Niigata Dent. J. 28(1):15-24, 1998

一原著一

Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法を実施した 唇顎口蓋裂患児の言語発達に関する研究 一言語成績を中心に一

磯 野 信 策

新潟大学歯学部口腔外科学第二講座 (主任:大橋 靖 教授)

(受付:平成10年1月29日;受理:平成10年6月4日)

Speech Results and Speech Development after Two-Stage Palatoplasty Combined with Hotz's Plate in Cleft Lip and Palate Children

Shinsaku Isono

Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Niigata University

(Chief: Prof. Yasushi Ohashi)

(Received on Jan 29, 1998; Accepted on June 4, 1998)

Key Words: cleft lip and palate children (唇顎口蓋裂児), two-stage palatoplasty (二段階口蓋形成手術), velopharyngeal competency (鼻咽腔閉鎖機能), articulation (構音), speech treatment (言語治療)

Abstract: Velopharyngeal competency and articulation in 70 patients with cleft lip and palate were examined over a period of years following two-stage palatoplasty combined with Hotz's plate, and were investigated the outcome of this treatment in terms of speech condition on the basis of evaluations at the age of 8 years.

The results were shown below.

- 1. Velopharyngeal competency at 8 years of age was competent in 84.3%, marginal in 5.7%, incompetent in 10.0%, indicating favorable velopharyngeal competency in most subjects. Chronological follow-up of velopharyngeal competency revealed marked long-term improvement even after the hard palate closure operation, which was the characteristic of this treatment system.
- 2. Fifty-three subjects (75.7%) have achieved normal articulation at 8 years of age. Normal articulation developed without the occurrence of compensatory articulation in 6 subjects, compensatory articulation transiently occured but spontaneously improved in 12 subjects, and articulation treatment had been completed in 35. While quite a few subjects required articulation treatment, appropriate therapy resulted in favorable improvement by the age of 8 years.
- 3. It should be suitable to evaluate speech results at the age of 8 years, when the hard palate closing surgery had been completed and velopharyngeal competency had become stable. This study suggested that the results of speech therapy must be included in evaluation, and that speech therapy is important in this treatment system.

These findings indicate that two-stage palatoplasty combined with Hotz's plate is a treatment system that requires a variety of types of elaborate care, and that a elaborate treatment plan and long-term care are also necessary to speech therapy. It is possible to achieve normal development of the jaw and normal speech with this treatment system, if appropriate medical treatment is provided and satisfactory speech therapy is included as part of the team approach.

抄録: Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法を行った唇顎口蓋裂一次症例70例について鼻咽腔閉鎖機能と構音を経年的に観察し,8歳時の評価により本治療法の言語成績を検討して以下の結果を得た。

- 1. 8歳時における鼻咽腔閉鎖機能は「良好」59例(84.3%),「軽度不全」4例(5.7%),「不全」7例(10.0%)であり、良好な鼻咽腔閉鎖機能が得られていた。経年的に観察すると硬口蓋閉鎖手術後まで長期にわたって機能の改善が顕著にみられ、これが本治療体系の特徴と考えられた。
- 2. 正常構音を獲得していたものは53例(75.7%)で異常構音の発現をみずに正常な構音発達をみたものが6例,一過性に異常構音をみたが自然消失したものが12例,構音治療が終了したものが35例であった。構音治療を必要とする症例が多かったが,適切な構音治療により8歳までには良好な改善が得られた。
- 3. 本治療法における言語成績の評価は、手術が完了した硬口蓋閉鎖手術後に鼻咽腔閉鎖機能が安定する8歳頃に行うことが適当と思われ、その場合では言語治療の成績も評価に含まれることになる。

以上から、Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法は種々の緻密なケアを必要とする治療体系といえるが、言語に関しても同様に緻密な治療計画と長期のケアが必要である。本治療体系では医学面から適切な治療が行われ、しかも、チームアプローチの一環として言語治療が十分に機能していれば、正常な顎発育とともに正常な言語を獲得させることが可能であると考えられた。

I. 緒 言

唇顎口蓋裂児の治療では形態の修復のみならず、機能 の改善が図られなければならず、特に言語に関する機能 の改善は重要である。

言語障害の発生を予防するためには、言語が飛躍的に 増大する2歳以前に口蓋形成手術が施行され、十分な鼻 咽腔閉鎖機能が付与されなければならず、これが行われ た場合では良好な言語成績が得られることが明らかにさ れている¹)。

正常な言語機能の獲得のためには早期に口蓋弁を後方移動し鼻咽腔閉鎖機能の十分な改善を得る必要があるが,一方では,これによって口蓋に対して大きな手術侵襲が加えられて上顎の成長が抑制され,顎顔面の変形や咬合の異常を呈することが知られている^{2,3}。

言語機能の獲得と正常な顎発育という矛盾する問題を解決するために、言語機能に関与する軟口蓋の手術を行ったのち、硬口蓋の手術を可及的に遅らせる二段階口蓋形成手術が試みられたが、当初の方法では軟口蓋形成手術法に問題があったためか、良好な顎発育は得られたものの十分な鼻咽腔閉鎖機能が得られず、言語機能の獲得について問題を残した⁴-6′。その後、ZürichのHotzら^{7,8}、およびPerko⁹は再び二段階法を採用し、出生直後から床装置を装着して早期の顎発育誘導を行い、さらには軟口蓋の形成法に工夫を加え、十分な鼻咽腔閉鎖機能の回復が図られるよう配慮した治療法を提唱した。この方法では、上顎骨の発育障害を予防し、言語においても満足すべき結果が得られるとしている⁷⁻⁹。。

当科においても,1983年から本治療法を導入し,Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法¹⁰⁾を唇顎口蓋裂児に対して 行ってきた。本治療体系を施行した唇顎口蓋裂児の顎発 育については,両側例については神成¹¹⁾が,片側例につい ては福原¹²⁾が詳細に報告し、本法が良好な効果をもたらすことを明らかにしている。

