

氏名	相馬裕子
学位の種類	博士(医学)
学位記番号	甲第1188号
学位授与の日付	平成31年3月10日
学位論文題名	「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の有 用な指標検索に関する研究」
指導教授	内藤健晴
論文審査委員	主査 教授 中田誠一 副査 教授 橋本修二 教授 松尾浩一郎

## 論文内容の要旨

### 【緒言及び目的】

口唇口蓋裂児の鼻咽腔閉鎖不全による開鼻声や構音障害は患児のコミュニケーション障害として重大である。当院では口唇口蓋裂児に対し言語獲得に重要な3-4歳にリハビリテーション科にて言語評価及び訓練を開始し、開鼻声とそれに伴う構音障害が疑われる症例に鼻咽腔閉鎖機能検査を行っている。基本検査は口腔・咽頭の視診、顔面側面軟部X線撮影、空気力学的検査、鼻咽腔ファイバースコープ検査で判定しているが、最終判断に至らない症例には、補完的にナゾメーターを判断の一助として行っている。ナゾメーターは構音時に口腔と鼻腔からの音圧比を測定し開鼻声の程度を評価する機器であるが、鼻咽腔閉鎖機能を判定する検査音や基準値は設けられておらず、当科では従来一つの指標として、検査音「ア」「シ」「ヌ」のnasalance score 50%以上を「鼻咽腔閉鎖不良例」として採用していた。しかしこの50%を一つの指標としたナゾメーターと基本検査との関連について統計学的検討を行ったところ、鼻咽腔閉鎖不全の治療方針を決定しうる判断の指標となるのは「シ」のみであった。また各検査音におけるnasalance scoreを基本検査で判定した鼻咽腔閉鎖不全あり群となし群で比較検討したところ、「ア」では50%より低い値で、治療方針を決定するより有用な判断となりうる可能性が考えられた。そこでナゾメーターの結果をより有効な臨床応用に繋げるため、的確なnasalance scoreの基準値の算出を目的として本研究を行った。

### 【対象・方法】

対象は2005年1月から2015年12月に鼻咽腔閉鎖機能検査を行った131例のうち、ナゾメーター検査を補足的に行った64例で、基本機能検査結果で鼻咽腔閉鎖不全なしと判断された症例は25例、ありと判断された症例は39例である。そして「ア」「シ」「ヌ」を複数回発声させ、安定したデータのnasalance scoreを算出し、平均値を計測値とした。そしてこの2群間で解析を行い、ROC曲線を作成し各検査音のnasalance scoreのカットオフ値を算出した。

### 【結果】

ROC曲線から算出したカットオフ値は、「ア」で25.0%(感度62%、特異度78%)、「シ」で51.2%(感度65%、特異度65%)、「ヌ」で54.4%(感度95%、特異度17%)であった。この結果から、「シ」は従来通り50%以上でよいことが再認識され、「ア」は25.0%以下が有用であることが分かった。

### 【考察】

口唇口蓋裂児の鼻咽腔閉鎖不全に対し当科では最終判断に至らない時、ナゾメーターを補完的に過去の文献を参考に、nasalance score 50%未満を「鼻咽腔閉鎖良好例」、50%以上を「鼻咽腔閉鎖不良例」で一律採用していたが、「シ」のみが有用で他の検査音は判定を決定する材料には至らなかった。そこで今回ナゾメーター検査における鼻咽腔閉鎖不全の有無をよりの確に判断できるnasalance scoreの算出を試みた。結果、「ア」はnasalance score 25%以上、「シ」は従来通り50%以上で閉鎖不全ありとして評価することで有益な判定材料となることが示唆された。一方「ア」「シ」の基準値算出時における感度は十分とはいえず、さらに症例を増やし、他の指標と詳細な比較検討を行うことが今後の課題と思われた。今回の検討からより感度の高いnasalance scoreの基準値算出を目指し研究を継続することで、ナゾメーターが鼻咽腔閉鎖不全のより有用な指標となりうることが分かり、本研究がこの研究領域の発展に多大の貢献をするものと考えられた。

## 論文審査結果の要旨

本研究は、口唇口蓋裂児における鼻咽腔閉鎖不全の有無を決定するのに際し、重要な検査の指標となりうるナゾメーター検査に着目した独創的な着眼点を持った研究である。従来の検査ではこのナゾメーター検査による鼻咽腔閉鎖不全の証明は単音の「ア」「シ」「ヌ」を採用した場合、音が漏れてしまう割合を表したnasalance scoreにて50%以上であったが、実はこれは明らかなエビデンスがなかった。よって、この研究の前段階として他の検査での鼻咽腔閉鎖不全と決定した症例につき、ナゾメーター検査ではどのように判定したかを、統計学的に検討したところ、「シ」以外の音には有意な相関性は認められなかった。そこで本研究はすでに他の検査等で「鼻咽腔閉鎖不全有り」、「鼻咽腔閉鎖不全無し」と決定された症例につき、それぞれ「ア」「シ」「ヌ」のnasalance scoreを使ってROC解析を行い、それぞれの音のnasalance scoreのカットオフ値、感度、特異度を算出した。これによりナゾメーター検査による、それぞれの音の鼻咽腔閉鎖不全と判断する統計学的に確かな基準値ができたことになる。この研究は前段階で出た疑問点を解明する形にて堅実な研究手法を用いており、有意な結果とともに限界点を含めて適切な解釈がなされており、今回の研究は学位授与に値するものであると考えられた。