吸気時声帯振動による鼾

—Multiple System Atrophy の2症例—

垣鍔 典也・貞岡 達也

本山 壯一・高橋 宏明

Snoring due to Inspiratory Vibration of the Vocal Folds

Noriya Kakitsuba, Tatsuya Sadaoka,
Souiti Motoyama and Hiroaki Takahashi
(Osaka Medical College)

In two cases of multiple system atrophy — Shy-Drager syndrome and olivopontocerebellar atrophy — sonorous respiratory sounds accompanied by hyperpnea were observed during sleep. Fiberscopic and sound-analytic examinations revealed that the sound source was the inspiratory vibration of the vocal folds. The limitation of the vocal fold abduction seemed to result in this abnormal vibration.

The possibility of atrophy of the posterior cricoarytenoid muscle is discussed.

Key words: inspiratory vibration, vocal folds, Shy-Drager syndrome, olivopontocerebellar atrophy, posterior cricoarytenoid muscle

はじめに

従来より鼾は、軟口蓋振動による振動音、狭い口峽あるいは舌根沈下によって狭小となった下咽頭を呼吸気流が通過する際の狭窄音、咽頭腔に貯留した唾液による雑音、などであると考えられてきた¹⁾²⁾。我々は、これを確認するため、2年前より、鼾をかいて眠っている患者の鼻腔よりファイバースコープを挿入して音源部位を観察し、さらに鼾の音を分析することにより、鼾の音源と音響の関連について検討を行っている。その結果、鼾の音源は前述の部位以外に、喉頭蓋や披裂部粘膜、あるいは特殊な例ではあるが声帯にも起因することが確認された。

本論文では、このうち Shy-Drager syndrome と Olivo-Ponto-Cerebellar Atrophy 患者にみられた声帯振動に起因する鼾について報告すると共に、その原因について文献的考察を加える。

症 例

症例 1

患者：47才，男性

主訴：大きな鼾

既往歴：10才，左鼠径ヘルニア。32才，胃十二指腸潰瘍。43才，椎間板ヘルニア。46才，前立腺炎，膀胱頸部硬化症。

家族歴：母親が弁膜症。

現病歴：若い頃には鼾はまったくなかったが、昭和59年頃より突然大きな鼾を生ずるようになってきた。近医耳鼻科を受診するも、鼻咽喉頭には特に異常はないとの事であった。保存的療法を続けていたが軽快せぬため、昭和60年1月某大学病院耳鼻科を受診、ここからの紹介により同年1月23日大阪医科大学耳鼻咽喉科を受診した。この間、自宅で鼾防止器（静電刺激器）を使用していたが無効であった。同年2月18日、検査目的にて当科に入院した。タバコ30～40本/日、ビール1本/日。

全身所見：身長166cm、体重55kg、体温36.8℃、血圧120/80mmHg、EKG正常、胸部X線正常、血液検査正常。

局所所見：耳、鼻には特に異常は認めない。咽頭：扁桃は埋没性で、口蓋垂がやや太い。口蓋弓は正常。喉頭：両側声帯ともに、発赤腫脹が強く浮腫状であり、正常の2倍ほどの幅がある。吸気時には両側披裂部の外転が弱く、声門が狭い。

持参録音テープ：300～500Hzに及ぶ極めて高い周波数で、しかもかなり周期性を持つ音である。

Sleep study：昭和60年2月21日、薬物睡眠検査を施行した。使用薬剤は、セルシン10mgを2A用い、このうち1Aはソリタ200ccに入れ点滴静注とし、他の1Aは検査開始と同時に、速やかに静注した。鼾が起こっている最中にファイバースコープを鼻腔より挿入し観察したところ、この鼾の音源は声帯に起因することが確認された。正常者では吸気時には当然声門が開大しているが、この患者では呼気時にはわずかの声門間隙を残しているものの、吸気時には発赤腫脹した声帯が強い吸気に伴い声門中央に引き寄せられ、ほとんど閉鎖した状態となる。そして、浮腫状となった粘膜が下方へ引き込まれる様にして振動し、喉頭全体も強く下方へ引き下ろされる。

