

和訳「術後口蓋裂幼児における裂型によることばの発達の差異」

中 嶋 敏 子

I 背景

1 【研究の動機】

口蓋裂の言語臨床に携わる臨床家は、生後間もない口蓋裂児について、今後の発達の予測と発達を促すための関わり方の助言を、家族に提供することから仕事が始まる、と言ってもよいだろう。そのためには、正常発達を理解し、口蓋裂の裂型によることばの発達の経過の差の有無と、差があるとしたら、その異なった様相と経過を認識し、今後の関わり方を具体的に説明できることが望まれる。

対象者やその家族に説明する内容は、確認された根拠に基づいたものでありたい。

口蓋裂児の言語発達は、発達早期の段階では遅れるが、結果的には追いついていくという説明がなされるのが、一般的かと思われる。具体的にはどのように遅れるのか、非口蓋裂児の発達に追いついていくには、どのような配慮を必要とするのか、対策を講じる根拠となる知見を得たいと思う。

長年、口蓋裂の言語臨床に携わっていると、臨床的には、口蓋裂の裂型によって、話しことばの発達に差があり、特に両側性唇顎口蓋裂児において、ことばの発達が遅れることが多いという印象を受ける。臨床において受けた印象を確認するために文献を検索すると、口蓋裂児のことばの発達は遅れるという研究報告は、様々な観点から行われている¹⁻¹⁷。

2 【構音発達について既に解明されていること】

口蓋裂は、声道の形態と機能の問題なので、まずは、構音が問題となる。構音発達における裂型差については、これまでの研究で、かなり明確にされている。以下に、【喃語—無意味発声】【始語期周辺】【異常構音の発現】【構音発達の遅れ】について述べ、最後に、【構音について現時点で言えること】を述べる。

(1) 【喃語—無意味発声】

O'Gara¹⁸は、生後3か月から36か月まで継時的

に調査し、口蓋裂児の喃語は、口唇や声門のように声道の両端を構音点とすることが特徴的だと報告しており、Chapman¹³は、口蓋裂児と非口蓋裂児との比較で、そのことを確認している。Chapman¹³は、口蓋未手術の12か月から14か月の口蓋裂児と非口蓋裂児の喃語で見られる音の種類を比較した。口蓋裂群が9種類、非口蓋裂群が23種類の音を出しているのを認めたという。非口蓋裂群には/d/音が多くみられた。口唇音の/m/音は、口蓋裂群の全例にみられたが、口腔内で破裂を作る音は少なかった。口蓋裂群では、声門摩擦音の/h/音が5例中4例に高頻度でみられたと報告している。

Lohmander-Agerskov¹⁹は、既に軟口蓋は閉鎖され、硬口蓋は未手術の生後8か月から15か月（平均11か月）の両側唇顎口蓋裂群9例、片側性唇顎口蓋裂群18例、口蓋裂単独群8例の喃語の子音を分析し、唇顎口蓋裂群と口蓋裂単独群で構音点に差が見られたと報告している。Lohmander-Agerskov¹⁹は、構音点を声門と「声門より上部」に分け、更に、「声門より上部」を、「口唇、口唇・歯、歯、歯頸部」を前方とし、「口蓋、軟口蓋、口蓋垂、咽頭」を後方とした。口蓋裂単独群では、構音点が前方である音が多くみられ（57%）、構音点が後方である音は少なく（15%）、統計的に有意な相関が認められた。それと対比的に、統計的には有意な相関は認められなかったが、構音点が後方である音は、両側性唇顎口蓋裂群（39%）と片側性唇顎口蓋裂群（36%）に多くみられたという。

(2) 【始語期周辺】

Estrem¹²は、生後16.6か月から22か月の口蓋形成術前後の5例の口蓋裂児の表出語の語頭音を年齢と性別を釣り合わせた正常児と比較した。正常児は、舌尖・歯茎音を多く表出し、口蓋裂児は、口唇音や声門音が多かったと報告している。

(3) 【異常構音の発現】

正常な構音発達の過程では、通常、見られないよう

な非定型的な構音の誤り^{20,21,22}を一般的に異常構音という。非定型的な構音の誤りの発現の裂型差を検討した報告は、口蓋形成術後鼻咽腔閉鎖不全例や口蓋瘻孔残存例を含んでいる場合がある。非定型的な構音の誤りの原因となりうる合併症や、口蓋形成術後の鼻咽腔閉鎖不全や口蓋瘻孔の残存がない症例を対象として、次の調査を行った²³。

