小児閉塞型睡眠時無呼吸症候群難治例の検討

新谷 朋子・朝倉 光司
中野 勇治・形浦 昭克

Unusual OSAS Cases in Children

Tomoko Shintani, Kohji Asakura, Yuji Nakano and Akikatsu Kataura
(Sapporo Medical University)

Adenoid and tonsillar hypertrophy is the most important cause of obstructive sleep apnea syndrome (OSAS) in children. A majority of these patients are successfully treated with adenotonsillectomy. However, it is difficult to treat those who have no adenotonsillar hypertrophy.

We studied 5 children with severe OSAS who showed no signs of adenotonsillar hypertrophy. All of them had other congenital malformations and associated systemic disorders. They were tested with inductive plethysmography and pulse oximetry. Apnea had been present since birth and had become worse recently. In relation to upper airway obstruction, micrognathia was noted in 4 patients, anterior dislocation of the atlas in 2 and cerebral palsy in 2. In children with cerebral palsy general muscular hypotonia plays a significant role in their obstruction.

Cephalometric analysis showed no signs of adenotonsillar hypertrophy. Poor prognathism of the maxilla and mandible and low positioned hyoid bones were thought to contribute to upper airway obstruction.

We performed tracheostomy in 2 patients. Uvulopalatopharyngoplasty (UPPP) was effective in the 1 patient. A nasopharyngeal tube was useful for treatment and for locating the site of the obstruction. If no adenotonsillar hypertrophy was apparent, UPPP with or without adenotonsillectomy improved OSAS in selected children. Because UPPP can enlarge the diameter of the nasopharyngeal airspace.

Key words: obstructive sleep apnea, UPPP, cerebral palsy, cephalometric analysis

はじめに

睡眠時無呼吸症候群は1973年 Guilleminaultら¹⁾により提起された疾患で一般的には大きく中枢型、閉塞型および混合型の3型に分類される²⁾³⁾。その中でも閉塞型睡眠時無呼吸症候群 (obstructive sleep apnea syndrome ; OSAS) は肥満、上気道狭窄が原因のことが多く、手術も

含めた耳鼻科的アプローチにより改善が認められる。成人の OSAS に対する手術療法としては狭窄部位に応じて鼻・副鼻腔手術、口蓋垂軟口蓋咽頭形成術 (Uvulopalatopharyngoplasty ; UPPP)⁴⁾、レーザーによる舌根部正中部分切除術 (Midline Laser Glossectomy ; MLG)⁵⁾、舌形成術 (lingual plasty)⁶⁾ および下顎・舌骨の手

術⁷⁾などが行われ、保存的治療としては nasal CPAP⁸⁾、歯科のシーネ装着⁹⁾により改善がみられるとの報告がされている。一方、小児の OSAS は鼻・副鼻腔炎、小顎症、頸椎位置異常、巨舌症および肥満なども原因となり得るが、ほとんどがアデノイド肥大、扁桃肥大が原因であるため、アデノイド切除術、扁桃摘出術により改善することが多い¹⁰⁾¹¹⁾。また、小児は気道が狭いためアデノイド、扁桃の影響を受け易いが、加齢によりアデノイド、扁桃の肥大が消退し、咽頭腔自体も広くなるため、3～6 歳をピークとしてその後は自然に症状が改善することも多い。しかし、重症例では慢性呼吸障害による右心不全を起こしたり¹²⁾¹³⁾、成長期における鼻閉、上気道狭窄による歯列・顔面形態¹⁴⁾¹⁵⁾や胸郭の変形¹⁶⁾が引き起こされることがあるといわれている。古賀¹⁶⁾は成人と異なり成長期にある小児の OSAS はその問題がより深刻で、合併症も成人と異なると警告しており、適切な診断、治療が必要である、と述べている。また、アデノイド肥大、扁桃肥大を伴わずに顔面形態および軟口蓋形態異常、巨舌症、脳性麻痺などを合併する症例では治療に苦慮し、乳幼児期より重症な呼吸障害を呈することが経験される。今回、我々は 5 症例の何らかの合併症を持った小児 OSAS の難治例を経験したので、各々の閉塞部位および治療についてまとめ、難治例に対するアプローチについて検討を加えた。

