

運動低下性ディサースリア例に対する集団発声療法の試み：MPTを指標とした検討

原著▶

田村俊暁¹⁾
Toshiaki Tamura

若林允甫²⁾
Masatoshi Wakabayashi

井口正明¹⁾
Masaaki Iguchi

西尾正輝³⁾
Masaki Nishio

要旨 パーキンソンニズムに伴うディサースリア4例(パーキンソン病2例, 大脳皮質基底核変性症1例, 進行性核上性麻痺1例)に対し, 集団発声療法を週1回の頻度で実施し最長発声持続時間(MPT), 全身機能, 会話明瞭度の長期経過を報告した. その結果, 全身機能は維持もしくは低下したが, MPTについては全例で一定期間は長期的に2~3秒前後の延長を認め, その臨床的有用性が示唆された. 一方で会話明瞭度は全例で維持や0.5~1/5の低下を示し, 発声機能に対するアプローチを単独かつ低頻度で実施することの限界が示された.

キーワード パーキンソン病, ディサースリア, 最長発声持続時間, 集団, 音声治療

I. はじめに

従来から, ディサースリア患者に対する集団療法の有用性が指摘されてきた^{1,2)}. しかし, 2003年にAcademy of Neurologic Communication Disorders and Sciences (ANCDS)が行ったシステマティックレビューでは, 呼吸・発声機能障害に関して集団療法がとりあげられているが, その特性上内容が多岐にわたり, エビデンスはほとんどないと結論づけている³⁾. それ以降も, 欧米においてはLaing⁴⁾, Manorら⁵⁾, Mackenzieら⁶⁾などの報告があるものの, 依然として乏しいのが現状である. また, パーキンソンニズムに伴うディサースリアに対する集団言語聴覚療法に関して, 特に長期的に音声言語機能や嚥下機能などにかかわる側面に改善が得られたとする先行報告例はきわめて乏しい.

今回, パーキンソンニズムに伴うディサースリア例に対して, 集団発声療法を実施し, 最長発声持続時間(Maximum Phonation Time: MPT)と全身機能, および会話明瞭度の長期経過を調査したため, その臨床経過を報告する.

II. 方 法

1. 対象

対象は, 2012年1月から2014年1月までの25ヵ月間当院で集団発声療法を実施した全6例のうち, 死亡も

しくは体調不良により継続困難となった2例を除いたパーキンソンニズムの4例である. なお, 症例Aについては途中参加であったため21ヵ月間を解析対象とした. その内訳はパーキンソン病(Parkinson's disease: PD)2例, 大脳皮質基底核変性症(Corticobasal degeneration: CBD)1例, 進行性核上性麻痺(Progressive supranuclear palsy: PSP)1例であった. ディサースリアのタイプは全例が運動低下性ディサースリアであった. Hoehn and Yahr重症度分類(以下, HY)はstage IVが2例, stage Vが2例であった. 平均年齢は78.8±4.1歳であった. 性別は女性が2例, 男性が2例であった. 罹病年数は5~23年(平均12.3±8.5年)であった. 内服状況はレボドパ・カルビドパ水和物を使用していた症例が2例(症例Aはセレギリン塩酸塩, 症例Dはプラミベキソール塩酸塩水和物との併用). 抗PD薬を使用していなかった症例が2例(症例BとC)であった. 表1に詳細を示す.

なお, 対象者全員に書面および口頭で本研究に関して説明と同意を得ており, 当院の倫理委員会の承認を得た.

2. 実施課題

40~50分の集団発声療法を週1回の頻度で実施した. 1セッションのプログラムは, 1)呼吸体操, 2) /o/, /a/等の母音の持続発声, 3) MPTの測定, 4)挨拶や短文等の常套句の発声, 5)呼吸体操から構成される. なお, 集団発声療法は声量の低下を主訴とした4~6名の症例からなる.