口蓋形成術後鼻咽腔閉鎖機能が良好で、口蓋瘻孔が残存していない唇顎口蓋裂群28例（両側性唇顎口蓋裂5例、片側性唇顎口蓋裂23例）と口蓋裂単独群21例（硬軟口蓋裂4例、軟口蓋裂17例）において非定型的な構音の誤りの発現の裂型差を検討した。全例、出生後5年以上経過を把握できている事例である。唇顎口蓋裂群の21例、口蓋裂単独群の8例に非定型的な構音の誤りが発現しており、統計的に有意差が見られた。唇顎口蓋裂群に発現した異常構音は、口蓋化構音17例、側音化構音4例、声門破裂音3例、鼻咽腔構音4例であり、口蓋裂単独群に発現したのは、口蓋化構音4例、側音化構音2例、声門破裂音1例、鼻咽腔構音5例であった。この調査は、本来、構音訓練によらない構音の改善について知ることも目的とした。唇顎口蓋裂群では、口蓋化構音6例、側音化構音2例は、舌運動の指導により改善し、声門破裂音と鼻咽腔構音は全例、自然改善した。また、口蓋裂単独群でも、声門破裂音と鼻咽腔構音については、全例、自然改善がみられた。結果的に、実際に構音訓練を必要としたのは、唇顎口蓋裂群13例と口蓋裂単独群5例であり、異常構音のタイプは口蓋化構音と側音化構音であった。他に、正常な構音発達の途上に見られる定型的な構音の誤りが、自然改善しなかったために、構音訓練を行った例が、唇顎口蓋裂に3例、口蓋裂単独に1例あった。

発現した非定型的な構音の誤りは、いずれも本来の構音点よりも構音点が後方に移動した誤り方である²⁴⁻²⁹。

声門破裂音は、声門部で音が作られ、鼻咽腔構音は、軟口蓋と咽頭後壁で音が作られ、口蓋化構音は硬口蓋や軟口蓋と舌背で音が作られ、側音化構音は舌の後方の舌縁で音が作られる。

鼻咽腔閉鎖機能が良好であれば、声門破裂音と鼻咽腔構音は自然改善し、実際に構音訓練を必要とするのは、口蓋化構音と側音化構音であることを示唆する調

査結果であった。

(4) [構音発達の遅れ]

中嶋¹⁷は、知的障害や聴覚障害等の言語発達に影響を及ぼす可能性のある合併症を伴わない唇顎口蓋裂群と口蓋裂単独群で、口蓋形成術後、正常な構音発達の経過をたどり、構音訓練が必要でないとみなされている4歳児20名ずつを、同じ地域に住む40名の4歳児の非口蓋裂群の構音発達と比較した。その結果、口蓋裂の2群の構音発達は、非口蓋裂群に比べて全体的に遅れていた。特に/s/音について、その差が、統計上有意であった。口蓋裂の2群間においては、/k ts dz r/音について、唇顎口蓋裂群の方が、口蓋裂単独群よりも遅れていた。

これらの/s ts dz r/音は、構音点が前方の歯や歯頸部であり、かつ、正常児でも、構音発達の最終段階で習得される音である^{30,31}。

口蓋形成術後、異常構音は出現せず、正常な構音発達の経過をたどっているようには見えても、口蓋裂児の構音発達は、正常児に較べて遅れていることを示唆する調査結果であった。

(5) [構音について現時点で言えること]

口蓋に裂隙があると、口腔で閉鎖や狭めを形成できないので、閉鎖や狭めを形成する位置を後退させて、構音が行われる。非口蓋裂群との比較で、口蓋裂群の喃語^{13,18,19}や初期の発話の音¹²の構音点がより後方にあり、また、唇顎口蓋裂群の方が口蓋裂単独群よりも後方であった¹⁹。口蓋形成術後、鼻咽腔閉鎖機能が良好で、口蓋瘻孔がなければ、鼻咽腔構音や声門破裂音は自然改善したが、口蓋化構音や側音化構音は残存した²³。口蓋化構音や側音化構音は、構音点が鼻咽腔構音や声門破裂音よりも前方ではあるが、本来の構音点からは後方へ移動している。

