Spastic Dysphonia

その外科的治療

平良 達三・一色 信彦・張田 裕

大川 正直*・田辺 正博**

Surgical Treatment of Spastic Dysphonia

Tatsuzo Taira, Nobuhiko Isshiki,
Yutaka Harita and Masanao Ohkawa

(Kyoto University)

Masahiro Tanabe
(Kochi Medical College)

Spastic dysphonia is a severe voice disorder apparently due to extreme tension of the entire phonatory system. It is rather rare in Japan. Psychotherapy, speech therapy, and many other forms of conservative therapy for spastic dysphonia have so far been disappointing. Thyroplasty type II (antero-posterior shortening of the thyroid cartilage) was performed on a patient with spastic dysphonia and the results were satisfactory.

Thyroplasty type II has the effect of relaxing the tension and abducting the vocal cord slightly. The surgical procedure required is rather simple, easy to perform, and unaccompanied by complications.

The advantages of our surgery are summarized as follows:

- 1) There is no direct surgical intervention on or in the vocal cord or the recurrent laryngeal nerve.
- 2) Operation is performed under local anesthesia and with the use of a laryngeal monitor system.
- 3) It is an easy surgical procedure and has almost no postoperative complications.

緒 言

発声時、あたかも laryngospasm を思わせる声門の過緊張と過閉鎖による努力性嗄声、発声困難のみならず、発声器官の過緊張性、痙攣性収縮を特徴とする痙攣性音声障害 (Spastic Dysphonia) は、本邦では、比較的稀れな疾患である。また、言語療法、心理療法、薬物療法など、現在、音声疾患に対して行なわれているすべての保存的治療方法は効を奏さず、難治性であることもよく知ら

京都大学医学部形成外科学教室

*京都大学医学部耳鼻咽喉科学教室

**高知医科大学耳鼻咽喉科学教室

れている¹⁾。1871年, Traube²⁾ による最初の報告以来 Spastic Dysphonia の病因を機能的疾患に求める考え方が多勢であったが²⁾³⁾⁴⁾, 近年では, 器質的疾患, それも中枢神経系の異常にその源を求める考え方が主流かの如く思われる⁵⁾⁶⁾⁷⁾⁸⁾⁹⁾¹⁰⁾¹⁸⁾。しかし, 依然として, その本態は不明である。また, Spastic Dysphonia を単一疾患とするのか, あるいは, その特徴的な Voice sign から一つの症候群としてとらえるのか¹⁷⁾, 現在でも, 混沌としている。Berendes¹¹⁾ は Spastic Dysphonia を, “全ての発声機構の過度の緊張によって惹起された voice attack (strained creaking and choked vocal attack) と voice sound (tense and squeezed voice sound) を特徴とする音声障害である” と定義しているが, Aronson¹²⁾ は, Spastic Dysphonia を特徴ある voice sign をもつ syndrome (症候群) としてとらえ, その病因の不明なものに対してのみ, idiopathic spastic dysphonia と診断し, その診断基準として, 以下の4項目を掲げている。1) Spastic Dysphonia と同様の voice sign を有する。2) 声門部に声帯痙攣など器質的变化を呈さない。3) 末梢言語機構が正常であること。4) 言語療法, 心理療法に抵抗性を示す。Spastic Dysphonia の分類方法でも, 現在, 統一された分類方法はない。Aronson¹³⁾ は, laryngospasm と類似した声門所見を示す Adductor Spastic Dysphonia と, 発声中, 声門が開大した状態で気息性の嗄声を特徴とする Abductor Spastic Dysphonia の2つの type に分類し, Adductor type が多くみられると報告している。このようになぞの疾患である Spastic Dysphonia に対し, Dedo¹⁴⁾ は, 一侧の反回神経切除による本疾患の外科的治療方法を報告し, その有効性を唱えているが, 術後の合併症¹⁶⁾, 再発率¹⁵⁾の面で, 今後, 追試, 検討の余地を残している。我々は, 保存的治療方法がほとんど無効な Spastic Dysphonia に対して, 一色の甲状軟骨形成術²³⁾を施行し, ほぼ満足のいく結果を得ている。本論文では, 我々の行なっている外科的治療方法とともに, 疾患のメカニズムについても考察を加える。