¹⁾ 小千谷さくら病院リハビリテーション室 (〒947-0041 新潟県小千谷市小栗田 2732 番地)

²⁾ 小千谷さくら病院神経内科 (〒947-0041 新潟県小千谷市小栗田 2732 番地)

³⁾ 新潟医療福祉大学医療技術学部言語聴覚学科 (〒950-3198 新潟県新潟市島見町 1398 番地)

[連絡先] 田村俊暁: 小千谷さくら病院リハビリテーション室 (〒947-0041 新潟県小千谷市小栗田 2732 番地)

TEL: 0258-83-2680 FAX: 0258-83-4416 E-mail: sakurahptamura-st@yahoo.co.jp

受稿日: 2014年7月26日 受理日: 2014年9月30日

表1 症例プロフィール

症例	診断名	年齢	罹病年数	HY	性別	抗PD薬
A	PD	75	15	IV	女性	レボドパ・カルビドパ水和物, セレギリン塩酸塩
B	CBD	80	5	IV	女性	なし
C	PSP	76	6	V	男性	なし
D	PD	84	23	V	男性	レボドパ・カルビドパ水和物, プラミベキソール塩酸塩水和物

PD：パーキンソン病，CBD：大脳皮質基底核変性症，PSP：進行性核上性麻痺

3. 評価方法

MPTの集計は、症例ごとに1ヵ月間の平均値を算出した。会話明瞭度は言語聴覚士2名が集団発声療法中の会話をサンプルとして評価し、症例ごとに1ヵ月間の平均値を算出した。使用した会話明瞭度は9段階評価尺度で、1を「よくわかる」、5を「まったく了解不能」とする田口⁷⁾によって考案された5段階評価尺度が伊藤⁸⁾によって改変され、5段階に中間点(たとえば2.5など)を含めたものである。全身機能評価はパーキンソン病統一スケール(Unified Parkinson's Disease Rating Scale: UPDRS)とGolbeら⁹⁾が考案し湯浅ら¹⁰⁾が翻訳した進行性核上性麻痺機能評価尺度日本語版(Progressive Supranuclear Palsy Rating Scale-J: PSPRS-J)を使用した。

4. 統計学的解析

統計学的解析にあたってJSTAT for Windows(南江堂)を使用し、Spearmanの順位相関係数を用いた。有意水準は5%とした。

Ⅲ. 結 果

1. MPT

介入期間中にある程度の変動はみられたものの、症例CはMPTが4秒前後から6秒前後に延長し、総介入期間とMPTとの間に有意な正の相関を認めた($r=0.436$, $p=0.015$)。これに対して、症例BはMPTが9秒前後から4秒前後に短縮し、有意な負の相関を認めた($r=-0.253$, $p=0.023$)。その他の症例では有意な相関は得られなかった(症例A: $r=-0.177$, $p=0.430$, 症例D: $r=0.089$, $p=0.670$) (図1)。

ただし、症例A, B, Dについても一定期間はMPTが延長する傾向を認めた。症例Aは11ヵ月目までは10秒前後から12秒前後に、症例Bは15ヵ月目までは9秒前後から11秒前後に、症例Dは14ヵ月目までは4秒前後から7秒前後に延長し、これらの介入期間とMPTの間には3例すべてにおいて有意な正の相関を認めた(症例A:

$r=0.636$, $p=0.044$, 症例B: $r=0.727$, $p=0.007$, 症例D: $r=0.720$, $p=0.013$)。

2. 全身機能

全身機能の経過は、ほぼ全例でUPDRSに著変を認めなかったが、症例Cは全期間でMPTが緩やかな延長を認めたとにもかかわらずPSPRS-Jでは低下傾向を認めた(図2)。

3. 会話明瞭度

介入期間と会話明瞭度の間に、症例Dは有意な相関はなかった($r=-0.203$, $p=0.319$)。その他の症例は会話明瞭度が0.5~1/5の低下を示し、介入期間と会話明瞭度の間に有意な負の相関を認めた(症例A: $r=-0.475$, $p=0.034$, 症例B: $r=-0.791$, $p=0.0001$, 症例C: $r=-0.643$, $p=0.002$) (図3)。

Ⅳ. 考 察

1. MPTと全身機能の経過について

今回の結果では、全例が進行性の疾患であったにもかかわらず、MPTは一定期間長期的な延長傾向を認め、HYやUPDRSなどといった全身機能が重度に低下している症例でも、集団発声療法の効果があることが示唆された。