いわゆる異常構音が発現せず、正常な構音発達の経過をたどっているようにみえる口蓋形成術後の口蓋裂群でも、非口蓋裂群と比較すると、歯音や歯茎音の完成が遅く、また、唇顎口蓋裂群は口蓋裂単独群よりも遅かった¹⁷。発達の早期に、第一次口蓋の裂があることが歯音や歯茎音の習得に不利に働くことを示唆する結果といえよう。

手術や補綴的処置によって口蓋の形態と機能を修復

しえた場合でも、自然改善せずに口蓋化構音や側音化構音が残存する可能性がある。そのような場合には、舌運動や呼気流の操作等の指導を行い、構音訓練開始の適時に達した時点で、本格的な構音訓練を行い、残存する構音障害の改善に取り組むことは、依然として、言語聴覚士の仕事の重要な部分である。

3 【話しことばの発達—構音以外の側面】

構音発達はことばの発達の一側面に過ぎない。構音以外の側面において、裂型差を検討した報告もみられる^{4,8,10,11}。なかでも Morris⁴、Lamb ら⁸、McWilliams と Matthews¹¹ は、Wechsler によって考案された動作性知能指数と言語性知能指数を算出できる知能検査を用いて検討した結果を報告している。

Morris⁴ は、Wechsler Intelligence Scale for Children (WISC) を唇顎口蓋裂群と口蓋裂単独群に実施し、唇顎口蓋裂群の言語性知能指数は口蓋裂単独群よりも高かったが、有意差が出るには至らなかったと報告している。しかし、動作性知能指数の範囲が 57～132 であったと記述してあることから推察すると、知的発達の遅れが疑われる事例も調査の対象に含まれていた可能性がある。

Lamb ら⁸ は、(唇裂±顎裂±口蓋裂) 群と口蓋裂単独群とに WISC および Peabody Picture

Vocabulary Test (Peabody 絵画語彙検査) を実施し、両検査の結果について、両群間に有意差は見られなかったと報告している。しかし、論文中に得点の範囲が記述されていないので、知的障害等の事例が含まれていなかったかどうかについては、不明である。

McWilliams ら¹¹ は、片側性唇顎口蓋裂群と口蓋裂単独群に、Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence for Children (WPPSI)、Wechsler Intelligence Scale for Children Revised (WISC-R)、Wechsler Adult Intelligence Scale (WAIS) を実施し、生得的な合併症を伴う群と伴わない群に分け、結果を検討している。片側性唇顎口蓋裂群は、口蓋裂単独群より言語性知能指数の平均は高かったが、統計的には有意差はなかったと報告している。しかし、動作性知能指数の範囲を見ると、生得的な合併症を伴わない唇顎口蓋裂群 60～135、口蓋裂単独群 45～134 であり、やはり、知的発達の遅れが疑われる事例も調査の対象に含まれていた可能性がある。

これらの調査は、ことばの発達に影響しうる口蓋裂以外の他の要因が除外されていない等の限界を持っているように思われる。また、両側性唇顎口蓋裂を 1 つの群として他の裂型と比較した研究報告は見当たらない。Nakajima らは、口蓋形成術後の幼児における裂型によることばの発達の差異について知見を得ることを目的として、以下に報告する研究³²を行なった。

II 目的

口蓋裂児の幼児期のことばの発達は、構音以外の側面でも遅れるか、そして、裂型差があるかについて明確にする。

III 対象

某広域救急病院言語治療科で 1981 年から 1996 年の間に生後早期からの言語管理を開始し、形成外科で Veau-Wardill-Kilner 法による初回の口蓋形成術を受けた口蓋裂児を本調査の対象とした。該当する事例の総数は 341 例であった。Kernahan らの分類^{33,34}に従って、第二次口蓋のみに裂がある口蓋裂単独と口唇および第一次口蓋と第二次口蓋に裂がある唇顎口蓋裂に分類した。さらに、唇顎口蓋裂を、片側性の唇顎口蓋裂と両側性の唇顎口蓋裂に分類した。口蓋裂単独群が 135 例 (男児 41、女児 94)、片側性唇顎口蓋裂群が 153 例 (男児 82、女児 71)、両側性唇顎口蓋裂群が 53 例 (男児 38、女児 15) であった。これらから下記に該当するものを除外した。

