原 著

小舌症と小下顎症を伴う1症例の構音の検討

——下顎歯列弓拡大後の変化について——

和田満美子 阿部 雅子 松崎 雅子
 森 良之 須佐美隆史 高戸 毅

要 約：小舌症と小下顎症を伴う症例（23歳，女性）に対して，術前および術後の歯科矯正治療と下顎歯列弓狭窄に対する拡大手術による外科的矯正治療を行い，治療過程の構音の変化と咀嚼機能について検討した。

1. 構音検査では，治療前と同様に/t, d, n, r/は舌と口蓋後方で作られる口蓋化構音に近い歪み音，/s, dz, ts/は上顎前歯と下口唇で音が作られる/f, v, pf/に近い歪み音であった。構音動態としては，治療前と比べ構音位置や構音方法に明らかな差は見られなかった。

2. 語音発語明瞭度は，術後6ヵ月で低下したものの，術後1年3ヵ月で治療前とほぼ同程度にまで改善していた。治療過程で口唇音や母音の異聴が一時的に増加したが改善し，異聴傾向としては治療前とほぼ同様であった。

3. 文章了解度は，術後6ヵ月で低下したものの，術後9ヵ月で治療前とほぼ同程度にまで改善していた。

4. 咀嚼機能にも改善が見られた。

索引用語：小舌症，構音障害，外科的矯正治療，語音発語明瞭度，文章了解度

Articulation in a Case with Microglossia and Micrognathia

——After Expansion of the Mandibular Dental Arch——

Mamiko Wada, Masako Abe, Masako Matsuzaki, Yoshiyuki Mori,
 Takafumi Susami and Tsuyoshi Takato

Abstract: A 23-year-old female patient with microglossia and micrognathia was reported with respect to articulation. The case was treated by gradual expansion of the mandibular dental arch followed by double-jaw orthognathic surgery.

1. As before treatment, /t, d, n, r/, sounds were distorted and almost like palatalized articulation; they were made with the tongue and the posterior part of the palate. Her /s, dz, ts/, sounds were distorted and almost like /f, v, pf/, in this instance made with the upper teeth and the lower lip. Both before and after treatment, no changes were seen in articulation place or manner.

2. Single-mora intelligibility had declined at 6 months after surgery. However, at 9

months after surgery it was improved to a level as good as that before the total treatment.

3. Sentence intelligibility had declined at 6 months after surgery. However, at 1 year and 3 months after surgery it was improved to a level as good as that before the total treatment. The tendency of mishearing was also the same as before the total treatment.

4. Masticatory function had also improved.

In this treatment, improvement was achieved in both occlusion and mastication without any damage in articulatory function.

Key words: microglossia, articulation disorders, orthognathic surgery, single-mora intelligibility test, sentence intelligibility test

はじめに

小舌症、無舌症はきわめてまれな先天異常とされており、その言語に関する詳しい報告は少ない¹⁻⁸⁾。2001年に阿部ら⁹⁾が、小舌症と小下顎症を伴う1症例の幼児期と成人期の構音について報告した。今回、この症例に対して、術前および術後の歯科矯正治療と下顎歯列弓狭窄に対する拡大手術による外科的矯正治療を施行し、治療過程の構音の変化と咀嚼機能について検討したので報告する。

症 例

1. 生育歴・既往歴

妊娠初期に母がインフルエンザに罹患したが、服用した薬については詳細不明である。

正常出産であり、生下時体重 3200 g であった。小舌症と小下顎症が認められたが、その他の異常は認められず、家族歴にも特記すべきことはなかった。

生後3ヵ月から3歳0ヵ月まで胃瘻からの栄養摂取であったが、その後は経口摂取が可能となった。成長発達、既往歴等の特記すべきことは認められなかった。

2. 治療前までの経過

1歳8ヵ月に言語指導目的に 大学医学部附属病院耳鼻咽喉科言語外来に紹介され、5歳8ヵ月まで経過観察指導を行った。小学校就学時、言語発達に問題なく、構音も構音器官を最大限使用している状態で、日常会話に支障ないため経過観察を終了とした。

23歳6ヵ月時に、歯科矯正治療を希望して同病院顎口腔外科・歯科矯正歯科を受診した。しかし、「発音が悪くなるのであれば、治療したくない」とのことであったため、言語症状について精査した。