加えて、PD, CBD, PSPと基礎疾患が異なってもMPTが延長を認めたことは注目になるが、今回の結果のみでは疾患別の傾向などは不明である。また、経過中に全身機能で維持もしくは低下を示した場合にも、MPTが延長を認めた結果は興味深く、疾患別の傾向も含めて今後さらに症例数を増やして検討を深めたい。

2. ディサースリアの集団療法の意義と効果について

Thomasら²⁾は集団療法中に他のディサースリア患者によって行われるフィードバックは、臨床家が提供するフィードバックよりも影響力があったと報告している。また、Rosenbekら¹⁾が指摘しているように、集団でディサースリアの治療を実施することに伴う意欲の向上などの心理的効果も期待できる。今回の治療経過についても集団発声療法実施時には、MPTの測定の際に互いに他者を称

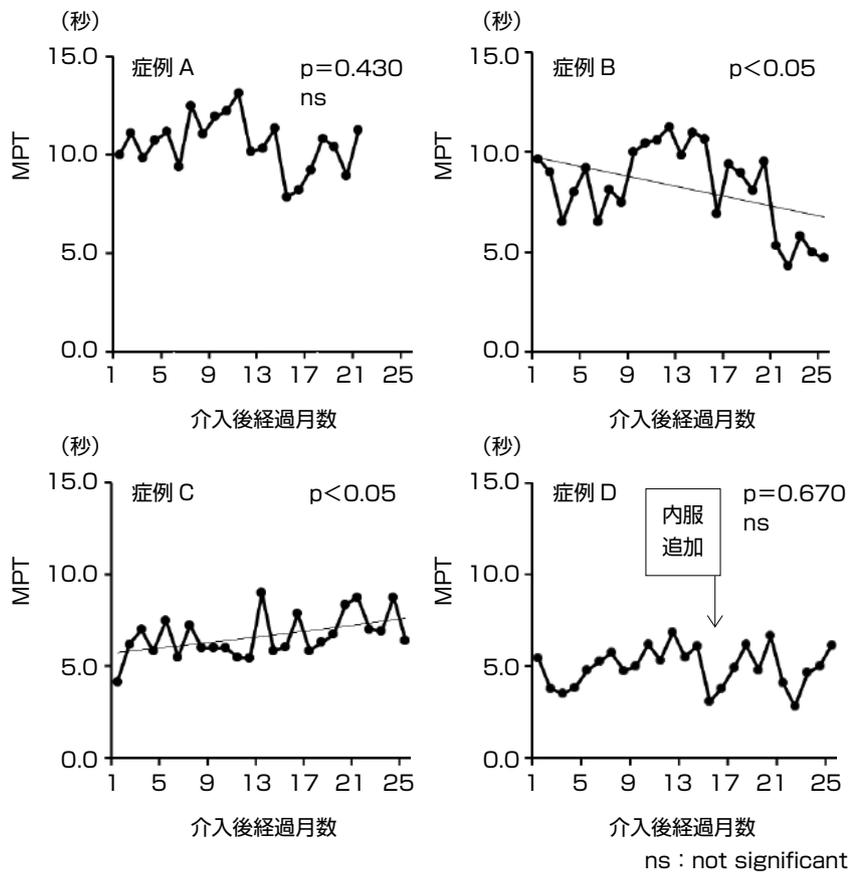


図1 各症例のMPTの推移 (近似直線は eye guide として追加した)

