



Title	痙攣性発声障害における定量的発話評価に関する研究 [論文内容及び審査の要旨]
Author(s)	柳田, 早織
Description	配架番号 : 2352
Degree Grantor	北海道大学
Degree Name	博士(医学)
Dissertation Number	甲第12938号
Issue Date	2017-12-25
Doc URL	https://hdl.handle.net/2115/68364
Rights(URL)	https://creativecommons.org/licenses/by-nc-sa/2.1/jp/
Type	doctoral thesis
File Information	Saori_Yanagida_abstract.pdf, 論文内容の要旨



学位論文内容の要旨

博士の専攻分野の名称 博士 (医 学) 氏名 柳田 早織

学位論文題名

痙攣性発声障害における定量的発話評価に関する研究
(Studies on the quantitative speech evaluations in spasmodic dysphonia)

【背景と目的】

痙攣性発声障害は、声帯に器質的異常や麻痺をみとめない機能性音声障害のひとつとされており、サブタイプには内転型（患者全体の90%以上）、外転型（約1%）、および両者の症状が混在する混合型（約2%）がある。内転型は声門の過閉鎖をきたして、間欠的な声のつまりやかすれ、途切れ、ふるえ、不自然で唐突な声の高さの変化を特徴とし、母音や有声音（/b, d, g, j/など）で音声症状が出現しやすい。その一方で、外転型では声門の開大をきたして、間欠的な声の抜け、途切れ、ふるえ、かすれをきたすという特徴がみられ、無声音（/p, t, k, s, h/など）で音声症状が出現しやすい。痙攣性発声障害の臨床特徴は以下の3つにまとめることができる。①喉頭に限局したジストニアであるとの見解が一般的であるが原因は不明である、②場面特異性や感覚トリックにより音声症状の出現様式には個人差が大きい、③標準的な診断基準や評価方法が確立されていない。

米国の痙攣性発声障害ワーキンググループにより提案された診断の手引きが公開され、音声学の視点をふまえた発話評価、すなわち内転型には有声音を多く含む文（adductor sentences）、外転型には無声音を多く含む文（abductor sentences）を用いることが推奨されているが、わが国における発話評価法には、（1）特徴的な音声症状を反映しやすい発話課題が設定されていない、（2）音声症状の持続時間などの量的要素が考慮されておらず、音声症状を定量化することができない、（3）音響分析による裏付けが明らかにされていない、という問題点がある。

本論文では痙攣性発声障害における定量的発話評価法の確立に向け、以下2つの実験研究を行なった。

[研究1]内転型痙攣性発声障害および外転型痙攣性発声障害にみられる音声症状（声のつまりや途切れ、母音や有声音の無声化、無声音の延長）を定量化するため、有声開始時間 Voice onset time (VOT) を計測してその特徴を明らかにする。

[研究2]内転型痙攣性発声障害にみられる音声症状（声のつまり、途切れ、ふるえ、努力性発声）を定量化して、申請者が新たに開発した聴覚印象評価と音響分析を行ない、本評価法が痙攣性発声障害の診断を補完する評価法となるか検証する。

【対象と方法】

[研究1]

内転型痙攣性発声障害患者（48名）、外転型痙攣性発声障害患者（9名）、対照群（20名）を対象とした。発話課題は、童話「北風と太陽」の音読とし、音読中に複数回出現する“太陽”という語を分析対象とした。句読点の有無により3つの発話条件を設定し（条件1：分析対象語“太陽”の直前に句読点がない（句読点なし）、条件2：直前に読点がある（読点「,」あり）、条件3：直前に句点「。」がある（句点あり））、2つのパラメータ（①無音区間長：分析対象語“太陽”の直前の語における最後の声帯振動から“太陽”の/t/の破裂のスパイクまでの時間、②VOT：“太陽”の/t/の破裂のスパイクから後続母音/a/の声帯振

動開始までの時間) について、音響分析ソフト Praat によりその持続時間を計測した。

[研究 2]