3. 治療前の状態

治療前の状態は以下のように報告されている⁹⁾。歯列・咬合の状態は、前歯部が過蓋咬合で、下顎歯列弓

は著しく狭窄しており、下顎右側臼歯部が舌側に偏位し、上下が咬み合っていなかった。また現症として、著しい scissors bite (鋏み状咬合) のために右側下顎臼歯部の歯肉炎が頻発していた。舌の動きは良好であったが、舌が小さいため可動域は狭く、左右運動では両側ともに口角に近い下口唇に接する程度、前方挺出では下口唇を前歯に被せるようにした上に出せる程度であった。舌が小さいため開口状態では舌先を挙上させても口蓋に接することはできないが、下顎の動きによって口腔を狭くして口蓋に接することはできた。

会話での明瞭度は比較的良好であり、本人は日常生活での支障を感じない状態であった。ただし、構音としては /t, d, n, r/ が口蓋化構音に近い歪み音に、/s, dz, ts/ が /f, v, pf/ に近い歪み音になっており、これらの構音にかかわる部位は舌と口蓋後方および下口唇と上顎前歯部であった。よって、今回の治療で咬合状態の改善のため下顎歯列弓の拡大を行っても、構音に大きな変化は生じないことが予測された。

4. 外科的矯正治療

24歳4ヵ月より術前矯正治療を開始し、手術は下顎歯列弓拡大術と上下顎骨切り術を併用した2段階の術式で行った。まず、27歳2ヵ月に下顎歯列弓の拡大を目的として、右下顎骨歯槽部骨切り術および拡大装置装着術を施行した。歯槽部の骨切りは下顎管の上方で右側犬歯近心から右側第二大臼歯遠心部の範囲で行った(図1)。初回手術の術後5日目から21日の間拡大を行った後、初回手術の術後37日目(27歳4ヵ月)に延長器除去術を行うと同時に、咬合平面の傾きを改善する目的で、上顎 Le Fort I 型骨切り術および下顎枝垂直骨切り術を施行した。2回目の手術の術後1週間(以下、術後の経過日数は2回目の手術からの経過日数)の顎間固定を行った後、顎間ゴムの使用を中心に術後矯正治療を行った。術後1年6ヵ月(28歳10ヵ月)で術後の動的矯正治療が終了し、現在は保定観察中であ

る (図 2)。

治療過程での検査

1. 構音器官

治療後の構音器官の形態と機能の変化、および、舌の動きと舌との位置関係の変化について観察した。

図1 拡大手術のシェーマ

2. 言語症状

1) 構音検査

構音検査は、治療前と同様に音声言語医学会機能性構音障害検査法小委員会により作成された構音検査法¹⁰⁾を用いた。検査は、術後6ヵ月・9ヵ月・1年3ヵ月の時期に、治療前の検査を行った言語聴覚士が行った。

2) 語音発語明瞭度と異聴傾向

語音発語明瞭度および異聴傾向については、治療前と同様に日本語100音節を無作為に配列した100語表を使用した。なるべく自然な調子で1音節ずつ音読した音声を、口唇より約15cmの距離のマイク (ECM-360, SONY) でレコーダー (PMD670, marantz) に録音した。録音は、術後6ヵ月、9ヵ月、1年3ヵ月の時期に行った。それを静かな部屋で聴きやすい音量で再生して、1音節ずつ仮名表記してもらった。聴取者は聴力に異常がないと思われる成人で、治療前は22名、術後6ヵ月は21名、術後9ヵ月は20名、術後1年3ヵ月は20名である。音が歪んで聴こえる場合には、最も近いと思われる日本語音節の仮名表記を求めた。これらの結果について、聴取者に正しく聴取された音節数の平均を算出した。さらに、異聴された音節について、その誤りの傾向を観察した。

3) 文章理解度

意味のある文章の内容がどの程度通じるかを検討するために、文章の音読を100語表と同様の条件で同時

図2 治療前後の口腔内所見

期に録音した。使用した文章は治療前と同じで、東京大学医学部附属病院耳鼻咽喉科および顎口腔外科・歯科矯正歯科の言語外来で使用している構音検査用文章(図3)である。聴取者には、100音節の聴取に続いて、聴き取ったとおりの内容を書き取ってもらった。なお、

