

学位論文内容の要旨

愛知学院大学

論文提出者

今岡 功喜

論文題目

当科における咽頭弁形成術（UVP 変法）の術前後の
鼻咽腔閉鎖機能評価及び臨床的検討について

(緒言)

口蓋形成術術後患者および先天性鼻咽腔閉鎖機能不全患者において、当科では有意義語が出始める 2-3 歳を目安に言語訓練・評価を開始し、その結果、鼻咽腔閉鎖機能 (VPC) の改善が認められない場合には就学期前後を目安に咽頭弁形成術を行っている。顎口腔外科の治療方針として、口蓋形成術においては 1986 年より顎発育を重視して、チューリッヒ大学の治療形態に準じた Perko 法を用い二段階口蓋形成術を行っている。定期的な言語訓練を行っても改善が認められない鼻咽腔閉鎖機能不全残存症例に対しては 2 次的咽頭弁形成術を行い VPC の改善を図っている。1996 年から現在まで本研究では鼻咽腔閉鎖機能不全患者に対し松矢・宮崎らが考案し、さらに舘村らが改良した Modified Unified Velopharyngeal Plasty (UVP 変法) を採用してきた。本法では咽頭弁の左右側で軟口蓋の口蓋帆挙筋を咽頭弁基部側方の咽頭収縮筋に縫合することを特徴とする。UVP 変法では良好な VPC の獲得がなされたと報告しているが、中長期的な VPC 評価についての報告はまだされていない。そこで今回、本研究は同一術者によって施行された UVP 変法に対する VPC 評価について術前および術後 1 年と 3 年で検討したので報告しております。

また、UVP 変法は咽頭部の手術侵襲が大きく手術操作が煩雑であり習熟には時間を要する。さらに術直後に呼吸困難や異常出血などの生命の危機に関わる。いびき、睡眠時無呼吸症候群のリスクもあり、周術期管理や術後経

過には注意が必要とされている。そこで UVP 変法の手術侵襲に対する臨床的検討も行ったので合わせて行っています。

(術式)

当科における咽頭弁形成術は UVP 変法を採用している。原法との違いは硬口蓋前方部の剥離を原法では粘膜骨膜弁で行うのに対して、変法では口蓋粘膜弁で行うことが違いである。UVP 変法は口蓋粘膜剥離部の血流確保や上顎骨の発育を考慮するために原法より改善が加えられた経緯がある。本法では咽頭弁の左右側で軟口蓋の口蓋帆挙筋を咽頭弁基部側方の咽頭収縮筋に縫合し、直径約 5 mm の pharyngeal orifice を左右側で形成する。従って、軟口蓋後端は咽頭後側壁に十分届くように、軟口蓋鼻側粘膜筋弁に横切開を行う。その結果、軟口蓋鼻側には大きな欠損が生じるため、そこに環椎前結節前縁を基部とした咽頭弁を入れる。本法では手術終了時には raw surface を生じないので術創の血流確保、瘢痕拘縮の防止が得られる。

(対象)

検討 1 では手術侵襲に対する臨床的検討は 1996 年 3 月～2016 年 10 月までに愛知学院大学歯学部附属病院口腔外科第一診療部の同一術者によって施行された UVP 変法症例は 88 例を対象とした。手術侵襲の臨床検討では、術後合併症（いびき、睡眠時無呼吸症候群）に影響する先天性心疾患や顔面形態異常を伴う染色体異常および症候群と術後の鼻咽腔閉鎖機能改善に影

響を及ぼす精神発達遅滞症例が含まれている。

また、検討2では検討1の88例中、術前後のVPC評価および異常構音について当院言語治療外来にて術後3年以上の評価が可能であった65症例を対象とし検討した。除外した23例に関しては、当院言語治療外来による評価でない場合や転居による評価不足のため除外した。65症例中にも鼻咽腔閉鎖機能評価に影響があるとされる精神発達遅滞症例(10例)を含めて検討している。

精神発達遅滞に関しては、他施設にて診断されIQ70以下と診断されたものを精神発達遅滞として検討した。自閉症スペクトラム障害も精神発達遅滞として今回は検討している。この研究は、ヘルシンキ宣言に従って実施され、患者両親からインフォームドコンセントが得られており、愛知学院大学倫理委員会の承認済みである(承認番号452)

(方法)

VPC評価は口蓋裂言語の臨床経験が5年以上ある当院言語治療外来の言語聴覚士3名で実施した。評価はそれぞれ言語聴覚士3人で評価したものを口腔外科医も含めてカンファレンスを行い最終評価した。評価基準に関しては日本コミュニケーション障害学会口蓋裂言語検査基準に基づき、良好・ごく軽度不全・軽度不全・不全の4段階で行った。音声サンプルは、すべての患者の単語、文、自由会話とした。当科の2段階口蓋形成術後におけるVPC評価の報告と同様に良好・ごく軽度不全の判定を良好群、軽度不全・

不全の判定を不良群として評価し検討した。異常構音の評価方法は VPC 評価と同様に 3 人の言語聴覚士を基に、単語検査・音節検査・文章検査にて聴覚判定した。異常構音の種類は鼻咽腔閉鎖機能と関連のある、声門破裂音、咽頭破裂音、咽頭破擦音、咽頭摩擦音を評価対象とした。

統計検討は精神発達遅滞の有無はフィッシャーの正確確率検定を使用した。裂型別及び年齢別に関しては Kruskal-Wallis 検定を使用した。また術前後の異常構音の改善に関してはカイ二乗検定を使用した。統計分析は Excel 統計 2013 を使用し、有意差は $P < 0.05$ とした。