症 例

患者: 50歳, 女性。

主訴: 嗄声, 発声困難。

現病歴: 昭和56年12月17日より, かすかに声が嗄れるのを自覚していたが, そのまま放置していた。同年12月19日, 突然, 声が出なくなった。咽頭痛, 嚥下痛, 呼吸困難等はなく, 近医受診し, 投薬 nebulizer 療法などをうけるも症状が改善せず, 昭和57年4月7日, 当科を紹介され初診した。

既往歴:

昭和31年; 大腿ヘルニア根治術

昭和32年; 中垂炎手術

昭和40年~47年; 先天性股関節脱臼の手術を計5回うけた。

昭和45年; 胃潰瘍の内科的治療。

昭和50年; 子宮筋腫にて子宮摘出術。

家族歴: 同胞に変性疾患, 同様の音声障害を

示すものは認めなかった。

現症: 身長 140.7cm, 体重32.5kg, やや, やせ型であるが, 全身状態は良好であった。耳, 鼻, 咽頭のルーチンの検査にても異常はなく, 眼瞼, 頭部, 口唇部等にチック様, 異常運動は認めなかった。

手指振慄もみられなかった。間接喉頭鏡検査では, “ア” 発声時の下咽頭, 喉頭, 披裂部の過緊張による声門の過閉鎖が認められ, 声帯は直視できなかった(図1)。しかし, 吸気時には, ほぼ正常と思われる両側の声帯が確認された。video fiberscopy では, 発語時に声門の過閉鎖像を認めるが, 他に器質的な変化は認めなかった。初診時, phonation analyzer にて, 平均呼気流率の著明な低下と, pitch の低下が認められたが, 平均的 AC/DC ratio はほぼ良好な値を示したが, 試行ごとのばらつき,

経時変動が大であった(図2)。

Sonagram による音声の分析では、音声の断

図1 披裂部，喉頭蓋の過閉鎖により声帯は見えない(写真の下が披裂部)

続とともに、雑音成分の著明な混入が認められた(図3)。なお、喉頭X-P 尿、血液、生化学検査では、異常なく、神経内科学的検査によっても、特に異常所見は見いだせなかった。

術前 Phonation Analysis.

Air Flow Rate	: 23 cc/sec
AC/DC	: 52 %
Intensity	: 73 dB
Pitch	: 11 Hz

図2

図3 術前“ア”音ソナグラム。音声の断続と雑音成分の混入が著明。

経

本症例は、その特徴的な音声の聴覚印象と声門所見、さらに、既往に変性疾患、錐体外路系疾患もないことより、Spastic Dysphonia (Aronson によると、idiopathic spastic dysphonia) と診断され、試みに Medication,

過

Speech therapy, Psychotherapy, 喉頭内表面麻酔、前節の浸潤麻酔等、保存的療法を行ってみたが、いずれも無効であった為、昭和56年6月8日、局所麻酔下に甲状軟骨形成術を施行した。

手

本症例に対して、我々は声門の軽度開大と弛緩作用が得られる甲状軟骨形成術Ⅱ型を行っ

術

た。本手術は局所麻酔下に行うことを原則とする。過度の前投薬は、術中患者の睡眠を誘い、

音声の monitor が不可能となる為、術前処置として、硫酸アトロピン、ジアゼパムの筋注のみを行った。局所麻酔は Epinephrine を含有した 0.5% Lidocaine (xylocaine) を使用した。皮膚切開は、前頸部横切開とし、甲状軟骨中央部、ほぼ声帯レベルと一致させた (図 4)。また、切開前にピオクタニン等の色素を用いて、切開予定線を marking し、縫合時の目安とした。切開線は約 4 cm、喉頭前頸筋群は、鈍的に左右へ展開し、保存した。甲状軟骨切痕を指標として、両側の甲状軟骨翼外側縁、甲状輪状関節まで露出し、左側甲状軟骨翼前中 $\frac{2}{3}$ の境界線に縦切開を加え、甲状軟骨翼を切断したが、この時、内側軟骨膜にメスが入らない様、注意深く行った。また、年長者、老人では、甲状軟骨の化石化が高度で、メスで切断できない事もあり、ノミもしくは電動バーを用いる事もあるが、本症例では、切断は容易であった。切断した外後方の軟骨片を軟骨膜下に剝離を行い、内前方の甲状軟骨片の上に、overlap させた (図 5)。軟骨膜下剝離に際し、内側軟骨膜をつき破り、喉頭内腔へ侵入しない様、慎重に行っ