- (1) 口蓋形成術の実施が生後 19 か月以降
- (2) 口蓋形成術後、鼻咽腔閉鎖不全
- (3) 持続的な聴力損失 (片側性および両側性)
- (4) 中枢神経系の疾患
- (5) 症候群という診断
- (6) WPPSI による動作性知能指数が 80 未満
- (7) データが揃っていない

その結果、調査対象は、両側性唇顎口蓋裂群 28 例 (男児 22、女児 6)、片側性唇顎口蓋裂群 74 例 (男児 37、女児 37)、口蓋裂単独群 33 例 (男児 4、女児 29)、合計 135 例となった。

平均在胎期間、平均出生体重、初回口唇形成術時平均月齢、口蓋形成術時平均月齢についてこの 3 群間に

表 1 調査対象児の背景

	Group			P-value
	BCLP	UCLP	ICP	
人数	28 (男児 22, 女児 6)	74 (37,37)	33 (4,29)	
在胎期間 (週)	39.3 ± 1.4	39.3 ± 1.2	38.7 ± 1.4	NS
出生体重 (g)	3064.1 ± 479.7	3135.3 ± 399.4	3049.7 ± 354.9	NS
口唇形成術時月齢	4.1 ± 1.2	3.9 ± 1.1		NS
口蓋形成術時月齢	12.5 ± 2.3	12.8 ± 1.9	13.3 ± 2.4	NS

検定法は分散分析法 (post-hoc test としてはシェフイー法) を用いた。

略号の説明: BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate

統計的な有意差はみられなかった (表 1)。

対照は二語文の初出時期については、文献例³⁵を用いた。18 か月 583 例 (男児 300 名、女児 283 名)、21 か月 113 例 (男児 62、女児 51 名)、24 か月 375 名 (男児 184、女児 191 名) であった。

WPPSI の対照については、調査対象と同一地域に住む正常児 52 例 (男児 25、女児 27) であり、著者が WPPSI を実施した。全例、中枢神経系の問題はなく、知的発達の遅れ (動作性知能指数 < 80)、言語発達障害、難聴はみられなかった。

IV 方法

- (1) 幼児期前期のことばの発達の指標として二語文の初出時期について裂型差と性差の検討
- (2) 幼児期後期の話しことばの発達の指標として 4 歳から 6 歳にかけて実施した WPPSI の言語性検査について裂型差と性差の検討
- (3) 異常構音の出現率について裂型差を検討

始語は、確認が困難な場合が多いため、幼児期前期のことばの発達の指標を二語文の初出時期とした。二語文の初出時期 (月齢) については、時期と発話内容について、保護者から情報を得て、臨床において言語聴覚士が確認した。検定法としては、二語文の初出時期の裂型差については分散分析法 (post-hoc テストはシェフイー法) を用いた。性差については、student's t-test を用いた。

WPPSI は、4 歳から 6 歳の時期に実施した (表 2)。

WPPSI の結果は、言語性知能指数と動作性知能指数について分散分析法 (post-hoc テストはシェフイー法) で検定した。言語性検査の各下位検査の知識、単語、算数、類似、理解、動作性検査の各下位検査の動

表 2 WPPSI 実施時の年齢と人数

年齢	BCLP	UCLP	ICP	対照
4	14	44	14	20
5	13	24	15	23
6	1	6	4	9
合計人数	28	74	33	52

略号の説明: BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate; WPPSI, Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence.

物の家、絵画完成、迷路、幾何図形、積み木模様の評価点についても同様に検定を行った。

構音訓練を必要とする異常構音の発現についても裂型別に検討した。検定法は χ^2 自乗検定を用いた。

全ての検定において有意水準は 0.05 とした。

V 結果

(1) 二語文の初出時期: 二語文の初出月齢の平均は、口蓋裂の 3 群間の比較では、両側性唇顎口蓋裂群が、口蓋裂の他の 2 群、口蓋裂単独群と片側性唇顎口蓋裂群に較べて 3 ~ 4 か月遅く、その差は統計上有意であった (各々、 $P < 0.005$, $P < 0.0001$ 表 3)。しかし、性差があり、口蓋裂群の女児が男児より 2 か月早く、その差は統計的に有意であった ($P < 0.0001$ 表 4)。