本治療体系においてはいかなる言語成績が得られるかが最も問題となるが、経年的に詳細に観察して言語発達の経過を明らかにした研究は少ない^{4,6,13,14)}。

今回, 患児の言語発達について, 言語治療の立場から 知覚的な評価を経年的に行って, 本治療法における正常 言語獲得の経過を調査し, 8歳時の鼻咽腔閉鎖機能と構 音を評価して Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法の言語 成績を検討したので報告する。

II. 研究 对 象

研究対象は1983年5月から1995年10月までの12年6か月の間に,新潟大学歯学部附属病院第2口腔外科でHotz 床併用二段階口蓋形成手術法により早期から管理,治療を行い,口蓋に対する第2段階の手術である硬口蓋閉鎖手術を完了した唇顎口蓋裂一次症例76例のうち,8歳まで定期的に言語発達を観察し得た症例70例で

Om Wearing Hotz plate

Im Cheiloplasty
Starting of speech management

1y Veloplasty operation

2y Wearing speech plate to the residual hard palate cleft

6y Hard palate closure operation

Fig. 1 Treatment System for Cleft Lip and Palate Children

ある。

裂型の内訳は両側性唇顎口蓋裂(以下, BCLP) 20例, 片側性唇顎口蓋裂(以下, UCLP) 50例であった。なお, これら70例には明らかな精神発達遅滞ないし言語発達遅 滞,および,中度以上の聴覚障害を示した症例は含まれ ない。

当科における Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法の管理・治療体系 (Fig. 1) における言語管理¹⁵⁾は生後6か月に行われる口唇形成手術直後から開始した。軟口蓋形成手術は1歳4か月から1歳9か月にかけて平均1歳6か月で行われていた。軟口蓋形成手術後に残した硬口蓋の破裂に対しては硬口蓋閉鎖床を装着して口腔内の形態の整備に努めた。口蓋閉鎖手術は5歳5か月から6歳8か月にかけて平均6歳0か月で行われていた。なお、軟口蓋形成手術は同一術者により、硬口蓋閉鎖手術は複数の術者により行われていた。

Ⅲ. 研 究 方 法

鼻咽腔閉鎖機能と構音について、加齢にともなう経年的変化を調査し、8歳時の評価をもってHotz床併用二段階口蓋形成手術法の言語成績として検討した。

検査時期は鼻咽腔閉鎖機能については4歳時,5歳時, 便口蓋閉鎖手術術前,および,術後,7歳時,8歳時と した。構音については4歳から8歳にかけて,毎年,構 音検査を行って判定した。硬口蓋閉鎖手術術前と術後の 検査はそれぞれ手術直前1週間以内,術後2週間以内に 行った。それ以外の各年齢時では誕生日から3か月以内 に行った。

鼻咽腔閉鎖機能と構音の判定は以下のように行った。

1. 鼻咽腔閉鎖機能の判定方法

1) 検査項目

- a. 5母音発声時の開鼻声:聴覚判定により開鼻声の程度を「なし」「軽度にあり」「あり」「重度にあり」の4段階で評価した。
- b. 子音構音時の呼気鼻漏出:通鼻音を除く子音に母音 /a/を付して(ただし,/ts/のみは/u/を付した)構音させ,呼気鼻漏出の程度を鼻息鏡によって観察した。呼気鼻漏出の程度を「なし」「軽度にあり」「あり」の3段階で評価した。検査対象音は/p/,/b/,/k/,/g/,/t/,/d/,/ \int /,/t \int /,/d3/,/s/,/ts/,/dz/,/h/の13音とし,構音障害が認められる子音は除外した。
- c. blowing 時の呼気鼻漏出:soft blowing についてストローによる水の泡立て時の呼気鼻漏出の程度を鼻息鏡によって観察して、呼気鼻漏出を「なし」「軽度にあり」「あり」の3段階で評価した。hard blowing については、巻笛の吹き伸ばし時の呼気鼻漏出の程度を鼻息鏡によっ

て観察して呼気鼻漏出「なし」「軽度にあり」「あり」の3段階で評価した。

2) 判定基準

上記の各検査結果をもとに、開鼻声がなく、子音構音時と blowing 時の呼気鼻漏出が「なし」あるいは「軽度にあり」を「良好」とし、開鼻声が「あり」ないし「重度にあり」で呼気鼻漏出が「あり」の場合を「不全」、その中間、すなわち開鼻声が「軽度にあり」で呼気鼻漏出が「軽度にあり」ないし「あり」を「軽度不全」と判定した。

2. 構音の判定方法

構音については単音と単語,文章音読ないし復唱,会 話について系統的な構音検査¹⁶⁾を行い,聴覚的および視 覚的に判定した。口蓋裂にともなう異常構音は声門破裂 音,口蓋化構音,咽頭破裂音,咽頭摩擦音,鼻咽腔構音, 側音化構音,呼気鼻漏出をともなった喉頭摩擦音に聴取 される構音発達不全の7種類について判定した。

IV. 結果

1. 8歳時における言語成績

鼻咽腔閉鎖機能は「良好」が59例 (84.3%),「軽度不全」が4例 (5.7%),「不全」が7例 (10.0%)であった (Table 1)。なお,不全例全例と軽度不全4例中の1例,計8例にバルブ型 speech aid を装着して機能の改善を図っていた。

正常構音を獲得していたものは53例(75.7%)で、その内訳をみると、異常構音の発現をみずに正常な構音発達をみたものが6例、一過性に異常構音をみたが自然消失したものが12例、構音治療が終了したものが35例で

Table 1. Velopharyngeal Competency at 8 Years Old

•	•	
	n	%
Competent	59	84.3
Marginal	4	5.7
Incompetent	7	10.0
total	70	100

Table 2. Normal Articulation Subjects at 8 Years Old

Normal Development	6
Spontaneous Improvement	12
After Treatment	35
total	53/70
%	75.7