症 例

対象は、1988 年から 1991 年の間にいびき、無呼吸などの呼吸障害を主訴に札幌医科大学耳鼻咽喉科を受診した小児のうち、アデノイド、扁桃肥大を伴わず、なんらかの合併症を有した男児 5 名である。初診時年齢は 6 カ月～6 歳 6 カ月(平均 3 歳 1 カ月)であった。sleep study は Nims 社の respigraph と Ohmeda 社のパルスオキシメーター; Biox 3700 を用いて行い¹⁸⁾、1 時間当りの無呼吸 (apnea) と低換気 (hypopnea) の合計の数である apnea-hypopnea index (AHI)、最低酸素飽和度 (Lowest SaO₂; L. SaO₂) で無

呼吸の程度を表した。また、顔面側面 x-p を用いて顔面計測 (cephalometric analysis) を行った¹⁹⁾。x-p の撮影条件は側面、自然位で焦点～フィルム間距離 150 cm、電圧 90 kvp で行った。対照群としては、当科でアデノイド、扁桃摘出術を行い、改善のみられた OSAS 症例 91 名(平均年齢 4.5±1.7 歳)とした。

以下に、各症例について経過、および治療を提示する。

症例 1.

4 歳の男児。生後より無呼吸がみられるため経鼻チューブを使用していたが、口蓋裂手術後、経鼻チューブを取ったところ無呼吸が悪化し、他院で 3 歳時に扁桃摘出術を受けている。しかし、呼吸状態は改善がなく、徐々にチアノーゼが出現してきたため当科を受診した。顔面側面写真(図 1-a)で小顎症が認められ、顔面側面 x-p (図 1-b)では、アデノイド、扁桃の肥大はなく、小顎症に伴う舌根部の狭窄と第一頸椎が正常に比べ前方に突出している所見が認められ、ここが閉塞部位と思われた。入院時に行った sleep study では AHI 16.5, L. SaO₂ は 65% で、胸部 x-p (図 1-c)では慢性呼吸不全に伴う右心不全の所見が認められたため入院の上、気管切開を行った。術後は、心陰影も改善し、現在はボタンカニューレを使用して経過は良好である。

症例 2.

6 カ月の男児で、生下時体重 2,360 g、出生後より喘鳴、無呼吸がみられるため、普段は経鼻チューブを使用し、さらに無呼吸になると母親が下顎を持ち上げなければならないため精査を求め、当科を受診した。合併症として両側橈骨欠損、両側第一指低形成があった。顔面側面写真、側面 x-p (図 2-a)では小顎症が認められたが著明なアデノイド、扁桃肥大は認められなかった。1 歳 6 カ月時の AHI は 16.4 であった。経鼻チューブを中咽頭まで挿入すると無呼吸は改善することより上咽頭が狭窄部位と考え、上咽頭造影を行ったところ図 2-b のように上

咽頭部の狭窄が確認されたが、ファイバースコープ、CT、全麻下での上咽頭精査では明らかな原因がみつからなかったため外来で経過観察していた。しかし、呼吸障害で夜間母親が下顎を持ち上げることが頻回になってきたため、3歳11カ月時再入院し、sleep studyを行ったところAHIは40.0、L. SaO₂は71%であった。アデノイド、扁桃の著明な肥大は認められな

ったが、咽頭が狭小なためアデノイド切除術と口蓋扁桃摘出術に加え、成人に行うUPPPを行ったところ、術後3カ月後のsleep studyではAHI 3.7、L. SaO₂ 79%と改善、夜間の無呼吸も著明に減少し、経過良好である(図2-c)。術後、鼻咽腔への逆流などの合併症は認められなかった。

(a)

(b)

(c)

図1 症例1

- (a) 顔面側面写真；小顎症が認められる。
 (b) 顔面側面 x-p；舌根部の狭窄が認められる。
 (c) 胸部正面 x-p；心陰影の拡大。

(a)

(b)

(c)

図2 症例2

- (a) 顔面側面 x-p；小顎症が認められる。
 (b) 上咽頭造影；➤ 狭窄部位
 (c) UPPP 術後の口腔内所見

症例 3.