正常児と口蓋裂の 3 群の通過率の比較では、18 か月時、21 か月時、24 か月時のどの時点でも両側性唇顎口蓋裂群における二語文の出現率が低かった (表 5)。

(2) 両側性唇顎口蓋裂群の言語性知能指数は他の 3 群に較べて有意に低かった ($P < 0.005$ 表 6)。他の群間では有意差は認められなかった。両側性唇顎口蓋裂群は、言語性下位検査の評価点が、知識、語彙、算数、

表3 二語文の初出月齢 (裂型別)

	BCLP	UCLP	ICP	F (df=2; 131)	P-value
平均 ± SD (月)	26.2 ± 3.9	23.1 ± 3.5	21.6 ± 3.5	11.74	< 0.0001
範囲 (月)	18-35	18-31	17-30		
	BCLP	versus	UCLP		< 0.005
	BCLP	versus	ICP		< 0.0001
		UCLP	versus	ICP	NS

検定法は分散分析法 (post-hoc test としてはシェフイー法) を用いた。

略号の説明: BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate.

表4 口蓋裂児の二義発話の初出月齢 (性別)

	男児	女児	t (df=130)	P-value
人数	63	72		
平均 ± SD (月)	24.9 ± 15.0	22.1 ± 12.0	4.27	< 0.0001
範囲 (月)	18-32	17-35		

検定法は Student's *t*-test を用いた

表5 二語文の通過率

	18 か月				21 か月				24 か月			
	対照	BCLP	UCLP	ICP	対照	BCLP	UCLP	ICP	対照	BCLP	UCLP	ICP
人数 *	583 (300, 283)	28 (22, 6)	74 (37, 37)	33 (4, 29)	113 (62, 51)	28 (22, 6)	74 (37, 37)	33 (4, 29)	375 (184, 191)	28 (22, 6)	74 (37, 37)	33 (4, 29)
全体	10.5%	3.5%	6.9%	25%	40.2%	7.14%	37.5%	46.8%	72.3%	46.4%	69.4%	78.1%
男児	6.9%	0	5.5%	25%	41.4%	0	25%	50%	66.4%	45.4%	61.1%	75%
女児	13.9%	16.6%	8.3%	25%	38.8%	33.3%	50%	46.4%	78.9%	50%	77.7%	75.8%

* 括弧内の最初の数字は、男児の人数、2番目の数字は女児の人数を示す。

表6 WPPSI 知能診断検査の結果

	BCLP	UCLP	ICP	対照	F (df=3; 183)	P-value
VIQ 平均 ± SD	84.1 ± 15.8	96.5 ± 17.8	96.5 ± 14.4	99.0 ± 14.2	5.69	<0.001
範囲	51-121	57-142	67-115	66-129		
	BCLP	versus		対照		<0.005
	BCLP	versus	UCLP			<0.01
	BCLP	versus	ICP			<0.05
PIQ 平均 ± SD	101.7 ± 14.7	108.1 ± 15.0	107.1 ± 16.6	107.5 ± 15.3		NS
範囲	81-129	80-150	81-138	80-152		

検定法は分散分析法 (post-hoc test としてはシェフイー法) を用いた。

略号の説明. BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; PIQ, Performance Intelligence Quotient; UCLP, unilateral cleft lip and palate; VIQ, Verbal Intelligence Quotient; WPPSI, Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence.

理解において、対照群より有意に低く、算数において、片側性唇顎口蓋裂群より、有意に低かった ($P < 0.05$ 表7)。動作性知能指数については、有意差はみられなかった。有意な性差は、言語性知能指数においても、動作性知能指数においても、認められなかった (表8、9)。

(3) 63.2%の口蓋裂児が異常構音に対する構音訓練を必要とした (表10)。裂型別にみると、両側性唇顎口蓋裂群 92.8%、片側性唇顎口蓋裂群 66.2%、口蓋裂単独群 33.3%であった。異常構音の出現率は、両側性唇顎口蓋裂群と片側性唇顎口蓋裂群および口蓋裂単