内転型痙攣性発声障害患者 (24 名)、疾患群と年齢性別をマッチングした対照群 (24 名) を対象とした。発話課題は有声音のみで構成した 3 つの短文とし、申請者が新たに開発した聴覚印象評価と音響分析を行なった。聴覚印象評価では、3 つの短文を 3 名の耳鼻咽喉科医が聴取し、全体的な重症度と 4 つの音声症状 (声のつまり、途切れ、ふるえ、努力性発声) について 100 mm の Visual analog scale (VAS) による重症度評価を行ない、左端 (0 : 正常) からの距離 (mm) を測定したものを「VAS スコア」とした。音響分析では、3 つの短文に出現する 9 語を分析対象とし、音響分析ソフト Praat により、申請者と音声障害の臨床経験のない大学生 5 名が 3 つの異常な音響特徴 (①基本周波数の変動、②非周期的な音声波形、③音声途絶) の発話に占める割合 (%) を算出した。両評価法とも、統計解析における有意水準は 5 %とした。

評価の信頼性は、聴覚印象評価における評価者内、評価者間一致度および音響分析における測定者内、測定者間一致度を算出して検討し、相関係数 $r=0.71$ 以上の場合を信頼性ありとした。評価の妥当性は、各評価法における対照群の平均値+3 標準偏差を基準値 (聴覚印象評価では「全体的な重症度」の VAS スコア : 4.6 mm, 音響分析では 3 つの異常な音響特徴の割合を合計したもの : 3.2 %) として設定し、感度と特異度を算出して検討した。

【結果】

[研究 1]

外転型痙攣性発声障害患者における音読時の VOT は、内転型痙攣性発声障害 (条件 1 : $P=0.046$, 条件 2 および 3 : $P<0.001$) や対照群 (条件 1 : $P=0.006$, 条件 2 および 3 : $P<0.001$) よりも延長しており、発話条件による有意差をみとめなかった (3 条件間で $P=0.067$)。

内転型痙攣性発声障害患者における音読時の VOT は、発話条件に関わらず対照群と有意差をみとめず (条件 1 : $P=0.449$, 条件 2 : $P=0.871$, 条件 3 : $P=0.240$)、条件 1 に比べて条件 3 で有意に延長していた ($P=0.001$)。

[研究 2]

聴覚印象評価の結果、疾患群の「全体的な重症度」の VAS スコアは、対照群より有意に悪化していた ($P<0.001$)。3 つの異常な音響特徴のうち、「音声途絶」は疾患群でのみ観察され ($P=0.0094$)、「基本周波数の変動」($P=0.004$) と「非周期的な音声波形」($P=0.001$) の割合は疾患群で増加していた。評価の信頼性は聴覚印象評価で高く (「全体的な重症度」における評価者内および評価者間一致度はいずれも $r=0.90$ 以上、「4 つの音声症状」における評価者内一致度は平均 $r=0.912$, 評価者間一致度は平均 $r=0.855$)、音響分析では高いとはいえなかった (測定者内一致度は基本周波数の変動 $r=0.645$, 学生 2 との測定者間一致度は平均 $r=0.525$)。

聴覚印象評価は感度 91.7 %, 特異度 100%で、除外診断と確定診断を補完する評価法として有用であった。その一方で、音響分析は感度 70.8 %, 特異度 100 %で、除外診断には適していなかったが、確定診断を補完する評価法としては有用であった。

【考察】

申請者の開発した聴覚印象評価は、簡便かつ実時間で定量的な発話評価ができ、信頼性と妥当性に優れた評価法である。音響分析により痙攣性発声障害の音声症状を定量化する場合には、VOT 計測 (外転型痙攣性発声障害)、音声途絶の有無 (内転型痙攣性発声障害) を確認することで、痙攣性発声障害の診断を補完できる可能性が示唆された。

【結論】

本研究の成果は、これまで臨床家の主観的評価により見過ごされてきた痙攣性発声障害患者を共通の科学的基盤の上で議論できることにつながり、わが国における痙攣性発声障害患者の標準的な発話評価法の確立に寄与することが期待される。