構音の主原因としては解明されておらず、どの要因がどの程度口蓋化構音に関与しているか、現段階では明らかではない。ご指摘のように、今後各要因を併せて検討することが必要であると考えている。

質問 1 9) 今後の研究として、舌の動きを評価し口蓋形態との関連を検討することが期待されるが、構音時の舌運動を調べる方法としてどのようなものがあるか？

(回答 1 9) エレクトロパラトグラフィー、超音波検査、functional MRI、VF (鼻咽腔透視ビデオ) などが挙げられる。

以上の結果から、5 名の審査委員は申請者が大学院博士課程修了者としての学力・識見を有しているものと認め、博士 (歯学) の学位を与えるに足る資格を有するものと認定した。