表7 言語性検査の評価点の平均の比較

	BCLP	UCLP	ICP	対照	F (df= 3: 183)	P-value
知識						
平均 ± SD	8.3 ± 3.0	9.4 ± 2.6	9.5 ± 2.7	10.3 ± 2.2	3.53	<0.05
範囲	3-17	3-15	3-13	5-17		
	BCLP	versus		対照		<0.05
単語						
平均 ± SD	7.4 ± 2.7	9.2 ± 3.4	8.7 ± 3.1	9.6 ± 2.6	3.36	<0.05
範囲	2-15	4-19	4-13	4-16		
	BCLP	versus		対照		<0.05
算数						
平均 ± SD	7.8 ± 2.8	9.5 ± 2.9	9.6 ± 2.6	9.7 ± 2.3	3.65	<0.05
範囲	4-16	3-16	2-14	4-17		
	BCLP	versus		対照		<0.05
	BCLP versus	UCLP				<0.05
類似						
Mean ± SD	7.3 ± 2.5	8.7 ± 3.1	8.9 ± 3.0	9.1 ± 2.6		NS
Range	3-19	3-17	4-13	3-16		
理解						
Mean ± SD	7.3 ± 2.5	9.5 ± 3.7	8.9 ± 2.5	9.8 ± 3.7	3.60	<0.05
Range	3-13	1-17	3-15	1-17		
	BCLP	versus		対照		<0.05

検定法は分散分析法 (post-hoc test としてはシェフイー法) を用いた。

略号の説明. BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate

表8 WPPSI 知能診断検査の言語性知能指数について性差を検討

	男児	女児	有意差
検査実施全例	n = 88	n = 99	
平均 ± SD	94.1 ± 17.9	96.5 ± 15.3	NS
範囲	51-142	57-136	
BCLP	n = 22	n = 6	
平均 ± SD	85.6 ± 16.5	78.5 ± 12.1	NS
範囲	51-118	64-96	
UCLP	n = 37	n = 37	
平均 ± SD	97.0 ± 19.4	96.0 ± 16.3	NS
範囲	63-142	57-136	
ICP	n = 4	n = 29	
平均 ± SD	96.7 ± 17.5	96.5 ± 14.3	NS
範囲	71-109	67-126	
対照	n = 25	n = 27	
平均 ± SD	96.7 ± 15.3	101.1 ± 13.0	NS
範囲	66-125	74-129	

検定法は、Student's *t*-test を用いた。

略号：BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate; WPPSI, Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence.

Table9 WPPSI 知能診断検査の動作性指数について性差を検討

	男児	女児	有意差
全検査実施児	n = 88	n = 99	
平均 ± SD	107.3 ± 15.0	106.4 ± 15.8	NS
範囲	81-135	80-150	
BCLP	n = 22	n = 6	
平均 ± SD	104.0 ± 15.1	93.0 ± 9.8	NS
範囲	81-129	83-112	
UCLP	n = 37	n = 37	
平均 ± SD	108.1 ± 13.7	108.1 ± 16.4	NS
範囲	83-135	80-150	
ICP	n = 4	n = 29	
平均 ± SD	107.7 ± 18.4	107.0 ± 16.6	NS
範囲	81-123	81-135	
対照	n = 25	n = 27	
平均 ± SD	108.8 ± 16.5	106.2 ± 14.3	NS
範囲	81-152	80-130	

検定法は、Student's *t*-test を用いた。

略号：BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate; WPPSI, Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence.

表 10 裂型別にみる特異な構音の誤りの発現

Group	BCLP	UCLP	ICP	χ^2 (df=2)	P-value
特異な構音の誤りが見られた例	26	49	11	26.29	<0.001
特異な構音の誤りが見られなかった例	2	25	22		
合計	28	74	33		
				χ^2 (df = 1)	
	BCLP versus	UCLP		6.10	<0.05
	BCLP	versus	ICP	22.48	<0.001
		UCLP versus	ICP	10.01	<0.005

検定法は、 χ^2 test を用いた。

略号：BCLP, bilateral cleft lip and palate; ICP, isolated cleft palate; UCLP, unilateral cleft lip and palate.