パパもママもみんなで豆撒きをした
この畳の部屋は弟と友達とで建てたものです
るりもはりも照らせば光る
霧が晴れば空からおりられる
ささやくような浅瀬のせせらぎにさそわれる
体がだるくてだるくてしかたがない
高い高い所へ登って行くところだ
あちからもこちらからもどちらからも行くことができる
青い家を買う

図3 構音検査用文章

検査用の文章を事前に知っていた聴取者については対象から除外した。

3. 咀嚼機能

構音以外の機能的変化の一つとして、咀嚼機能についても検討した。従来の報告¹¹⁻¹³⁾を参考にして選んだ食品50品目(表1)についての質問票を作成した。それぞれの品目に対して、6つの選択肢から一番近い選択肢を本人が選ぶことにした。選択肢は「①両側で簡単に食べられる、②両側で何とか食べられる、③片側でなら簡単に食べられる、④片側でなら何とか食べられる、⑤食べられない、⑥食べない」とした。

結 果

1. 構音器官の変化

治療後は、右側の第一大臼歯部で10.0mmの頬側へ

表1 質問票の50品目

あられ	かまぼこ	ステーキ	なすの浅漬け	プリン
いかのさしみ	きゃべつ(生)	スパゲッティ	生あわび	ポッキー
いちご	きゅうり(生)	するめいか	なまこ	ポテトチップス
うどん	くらげの酢の物	せんべい	鶏の唐揚げ	まぐろのさしみ
うなぎの蒲焼	ごはん	雑煮餅	にんじん(生)	焼き肉
枝豆(ゆで)	ごぼう(煮)	たくあん	ハム	焼き餅
海老のてんぷら	こんにゃく	豆腐	ピーナッツ	らっきょう
おかき	しいたけ(煮)	鶏肉の煮物	ひじき	りんご
おこし	食パンの耳	豚カツ	ビスケット	レタス(生)
貝柱の干物	酢だこ	梨	フランスパン	チューインガム

舌を
右口角へ

舌を
左口角へ

治療前の言語評価時
23歳9ヵ月

治療後(保定観察期間中)
術後2年2ヵ月
(29歳1ヵ月)

図4 治療前後の舌の左右運動

表4 100音節の異聴傾向（術後1年3ヵ月）

	脱落	k	g	h	t	d	n	s	dz	r	p	b	m	Φ	その他
k		80			14						5				1
g		1	90						1			7			1
h				65	1							1	1	9	3
t		8			71						20			1	
d			9		1	10				17	1	22			
n			2				48		1	1			46		2
s				13				80						5	2
dz	1					2		5	73	5		14			
r	2		9				18			35		15	19		2
p	2	4		2	7						80			2	3
b	5										3	92			
m	4						8						80		8
Φ														20	

表5 文章理解度検査において異聴された単語

音読語	誤った人数	異聴された単語（人数）
治療前		
るり	10	くぎ（4）、うり（3）、ぐり（1）、ぶり（1）ゆり（1）
たてた	4	かけた（4）
はり	2	はぎ（1）、はる（1）
きり	2	きみ（1）、無答（1）
あさせの	1	ささの（1）
術後6ヵ月		
たたみ	14	さかな（8）、たかな（4）、たかだい（1）、無答（1）
はり	5	はる（2）、無答（3）
るり	4	みぎ（1）、るびー（1）、無答（2）
いえ	4	いね（3）、いぬ（1）
へや	3	へら（1）、ほね（1）、無答（1）
ともだち	2	みんな（1）、ぱぼとふたりで（1）
たてた	2	たべた（2）
てらせば	1	みがけば（1）
あさせ	1	あさひ（1）
そらから	1	ほだかが（1）
かう	1	かう（1）
ような	1	無答（1）
せせらぎ	1	無答（1）
術後9ヵ月		
るり	14	のり（10）、ゆび（1）、ぬり（1）、るびー（1）、ぬの（1）
てらせば	2	ぬらせば（2）
たてた	1	かけた（1）
そらから	1	ほだかが（1）

