

## 神経筋疾患患者の舌圧と舌の厚みの関係

神経筋疾患の嚥下障害の調査研究チーム（課題番号：117108）

研究期間：平成 23 年 7 月 22 日～平成 24 年 3 月 31 日

研究代表者：梅本丈二 研究員：馬場康彦

### 【研究目的】

デュシェンヌ型筋ジストロフィー（DMD）は、10 歳代から 20 歳代にかけて呼吸不全や心不全を発症する。筋力低下と筋萎縮に伴って、喉頭挙上や咽頭収縮が不十分となり嚥下障害が進行し、舌はしばしば肥大する<sup>1)</sup>（図 1A）。DMD では舌肥大により、舌の可動域が制限されることが指摘されている<sup>2)</sup>。それに対し、筋萎縮性側索硬化症（ALS）は、神経原性筋萎縮から嚥下障害が進行し、舌が萎縮することが多いとされている<sup>3)</sup>（図 2B）。しかし、こうした舌の体積の変化が舌機能に与える影響について詳細に検討した報告はあまりない。そこで今回、DMD 患者と ALS 患者、肢帯型筋ジストロフィー（LGMD）患者、筋強直性ジストロフィー（DM1）患者の舌の厚みを測定し、舌圧や舌運動、食形態との関連について検討した。

### 【研究方法】

#### 1. 対象

2010 年 11 月から 2012 年 3 月までに国立病院機構大牟田病院で嚥下機能検査を行った DMD 男性患者 14 名（平均年齢 21.4 歳）と、LGMD 患者 12 名（男性 5 名、

女性 7 名、平均年齢 65.2 歳）、DM1 患者 13 名（男性 8 名、女性 5 名、平均年齢 50.0 歳）、ALS 患者 28 名（男性 13 名、女性 15 名、平均年齢 69.3 歳）とした（表 1）。検査時の食形態は、DMD 患者は常食が 4 名、軟飯食または粥食が 4 名、ミキサー食 5 名、経管栄養が 1 名、LGMD 患者は常食が 3 名、軟飯食または粥食が 8 名、経管栄養が 1 名、DM1 患者は常食が 3 名、軟飯食または粥食が 7 名、ミキサー食が 2 名、経管栄養が 1 名、ALS 患者は常食が 10 名、軟飯食または粥食が 12 名、ミキサー食が 3 名、経管栄養が 3 名であった。

表 1. 対象患者の内訳

	DMD 群	LGMD 群	DM1 群	ALS 群
症例数 (M 男性、 F 女性)	M14	12 (M5, F7)	13 (M8, F5)	18 (M13, F5)
平均年齢 (歳)	21.4 ± 5.8	65.2 ± 12.9	50.0 ± 9.4	69.3 ± 8.7

#### 2. 調査方法

検査時の食形態はスコア化し、常食を 3 点、軟飯食または粥食を 2 点、ミキサーまたは流動食を 1 点、経管栄養を 0 点とした。

舌圧は口腔内バルーン式簡易測定装置（JMS 社、広島）を用いて 3 回測定し、その平均値を求めた<sup>4)</sup>（図 2）。

舌の厚みは、岡山らの方法<sup>25)</sup>をもとに超音波画像診断装置（FFsonic、UF-4100A、フクダ電子、東京）を用いて両側下顎 7 番からフランクフルト平面に垂直な前額断面に測定部位を設定し、顎舌骨筋下端から舌背面表層までの距離を測定した（図 3A、B）。



図 1 A（左）：DMD 患者の舌肥大

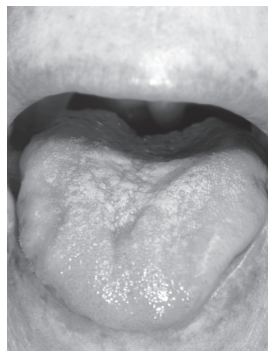


図 1 B（右）：ALS 患者の舌萎縮



図 2. 簡易舌圧測定装置



図 3 A : 超音波画像診断装置を用いて両側下顎 7 番からフランクフルト平面に垂直な前額断面に測定部位を設定

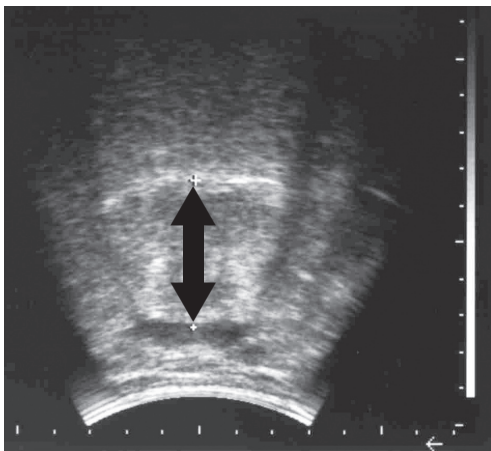


図 3 B : A により顎舌骨筋下端から舌背面表層までの距離を測定した

嚥下造影検査では、バリウム含有ゼリー約 1.5ml を普段の食事と同じ体位で自由嚥下させ、口腔咽頭通過時間における舌根運動距離、すなわち舌根と下顎骨下縁の交点の運動距離を算出した<sup>6)</sup> (図 4)。