独群との差は、統計的に有意であった（各々、 $P<0.05$, $P<0.001$ ）。片側性唇顎口蓋裂群と口蓋裂単独群の差も統計的に有意であった（ $P<0.005$ ）。

VI 考察

本研究によって幼児期の両側性唇顎口蓋裂児においては、口蓋裂の他の裂型に較べて異常構音の出現率が高いだけでなく、構音以外の側面でも、ことばの発達が、幼児期前期においても、幼児期後期においても遅れることが明らかになった。

両側性唇顎口蓋裂児においては、口蓋裂の他の裂型に較べて異常構音の出現率が高かったが、異常構音を聞き慣れた言語障害の臨床家が検査を実施したので、検者が被験者の回答を正しく聞き取れずに言語性知能指数を実際よりも低く評価したという可能性はない。著者は先に、口蓋裂児において異常構音の有無は、言語性知能指数に差を生じないことを明らかにしている³⁶。従って本調査の結果得られた言語性知能指数が構音障害の存在のために実際より低く評価された可能性は否定する。

幼児期前期のことばの発達の指標とした二語文の初出時期は、口蓋裂単独群、片側性唇顎口蓋裂群、両側性唇顎口蓋裂群の順に早く、裂型差がみられた。また、女児群が男児群よりも早いという性差も見られた。

しかし、幼児期後期に実施した WPPSI では、言語性知能指数に、裂型差はみられたが、性差はみられなかった。幼児の発達において、性差によることばの発達の差異は、幼児期後期では解消するが、口蓋裂の裂型によることばの発達の差は、幼児期後期でも明確に

存在することが本調査によって示唆されたと言えよう。口蓋形成術が、18 か月までになされても、口蓋裂の程度が重篤である程、ことばの発達は幼児期後期においては遅れていた。

本研究は、口蓋裂の裂型によることばの発達に及ぼす影響の差異について知見を得ることを目的としたので、「Ⅲ 対象」で述べたように、本研究の調査対象から、(1) から (7) に該当する事例を除外した。本研究の調査対象は、135 例であったが、(1) から (7) に該当するので除外した事例は 206 例であり、調査対象より多かった。すなわち、除外した事例においては、今回、結果として得られたことばの発達の遅れや構音障害が、より重篤で、様相も多岐にわたってみられることが想像される。また、今回調査対象とした事例も含めて、裂型によっては、容貌³⁷ に対する周囲の受け入れや本人の受け入れも絡んでくる可能性がある。

口蓋裂に対するきめ細かい治療体系の構築と力量のある人材を育成する教育カリキュラムの充実の必要性を痛感する。

[後書き]

本稿は、2001 年に "Pediatrics International" に掲載された "Postoperative Speech Development based on Cleft Types in Children with Cleft Palate" の和訳である。和訳に際して、若干加筆し、文献を数編加えた。

【謝辞】

稿を終えるにあたり、資料を提供して下さいました熊本リハビリテーション病院 形成外科部長 吉川 厚重先生、ならびに、本稿の英文名につきましてご助言くださいました本学キャリア形成学科教授 Carolyn Wright 先生に感謝いたします。

【文献】

- 1 Bzoch KR. An investigation of the speech of preschool cleft palate children. Unpublished doctoral thesis. Northwestern University.1956.
- 2 Spriestersbach DC, Darley FL, Morris HL. Language skills in children with cleft palate. *J Speech Hear Res.* 1958; 1: 279-285.
- 3 Goodstein LD. Intellectual impairment in children with cleft palates. *J Speech Hear Res.* 1961; 4: 287-286.
- 4 Morris HL. Communication skills of children with cleft lips and palates. *J Speech Hear Res.* 1962; 5: 79-90.
- 5 Ruess AL. A comparative study of cleft palate. *J Clin Psychol.* 1965; 21: 354-360.
- 6 Smith RM, McWilliams BJ. Psycholinguistic considerations in the management of children with cleft palate. *J Speech Hear Disord.* 1968; 33: 26-33.
- 7 Philips BJ, Harrison RJ. Language skills of preschool cleft palate children. *Cleft Palate J.* 1969; 6: 108-119.
- 8 Lamb MM, Wilson FB, Leeper HA. The intellectual function of cleft palate children compared on the basis of cleft type and sex. *Cleft Palate J.* 1973; 10: 367-377.
- 9 Nation JE. Vocabulary comprehension and usage of preschool cleft palate and normal children. *Cleft Palate J.* 1976; 7: 639-644.
- 10 Fox D, Lynch J, Brookshire B. Selected developmental factors of cleft palate children between two and thirty-three months of age. *Cleft Palate J.* 1978; 15: 239-245.
- 11 McWilliams BJ, Matthews HP. A comparison of intelligence and social maturity in children with unilateral complete clefts and those with isolated cleft palate. *Cleft Palate J.* 1979; 16: 363-372.
- 12 Estrem T, Broen PA. Early speech production of children with cleft palate. *J Speech Hear Res.* 1989; 32 :12-23.
- 13 Chapman KL. Vocalization of toddlers with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1991; 28: 172-178.
- 14 Chapman KL, Hardin MA. Phonetic and phonological skills of two-year-olds with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1992; 29: 435-441.
- 15 Chapman KL. Phonological process in children with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1993; 30: 64-73.
- 16 Chapman KL, Graham KT, Gooch J, Visconti C. Conversational skills of preschool and school-age children with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 1998; 35: 503-516.
- 17 中嶋 敏子 . 口蓋形成術後の4歳児における構音発達の遅れに関する研究. 福岡大学医学紀要. 1996; 23: 117-121.
- 18 O'Gara MM and Logemann, JA. Phonetic analysis of the speech development of babies with cleft palate. *Cleft Palate Journal.* 1988; 25:122-134.
- 19 Lohmander-Agerskov A, Soederpalm E, Odont HF, Persson E, Lilja J. Pre-speech in children with cleft lip and palate or cleft palate only: phonetic analysis related to morphologic and functional factors. *Cleft Palate Craniofac J.* 1994; 31: 271-279.
- 20 福迫陽子、沢島政行、阿部雅子. 小児にみられる構音の誤り (いわゆる機能的構音障害) について—その臨床経験—. *音声言語医学.* 1976;17: 60-71.
- 21 Stoel-Gammon, C.and Dunn, C. *Normal and Disordered Phonology in Children.* 1985.