異聴された単語は5単語、誤り総数は19であった⁹⁾ので、文章理解度も、術後に低下が見られたものの、術後9ヵ月には治療前と同程度にまで回復していた。

3. 咀嚼機能

本人から得られた咀嚼についての回答結果のまとめ

を示す(表6)。治療前は、「食べない」を除くすべての食品に対して「片側でなら簡単に食べられる」を選択しており、噛み合っている左側でなら何でも容易に食べられるという状態であった。術後6ヵ月には両側で食べられる食品が増加したものの、片側でも食べにく

表6 咀嚼についての回答結果のまとめ

		治療前 6ヵ月	術後 6ヵ月	術後 1年3ヵ月	術後 1年6ヵ月
両側で	簡単に食べられる	0	4	19	39
	何とか食べられる	0	6	8	6
片側でなら	簡単に食べられる	47	19	19	0
	何とか食べられる	0	17	0	0
食べられない		0	1	1	0
食べない		3	3	3	5

いものが見られた。「食べられない」としたものは「チューインガム」であり、矯正装置に引っかかるとのことであった。徐々に両側で食べられるようになり、術後1年6ヵ月には、日常的な食品は「両側で簡単に食べられる」状態になっていた。なお、「両側で何とか食べられる」を選択した食品は「するめいか、生のにんじん、あられ、せんべい、食パンの耳、フランスパン」の6品目であった。

考 察

1. 言語症状

小舌症の言語症状については、伊東³⁾、鍋島ら¹⁵⁾、鶴田ら¹⁶⁾、Weckx⁴⁾が会話の全体的印象について報告している。それらによると、会話の明瞭度は良好とされているものの、構音障害の存在が指摘されている。このような構音障害は、本症例の治療前にも認められており、今回はそれが治療過程でどのように変化したかについて検討した。

1) 構音

小舌症や無舌症の構音については、いくつかの報告^{1-8,15-18)}にも触れられている。これらのなかで、本症例と評価方法などが類似している報告を見ると、Merson⁶⁾、伊東³⁾、福田ら⁷⁾の報告があり、軟口蓋音は比較的良好だが、歯音・歯茎音に歪みが認められるとされている。また、舌の代償としては、下口唇や口腔底の膨隆が使われているという報告がある^{5,8)}。

本症例についての治療前の構音は、すでに報告されているように⁹⁾聴覚的には/t, d, n, r/は口蓋化構音に近い歪み音に、/s, dz, ts/は/f, v, pf/に近い歪み音となっていた。構音動態としては、/t, d, n, r/では下顎の代償的な運動があり、主に舌が硬口蓋の後方から軟口蓋にかけて接していること、/s, dz, ts/では下口唇が代償的に使われ、上顎前歯と下口唇でつくられていることが観察されていた。このように、治療前の本症例の構音には従来の報告と同様の傾向が見られた。

治療過程の構音としては、治療前と構音位置および

構音方法に明らかな差は認められなかった。下顎歯列弓が広がったが舌の大きさには変化がないため、構音時の舌と上顎歯列弓との位置関係には変化がなく、治療後も治療前と同様の構音が保たれていたものと考えられる。

2) 発語明瞭度および文章理解度

発語明瞭度および文章理解度に関しては、術後に一時的な低下が見られたが、この時期に見られた問題として、手術による口腔形態の急激な変化に加えて口唇周囲の知覚鈍麻、開口制限、唾液の貯留や流涎などが挙げられる。

術後のおとがい神経麻痺の出現率に関してS-W知覚計^{14,19)}を用いた当科の報告では、下顎枝矢状分割法術後の106症例²⁰⁾で「術後1週間での知覚麻痺出現率は49%であり、1年後まで知覚麻痺が残存していたのは2%」、また、下顎枝垂直骨切り術後の16症例²¹⁾で「術直後8%であったが経時的に回復し、半年後には消失していた」とされている。本症例では、下顎枝垂直骨切り術に加え、下顎管直上での骨切りで、下歯槽神経血管束を直視下に明示したため、従来の骨切り術と比較しておとがい神経麻痺の程度は大きいと予測された。しかし、術後6ヵ月にS-W知覚計での検査結果は正常域まで改善し、術後9ヵ月には自覚症状としての知覚鈍麻も消失していた。したがって、従来の報告から逸脱しない範囲内の経過であったと思われる。また、開口制限と唾液の貯留や流涎も一時的に見られたが改善した。