一方、通常の鼾に認められる様な軟口蓋振動はときどき認められるにすぎなかった。

音響分析：図1にサウンドスペクトログラフSG-07で分析したこの鼾のパターンを示す。周波数は280～295Hzに及び、整然とした基本周波数を有している。ちなみに、この患者の話声は110～120Hzである。

退院後経過：昭和60年2月23日退院。以後、声帯の炎症軽減を計るため投薬、喉頭ネブライザー、禁煙などの保存的療法を続けていたが、一時軽快傾向にあった鼾が同年9月頃より再び増悪してきた。これとほぼ時期を同じくして、4～5年前より自覚していた歩行時のフラツキ、両下肢の脱力感が徐々に増悪してきたため、昭和61年1月17日精査目的にて大阪医大第1内科へ入院した。検査の結果、Shy-Drager syndrome（以後SDSと略す）の診断を得た。

内科入院中に行った喉頭鏡検査では、前回入院時に比較して声帯の炎症は増悪しており、吸気時には声門の外転が明らかに制限されていた。

このため、夜間の呼吸困難の程度を調べる目的で、昭和61年1月19日自然睡眠検査を施行した。図2は睡眠経過図、表1はその分析結果である。

この声帯に起因する鼾は全睡眠段階で認められた。鼾は吸気時のみに起こり、最高音圧は口前30cmで85dBに達した。そして、Non-REM期では睡眠深度が深くなるほど頻度が高く、ま

図1 症例1 Shy-Drager Syndrome 患者の鼾のパターン。周波数は280～295Hzに及ぶ。

たREM期でもよく発生した。

呼吸様式は主として腹式呼吸で、喘ぐ様な呼吸にともない喉頭が激しく上下動し、しかも吸気時には鎖骨上窩が著しく陥没する。

呼吸数は覚醒時に比較して睡眠時には5割前後増加しており、しかも睡眠深度が深くなるほどこの傾向が強くなる。これは **Snoring Index** と比例関係にある。

他方、睡眠経過中に無呼吸の発生は認められなかった。

現在なお内科と共同して外来通院にて経過観察中である。

症例2

患者：36才，男性

主訴：大きな鼾

既往歴・家族歴：特になし

現病歴：生来健康であったが、昭和57年頃より排尿困難、昭和60年初め頃より歩行困難、昭和61年3月頃より書字困難が出現するようになった。精査のため、昭和61年5月16日大阪医大第1内科へ入院。Olivo-Ponto-Cerebellar Atrophy (以後OPCAと略す)の診断を受けた。

患者は、入院当初より、連日大きな鼾をかき、同室の患者より苦情が絶えぬため、同年5月29日精査目的で耳鼻科を受診した。

タバコ(－)，アルコール(－)。

全身所見：身長159cm，体重63kg，体温36.8℃，血圧 坐位128/68mmHg→立位92/68mmHg，EKG正常，胸部X線正常，血液検査正常。

局所所見：耳、鼻には異常を認めない。咽頭；口蓋垂はやや長く太い。後口蓋弓は幅が広い。扁桃は埋没性。喉頭；両側声帯は、発声時には十分内転するが、それに続く吸気時には外転が不十分の時がある。深呼吸をさせても開大位までは外転しない。声帯の炎症所見はない。

持参録音テープ：吸気呼気ともに、低い振動音がある。それ以外に吸気時に非常に高いきれいな音もある。

Sleep Study：昭和61年7月13日，自然睡眠

検査を実施した。図3は睡眠経過図，表2はその分析結果である。

鼾は、図2に示すごとく、吸気時振動型鼾、呼気時振動型鼾、吸気時声帯振動によると思われる鼾、の3種類を認めた。このうち、第3の鼾が声帯振動に起因すると判断した理由は考案において後述する。但し、第3の鼾は単独で発生するものではなく、1回吸気のうちの前半は軟口蓋振動による鼾であり、それに引き続く後半の吸気が声帯振動と思われる鼾に移行するものであった。しかも、この音は、Non-REM II, III, IV期にのみ認められ、この順序で **Snoring Index** も増加していった。さらに、覚醒時安静呼吸数18回/分に対し、この音が発生している時期は若干の呼吸増加を認めた。