- Texas,pro・ed, 110-127.
- 22 Smit AB. Phonologic error distributions in the Iowa-Nebraska Articulation Norms Project: Consonant Singletons. *J Speech Hear Res.* 1991; **36** :533-547.
- 23 村上 敏子. 残孔のない鼻咽腔閉鎖機能の良好な口蓋形成術後例にみられた構音の問題. *日口蓋誌.* 1994;**19**:297-298.
- 24 福迫陽子、相野田紀子、阿部雅子、岡崎恵子. 口蓋裂の言語治療. 医学書院. 1983.
- 25 阿部雅子. 鼻咽腔構音（いわゆる鼻腔構音）の病態—音の分析と構音動態の観察. *音声言語* 1987;**28**:239-250.
- 26 阿部雅子. 鼻咽腔構音（いわゆる鼻腔構音）の臨床研究. *音声言語医学.* 1988a;**29**: 8-14.
- 27 阿部雅子. 口蓋裂言語にみられる異常構音. *音声言語医学.* 1988b;**29**: 296-298.
- 28 阿部雅子. 構音障害の臨床 改訂第2版. 金原出版. 2008.
- 29 加藤正子. 側音化構音の動態について—エレクトロ歯冠パトグラフによる観察—. *音声言語医学.* 1991;**32**:8-31.
- 30 中西靖子, 大和田健次郎, 藤田紀子. 構音検査とその結果に関する考察. *特殊教育研究施設報告* 1. 1972. 1-21.
- 31 中西靖子. 構音発達. 講座言語障害治療教育4 構音障害. 内須川洗他編集. 福村出版. 1982. 37-64.
- 32 Nakajima T., Mitsudome A., Yoshikawa A. Postoperative speech development based on cleft types in children with cleft palate. *Pediatrics International.* 2001; **43**: 666-672.
- 33 Kernahan DA, Stark RB. A new classification for cleft lip and cleft palate. *Plast. Reconstr. Surg.* 1958 ;**22**: 435.
- 34 Kernahan DA. Classification. In R.B.Stark (Ed.), *Cleft Palate: A multidispline approach.* Harper & Row, New York. 1968.
- 35 津守真, 稲毛教子. 増補 乳幼児精神発達診断法 0才～3才まで. 大日本図書株式会社. 1961 増補版 1995.
- 36 中嶋敏子. 術後唇顎口蓋裂児における構音障害の有無と言語発達. *音声言語医学.* 1998; **39**: 5-8.
- 37 中嶋敏子. 思春期に達した口蓋裂患者を対象とする問診票作成の試み—Youth Quality of Life Instrument-Facial Differences Module (YQOL-FD) の紹介と今後の展望—. 京都光華女子大学 京都光華女子大学短期大学部研究紀要. 2015;**53**: 89-98.