図 4 皮フ切開線の位置と切開を色素にて marking する。

図 5 甲状軟骨翼の縦切開と重ね合わせ。

(右) (左)
図 6 本症例に用いた甲状軟骨形成術Ⅱ型のシェーマ。

た。剥離には、耳手術用のローゼンの剥離子を使い易く、これを使用した。2つの軟骨片は2～3mm重ね合わせた。音声は直ちには劇的変化を示さず、徐々に発声ごとに緊張がとれていき、安易な発声が可能となってきた。また、鼻から入れた **fiberscopy** でも、発声時、全く見られなかった声帯が特に同側(左)で見られるようになってきて、声帯の過緊張ないし過閉鎖が明らかに改善されてきた。しかしながら、従来の報告例にみられる如く、再発が考えられるので、より確実な脱緊張を目的として、同様の操

作を反対側にも行った。両側とも同様の甲状軟骨変形(外後方部分の内前方部分上への重ね合わせ)を来さしめると音声は極めて低くなり、発声がかえって困難となり、右側をもとの位置にもどした方が発声が容易で、声も柔らかい良い声が出た。従って、右側は元の位置にマットレスチューチャー2本を用い固定。左側は図6の如く重ね合わせて、手術を終った。術後とくに合併症なく、術後1週間は、局所腫脹防止を目的として、沈黙を守らしめた。

術 後 経 過

現在、術後18カ月を経過しているが、Spastic

Dysphonia の再発は見られない。声門部の弛緩作用は持続している(図7)。また、音声の改善度も著明であり(図8)、phonation analyzer でも、ほぼ正常の検査結果が得られた(図9)。

図7 左側声帯は弛緩している。

術後 Phonation Analysis.

Air Flow Rate	:	112 cc/sec
AC/DC	:	61 %
Intensity	:	88 dB
Pitch	:	165 Hz

図9 平均呼気流量、ピッチとも改善が著しい。

図8 術後ソナグラム音声の改善は著しい。

考 案

Spastic Dysphonia の病因については、従来より、精神的ショック、ストレスなどの心理的要因が重要視され、機能的音声疾患とする見方が優位であったが²⁾³⁾⁴⁾、Robe⁶⁾らにより、Spastic Dysphonia 患者の 90%に EEG の異常が認められるとの報告に端を発し、錐体外路系疾患、変性疾患の中には、Spastic Dysphonia と同様の voice sign を示すこと¹⁹⁾、さらには、Dedo⁹⁾らにより、反回神経の運動線維の変性が認められたという報告がなされる様になって、本疾患を、中枢神経系の異状による器質的疾患とする見方が強くなっている。Dedo⁷⁾ は、反回神経運動線維変性の原因として、神経親和性ビールスによる感染症を上げ、ビールス感染により、反回神経の motor fiber が障害をうけ、声帯の proprioceptive controle が損なわれることによるとしているが、反回神経の変性は認められないとの報告もみられ²⁰⁾、その本態は、依然として不明である。また、平野²¹⁾の論文にみられるが如く、何らかの心因的要素が本疾患発症の引きがねとなっている症例も少なくなく、種々の発声条件によって、音声の spasticity が軽減する。さらに、spasticity は日によって変動したり、歌をうたったり、笑ったりは比較的容易という事実などは、機能的疾患を疑わせるに充分な要素でもある。我々の症例でも、何ら精神的ストレス、器質的疾患は見い出せなかった。

Aronson¹³⁾ は、Spastic Dysphonia を Adductor type, Abductor type に分類しているが、我々は、laryngospasm 様の声門所見と、努力性の嗄声を示す type を tonic type また、発声時に声帯が間代性の動きを示し、vibration の強い途切れる様な音声の特徴とする clonic type とに分類している。

Spastic Dysphonia に対する外科的治療法として、我々は甲状軟骨形成術を行なっている²³⁾²⁵⁾。甲状軟骨形成術Ⅱ型を行なうことにより、声帯、声門の弛緩は得られるが、そのみ

で瞬時に良い音声は得られない。しばらく発声を繰り返すうちに、段々と楽な発声となり、Spasticity が減じた良い音声となってくる。次に、反対側にも、同様にⅡ型を行ったが、興味あることは、甲状軟骨切開線で重ね合わせをせず、両側とも元の状態にもどしてやると、メカニカルには声帯緊張は術前と同じ状態であり、再び過緊張的な音声になるかと思われたが、そうはならず、かなり良い声が出た。