また無呼吸はNon-REM I期とREM期に認められたが、Sleep Apnea Syndromeの規定には達しなかった。

さて、前述した各種鼾の音源を確認するため、昭和61年7月17日鼻腔よりファイバースコープを挿入した状態で、症例1と同様の薬剤を用いて薬物睡眠検査を実施した。しかし、この検査中には通常の振動型鼾しか出現せず、第3の鼾の音源確認はできなかった。これは、本検査に用いる薬剤の性質及びファイバースコープによる刺激のため、自然睡眠時に認めた第3の鼾が発生するだけの睡眠深度に達しなかったためである。本検査で得られる睡眠深度がNon-REM II期までである事は、以前に確認済みである。

一方、振動型鼾は、中咽頭側壁が中央に膨隆する事により上気道狭窄を生じ、ここを通る呼気・吸気が軟口蓋を振動させるために発生するものである事がわかった。また、この検査中には声門の閉鎖は認めなかった。

音響分析：図4は本例の軟口蓋振動による鼾のスペクトログラムであり、図5は声帯振動に起因すると思われる鼾のものである。前者が30Hz前後であるのに対し、後者は350Hzにも達する。

図 2

表 I 全体 吸気時声帯鼾 (声)

1986/1/19

■ 47

睡眠段階	時間 (分)	呼吸数 (回)	無呼吸数 (回)	鼾数 (回)	呼吸平均= 時間(分)	呼吸数(回) 鼾平均= 時間(分)	$A \cdot I = \frac{\text{無呼吸数(回)}}{\text{時間(分)}} \times 60$	$S \cdot I = \frac{\text{鼾数(回)}}{\text{呼吸数(回)}} \times 100$
W	16	310			19.4 ± 2.8			
I	56	1751	0	1512	31.3 ± 4.5	27.0 ± 11.6	0	86.4
II	98	3074	0	2717	31.4 ± 3.2	27.7 ± 8.8	0	88.4
III	27	839	0	749	31.1 ± 4.0	27.7 ± 8.2	0	89.3
IV	16	534	0	534	33.4 ± 0.6	33.4 ± 0.6	0	100.0
R	23	678	0	611	29.5 ± 5.2	26.6 ± 8.8	0	90.1
計	220	6876	0	6123	31.3 ± 3.8	27.8 ± 9.3	0	89.0

A・I Apnea Index

S・I Snoring Index

図 2, 表 I 症例 1 の自然睡眠経過図とその分析結果

図 3

表 2 仰臥位 吸気時声帯振動 (声)

1986/7/13

36

睡眠段階	時間 (分)	呼吸数 (回)	無呼吸数 (回)	鼾数 (回)	呼吸平均= $\frac{\text{呼吸数(回)}}{\text{時間(分)}}$	鼾平均= $\frac{\text{鼾数(回)}}{\text{時間(分)}}$	A・I= $\frac{\text{無呼吸数(回)}}{\text{時間(分)}} \times 60$	S・I= $\frac{\text{鼾数(回)}}{\text{呼吸数(回)}} \times 100$
I	49	897	5	0	18.3 ± 2.7	0.0 ± 0	6.1	0.0
II	6	126	0	18	21.0 ± 2.3	3.0 ± 5.3	0.0	14.3
III	43	867	0	352	20.2 ± 2.9	8.2 ± 8.2	0.0	40.6
IV	17	350	0	202	20.6 ± 1.1	11.9 ± 4.3	0.0	57.7
R	17	352	2	0	20.7 ± 3.1	0.0 ± 0	7.1	0.0
計	132	2592	7	572	19.6 ± 2.5	4.3 ± 6.8	3.2	22.1

A・I Apnea Index
S・I Snoring Index

図 3, 表 2 症例 2 の自然睡眠経過図とその分析結果

図4 症例2の軟口蓋振動による鼾のパターン
周波数は約 30Hz である。

図5 症例2の声帯振動に起因すると思われる鼾
のパターン。周波数は 350Hz にも及ぶ。
前半は軟口蓋振動による鼾である。

本患者の話声は、120Hz 前後である。

退院後経過：昭和61年8月23日退院後は、地元にある総合病院で経過観察中である。

考 案

SDS及びOPCAは、脊髄小脳障害と自律神経障害を主とする変性疾患である。これらの疾患は従来までは各々独立した疾患として取り扱われてきたが、最近では両者の移行したタイプが多数報告され、臨床病理学的に各々の疾患単位に分離されるものではないとの見地から、Multiple System Atrophy（以後 MAS と略す）の概念が提唱されるようになってきている³⁾⁴⁾。この疾患は、1) 小脳症状として、歩行障害、言語障害、企図振戦、2) 自律神経症状として、起立性低血圧、膀胱直腸障害、発汗異常、3) 錐体路症状として、腱反射亢進、病的反射、4) 錐体外路症状として、無動、固