6 歳の男児. Pierre Robin 症候群で 3 歳時の口蓋裂の手術後に無呼吸が出現している. この疾患は下顎発育不全のため, 舌筋肉の保持が妨げられ, 舌後退を来し, 舌根部が沈下することにより呼吸障害が起ると考えられる. x-p (図 3-a) では舌根部の狭窄が認められる. この疾患は乳歯の発育と共に下顎の発育も良くなり呼吸困難が改善してくるといわれており, この症例も検査時 (4 歳) に AHI は 10.1 であったが, 母親によると呼吸状態は徐々に改善しているとのことで, 外来にて経過観察となっている.

症例 4.

1 歳 10 カ月の男児で脳性麻痺, てんかんがあり, 出生直後から無呼吸発作を起こすため入院を繰り返していた. 他院より紹介で両内耳奇形, 高度難聴の精査のため, ABR の検査目的にリン酸トリクロロリルエチルナトリウム (トリクロロール®) を服用した際, 無呼吸発作, 意識障害が出現し即日入院となった. その原因として数日前より感冒にかかっていたところにトリクロロール® を内服したためと思われた. 入院後, 酸素テント, 抗生剤等の輸液療法を行い呼吸状態の改善がみられた. 入院後の sleep study で

は AHI 0.6, L. SaO₂ 68% であった. 顔面側面 x-p, CT, MRI にて環軸椎亜脱臼, 第 2, 3 頸椎の低形成があり, それによる舌根部の狭窄が考えられた. 脊髄を圧迫している所見もあるが, 脳外科ではリスクが高いため, 手術せず, 呼吸状態の改善のため気管切開を勧めているが, 両親が希望せず経過をみている状態である. 現在まで年に何度かは感冒をきっかけとして無呼吸発作を起こし, 入院治療を受けているとのことである.

症例 5.

1 歳 10 カ月の男児で脳性麻痺とてんかんを合併している. 出生後より無呼吸があり, 入院時の sleep study では AHI は 8.1, L. SaO₂ は 60% であった. 側面 x-p (図 3-b) でアデノイド肥大はなく頭蓋骨の形態異常による舌根部狭窄が認められた. アデノイド切除術や経鼻チューブの挿入も試みたが効果がないため, 気管切開を行い, 現在カニューレ装着中である.

次に難治例 5 例の顔面側面 x-p を用いてこれらの症例のアデノイド, 扁桃の大きさ, 上顎, 下顎の突出度を図 4, 5 のような方法でアデノイド肥大度, 扁桃肥大度, 気道の狭窄の程度について顔面計測を行った¹⁹⁾. この結果を,

図 3 (a) 症例 3. 顔面側面 x-p; Pierre Robin 症候群
(b) 症例 5. 顔面側面 x-p; 頭蓋骨形態異常

当科でアデノイド、扁桃摘出術を行って改善した通常の OSAS 症例91名の計測値の平均と比較を行った。その結果、表1に示すように症例1～5はいずれもアデノイド、扁桃の著明な肥大はなく、症例1～3の脳性麻痺を合併しない3症例では上顎、下顎の突出が悪く、全例舌骨の位置が低かった。それに対し、症例4、5の脳性麻痺症例では上顎、下顎の突出度、舌骨の位置においては明らかな異常は認められなかった。

表2は以上の5症例について、AHI, L. SaO₂, 狭窄部位、合併症をまとめたものである

が、症例1～3は小顎症など舌根部の解剖学的異常が認められ、症例4、5は解剖学的異常に加えて脳性麻痺が合併していた。

考 察

一般に小児の OSAS はアデノイド、扁桃肥大が原因のことが多いが、今回著明なアデノイド、扁桃肥大がなく、なんらかの合併症を持った OSAS の5症例を経験した。5症例のうち、症例1～3は小顎症、頸椎形態異常による舌根部狭窄が原因であり、そのうち1例では気管切開が必要であった。いずれの症例もアデノイド、扁桃の肥大は認められなかったが、症例2では

図4 アデノイド、扁桃の顔面計測

- PTV; 鼻咽頭溝上縁 (pterygoid vertical)
 AA ; 第1頸椎上縁 (anterior of atlas)
 N ; 鼻咽頭腔の前後径の深さ (nasopharyngeal measurement)
 A ; アデノイドの厚み (adenoidal measurement)
 PNS; 後鼻棘 (postnasal spine)
 BA ; 基底点 (basion)
 T ; 扁桃の厚み (tonsil measurement)
 P ; 咽頭の前後径の深さ (pharyngeal measurement)