以上の事から、Spastic Dysphonia では、声が出ない為、喉頭筋群の筋緊張を増加させ、声が出る様努力する。この為、より一層の筋緊張上昇と声門の過閉鎖を促進させる。さらに、より強い声門下圧を必要とする為、ますます声が出にくくなる。この悪循環をくり返しているものと考えられる。しかし、この悪循環が、一旦、断ち切れると、甲状軟骨自身は元の状態でもかなり良好な音声を得られる。音声と video-fiberscopy を用いて声門像を同時観察することにより、Spastic Dysphonia の悪循環が提唱されるのである (図10)。

我々は、術中に VTR-flexible fiberscope を用いて、音声とともに声門像をモニターしながら手術を行っている (図11)。本モニターシステムを用いることによって、手術に際する喉頭内合併症を防止でき、また、ほぼ直視下と同じ条件で、手術による経時的な声門部の変化を

悪循環説

図10 Spastic Dysphonia のメカニズムに対する悪循環説。

図11 ビデオファイバースコープを用いたモニタリングシステム。

とらえることができる。さらに、手術効果の確認ができることはいうまでもない。

心因的、器質的要因とも、ともに **Spastic Dysphonia** 発症の **trigger** となりえるが、**Spastic Dysphonia** の本態は、発声の悪循環回路が主であると考えている。また、発症の素因なるものが存在することも充分推察できる。甲状軟骨形成術が **Spastic Dysphonia** に有効な理由については、手術による声帯弛緩作用、声門の軽度開大により悪循環回路を遮断することによると思われる。**Spastic Dysphonia** に対する手術療法としては、Dedo の反回神経切除術¹⁴⁾、Biller らによる反回神経挫滅術²²⁾があるが、これらの手術療法は、反回神経麻痺

を手術的に作り出すことにより、声帯の固定位置によっては、声門閉鎖不全を生じ、氣息性嗄声を惹起する。手術後、健側声帯の過代償作用により **Spastic Dysphonia** の再発が見られる。手術側声帯の器質的変化が生じ、音声に影響を与える。また、術後、呼吸困難が生じ、気管切開を要する症例がみられたという報告¹⁶⁾など、術後の合併症が生じうる可能性も否認ない。声帯自身の過緊張は主に、声帯筋である甲状披裂筋によるものであり、声帯の脱緊張、声門過閉鎖抑制を得る為には、反回神経の甲状披裂筋枝ないし声帯内転を起す筋群への選択的切除が考えられる。**adductor branch** 切除の可能性については1977年、一色²³⁾が示唆しているが、Iwamura ら²⁴⁾は、反回神経の **xylocain** による浸潤麻酔後、音声の改善が得られる事を節電図学的に確認し、反回神経の分枝である甲状披裂筋枝の選択的切除のみで、術後、何ら合併症もなく、著明な音声の改善を得ている。我々の甲状軟骨形成術の利点として、局所麻酔下にて音声とともに声門像を、ほぼ直視下と同じ状態で **monitor** しながら行いえる。反回神経、声帯等に直接侵襲を加えない為、反回神経麻痺、声門閉鎖不全に由来する氣息性嗄声、声帯萎縮などの器質的変化は起こり得ない。手術操作が簡単で、耳鼻咽喉科医なら、誰れでも行いえること。また、手術侵襲が少ない点があげられる。要するに、正常な神経を犠牲にしないで済むという事である。

む す び

本邦では、比較的稀な疾患である **Spastic Dysphonia** の外科的治療方法である甲状軟骨形成術の有効性について述べた。本法が有効な理由として、以下の事が考えられる。

- 1) 手術自体が声帯弛緩作用、声門の軽度開大作用を有する。
- 2) メカニカルな脱緊張作用により、喉頭の過緊張、声門過閉鎖という悪循環回路を遮断する。また、本手術方法の利点として、
 - ① 正常神経を切断するという大きな代償とかけをしなくて済む。
 - ② 局所麻酔下に、音声・声門像を **monitor** しながら、良い声が出るまで手術操作を調節できる。
 - ③ 手術操作が簡単で、手術侵襲が少なく、術後の合併症はなく、安全である。さらに、**Spastic**

Dysphonia のメカニズムとして, 喉頭の悪循環説を提唱した。

(本論文の要旨は, 第83回日本耳鼻咽喉科学会総会にて演述した。)