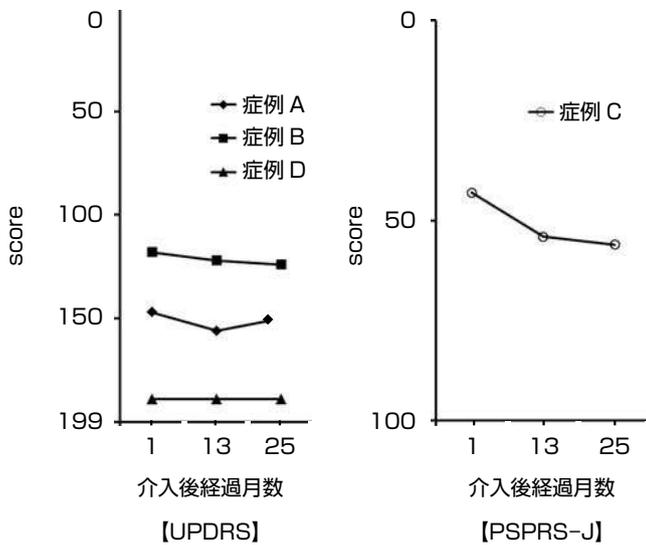


図2 全身機能の継時的変化

賛したり、励ましたりする様子がみられるようになり、個別療法ではみられないような発声努力が得られた。こうした点が、今回得られた効果に関与しているものと思われる。以上より、単純であっても、ディサースリアの集団療法はもっと普及してもよいのではないかと拝察される。

加えて、Thomas ら²⁾は、集団療法は個別療法中に学

習した技能や方略の般化の段階にきている軽度の患者にとって理想的であると述べている。しかし、今回対象とした患者はいずれも重度で、集団発声療法のプログラムも発声のみに焦点を絞ったものであったために会話明瞭度が改善しなかったものと推察される。また、一般的に個別療法では集中的な治療や症例ごとに対応はさまざまであるが¹¹⁾、上記で触れた心理状態の他にも人数や時間などの量的効率性やピア・カウンセリングといった面などから考えると、集団発声療法のような治療法は有用であると思われる。今回の結果からは、集団発声療法の効果や限界について理解したうえで、介入を行うことでより効率的な臨床が可能となると思われた。

ただし、症例 A, B, D の MPT の経過は 11~15 ヶ月以降は維持にとどまり、MPT の延長幅も 2~3 秒程度であったが、この結果だけでは集団発声療法の効果の限界とは言いきることはできず、今後比較対照群を設定し、さらに症例数を増やし、これらの結果がどのような意味を有するのか検討を深めたい。

3. MPT と会話明瞭度の経過について

今回の結果では、MPT については全例で一定期間は長期的な延長を認めたが、会話明瞭度は維持もしくは低下を示した。こうした結果は、発話は発声に加えて呼吸、構音、

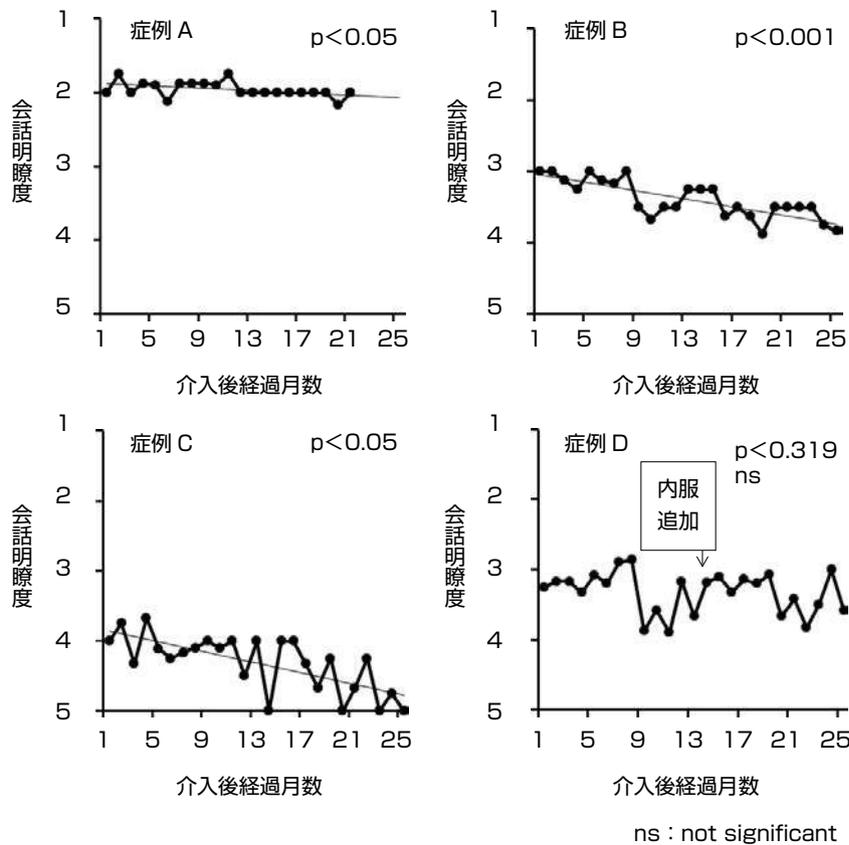


図3 各症例の会話明瞭度の推移 (近似直線は eye guide として追加した)