図5 上顎、下顎の突出度、舌骨の位置の計測

- S ; トルコ鞍の中心 (sella)
 N ; 鼻根点 (nasion)
 A ; 上顎骨最深点 (subspinale)
 B ; 下顎骨最深点 (supraspinale)
 Go ; 顎角点 (gonion)
 Gn ; 下顎点 (gnathion)
 H ; 舌骨 (hyoid bone)
 MP ; 下顎面 (mandibular plane)

アデノイド、扁桃摘出術に加えて成人の OSAS に多く行われている UPPP を施行し良好な結果が得られた。他施設ではダウン症の症例や、脳性麻痺児に UPPP を行い、従来気管切開を行っていた症例も UPPP のみで治療できたとの報告²⁰⁾²¹⁾もある。これは UPPP により相対的に気道が広がり、呼吸状態が改善したもので、症例を選べば難治例には試みられるべきと思われる。しかし、成人の UPPP でも合併症として鼻咽腔逆流、構音異常²²⁾²³⁾などが報告され

ており、とりわけ発語に影響を及ぼす時期の手術は慎重に行う必要もあると考えられた。

症例 3 は Pierre Robin 症候群であるが、この疾患は Robin anomalad ともいわれ、舌後退、小顎症を伴う症候群で、口蓋裂を伴うことが多い²⁴⁾²⁵⁾。特に乳児期に、呼吸困難が著明だが、原因として下顎発育不全のため、舌筋肉の保持が妨げられ、舌後退を来し、舌根部が沈下するためと考えられる。1 歳未満は哺乳困難、呼吸障害が強くみられ、経鼻挿管や舌前方固定術が

表 1 難治症例の cephalometric analysis

	AA (mm)	AN ratio	PNS-A (mm)	TP ratio	SNA (度)	SNB (度)	GoGnH (度)	MP-H (mm)
1.	2	0.48	14	nd	67	64	49	21
2.	11	0.75	1	0.30	60	61	15	28
3.	8	0.44	20	nd	69	60	98	26
4.	5	0.47	35	0.16	77	73	nd	nd
5.	2	0.52	14	0.22	85	75	36	22
他の OSAS 症例平均値	13.3	0.70	10.9	0.825	78.6	76.1	23.2	12.8

nd ; not determined

表 2 難治症例のまとめ

症例	年齢, 性	発症年齢	AHI	L.SaO2(%)	狭窄の部位 (原因)	合併症	治療	転帰
1.	8 男	生下時	16.5	65	舌根部 (小顎症, 頸椎位置異常)	口蓋裂, 幽門狭窄, 肺高血圧症	経鼻チューブ, 扁桃摘 → 気管切開術	良好
2.	7 男	生下時	47.6	71	上咽頭 (アデノイド), 舌根部 (小顎症)	両側橈骨欠損, 両側第一指低形成	経鼻チューブ → アデノイド切除術, 扁桃摘, UPPP	良好
3.	7 男	4 歳	10.1	76	舌根部 (小顎症)	Pierre Robin 症候群, 口蓋裂	経過観察	不明
4.	5 男	生下時	10.6	68	舌根部 (環軸椎亜脱臼)	脳性麻痺, てんかん, ASD, 両内耳奇形	経過観察	不良
5.	4 男	生下時	8.5	60	上咽頭 (アデノイド), 舌根部 (小顎症)	脳性麻痺, てんかん	アデノイド切除術 → 気管切開術	良好

必要な症例があるが、乳歯の発育と共に下顎の発育も良くなり呼吸困難が改善してくるといわれている²⁶⁾。我々の症例は3歳時の口蓋裂手術後よりいびき、無呼吸が悪化し、来科した患者であるが、検査時(6歳)には少々改善しているとのことで、経過観察となっている。症例1も同様に口蓋裂の手術後にいびき、無呼吸が悪化している症例である。これは口蓋裂のため鼻腔と口腔の交通が保たれていたものが、手術後上咽頭が狭くなったことにより無呼吸が悪化したものと考えられ、小顎症などを伴う場合の口蓋裂児の手術の際には術後の気道も考慮すべきと思われた。