Table 3. Remained Compensatory Articulation Type at 8 Years Old

at 0 Tears Old	
Glottal Stop	7
Palatalized Articulation	8
Pharyngeal Stop	
Pharyngeal Fricative	2
Nasopharyngeal Articulation	
Lateral Articulation	—
Articulation Development Inadequacy	2
total	19

Table 4. Comparison of Normal Articulation Subjects and Remained Compensatory Articulation Subjects on Ratings of Velopharyngeal Competency (%)

	Competent	Marginal	Incompetent
Normal Subjects	47(88.7)	2(3.8)	4(7.5)—
Compensatory Subjects			/ 13
	$\chi^2 = 102$.4 DF=	2 p<0.01

あった(Table 2)。構音治療が終了していた35例中, 当院言語治療室治療例は20例(治療例23例中), 他施設治療例が15例(治療例28例中)であった。

なお、鼻咽腔閉鎖機能と構音のいずれもが良好であったものは46例(65.7%)であった。

異常構音は17例(24.3%)で残存していた。異常構音の種類別の症例数(延べ数)は声門破裂音が7例,口蓋化構音が8例,咽頭摩擦音と構音発達不全が各2例であった(Table 3)。BCLPの1例で声門破裂音と口蓋化構音,咽頭摩擦音が重複して残存していた。

正常構音獲得例と異常構音残存例について鼻咽腔閉鎖 機能を比較すると、正常構音獲得例では「良好」88.7%、 「軽度不全」3.8%、「不全」7.5%、であるのに対し、異 常構音残存例では「良好」70.6%、「軽度不全」11.8%、 「不全」が17.6%で、 χ^2 検定で両群間に有意の差を認め た(Table 4)。

2. 鼻咽腔閉鎖機能と構音の経年的変化

鼻咽腔閉鎖機能を経年的に観察すると、「良好」例は4 歳時では19例(27.2%)に過ぎなかったが、5歳時23例 (32.9%)、硬口蓋閉鎖手術術前45例(64.3%)と経年的 に増加していた。さらに、硬口蓋閉鎖手術後では54例 (77.1%)と、術前に比し顕著に増加していた。硬口蓋 閉鎖手術後以後は変動が少なく、8歳時にはほぼ安定し、 59例(84.3%)で機能は良好であった(Fig. 2)。

経過中に鼻咽腔閉鎖機能不全に対してバルブ型ないし リフト型の speech aid を装着したものが12例あり、その 装着年齢は3歳が3例、4歳が4例、6歳と7歳で各2

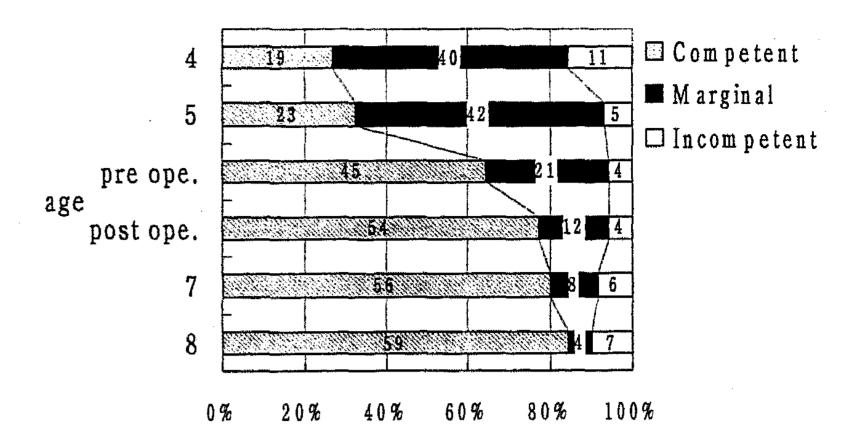


Fig. 2 Velopharyngeal Competency in each age (4-8 years old)

Table 5. Subjects Weared Speech aid (12 cases)

	Velopharynge	Velopharyngeal Competency			
	Marginal	Incompetent			
3	0	$\circ \bullet$			
4		$\bigcirc\bigcirc\bigcirc\bullet\bullet$			
5					
6					
7					
8					

Removed lately

Wearing continually

例,8歳が1例であった。装着当時の鼻咽腔閉鎖機能不全の程度は軽度不全が2例,不全が10例であった。12例中4例では,経過中に鼻咽腔閉鎖機能の改善がみられて撤去することが可能であり,8歳の成績判定時にspeech aid を装着していたものは8例であった(Table 5)。

正常構音獲得例の経年的推移をみると,4歳時17.1%,5歳時24.2%と低率であったが,6歳時では51.4%,7歳時65.7%,8歳時75.7%と加齢にともなう急速な増加がみられた(Table 6)。正常構音の獲得過程をみると,4歳時では正常構音発達6例,異常構音の自然消失6例,計12例,5歳時では自然消失2例と構音治療終了3例の5例が正常構音を獲得していた。6歳時に正常構音を獲得した症例が最も多く,その内訳は自然消失5例,構音治療終了14例であった。7歳以後正常構音獲得例17例はすべて構音治療終了例であった(Table 7)。

異常構音によって障害された音韻数の推移を一症例あたりの平均でみると、4歳時では6.8音と多数であったが、5歳時5.2音、6歳時2.7音、7歳時1.3音、8歳時0.9音と加齢にともなって減少していた。5歳と6歳、および、6歳と7歳の間で有意差が認められた(Table 8)。

対象70例中全経過中に異常構音の発現をみず正常構音 の発達をみた例と異常構音が自然消失した例は計18例 で、それに対し構音治療を必要とした症例は52例 (74.2%)あり、裂型別でBCLP14例(70.0%)、UCLP38

Table 6. Normal Articulation Subjects in each age

				4 0 years	0107 (707
Age	4y	5y	6y	7у	8y
n	12(17.1)	17(24.2)	36(51.4)	46(65.7)	53(75.7)