プロソディー機能なども必要とすることから鑑みれば、然るべき結果といえ、発声機能単独のアプローチの限界が示唆されたともいえるであろう。ところで、PD に対する音声治療では最もエビデンスレベルが高いとされているリー・シルバーマンの音声治療 (Lee Silverman Voice Treatment : LSVT) に関しても、Cannito ら¹²⁾ が PD8 例を対象として文章レベルの会話明瞭度と音圧についての効果を検討し、治療前後で音圧は全例向上したにもかかわらず、会話明瞭度は2例が変化なしや低下を認めたと報告している。また、鈴木ら¹³⁾ は脳深部刺激術後に生じた反復性発話を呈する PD 例に対して LSVT を実施して音量の増大は認められたものの反復性発話の異常は改善されず、ペーシングボードにより改善が認められたと報告している。したがって、会話明瞭度を改善させるためには、個々の症例ごとに発声発話器官の問題点に対応した機能障害レベルからの治療と、発話障害の問題点に対応した活動制限レベルからのアプローチを併用する必要があると思われる。

今後、症例を蓄積し MPT の延長が及ぼす発話機能への影響について検討を深めたい。

4. 薬物療法との関連性について

PD に対する医学的治療として主流の一つである薬物療法は四肢の運動機能に対しては有効であることが知られているが、発話機能に対する有効性は今日でも明確にされて

いない。レボドパにより発話機能が改善したとする報告も散見されるが^{14,15)}、レボドパによる発話の改善効果に対して否定的な結果が多数報告されている¹⁶⁻¹⁸⁾。こうした一連の報告より、Fox ら¹⁹⁾ が指摘しているように、PD に伴う運動低下性ディサスリアに対しては、薬物療法だけでは適切な治療は困難であるといえるであろう。

また、症例 D は治療開始 15 ヶ月から認知症であるメマンチン塩酸塩の内服が追加になった。メマンチン塩酸塩は通常認知症として用いられるが、抗 PD 薬の効果の増強が示唆されている²⁰⁻²²⁾。しかし、今回は MPT が内服開始時までは延長していたにもかかわらず、内服開始後変動が大きくなり、さらには延長を認めなくなり、発声機能に良好な効果は認められなかった。こうした結果は、Fox ら²³⁾、Trail ら²⁴⁾ が示唆しているように、PD に対する行動的な音声言語治療の重要性を逆説的に示すものと思われる。