(検討項目)

検討 1 の検討項目は出血量・手術時間、術中合併症（輸血・術中異常出血）、術後合併症（術後出血・再挿管症例）を調査した。さらに術後 1 年のいびき・睡眠時無呼吸症候群の有無と術前処置としてのアデノイド・扁桃摘出の有無について調査した。

検討 2 では VPC および異常構音の改善率を検討した。VPC の改善率については、全 65 例の VPC 改善率と精神発達遅滞の有無による VPC 改善率、精神発達遅滞を除いた原因疾患別および年齢別の改善率について検討した。また、鼻咽腔閉鎖機能に関連のある異常構音の改善率についても調査した。

原因疾患別での VPC 改善率は両側性唇顎口蓋裂・片側性唇顎口蓋裂・口蓋裂の口蓋形成後に 2 次的に UVP 施行群：27 例、粘膜下口蓋裂で初回 UVP 施行例および、初回到口蓋形成後 2 次的 UVP 群：15 例、先天性鼻咽腔閉鎖機

能不全で初回 UVP 施行群: 13 例の 3 群で比較検討した。手術時年齢別の VPC 改善率は 6 歳未満 (17 例)、6 歳以上 10 歳未満 (24 例)、10 歳以上 (14 例) の 3 群で比較検討した。区分理由は日本の小学校入学年齢が 6 歳であるためその前後で区分し、また 10 歳前後の区分に関してはアデノイド扁桃退縮や顎発育に影響を考慮し区分した。

(結果)

検討 1 の手術侵襲の結果は、術中の輸血、術直後の出血・腫脹が原因となる気道圧迫や狭窄症例、それに伴う再挿管症例はなかった。また術後出血による止血困難症例も認めなかった。

術前にアデノイド・扁桃摘出した症例は 88 例中 22 例で全体の 25%であった。術後 1 年以降もいびきが残存した症例は 88 例中 9 例 (10%) で、そのうちの 1 例は軽度の睡眠時無呼吸症候群を併発したが CPAP などの治療は要しなかった。

また、VPC の改善率は、全 65 症例では術後 1 年で 84% が良好群となり、術後 3 年で 98% に上昇した。原因疾患別の改善率は術後 1 年で先天性鼻咽腔閉鎖不全、粘膜下口蓋裂、その他の口蓋裂群が 77%、87%、96% であったが術後 3 年ではそれぞれ 100%、93%、100% に改善した。原因疾患において有意差はなかった。精神発達遅滞保有の有無では、術後 1 年では保有していない群の改善率が 89% に対して、精神発達遅滞保有症例に関しては 60% と改善率に有意差があった。しかし術後 3 年では精神発達遅滞の保有

の有無にかかわらず改善率に有意差はなかった。年齢区分別の改善率では術後1年と術後3年の両方で有意差はなかった。構音障害に関しては、術前に構音障害を認めた症例は34症例(52%)であった。術後3年でも構音障害が残存した症例は27例(42%)であり、改善がみられたのは7例と少なく、異常構音の改善にUVP変法は有意な関連を認めなかった。

(考察)

口蓋形成後も鼻咽腔閉鎖機能不全残存症例の患者や先天性鼻咽腔閉鎖機能不全の患者において、UVP変法は有効的な方法であることが示された。

安全で高いVPC改善率を図るには、術者による経験値や術前のスクリーニングや、定期的な言語訓練評価が重要である。

改善率が術後1年から3年で増加した理由は、手術侵襲による瘢痕組織の強い影響が咽頭部周囲と軟口蓋に残るため軟口蓋と咽頭弁の複合体が賦活するのに術後半年から1年かかる。そのため開鼻声と閉鼻声を繰り返し徐々に改善していくと考えられる。つまり、中長期的な言語評価・訓練および術後の経過観察は大変重要となる。手術時年齢によっては、アデノイドの退縮による鼻咽腔閉鎖機能の後戻り、発達年齢など様々な要因を考慮し、可能な限り長期的な言語評価・経過観察が必要であり、今回の研究では最低でも術後3年は必要であることがわかった。精神発達遅滞保有症例では、VPC改善率の比較検討において術後1年で精神発達遅滞の保有の有無で有意差があったことより、より慎重な言語評価・訓練、経過観察が必要である

ことが示された。

手術時年齢別の VPC 比較検討では、どの群においても有意差はなかったが当科では就学前の鼻咽腔閉鎖機能不全改善を可能な限り薦めている。理由としては、就学前の言語改善が社会的及び心理的に重要であり、学校生活を充実したものにするためには、鼻咽腔閉鎖機能の獲得が不可欠であると考えている。しかし、欠点としてアデノイド扁桃退縮による鼻咽腔閉鎖機能の悪化や顎発育への影響が心配される。改善策として術前にアデノイド扁桃肥大症例は術前に摘出することや、口蓋粘膜弁を用いた上顎への手術侵襲の軽減をすることにより対応できると考えている。今回の検討においてもアデノイド扁桃退縮による後戻り症例や咽頭弁形成術が原因となる上顎劣成長症例はなかった。

(まとめ)

本 UVP 変法は、VPC 改善率が術後 3 年で 98% であり、患者家族が希望することの多い小学校就学前の VPC 改善に有効な方法であることが示された。裂型や手術時年齢・精神発達遅滞保有の有無によって改善率が術後 1 年から 3 年で増加することから、言語訓練・評価期間は最低でも 3 年は必要であることが示された。

また本法による手術侵襲については適切な術前検査や周術期管理により、安全に手術を終えることが示された。