Table 7. Course of Normal Articulation Acquisition in each age

Age	4y	5y	6y	7y	8y	total
Normal Development	6					6
Spontaneous Improvement	. 6	2	5			13
After Speech Treatment	*****	3	14	10	7	34
total	12	5	19	10	7	53

Table 8. Average of Substituted Phoneme in each age

Age	4y	5y	6y	7y	8y
Average of Substituted Phoneme	6.8	1	2.7 *	1.3 *	0.9
	* *	: p<0	.01	*:p	< 0.05

例(76.0%)で、裂型による差は認められなかった。構音治療を必要とした症例の異常構音の種類は声門破裂音30例、口蓋化構音22例、咽頭摩擦音と側音化構音が各3例、鼻咽腔構音1例、構音発達不全8例で、この中に複数の異常構音を合併していたものを11例含んでいる。裂型別に異常構音の種類別頻度をみると、BCLPでは口蓋化構音が64.3%と最も多く、ついで声門破裂音が50.0%にみられた。UCLPでは声門破裂音が60.5%と最も多く、ついで口蓋化構音が34.2%であった。BCLPで口蓋化構音が多い一方、UCLPでは声門破裂音が多く、裂型により異常構音の種類が異なっていた(Table 9)。

Ⅴ. 考 察

1. Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法の言語成績の判 定時期について

今回, Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法で管理した 患児の言語成績の判定にあたって,本治療法が口蓋裂に 対して2回の施術で手術が完了するという点を勘案する と,6歳時の硬口蓋閉鎖手術後の一定期間を経過したの ちに評価を行うのが妥当と考えられる。術後の期間につ いては何年後とするか議論のあるところであろう。

従来より、口蓋形成手術の言語成績は術後2,3年経過した4歳頃に判定が行われている^{17,18)}。その根拠の一つとして、吉増ら¹⁹⁾は、鼻咽腔閉鎖機能は術後2年経過時に安定するとし、また、4,5歳では構音がほぼ完成し、残存した異常構音が固定化することをあげている。今回

Table 9. Treated Compensatory Articulation Types (%)

	BCLP	UCLP	total
Number of Subjects	20	50	70
Number of Treated Subjects	14(70.0)	38(76.0)	52(74.2)
Glottal Stop	7(50.0)	23(60.5)	30(57.7)
Palatalized Articulation	9(64.3)	13(34.2)	22(42.3)
Pharyngeal Stop	-		No. of Contract
Pharyngeal Fricative	1(7.1)	2(5.3)	3(5.8)
Nasopharyngeal Articulation	*****	1(2.6)	1(1.9)
Lateral Articulation	1(7.1)	2(5.3)	3(5.8)
Articulation Development Inadequacy	4(28.6)	4(10.5)	8(15.4)

の二段階法においても真の鼻咽腔閉鎖機能の回復は硬口蓋閉鎖手術後であり、この機能の安定と、機能改善にともなう構音の変化が一定化する期間として同様の2年間の経過観察が必要と考え、8歳時における言語成績を検討した。

その結果,鼻咽腔閉鎖機能について経年的に観察した ところ,硬口蓋閉鎖手術後まで著明な改善が引き続き, その後はわずかな変動で8歳頃には安定した結果が得ら れており,判定の時期として妥当なものであったと考え る。

一方で、手術の完了が6歳と遅いということは、言語障害が出現した場合には手術完了前に言語治療がすでに開始されているということであり、早期の言語管理をはじめ、その後の鼻咽腔閉鎖機能の賦活や構音障害に対する言語治療が本治療体系の重要な一役を担っており、本治療体系における言語成績はこの点も含めて判定すべきものであることを強調したい。この点は従来の口蓋裂患者の言語成績判定とは趣を異にするのは止むを得ない。

2. 鼻咽腔閉鎖機能の判定方法について

鼻咽腔閉鎖機能の検査は日本音声言語医学会口蓋裂言語小委員会が定めた方法²⁰⁾が用いられることが多い。この検査法では、口腔内視診、blowing、音声言語の聴覚判定を行うこととされているが、これらの検査項目結果からどのようにして鼻咽腔閉鎖機能を判定するかについては述べられていない。

本研究では聴覚印象による5母音発声時の開鼻声の程度判定を中心にして、子音構音時とblowing時の呼気鼻漏出の程度を加味して判定を行った。この判定方法において実際にどの検査項目がどの程度の重みをもって判定されたかを統計的に検討してみた。方法としては、5母音発声時の開鼻声の程度を「なし」の1点から「重度にあり」の4点まで、および、子音構音時の呼気鼻漏出、blowing時の呼気鼻漏出の程度判定に「なし」の1点から「あり」の3点の評価点を与えて説明変数とし、鼻咽腔

Table 10. Multiple Logistic Regression Analysis Related to Assessment on Velopharyngeal Competency

Variables	Regression Coefficient	OddsRatio(95%CI)	P
Hypernasality	0.2727987	1.314 (1.167~1.479)	0.0001<
Nasal Emission	0.8278298	2.288 (1.521~3.443)	0.0001<
in Articulated Consonants			
Nasal Emission	0.4364580	1.547 (1.257~1.905)	0.0001<
in Blowing			

CI; Confidence Interval

Table 11. Agreement of Perceptual Judgement and Statistical Judgement

	Statistical Judgement				
	Competent	Incompetent			
Perceptual Judgement					
Competent	211	34	4		
Marginal	61	55	13		
Incompetent	2	18	22		

閉鎖機能の良否を目的変数としてロジスチック回帰分析²¹⁾を行った。その結果、オッズ比からすべての検査項目が一様に判定に深く関与していることが判明した。同時に得られた回帰係数を基にした鼻咽腔閉鎖機能(VPC)を判定するモデル式は以下のようになった(Table 10)。