上気道の解剖学的評価に、cephalometric analysisを行うことにより、気道の狭小部、閉塞部を特定することが可能であるが²⁷⁾、以上の症例1～3においてcephalometric analysisの結果をアデノイド切除術、扁桃摘出術で改善した小児 OSAS 症例の値と比べると、アデノイド、扁桃の肥大はみられないが、それぞれ上顎、下顎の突出度を表す SNA, SNB は小さく、舌骨が著しく低く位置しており、舌根部の狭窄のため、治療が困難であるものと思われた。成人の OSAS 症例における cephalometric analysis の検討でも同様に重症 OSAS ほど SNA, SNB は小さく、舌骨の位置が低いとの報告があり²⁸⁾²⁹⁾、成人と同様に cephalometric analysis による狭窄部位の診断は簡便で有用であった。

症例4,5は脳性麻痺の症例で2症例とも cephalometric analysis ではアデノイド、扁桃肥大は認められず、SNA, SNB も小さくはなかったが、舌骨がやや低い傾向はみられた。また、症例4は Klippel-Feil 症候群による舌根部の狭窄があり、2症例とも気管切開の適応であった。つまり、形態的な上気道狭窄に加え、原疾患の脳性麻痺による筋トーンの異常も病態に大きく関与していると考えられた。

重症の脳性麻痺児において呼吸問題は重要で、重症の脳性麻痺児も含む重複障害児の生命予後を左右する関門は思春期までの呼吸器感染症で

あるといわれているが、陥没呼吸、喘鳴、酸素飽和度低下を生じさらに睡眠時や覚醒時の呼吸障害を呈することもあり、突然死との関連についても報告されている^{30)~32)}。その要因として脳性麻痺児は筋緊張バランスが悪いので軟口蓋を含めた筋トーンの低下が認められ、舌根低下、下顎後退が認められること、喉頭の脆弱性または過緊張が起こりやすいといった機能的狭窄に加えて、小児に特徴的なアデノイド、扁桃肥大という構造的狭窄が存在すると容易に閉塞型の呼吸障害が起こることが考えられる。さらに、呼吸器の不調な弱さ、胸部、腹部の時間的不協応からくる安静呼吸リズムの変異性と周期の乱れ、胸郭と胸部の運動が逆に働くといった奇異呼吸がみられること、乳児呼吸パターンが残存するため肺活量が少なく、浅く早い呼吸パターンとなる。又、胸郭の変形、胸壁の陥凹が横隔膜の正常な機能を阻害し、異常呼吸パターンとなる、など複合的な要因により呼吸障害が起こり得るといえる^{33)~35)}。つまり、必ずしも脳性麻痺症例が上気道狭窄を起こすわけではなく脳性麻痺の程度にもよるが、脳性麻痺の筋トーンの異常に、アデノイド、扁桃の肥大や舌根狭窄などの器質的な狭窄が加わり無呼吸が悪化するものと考えられる。そのため、cephalometric analysis や経鼻チューブ挿入、ファイバースコープなどの方法で閉塞部位を確定し治療することが必要と思われた。無呼吸の分類については脳性麻痺の中でも橋、延髄に重い病変を持ち呼吸中枢の反応低下があると中枢性の無呼吸となり、中には人工呼吸器下の管理が必要な症例があるが、多くの脳性麻痺の OSAS 症例はポリグラフでは閉塞性のパターンを示すことが多いと報告されており³⁰⁾³²⁾、我々の2症例も閉塞性の呼吸障害であった。

治療は、日常では側臥位にするなどの体位を工夫したり、アデノイドや扁桃の肥大が認められれば手術によって気道は多少とも広くなるのでアデノイド切除術、扁桃摘出術を行い、小児でも UPPP が効果的と思われる。下村ら³⁰⁾は

酸素投与により呼吸状態が改善し, 感染症の頻度の減少, 運動機能の改善がみられたと報告しているが, 慢性的に高炭酸ガス血症のある症例では CO_2 ドライブがなくなることも警告している. また, 経鼻チューブは治療とともに閉塞部位を診断する上でも有用³⁶⁾³⁷⁾であった. しかし経鼻チューブは下咽頭までの狭窄には有用であるが喉頭脆弱などの喉頭部の狭窄には無効で, このような症例は最終的に気管切開の適応と思われる.