利益相反

本稿のすべての著者において利益相反に相当するものはない。

文 献

- 1) Rosenbek JC, LaPointe LL : The Dysarthrias : Description, diagnosis, and treatment. In Johns DF (ed.), Clinical management of neurogenic communication disorders. Little Brown, Boston, pp.97-152, 1985.
- 2) Thomas JE, Keith RL : Group therapy for dysarthric speakers. Paper presented at the American Speech-Language-Hearing Association Convention, St. Louis, 1989.
- 3) Yorkston KM, Spencer KA, Duffy JR : Behavioral management of respiratory/phonatory dysfunction from dysarthria : a systematic review of the evidence. *J Med Speech Lang Pathol*, 11 : 13-38, 2003.
- 4) Laing C : Group therapy to improve communicative participation in people with multiple sclerosis and dysarthria. *Way Ahead*, 11 : 8-10, 2007.
- 5) Manor Y, Posen J, Amir O, et al : A group intervention model for speech and communication skills in patients with Parkinson's Disease. *Commun Disord Q*, 26 : 94-101, 2005.
- 6) Mackenzie C, Paton G, Kelly S, et al : The living with dysarthria group : implementation and feasibility of a group intervention for people with dysarthria following stroke and family members. *Int J Lang Commun Disord*, 47 : 709-724, 2012.
- 7) 田口恒夫 : 言語障害治療学. 医学書院, 東京, 37 頁, 1966.
- 8) 伊藤元信 : 単語明瞭度検査の感度. *音声言語医学*, 34 : 237-243, 1993.
- 9) Golbe LI, Ohman-Strickland PA : A clinical rating scale for progressive supranuclear palsy. *Brain*, 130 : 1552-1565, 2007.
- 10) 湯浅龍彦, 濱田恭子 : 神経変性疾患の機能評価尺度 進行性核上性麻痺 : 治療戦略と疾患特異的評価尺度 (PSPRS). *月刊神経内科*, 73 : 573-585, 2010.
- 11) Duffy JR : Motor Speech Disorders : substrates, differential diagnosis, and management. Mosby, St.Louis, 1995 (荊安誠, 監訳 : 運動性構音障害—基礎・鑑別診断・マネージメント—. 医歯薬出版, 東京, 354-373 頁, 2004).
- 12) Cannito MP, Suiter DM, Beverly D, et al : Sentence intelligibility before and after voice treatment in speakers with idiopathic Parkinson's disease. *J Voice*, 26 : 214-219, 2012.
- 13) 鈴木淳一郎, 田中康博, 渡辺宏久, 他 : 脳深部刺激術後に生じた反復性発話異常に対してペーシングボードが有用であった
パーキンソン病の 1 例. *臨床神経学*, 53 : 304-307, 2013.
- 14) Gallena S, Smith PJ, Zeffiro T, et al : Effects of levodopa on laryngeal muscle activity for voice onset and offset in Parkinson disease. *J Speech Lang Hear Res*, 44 : 1284-1299, 2001.
- 15) De Letter M, Santens P, Van Borsel J : The effects of levodopa on word intelligibility in Parkinson's disease. *J Commun Disord*, 38 : 187-196, 2005.
- 16) Kompoliti K, Wang QE, Goetz CG, et al : Effects of central dopaminergic stimulation by apomorphine on speech in Parkinson's disease. *Neurology*, 54 : 458-462, 2000.
- 17) Schulz GM, Grant MK : Effects of speech therapy and pharmacologic and surgical treatments on voice and speech in Parkinson's disease : A review of the literature. *J Commun Disord*, 33 : 59-88, 2000.
- 18) Plowman-Prine EK, Okun MS, Sapienza CM, et al : Perceptual characteristics of Parkinsonian speech : a comparison of the pharmacological effects of levodopa across speech and non-speech motor systems. *NeuroRehabilitation*, 24 : 131-144, 2009.
- 19) Fox CM, Ramig LO, Sapir S, et al : Voice and speech disorders in Parkinson's disease and their treatment. In Trail M, Protas EJ, Lai EC (Eds), *Neurorehabilitation in Parkinson's disease*. SLACK Incorporated, Thorofare, pp245-276, 2008.
- 20) Spanagel R, Eilbacher B, Wilke R : Memantine-induced dopamine release in the prefrontal cortex and striatum of the rat — a pharmacokinetic microdialysis study. *Eur J Pharmacol*, 262 : 21-26, 1994.
- 21) Skuza G, Rogoz Z, Quack G, et al : Memantine, amantadine, and L-deprenyl potentiate the action of L-dopa in monoamine-depleted rats. *J Neural Transm Gen Sect*, 98 : 57-67, 1994.
- 22) Fredriksson A, Danysz W, Quack G, et al : Co-administration of memantine and amantadine with sub/suprathreshold doses of L-dopa restores motor behaviour of MPTP-treated mice. *J Neural Transm*, 108 : 167-187, 2001.
- 23) Fox C, Morrison CE, Ramig LO, et al : Current perspectives on the Lee Silverman Voice Treatment (LSVT) for individuals with idiopathic Parkinson disease. *Am J Speech Lang Pathol*, 11 : 111-123, 2002.
- 24) Trail M, Fox C, Ramig LO, et al : Speech treatment for Parkinson's disease. *NeuroRehabilitation*, 20 : 205-221, 2005.