VPC 得点=0.27×母音得点*+0.82×子音得点**+0.43×blowing 得点***-5.69

- * 5母音各評価点の合計得点
- * * 構音障害のない子音の合計評価点を検査子音数 で除した値
- * * * soft blowing と hard blowing の合計得点

この式で得られた VPC 得点を 0 点未満で「良好」, 0 点以上 2 点未満で「軽度不全」, 2 点以上で「不全」とすると,延べ検査数420件(70例× 6 回)のうち,判定が一致したものは288件(211+55+22)(68.6%)と高率で,良好と不全が逆に判定されてまったく一致しなかったものは 6 件 (1.4%)にすぎなかった(Table 11)。以上のごとく,今回,日常の臨床において判定可能な項目を用いて「良好」「軽度不全」「不全」の 3 段階に判定したことは妥当なものであった。

これまで、鼻咽腔閉鎖機能の判定に対する各因子の重 みが明らかでなかったために客観的な判定が行われてい ないが、今回、統計的手法を用いて客観的モデルを構築 することができた意義は大きい。今後、このモデル式を 応用し検者間の差の判定などにも利用できると思われ る。

3. 言語成績について

8歳時でみた鼻咽腔閉鎖機能は「良好」84.3%,「軽度不全」5.7%,「不全」10.0%であり, speech aid の継続的な装着を必要とした8例を除くと88.6%で実用的に十分な機能が獲得されていた。

この点について、今回の治療体系と同様な Zürich 法を検討した Van Demark ら¹³⁾は良好例40.5%、境界例54.1%、不全例5.4%とし、和田ら¹⁴⁾は良好例76%、軽度不全例12%、不全例12%、小枝²²⁾は正常構音を獲得したものでは良好例68.2%、概ね良好例18.2%で不良例はなかったとして、いずれも今回の結果と同様に良好な成績の得られることを報告している。一方、従来の一段階口蓋形成手術による、いわゆる push back 法の術後成績について岡崎ら²³⁾は BCLP で95.0%、UCLP で97.3%をあげているが、本治療体系においても最終的には push back 法に準じる良好な鼻咽腔閉鎖機能が得られることが明らかで、遜色のない結果といえる。

8 歳時における正常構音獲得例は53例(75.7%)であり、その1/3 (全体では27.1%) は異常構音の自然消失を含めた正常発達例であった。正常発達例について Van Demark ら¹³⁾は10.8%、和田ら¹⁴⁾40.0%と報告しており、施設による差がみられるが、今回の結果は中間的値といえよう。

一方,全経過中に構音治療の対象となった構音障害例は52例で、そのうち35例は8歳までに治療が終了し、他の17例は治療を継続中であった。治療終了例と残存例を比較すると、裂型と異常構音の種類に明らかな差はなく、鼻咽腔閉鎖機能良好例と当院言語治療室治療例で終了例が多かった。鼻咽腔閉鎖機能良好例に治療終了例が多かったことは口蓋裂患者の言語障害の性質上当然のことといえる。一方で、定期的な観察のみで種々の理由から当院言語治療室で積極的な構音治療の行い得なかった症例において、治療未終了者が多かったことについては反省すべき点と考えている。しかし、当地域の特徴の一つとして、遠隔居住などにより頻繁な通院が困難な例も少なくなく、これら症例に対して、著者の直接的な指導により口蓋裂患児の言語治療について知識と技能を有する

ものに治療を依頼せざるを得なかった。本治療体系では 前述のごとく言語治療は治療の重要な一端を担っている ことを考えた場合、これら症例に対する対応も含めて、 治療施設の充実を図ることが残された問題であろう。

4. 鼻咽腔閉鎖機能と構音の経年的変化

鼻咽腔閉鎖機能は加齢にともなう著明な改善が認めら れ、4歳から硬口蓋閉鎖手術後まで顕著な改善がみられ た。機能の改善が長期にわたってみられることが、従来 と異なる本治療体系で治療した場合の特徴であると思わ れた。機能が改善する要因としては、鼻咽腔閉鎖運動の 改善、硬口蓋に残した破裂の狭小化24), および、硬口蓋閉 鎖手術があげられよう。

8歳時における正常構音獲得例53例のうち言語発達中 に異常構音の出現をみなかった正常発達例と異常構音の 自然消失例が18例と1/3を占めていたが,他は構音治療を 終了したものであった。正常構音の獲得には構音治療の 終了という要因が最も大きいと考えられた。

本治療体系において経年的に構音を観察すると、低年 齢児には異常構音を有する例が多く、社会生活を考慮し て構音治療を必要とするものが多かったが、構音治療が 適切に行われれば、8歳までには相当数で改善をみて治 療を終了することが可能であった。

構音治療を必要とした症例における異常構音の種類で は、鼻咽腔閉鎖機能不全の直接的な反映である声門破裂 音, 咽頭摩擦音, 鼻咽腔構音, 構音発達不全が80.8%を 占めていた。これらの異常構音は構音が発達する幼児期 の早期で、まだ、鼻咽腔閉鎖機能が完全には獲得されて いない場合に、口腔内圧を上げることができないために 生起するものと考えられる。

本治療体系における軟口蓋形成手術はり、最初に試み られた二段階法の軟口蓋形成手術がに比較して鼻咽腔閉 鎖機能の改善に配慮されており、本治療体系と同じ Zürich での治療例の言語成績を検討した Van Demark ら¹³⁾ も言語成績が満足すべき結果であった一つの要因として 軟口蓋形成手術法の改善を指摘している。しかし、push back 法に比較した場合,手術直後からの機能回復が得ら れにくいことは今回の経年的観察結果からも明らかで、 これが幼児期早期の構音の形成に影響を与えたことは否 定できない。この点からも本治療体系における早期から の言語治療士の積極的な参加は不可欠である。