縮、振戦など、多彩な臨床症状を呈するのが特徴である。さらに、従来まではこれら多くの背景にあってあまり注目されなかった症状のひとつに、呼吸障害があげられる。すなわち、睡眠中の大きな鼾や、無呼吸、多呼吸、周期の不規則な呼吸などがそれであり、さらに若干例ではあるが声帯麻痺を伴う症例^{6)7)~17)21)}や、Sleep Apnea Syndrome を合併する症例⁵⁾⁶⁾⁸⁾¹²⁾も散見されている。我々の2症例においても、MSAの主症状の他に、大きな鼾や声帯の外転障害があり、また第1症例では睡眠中の著明な多呼吸が認められた。

第1症例で示したように、この大きな鼾は外転障害を起こした声帯の吸気時振動に起因することがわかった。しかし第2症例では、薬物睡眠検査の際この種の鼾は起こらず、音源の確認はできなかった。この理由は、前述したように、第1症例では自然睡眠のすべての Stage で声帯鼾が起こったのに対し、第2症例では自然睡眠の Non-REM II, III, IV 期に第3の鼾が認められたにすぎず、薬物睡眠検査ではこの鼾が発現する睡眠 Stage までは達し得なかったためであると思われる。しかし、この鼾は第1症例の声帯鼾と音響学的に酷似しているもので、同じ原因によるものと考えられる。なお、この音を鼾と呼んでいいかどうかは異論もあろうが、高橋¹⁾の定義「鼾は睡眠中の異常呼吸音」に従い、一応鼾と呼ぶことにする。Arnord and Luchsinger⁷⁾ らも、「喉頭麻痺に際しては、呼気流が弛緩した声帯を受動的に振動させることで、鼾が喉頭から起こる場合もある」と、記載している。

さて、この鼾は、音圧と周波数の2点において、通常の鼾とは明らかに区別されるべき音響学的特徴を有している。

第1の特徴である音圧については、通常の鼾は口前30cmで60dB前後、Sleep Apnea Syndrome 患者の無呼吸解除後の鼾が70dB前後であるのに対し、今回の2症例の鼾は、75~100dBの音圧を記録した。国内外の文献にお

いても、その強烈さ、異様さを示すのに、「喘鳴様の」⁵⁾「激しい」⁶⁾「increased」⁸⁾「excessive」⁹⁾「loud」¹⁰⁾などの形容が用いられているが、音源を記載したものはない。わずかに Bannister⁹⁾らが、「声門間隙が狭まる結果、声帯が振動しやすくなり、これらの患者に特徴的で特異な吸気音が生ずるのであろう」と、推測している。

次に、第2の特徴である周波数について述べる。寺井²⁾は、「鼾の音響学的研究」の中で軟口蓋振動による鼾の基本周波数は150Hz附近が上限であり、400~500Hzに及ぶ鼾は舌根狭窄部に起因するものであろうと結論している。

この事実は、我々もファイバースコープを用いて確認している。これに対し、症例1の声帯鼾は280~295Hzで、症例2の声帯振動によると思われる鼾は300~350Hzであり、寺井²⁾の言ういずれの鼾にも属さないタイプであった。一般男性の話声は120Hz前後、女性で250Hz前後であるから、この鼾は女性のそれよりも高振動である。一定の呼吸量でこれだけの振動を有するためには、質量の軽い物体でなくてはならず、軟口蓋や喉頭蓋の様な質量のある物体とは考え難い。すなわち、声帯のような軽質量によるものと考えるのが妥当である。しかし、男女の会話域よりもさらに高い振動数を有するためには、声帯をかなり緊張させる必要があるにもかかわらず、かえって筋緊張が減弱する睡眠中にこれだけの振動数を有するのは矛盾があるように思われる。しかしながら、健康な男性5名に、自然な状態で吸気発声をさせたところ、基本周波数が300Hz前後であることが多かった。