文 献

- 1) Dedo H.H., Shipp T. : Spastic Dysphonia, A surgical & voice therapy treatment program : College Hill, Houston, Texas, 1980.
- 2) Traube L. : Spastische Form der nervösen Heiserkeit. Gesammelte Beiträge zur Pathologie und Physiologie. vol. 2, Berlin, August, Hirschwald, 1871. P.677.
- 3) Brodnitz F.S. : Spastic Dysphonia, Ann. otol. 85 : 210~214, 1976.
- 4) Heaver L. : Spastic dysphonia, Psychiatric considerations, Logos 2 : 15~24, 1959.
- 5) Bocchino J.V., Tucker H.M. : Recurrent laryngeal nerve pathology in spasmodic dysphonia, The laryngoscope 88 : 1274~1278, 1978.
- 6) Robe E., Brumlik J., Moore P. : A study of spastic dysphonia, Neurologic and Electroencephalographic Abnormalities, The laryngoscope vol LXX : 219~245, 1960.
- 7) Dedo H. H., Townsend J. J., Izdebski K. : Current evidence for the organic ethiology of Spastic dysphonia ORL Vol. 86 : 875~880, 1978.
- 8) Aminoff M.J., Dedo H.H., Izdebki K. : Clinical aspects of spasmodic dysphonia, Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry vol. 41 : 361~365, 1978.
- 9) Dedo H.H., Izdebski K., Townsend J.J. : Recurrent laryngeal nerve Histopathology in spastic dysphonia, Ann otol 86 : 806~812, 1977.
- 10) Aronson A. E., Brown J. R., Litin E.M., Pearson J.S. : Spastic Dysphonia I, Voice, neurologic, and psychiatric aspects, J. Speech and Hearing. Disorders 33 : 203~216, 1968.
- 11) Berendes (Cited by Arnold G.E.) : Spastic Dysphonia I Changing Interpretations of a Persistent Affliction. Logos 2 : 3~14, 1959.
- 12) Aronson A.E. : Clinical voice disorders : An tuter disciplinary Approach : Brian C., Decker, Division of Thieme Stratton, New York P.157~170, 1980.
- 13) Aronson A.E. : Psychogenic voice disorders, Philadelphia, W.B. Saunders Co. 1973, 42~43.
- 14) Dedo H.H. : Recurrent laryngeal nerve section for spastic dysphonia : Ann Otol 85 : 451~459, 1976.
- 15) Aronson A.E., Desanto L.W. : Adductor spastic dysphonia : 11/2 years After recurrent laryngeal nerve section. Ann Otol 90 : 2~6, 1981.
- 16) Salassa J.R., Desanto L.W., Aronson A.E. : Respiratory distress after recurrent laryngeal nerve sectioning for adductor spastic dysphonia : Laryngoscope 92 : 240~245, 1982.
- 17) Aronson A.E., Hartoman D.E. : Adductor spastic dysphonia as a sign of essential (voice) tremor : J. Speech and Hearing Disorders, P.52~58, 1981.
- 18) McCall G.N., Skolnick M.L., Brewer D.W. : A preliminary report of some atypical movement patterns in the tongue, palate, hypopharynx, and larynx of patients with spasmodic dysphonia : J. Speech and hearing disorders : xxxvi. 4 : 466~470, 1971.
- 19) Aronson A.E., Brown J.R., Litin E. M., Dearson J.S. : Spastic dysphonia II comparison with essential (voice) tremor and other neurologic and psychogenic dysphonia : J. Speech and Hearing Disorders : xxxiii. 3 : 219~231, 1968.
- 20) Ravits J.M., Aronson A. E., Desants L.W., Dyck P.J. : No morphometric abnormality of recurrent laryngeal nerve in spastic dysphonia Neurology 29 : 1376~1382, 1979.

- 21) 平野 実, Bloch C.S., Gould W.J. : Spastic dysphonia. 耳鼻臨床 75 : 1395~1402, 1982.
- 22) Biller H.F., Som M.L., Lawson W. : Laryngeal nerve crush for spastic dysphonia, Ann Otol 88 : 531~532, 1979.
- 23) 一色信彦 : 喉頭機能外科, 京都大学耳鼻咽喉科学同窓会, 1977.
- 24) Lawrence L.L.(edited) : Spastic Dysphonia : state of the art 1979 : The voice foundation :

New York.

- 25) 本庄 巖, 本田啓二, 高島凱夫, 村上康子 : 痙攣性発声障害の手術的治療例. 耳鼻臨床 70 : 4 ; 319~322, 1977.

原稿到着 : 昭和57年12月 3 日

別刷請求先 : 平良達三

〒734 広島市南区霞 1-2-3

広島大学医学部耳鼻咽喉科学教室