口蓋化構音は口蓋の形態、特に、咬合の異常、V字型 狭窄歯列、および、瘻孔と関係があるとされている異常 構音である25)が、このうち、瘻孔との関連についてはこれ を否定するものもあり26)評価は一定していない。自験例 では硬口蓋に破裂が残存しているものの、口蓋の形態が 良好である11,12)にも関わらず口蓋化構音が多発してい た。鼻咽腔閉鎖機能不全があると舌は後方移動すること

は従来より指摘されている27,これらをあわせ考えると, 構音が発達する4歳頃までの幼児期早期に比較的軽度の 鼻咽腔閉鎖機能不全がみられる症例の多かったことが口 蓋化構音を生じた原因ではないかと推測される。

5. 硬口蓋閉鎖床の装着について

本治療体系においては軟口蓋形成手術後に残した硬口 蓋の破裂に対して、硬口蓋閉鎖手術時まで硬口蓋閉鎖床 を装着することにより口腔内の口腔環境の整備に努めて いた。

従来から主として行われている push back 法につい ては、一般に術後の瘻孔は、その部位にもよるが開鼻声 や呼気鼻漏出の原因となり28)、その結果として口腔内圧 を上げることができないために構音障害を惹起せしめる 可能性があるとされている29,30)。佐藤ら31), 岡崎ら32)は言 語の面から瘻孔を閉鎖する必要性を指摘しており、酒向 ら33)は本治療体系と同様の二段階口蓋手術法施行に際し 患児の顎発育を抑制せず、言語発達に対しては効果的で あることから、硬口蓋閉鎖床装用の必要性を強調してい る。一方で,二段階治療法を提案した Hotz ら8)は当初は 硬口蓋閉鎖床を装着していたが、閉鎖床がなくとも構音 にあまり影響がないとの理由で、使用の必要がないと報 告している。

試みに、自験例について硬口蓋閉鎖手術術前の硬口蓋 に破裂を残している状態で, 硬口蓋閉鎖床を装着した時 と装着しない時での鼻咽腔閉鎖機能を比較した。その結 果,鼻咽腔閉鎖機能「良好」例は装着時では64.3%であっ たが, 硬口蓋閉鎖床を撤去すると35.8%に著しく減少し, 装着時で有意に鼻咽腔閉鎖機能が良好であった(Table 12)。硬口蓋閉鎖床の装着は口腔内圧を高めるために有用 で、良好な言語を獲得する上で必要であると考えられ、 特に、可及的早期からの装着が重要である。

舘村ら³⁴⁾は鼻咽腔閉鎖機能良好例では鼻口腔瘻を閉鎖 すると口蓋帆挙筋活動が上昇すると報告しており,また, 当教室の飯田ら³⁵⁾, 今井ら³⁶⁾, 焦ら^{37,38)}の実験においても 硬口蓋部への刺激が軟口蓋の神経反射に有効に作用する ことを認めており、硬口蓋閉鎖床の装着は同部からの呼 気鼻漏出を軽減するのみならず鼻咽腔閉鎖運動を促進す る可能性があるとも考えられ、早期から装着すべきと考

Table 12. Comparison of Wearing Speech Plate and Removing Speech Plate on Ratings of Velopharyngeal Competency

(%)

	Competent	Marginal	Incompete	ent
Wearing Speech Plate	64.3	30.0	5.7	
Removing Speech Plate	35.8	49.3	14.9	

*: p < 0.01

える。

6. 本治療法における言語管理と言語治療について

本治療体系のもとでは言語治療はチームアプローチの一環として必須の部門である。今回の経年的な詳細な観察の結果,幼児期に高頻度にみられる言語障害は適切な管理,治療プログラムを実行することにより,8歳までには改善をみて,従来の一段階法に遜色ない結果が得られることが明らかとなった。

どのような場合においても言語治療に求められるものは、第一に、早期の言語管理の開始である^{39,40)}。特に、唇顎口蓋裂児の母親では口唇形成手術時からすでに言語障害に対する関心が高く、適切な養育環境を整備する必要がある⁴¹⁾が、著者らはその点を考慮して口唇形成手術直後(生後6か月)から定期的な言語管理を開始した。その後は、鼻咽腔閉鎖機能および構音障害の経過観察はもちろん、噛む、吸う、吹く等の口腔機能の向上を図る指導や、言語障害が明らかとなってきた場合の両親の不安に対するガイダンスと言語環境の整備など、定期的な来院を通して十分に対応してきた。このような管理の重要性は本治療体系においては従来以上に大切である。

第二は構音障害治療の工夫であり、著者は安定した鼻咽腔閉鎖機能が得られるようになる硬口蓋閉鎖手術を目安として治療計画を立案し、硬口蓋閉鎖手術前には、聴覚的弁別力を高める耳の訓練と鼻咽腔閉鎖機能の賦活を考慮した基礎的な構音運動を学習させ⁴²⁾、手術後にキャリーオーバー⁴³⁾を進めた。必要な症例に対しては speech aid や palatal lift prosthesis 等の発音補助装置の適用は当然であるが、言語訓練としての鼻咽腔閉鎖機能の賦活は重要である。日常臨床から、著者は正常な構音の誘導が適切に行われれば鼻咽腔閉鎖機能がさらに賦活されるという相乗効果が期待できることを経験している。

VI. 結 論

新潟大学歯学部附属病院第2口腔外科において1983年5月から1995年10月までの12年6か月間にHotz床併用二段階口蓋形成手術法により早期から管理,治療を行い,第2段階の硬口蓋閉鎖手術を完了して8歳まで定期的に言語を観察し得た唇顎口蓋裂一次症例70例(BCLP20例,UCLP50例)について,鼻咽腔閉鎖機能と構音の経年的変化,ならびに8歳時の評価により本治療法の言語成績を検討して以下の結果を得た。