ま と め

著明なアデノイド肥大, 扁桃肥大を伴わない閉塞性睡眠時無呼吸症候群の小児 5 症例に対して, 臨床的検討を行った. いずれも生下時より夜間の呼吸障害があり, 何らかの奇形を合併していた. 脳性麻痺のない 3 例はいずれも上顎および下顎の突出度を示す SNA, SNB の異常値を示していた. これらのうち 1 例は気管切開術を行い, 他の 1 例は UPPP を行い経過良好である. 脳性麻痺の合併した 2 例は, SNA および SNB に異常はなく, 形態的な上気道狭窄に加えて脳性麻痺による筋トーンの異常も病態に関与していると思われる. 脳性麻痺合併例のうち 1 例は気管切開術を行い経過良好である.

本論文の一部は第 27 回小児耳鼻咽喉科研究会にて報告した.

参考文献

- Guillminault C, Eldridge FL and Dement WC : Insomnia with sleep apnea ; a new syndrome. *Science* **181** : 865~858, 1978.
- 高崎雄司, 太田保世 : 睡眠時無呼吸症候群の病態. *耳喉頭頸* **61** : 673~679, 1989.
- 形浦昭克, 朝倉光司 : 睡眠時無呼吸症候群 — 診断と治療 —. *口腔科* **1** : 103~109, 1989.
- Fujita S, Conway W and Zorick F : Evaluation of the effectiveness of uvulopalatopharyngoplasty. *Laryngoscope* **95** : 70~74, 1985.
- Fujita S, Woodson BT, Clark J, et al : Laser midline glossectomy as a treatment for obstructive sleep apnea. *Laryngoscope* **101** : 805~809, 1991.
- Woodson BT and Fujita S : Clinical experience with lingualplasty of the treatment of severe sleep apnea. *Otolaryngol Head Neck Surg* **107** : 40~48, 1992.
- Riley RW, Powell NB and Guilleminault C : Inferior mandibular osteotomy and hyoid myotomy suspension for obstructive sleep apnea. *J Oral Maxillofac Surg* **47** : 159~164, 1989.
- 吉沢孝之, 倉科桂司, 佐々木巖, 他 : 閉塞性睡眠時無呼吸症候群に対する nasal CPAP の効果の検討. *日気食会報* **40** : 416~421, 1989.
- 中川健三, 市岡正彦, 千田 守 : いびきの治療 — 睡眠時無呼吸障害に対するスリープスプリントの効果 —. *歯科展望* **73** : 1535~1550, 1989.
- Eliaschar I, Lavie P, Halperin E, et al : Sleep apneic episodes as indications for adenotonsillectomy. *Arch Otolaryngol* **106** : 492~497, 1980.
- Lind MG and Lundbell BP : Tonsillar hyperplasia in children. *Arch Otolaryngol* **108** : 650~654, 1982.
- Talbot AR, Robertson LW and Richmond V : Cardiac failure with tonsil and adenoid hypertrophy. *Arch Otolaryngology* **98** : 277~281, 1973.
- 立本圭吾, 久 育男, 出島健司 : 中枢性および末梢性睡眠時呼吸障害. *小児耳* **13** : 41~45, 1992.
- Vargervik K, Miller AJ, Chieria G, et al : Morphologic response to change in neuromuscular patterns experimentally induced by altered modes of respiration. *Am J Orthod* **85** : 115~124, 1984.
- Linder-Aronson S : Effects of adenoidectomy on denition and nasopharynx. *Am J Orthod* **65** : 1~15, 1974.
- 古賀慶次郎 : 小児の睡眠時無呼吸症候群. *耳喉頭頸* **61** : 695~701, 1989.
- 武市佳代子, 石田達也, 宇高二良 : 睡眠時呼吸障害児における問題点 — 胸郭変形を中心として —. *日気食会報* **40** : 422~430, 1989.
- 朝倉光司, 形浦昭克 : 小児における睡眠時無呼