なお、外科的矯正治療後の構音の改善についての従来の報告^{22,23)}では、術後は徐々に改善が見られ、術後1年では良好な状態になるとされている。さらに、松崎²³⁾らは外科的矯正治療による音質変化について「顎矯正手術直後かなり低下するものの、術後6ヵ月から1年を経過するにつれ口腔内環境に適応した発声ができるようになる」と術後の一時的な低下についても指摘している。本症例においても、術後いったん低下した構音機能が、口腔形態の急激な変化に徐々に適応し、口

唇周囲の知覚鈍麻、開口制限、唾液の貯留および流涎なども術後の回復に伴って解消され、術後1年3ヵ月の時点で治療前とほぼ同様にまで改善したと思われる。

さらに、回復経過を本人の自覚的評価で見ると、文章理解度がほぼ治療前まで改善した術後9ヵ月は、「口唇のしびれが治って、唾が流れることがなくなった」という時期、語音発語明瞭度が治療前とほぼ同様にまで改善した術後1年3ヵ月は、「手術前のしゃべりやすさに戻った」という時期と合致していた。

異聴傾向については、治療過程においても舌尖音が口蓋音や口唇音に異聴されることが多かったが、これは治療前と同様に舌尖音を産生する際に口蓋後方や下口唇が代償的に使われているためと考えられる。一方、術後6ヵ月(表2)には、治療前にはあまり見られなかった口唇音の脱落や、イ列音・エ列音で母音の異聴が見られた。口唇音の脱落については、口唇周囲の知覚鈍麻などのため構音動作が不十分になっていた可能性が考えられる。また、異聴された母音のイ列音・エ列音は狭母音であるため、口腔形態の急激な変化が影響したものと思われる。

2. 咀嚼機能

今回の治療による咀嚼機能の変化についても検討した。咀嚼機能の評価方法には、客観的評価としての咀嚼能率審査法や主観的評価としての質問票による食品受容性の評価などがある²⁴⁾。今回は、従来の報告¹¹⁻¹³⁾を参考にして食品50品目を選別した。治療前の片側の臼歯部しか噛み合っていない状態からの変化について、本人が主観的に評価できるような質問票を作成して評価した。その結果、元から食べない物が多少あったが、治療前には片側でしか食べられなかった物が、術後6ヵ月、術後1年3ヵ月と徐々に両側で食べられるようになり、術後1年6ヵ月後には日常的な食品は両側で食べられるようになった。この術後1年6ヵ月の時期は動的矯正治療が終了した時期であるので、良好な咬合が獲得されたことにより咀嚼機能が改善されたものと思われる。

ま と め

小舌症と小下顎症を伴う症例(23歳、女性)に対して、術前および術後の歯科矯正治療と下顎歯列弓狭窄に対する拡大手術による外科的矯正治療を行い、治療過程の構音の変化と咀嚼機能について検討した。

1. 構音検査では、治療前と同様に/t, d, n, r/は舌と口蓋後方でつくられる口蓋化構音に近い歪み音、

/s, dz, ts/は上顎前歯と下口唇で音がつくられる/f, v, pf/に近い歪み音であった。構音動態としては、治療前と比べ構音位置や構音方法に明らかな差は見られなかった。

2. 語音発語明瞭度は、術後6ヵ月で低下したものの、術後1年3ヵ月で治療前とほぼ同程度にまで改善していた。治療過程で口唇音や母音の異聴が一時的に増加したが改善し、異聴傾向としては治療前とほぼ同様であった。