以上より、第2症例の高振動型鼾も、声帯に起因するものと考えられた。

次に、MSAに合併する声帯麻痺の報告は比較的少なく、我々の渉猟し得た範囲では、国内で4論文⁶⁾¹¹⁾¹²⁾²¹⁾、国外でも8論文⁸⁾⁹⁾¹⁰⁾¹³⁾¹⁴⁾¹⁵⁾¹⁶⁾¹⁷⁾があるにすぎない。このうち、Williamsら⁸⁾は、SDS12例中8例に両側声帯外転障害

を認め、Hansonら¹⁴⁾はWilliamsらの症例を追跡すると、そのうち11例に両側声帯麻痺を来したと報告した。また、Guindiら¹⁰⁾はSDS5例中全例に声帯麻痺を認めたとの報告を行っている。MSA症例に合併する声帯麻痺発見の大半は喘鳴や呼吸困難によるものであり、声帯麻痺症状としてはかなり進行していることを意味する。すなわち、本例のような両側外転障害では声門間隙がないため嗄声はなく、早期診断が困難である。このような理由でMSAの声帯麻痺は見過ごされる可能性があり、実際には、かなり高率に発現しているものと考えられる。

さて、喉頭の運動神経は、大脳皮質で中心前回にならぶ舌、咽頭などの運動中枢に接して発し、皮質下中枢、間脳を経て下行し、延髄において尾状部にある疑核に達し、ここより迷走神経が頸部を通して胸腔内に至り、さらに反回して再び頸部を上行した後、喉頭に達する。したがって、この経路のいずれの部位の障害によっても、声帯麻痺を生ずる。MSAに合併する声帯外転障害の発現機序としては、現在までにいろいろと示唆に富んだ報告があるが、決定的なものはない。1960年、Shyら¹⁸⁾はSDS2例の剖検例で、疑核の著明な変性を認めている。また1978年Lapresleら¹⁷⁾も声帯麻痺を伴うOPCAの剖検例において両側疑核の高度な変性を認めている。1980年、Guindiら¹⁰⁾は、SDS5例に喉頭筋電図検査を行い後輪状披裂筋の神経原性萎縮を認めた。さらに、1981年、Bannisterら⁹⁾もSDS3例の剖検例で、内転筋群は比較的正常であるにもかかわらず後輪状披裂筋のみの神経原性萎縮を認めたが、疑核の変性はなかったと報告している。また、1985年朝長ら¹⁹⁾も、SDS剖検例で、疑核の変性は認めておらず、末梢神経に病変があることを指摘している。いっぽう、1983年広瀬ら²⁰⁾は、「別の考え方として、MSA患者の四肢にみられる固縮に相当する拮抗筋の周期的緊張と、これによる相反性の破綻も声帯運動障害の成因として

考慮すべきだ」と述べている。

我々の2症例の声帯麻痺は、以下の理由で後輪状披裂筋の萎縮が原因であることを示唆する。すなわち、症例1で認められた睡眠中の著明な多呼吸や声帯痙は、外転障害を起こした結果生ずる声門の狭窄に由来するものであるが、覚醒時には多呼吸や喘鳴は認められてない。それは、睡眠中の声帯外転障害は覚醒時のそれよりもさらに高度であるためと思われる。すなわち、睡眠中には筋緊張がなくなるため、前述のBannister⁹⁾の報告に従えば、萎縮した後輪状披裂筋の働きは他の内喉頭筋よりも強く障害される結果、より強く声門狭窄を起こし、睡眠中にのみこれらの症状が起こることになる。また症例2においても、声帯痙は睡眠深度が増すほどよく発生しており、これはBannisterの報告を裏付ける結果であると考ええる。しかし、後輪状披裂筋萎縮の原因は不明である。

これまで、MSAの責任病巣として多数の中樞性病変が指摘され、臨床病理学的に説明されてきている。多呼吸や声帯麻痺の原因と思われる疑核にも、オリブ核や黒質、迷走神経背側核に見られるのと同様な変性があったとしても不思議ではないように思われる。