- 吸モニター, 臨床モニター, 2. 487~497頁, 1991.
- 19) Shintani T, Asakura K and Kataura A : Obstructive sleep apnea syndrome, Tonsils. A Clinically Oriented Update (ed by Galioto GB). Advanced in Oto-Rhinol-Laryngology 47. pp 267~270, Kager, Basei, 1992.
- 20) Strome M and Boston MA : Obstructive sleep apnea in down syndrome children ; a surgical approach. Laryngoscope **96** : 1340~1342, 1986.
- 21) Seid AB, Martin PJ, Pransky SM, et al : Surgical therapy of obstructive sleep apnea in children with sever mental insufficiency. Laryngoscope **100** : 507~510, 1990.
- 22) Coleman RF and Sly DE : Preoperative and postoperative voice analysis of uvulopalatopharyngoplasty patients. Arch Otolaryngol Head Neck Surg **117** : 1345~1349, 1991.
- 23) Zohar Y, Finkelstein Y, Talmi YP, et al : Uvulopalatopharyngoplasty ; evaluation of postoperatively complications, sequelae, and results. Laryngoscope **101** : 775~779, 1991.
- 24) Robin sequence. Syndrome of the Head and Neck (ed by Garlin RJ). pp 700~704, Oxford University Press, New York, 1990.
- 25) 黄金井康巳, 塩谷信幸 : Pierre Robin 症候群. 小児科 Mook No. 37. 顔貌からみた小児疾患 (松井一郎編). 250~258頁, 金原出版. 東京 1985.
- 26) 長田光博 : Pierre Robin 症候群の呼吸障害. 小児外科 **22** : 53~59, 1990.
- 27) 新谷朋子, 朝倉光司, 中野勇治 : 小児睡眠時無呼吸症候群における顔面計測. 耳鼻臨床 **83** : 1435~1440, 1990.
- 28) 朝倉光司, 中野勇治, 新谷朋子 : 閉塞型睡眠時無呼吸症候群患者における頭部X線写真上の顔面頭蓋骨計測値の検討. 耳喉 **62** : 997~1001, 1990.
- 29) Riley R, Guileminault C, Powell N, et al : Palatopharyngoplasty failure ; cephalometri-
- croentogenograms and obstructive sleep apnea. Otolaryngol Head Neck Surg **93** : 240~243, 1985.
- 30) 下村千枝子, 舟橋満寿子, 長 博行 : 重度重複障害児の呼吸不全に対する評価と対策 —睡眠時呼吸障害のポリグラフ的分析と酸素療法の有効性について—. 脳と発達 **22** : 38~44, 1990.
- 31) 河野親彦 : 重症心身障害児における睡眠時無呼吸に関する研究. 脳と発達 **20** : 217~225, 1988.
- 32) 稲垣真澄, 吉野邦夫, 高嶋幸男 : ねたきり重症心身障害児・者における睡眠時無呼吸の血液ガス分析と経皮酸素分圧変化. 脳と発達 **20** : 288~293, 1988.
- 33) 北住映次, 米山 明, 児玉真理子 : 神経(筋)疾患児(主に重症心身障害児)における閉塞型睡眠時無呼吸発作を含む上気道閉塞性換気障害の診断と治療法の検討 —その1 気道透視による診断と病態の検討—. 小児耳 **10** : 40~42, 1989.
- 34) 児玉和夫 : 脳性小児麻痺. 新小児医学大系. 13 巻D. 小児神経学Ⅳ (小林 登編). 94~95頁, 中山書店, 東京, 1983.
- 35) 倉田清子 : 脳性麻痺の気道狭窄 —特に重症心身障害児の呼吸管理—. JOHNS **8** : 623~628, 1992.
- 36) 米山 明, 北住映次, 児玉真理子 : 神経(筋)疾患児(主に重症心身障害児)における閉塞型睡眠時無呼吸発作を含む上気道閉塞性換気障害の診断と治療法の検討 —その2 Nasal airway による上気道閉塞性換気障害治療の有効性について—. 小児耳 **10** : 43~46, 1989.
- 37) 長 博行, 鈴木康之, 舟橋満寿子 : 重度重複障害児の呼吸不全に対する評価と対策 —酸素飽和度モニターと鼻咽頭チューブの有効性について—. 脳と発達 **20** : 301~307, 1988.

(原稿受付 : 平成5年6月22日
原稿採択 : 平成5年10月19日
別刷請求先 : 新谷朋子
〒060 札幌市中央区南1条西16丁目
札幌医科大学耳鼻咽喉科学教室)