1. 8歳時における鼻咽腔閉鎖機能は「良好」59例 (84.3%),「軽度不全」4例(5.7%),「不全」7例(10.0%) であり、本治療体系では最終的には良好な鼻咽腔閉鎖機能が得られた。鼻咽腔閉鎖機能を経年的に観察すると、硬口蓋閉鎖手術後まで長期にわたって機能の改善が顕著

にみられ、これが本治療体系の特徴と考えられた。

- 2. 正常構音を獲得していたものは53例(75.7%)で異常構音の発現をみずに正常な構音発達をみたものが6例,一過性に異常構音をみたが自然消失したものが12例,構音治療が終了したものが35例であった。構音治療を必要とする症例が多かったが,適切な構音治療により8歳までには良好な改善が得られた。本治療体系においては正常構音の獲得には構音治療が特に重要であった。異常構音の多発は幼児期の早期に鼻咽腔閉鎖機能が十分に獲得されていないために生起するものと考えられた。
- 3. 本治療法における言語成績の評価は,手術が完了する硬口蓋閉鎖手術後に鼻咽腔閉鎖機能が安定する8歳頃に行うことが適当と思われ,その場合では言語治療の成績も評価の対象に含む必要があり,本治療体系における言語治療の重要性が確認された。

以上のことから、Hotz 床併用二段階口蓋形成手術法は種々の緻密なケアを必要とする治療体系といえるが、言語に関しても同様に緻密な治療計画と長期のケアが必要である。本治療体系では医学面から適切な治療が行われ、しかも、チームアプローチの一環として言語治療が十分に機能していれば、正常な顎発育とともに正常な言語を獲得させることが可能であると考えられた。

稿を終えるに臨み、終始ご懇切なるご指導、ご校閲を 賜りました大橋靖教授に深甚なる感謝の意を表します。 さらに、データの分析にあたりご指導をいただきました 本学予防歯科学八木稔博士に衷心より謝意を表します。 また、研究を遂行するにあたり、種々の御助言をいただ いた口腔外科学第二講座の皆様にお礼申し上げます。

本研究の一部は文部省科学研究費基盤研究(C)(研究 課題番号07672163)の補助を受けた。

本研究の要旨は第18回日本口蓋裂学会(平成6年7月, 吹田),第19回日本口蓋裂学会(平成7年,東京),第21 回日本口蓋裂学会(平成9年7月,東京),平成9年度第 1回新潟歯学会例会(平成9年7月,新潟)で発表した。

参考文献

- 1) 湧井 豊:口蓋裂早期手術患者の言語管理と言語成績に関する臨床的研究. 日口蓋誌, 3:10-30, 1978.
- 2) Graber, T. M.: Craniofacial morphology in cleft palate and cleft lip deformties. Surg. Gynecol. Obstet., 88: 359-369, 1949.
- 3) Kremenak, C. R., Huffman, W. C., and Olin, W. H: Maxillary growth inhibition by mucoperiosteal denudation of palatal shelf bone in non-cleft beagles. Cleft Palate J., 7, 817-825, 1970.
- 4) Schweckendiek, H.: Zur Frage der Früh-und

- Spätoperation der angeborenen Lippen-Kiefer-Gaumen-Spalten. Z Laryng Rhinol Otol, 30: 51-56, 1951.
- 5) Slaughter, W. B. and Pruzansky, S.: The rationale for velar closure as a Primary procedure in the repair of cleft palate defects. Plast. Reconstr. Surg., 13: 341-357, 1954.
- 6) Bardach, J., Morris, H. L., and Olin, W. H.: Late results of primary veloplasty: The Marburg project. Plast. Reconstr. Surg., 73, 207-215, 1984.
- 7) Hotz, M. M., and Gnoinski, W. M.: Comprehensive care of cleft lip and palate children at Zurich University: A preliminary report. Am. J. Orthod., 70: 481-504, 1976.
- 8) Hotz, M. M., and Gnoinski, W. M.: Effects of early maxillary orthopaedics in coordination with delayed surgery for cleft lip and palate. J. Maxillofac. Surg., 7: 201–210, 1979.
- 9) Perko, M. A.: Two-Stage closure of cleft palate. J. Maxillofac. Surg., 7:76-80. 1979.
- 10) 大橋 靖:口蓋形成手術と顎発育一ヨーロッパにおける口蓋裂治療の現況一. 新潟歯学会誌, 14:1-12, 1984.
- 11) 神成庸二,大橋 靖:両側性唇顎口蓋裂児の顎発育 に関する研究一Hotz 床併用二段階口蓋形成手術例 について一. 口科誌. 43:423-439, 1994.
- 12) 福原信玄, 大橋 靖:片側性唇顎口蓋裂患児の新生児から7歳までの顎発育に関する研究—Hotz 床 2 段階手術例と健常児の比較—. 口科誌. 45:227-239, 1996.
- 13) Van Demark, D. R., Gnoinski, W., Hots, M. M., Perko M. A., and Nussbaumer, H.: Speech results of the Zürich approach in the treatment of unilateral cleft lip and palate. Plast. Reconstr. Surg. 83:605-613, 1989.
- 14) 和田 健,福田登美子,館村 卓,松橋和江,米田 真弓,松矢篤三:二段階口蓋裂手術法における言語 成績の評価.大阪大学歯学雑誌.33(2):427-436, 1988.
- 15) 小林敏雄, 伊東節子, 岡崎恵子, 増井美代子, 湧井豊: 口蓋裂患者の言語治療. 歯科 Jr., 7:201-220, 1978.
- 16) 日本聴能言語士協会,日本音声言語医学会:構音検査法査法手引き.1-20,日本聴能言語士協会構音検査法委員会,日本音声言語医学会機能的構音障害検査法委員会,横浜,所沢.1981.
- 17) 岡崎恵子, 大久保文雄, 加藤正子, 鬼塚卓弥, 林 雅 裕: 口蓋裂早期手術後の言語成績. 音声言語医学,