今後MSA患者では積極的に喉頭を観察し、声帯の状態を検討するとともに、夜間の呼吸状態にも十分気をつける必要があると考える。

結 語

1) MSA 2例 (SDS 1例, OPCA 1例) に認められた、声帯に起因する鼾を報告した。

2) 薬物睡眠検査及び音響学的分析の結果、この鼾は声帯の外転障害に起因することがわかった。

3) 自然睡眠検査の結果、SDSでは睡眠中の著明な多呼吸、OPCAでも若干の多呼吸を認めた。Sleep Apnea はなかった。Snoring Index は、呼吸数と比例関係にあった。

4) 両睡眠検査の結果、声帯の外転障害は、後輪状披裂筋の萎縮の可能性を示唆する。

尚、本論文の要旨の一部は、第47回耳鼻咽喉科臨床会総会において講演した。

文 献

- 1) 高橋宏明：鼾の診断と治療。医療 23: 11, 1969.
- 2) 寺井 修：鼾の音響学的研究。耳鼻臨床 68: 373~379, 1985.
- 3) 古池保雄，他：Shy-Drager 症候群。日本臨床 40: 臨増; 768~769, 1982.
- 4) 西川清方，他：Shy-Drager 症候群。医薬ジャーナル 22: 5; 953~956, 1986.
- 5) 古池保雄，他：Shy-Drager 症候群と筋萎縮性側索硬化症における睡眠時呼吸異常について。臨床神経学 20: 7; 522~531, 1980.
- 6) 神庭 誠，他：背髄小脳変性症の Sleep Apnea の検討およびTRHの効果。臨床脳波 28: 10; 675~682, 1986.
- 7) Arnold and Luchsinger: Speech and language, special part. Voice-Speech-Language: 568~570, 1966.
- 8) Williams A, et al: Vocal cord paresis in the Shy-Drager Syndrome. J Neurol Neurosurg Psychiat 42: 151, 1979.
- 9) Bannister R, et al: Laryngeal abductor paralysis in multiple system atrophy. Brain 104: 351, 1981.
- 10) Guindi GM, et al: Laryngeal electromyography in multiple system atrophy with automatic failure. J Neurol Neurosurg Psychiat 44: 49, 1981.
- 11) 久布白幹男：両側声帯麻痺に基づく呼吸不全を来した Shy-Drager 症候群の1例。日内会誌 75: 660~665, 1986.
- 12) 欠吹聖三，他：睡眠中の周期性無呼吸と強いイビキを呈した Shy-Drager の症候群の1例。神経内科 12: 597~599, 1980.
- 13) Israel RH, et al: Upper airway obstruction in the Shy-Drager syndrome. Ann Neurol 2: 83, 1977.
- 14) Hanson D, et al: Vocal cord paresis in Shy-Drager Syndrome. Ann Otol Rhinol Laryngol 92: 85, 1983.

- 15) Gilmartin JJ, et al: Upper airway obstruction complicating the Shy-Drager syndrome. *Thorax* 39: 313, 1984.
- 16) Roessmann V, et al: Idiopathic orthostatic hypotension. *Arch Neurol* 24: 503, 1971.
- 17) Lapresle J, et al: Olivopontocerebellar atrophy with velopharyngolaryngeal paralysis: A contribution to the somatotopy of the nucleus ambiguus. *J Neuropathol Exp Neurol* 38: 401, 1979.
- 18) Shy GM, et al: A neurological syndrome associated with orthostatic hypotension. *Arch Neurol* 2: 511~527, 1960.
- 19) 朝長正徳: Shy-Drager syndrome の病理—自律神経系—。脳神経 37: 687~689, 1985.
- 20) 広瀬 肇: 発声の制御—ヒトを中心に—。日気食会報 34: 116~121, 1983.
- 21) 森川郁朗, 他: 両側反回神経麻痺をともなった Shy-Drager 症候群の 1 症例。第48回耳鼻咽喉科臨床学会予稿集: 100, 1986.

(原稿採択: 昭和62年9月30日
別刷請求先: 垣鏑典也
〒569 大阪府高槻市大学町2-7
大阪医科大学耳鼻咽喉科学教室)