3. 文章理解度は、術後6ヵ月で低下がしたものの、術後9ヵ月で治療前とほぼ同程度にまで改善していた。

4. 咀嚼機能にも改善が見られた。

以上より、今回の治療によって、言語機能を損なうことなく咬合および咀嚼機能の改善を得ることができたと考えられる。

稿を終えるにあたり、語音発語明瞭度検査にご協力いただきました皆様に深謝いたします。

なお、本論文の要旨は第50回日本音声言語医学会(2005年10月)において報告した。

文 献

- 1) Rosenthal R: Aglossia congenita. *American Journal of Diseases of Children*, 44: 383-389, 1932.
- 2) Wada T, Inoue K, Fukuda T, et al: Hypoglossia-hypodactylia syndrome: Report of a case. *J Osaka Univ Dent Sch*, 20: 297-304, 1980.
- 3) 伊東節子: 舌の異常による言語障害 2. 先天性小舌症および無舌症と言語障害. *Quintessence Journal*, 3: 32-39, 1981.
- 4) Weckx LLM, Justino DAF, Guedes ZCF, et al: Hypoglossia congenita. *Ear Nose Throat J*, 69: 108-113, 1990.
- 5) Eskew HA and Shepard EE: Congenital aglossia. *Am J Orthod*, 35: 116-119, 1949.
- 6) Merson RM: Speech rehabilitation in congenital aglossia. *J Rehabil*, Sept-Oct: 32-35, 1967.
- 7) 福田登美子, 館村 卓, 和田 健: 舌の先天奇形を呈する2症例の構音について. *音声言語医学*, 29: 98, 1988.
- 8) 磯野信策, 大橋 靖, 飯田明彦, 他: 先天性無舌症児の構音の観察. *音声言語医学*, 34: 149-157, 1993.
- 9) 阿部雅子, 石毛美代子, 熊田政信, 他: 小舌症と小下顎症を伴う1症例の構音の分析. *音声言語医学*, 42: 242-248, 2001.
- 10) 阿部雅子, 加藤正子, 斎藤佐和子, 他: 構音検査法<試案1>. *音声言語医学*, 22: 209-217, 1981.
- 11) 平井敏博, 石島 勉, 越野 寿, 他: 顎補綴診療における咀嚼機能評価法について. *顎顔面補綴*, 19: 42-52, 1996.
- 12) 山城正司, 小林明子, 鈴木鉄夫, 他: 舌口底再建例の咀嚼機能評価. *頭頸部腫瘍*, 28: 92-97, 2002.
- 13) 嶋谷庸子, 山口泰彦, 小松孝雪, 他: 食品摂取アンケート

- を用いた顎関節症患者の咀嚼機能評価。補綴誌, 44:160-167, 2000.
- 14) 蜂須賀英三: 皮膚知覚テストによる知覚麻痺の客観的評価法。口唇麻痺研究会会報, 2:4, 1988.
- 15) 鍋島耕二, 石川隆義, 三浦一生, 他: 先天性小舌症の1症例。小児歯科雑誌, 26:415-422, 1988.
- 16) 鶴田 仁, 渡辺八十夫, 山内和夫: 小舌症患者についての所見と考察。広大歯誌, 20:180-187, 1988.
- 17) 河合 幹, 織家 茂, 栗田賢一, 他: 先天性無舌症の1例。日口外誌, 26:1276-1279, 1980.
- 18) 横江義彦, 兵 行忠, 広岡康博, 他: 先天性無舌症の1例。日口外誌, 31:2450-2456, 1985.
- 19) 高崎義人, 野間弘康, 藤川真紀, 他: 下顎枝矢状分割法術後のオトガイ神経知覚検査に関する臨床的研究—第一報 SW 知覚テストを用いた検査方法と報告様式の検討—。日顎変形誌, 10:290-299, 2000.
- 20) 江口智明, 高戸 毅, 森 良之, 他: 下顎枝矢状分割法術後おとがい神経麻痺の臨床的検討。形成外科, 48:137-143, 2005.
- 21) 近津大地, 森 良之, 西條英人, 他: 東京大学医学部附属病院顎口腔外科・歯科矯正歯科における下顎枝垂直骨切り術の適応と結果。日形会誌, 26:434-440, 2006.
- 22) 荒尾宗孝: 下顎前突症手術前後の音声ならびに発音に伴う舌運動, 下顎運動に関する研究。愛院大歯誌, 25:356-361, 1987.
- 23) 松崎雅子, 黒田敬之, 城戸健一: 外科的矯正治療による音質変化の音響学的評価。日顎変形誌, 9:149-156, 1999.
- 24) 小野高裕, 野首孝祠: 「食えること」を能力として評価する 2。質問票による食品受容性の評価。補綴臨床, 34:436-444, 2001.
- 別刷請求先: 〒113-8655 東京都文京区本郷 7-3-1
東京大学医学部附属病院顎口腔外科・
歯科矯正歯科
和田満美子
-