- 32:178-184, 1991.
- 18) 塙 朋子,川野通夫,松本晶子,野瀬謙介,平良達三,澤田正樹,一色信彦:片側粘膜骨膜弁法の術後成績-鼻咽腔閉鎖機能および構音について.日口蓋誌,17:186-191,1992.
- 19) 吉増秀実,大平章子,塩田重利,橋本賢二,天笠光雄,佐藤和子,石井純一,冨塚謙一,門脇伸子,大山喬史,伊東節子:唇・顎・口蓋裂患者に対する初回口蓋形成手術の遠隔成績一第1報 1歳代および2歳代手術例の言語成績について.日口蓋誌,11:62-69,1986.
- 20) 大平章子, 岡崎恵子, 相野田紀子, 加藤正子, 田野口二三子, 福田登美子, 三浦真弓, 澤島政行: 鼻咽腔閉鎖機能検査法について. 音声言語医学. 34: 298-304, 1993.
- 21) 高橋善弥太: 医者のためのロジスチック Cox 回帰入門. 1-50, 日本医学館,東京,1995.
- 22) 小枝弘実:二段階口蓋形成術を施行した唇顎口蓋裂 児の言語成績,特に鼻咽腔閉鎖機能について. 日口 蓋誌, 18:79-106, 1993.
- 23) 岡崎恵子,加藤正子,鬼塚卓也,角谷徳芳,松井厚雄,宇田川晃一:口蓋裂初回手術後の言語成績.日口蓋誌,10:161-168,1985.
- 24) 小野和宏, 大橋 靖, 高木律男, 永田昌毅, 飯田明彦, 今井信行, 神成庸二, 早津 誠:二段階法における軟口蓋閉鎖後の硬口蓋裂の推移.日口蓋誌, 21:126-141, 1996.
- 25) 加藤正子, 岡崎恵子, 大久保文男, Piyoros Preeyanot, 鬼塚卓弥, 佐藤昌史: 口蓋裂児にみられる構音障害-口蓋化構音と側音化構音について. 日口蓋誌, 18:172-180, 1993.
- 26) 宮之下靖子,香月 武,田代英雄:術後口蓋裂児における歯音,歯茎音の構音点の口蓋化傾向について.日口蓋誌,2:27-33,1977.
- 27) Trost, J. E.: Articulatory additions to the classical description of personswith cleft palate. Cleft Palate J., 18: 193-203, 1981.
- 28) Lohmander-Agerskov, A., Friede, H., Soderpalm, E., and Odont, J. L.: Residual clefts in the hard palate: Correlation between cleft size and speech. Cleft Palate-Craniofacial J., 34: 122-128, 1997.
- 29) 木村 照, 大原義男: 口蓋裂手術後の瘻孔について. 聴覚言語障害. 1:145-152, 1972.
- 30) 神原 淳:口蓋形成術後の残孔が発音に及ぼす影響 に関する研究. 九州歯会誌, 28:688-710, 1975.
- 31) 佐藤美子, 岡崎恵子, 鬼塚卓也:瘻孔のスピーチに 及ぼす影響. 聴覚言語障害, 6:47-54, 1977.
- 32) 岡崎恵子, 加藤正子, 赤川徹弥, 佐藤兼重, 加藤至:

- 口蓋裂術後瘻孔とスピーチ. 形成外科, 25:525-531, 1982.
- 33) 酒向 誠, 栗田賢一, 小牧完二, 向井 陽, 近藤定彦, 神野洋輔, 尾沢陽子, 神出敏影, 下郷和雄, 河合 幹, 伊藤美知恵, 下岡美智子, 高見 観: 口蓋裂二段階形成法における未手術硬口蓋披裂部閉鎖床について. 日口蓋誌, 18:194-200, 1993.
- 34) 館村 卓,原 久永,和田 健,佐藤耕一,高 英保,森本知花:口蓋裂・鼻口腔瘻の鼻咽腔閉鎖機能におよぼす影響,日口蓋誌,20:33-38,1995.
- 35) 飯田明彦, 島田久八郎, 大橋 靖:ネコ硬口蓋の機 械的刺激による反射性外舌筋活動について. 日口科 誌, 41:631-646, 1992.
- 36) 今井信行,島田久八郎,大橋 靖:ネコロ蓋粘膜機 械的刺激による口蓋帆挙筋の反射性筋活動について、日口科誌,42:78-90,1993.
- 37) 焦 暁輝, 今井信行, 大橋 靖:除脳ネコの口蓋帆 挙筋の反射性筋活動に関する研究-第1報 舌背粘 膜への機械的刺激に対する反射応答. 日口科誌, 45: 105-112, 1996.

- 38) 焦 暁輝, 今井信行, 大橋 靖:除脳ネコの口蓋帆 挙筋の反射性筋活動に関する研究-第2報 舌背と 口蓋粘膜への同時機械的刺激に対する反射応答. 日 口科誌, 46:36-42, 1997.
- 39) 峪 道代,西尾順太郎,北村龍二,川本真奈美,宮崎 正:大阪府立母子保健総合医療センターにおける口蓋裂児の言語管理と初回口蓋形成術後の言語成績. 日口蓋誌,18:241-250,1993.
- 40) McWilliams, B. J., Morris, H. L. & Shelton, R. L.: Cleft Palate Speech. 111-121. B. C. Decker Inc., Philadelphia, 1984.
- 41) 伊藤静代: 口蓋裂児をもつ母親の恵児に対する関心 についての経年的研究. 日口蓋誌, 14:333-342, 1989.
- 42) 福田登美子:言語治療. 宮崎正編集;口蓋裂ーその基礎と臨床. 367-388, 医歯薬出版,東京, 1982.
- 43) 今井智子訳:構音訓練における般化. Winitz, H. 編著. 船山美奈子, 岡崎恵子監訳;臨床家による臨床家のための構音障害の治療. 111-126, 共同医書出版,東京,1993.