### 3. 解析方法

側面 VF 画像は、コンピューターに取り込み、画像ファイルに置換した。画像解析ソフト (Dipp-Motion Pro®, Ditect 社、東京) を用いて、VF 画像ファイルを 1 フレーム毎に解析した。頸椎の任意の 2 点から原点と Y 軸を

設定し、頭部の動揺を補正した。口腔咽頭通過時間はゼラチンゼリーが口腔内に入って、その先端が食道入口部を通過するまでの時間とした。舌根運動量はその口腔咽頭通過時間内に舌背と下顎骨下縁の交点が 1 秒あたりに X 軸方向に移動した距離とした<sup>6)</sup>。(図 4)。

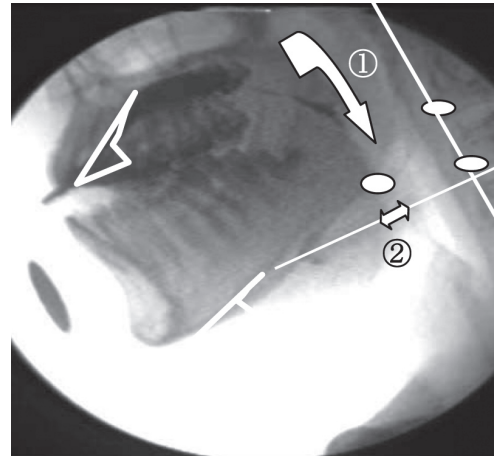


図 4. ①口腔咽頭通過時間：ゼラチンゼリーが口腔内に入って、その後端が食道入口部を通過するまでの時間。②舌根運動量：口腔咽頭通過時間内に舌背と下顎骨下縁との交点が 1 秒あたりに X 軸方向へ運動した距離。

### 4. 統計解析

食形態スコア、最大舌圧値、舌根運動量、舌厚みの 4 項目について DMD 群、LGMD 群、DM1 群、ALS 群間の有意差を、分散分析 (Bonferroni/Dunn 法) を用いて検討した。各群における最大舌圧値、舌根運動量、舌厚みの 3 項目間の相関関係についてはピアソンの相関係数を用いて検討した。

### 【研究結果】

#### 1. 各測定項目の平均値 (表 2)

食形態スコアは、DMD 群が 1.8、LGMD 群が 2.1、DM1 群が 1.9、ALS 群が 2.0 であった。最大舌圧値は、DMD 群が 15.9kPa、LGMD 群が 18.3kPa、DM1 群が 11.3kPa、ALS 群が 20.0kPa であった。舌根運動量は、DMD 群が 11.7mm、LGMD 群が 13.1mm、DM1 群が 14.7mm、ALS 群が 12.0mm であった。これらの項目において群間に有意差はなかった。舌厚みは、DMD 群

表 2. 各評価項目の疾患別比較

	DMD 群	LGMD 群	DM1 群	ALS 群
食形態スコア	1.8 ± 0.97	2.1 ± 0.79	1.9 ± 0.86	2.0 ± 0.96
最大舌圧値 (kPa)	15.9 ± 5.9	18.3 ± 11.1	11.3 ± 6.0	20.0 ± 10.3
舌根運動量 (mm)	11.7 ± 4.0	13.1 ± 4.9	14.7 ± 4.2	12.0 ± 3.8
舌厚み (cm)	5.6 ± 0.84	5.1 ± 0.68	4.7 ± 0.88	4.5 ± 0.72

が5.6cm、LGMD群が5.1cm、DM1群が4.7cm、ALS群が4.5cmであり、DMD群とALS群の間にのみ有意差が認められた ( $p < 0.01$ )。

### 2. 各測定項目間の相関関係 (表3)

ALS群においては、最大舌圧値と舌厚みの間に有意な相関関係が認められたが ( $R = 0.375, p = 0.049$ , 図5)、DMD群、LGMD群、DM1群では認められなかった。また、DMD群で舌根運動量と舌厚みの間に有意な相関関係が認められた ( $R = 0.658, p = 0.011$ ) が、その他の項目間においては有意な相関関係が認められた項目の関係はなかった。

表3. 疾患別の測定項目間の相関関係 (\*: $p < 0.05$ )

	最大舌圧 vs 舌根運動量	舌根運動量 vs 舌厚み	舌厚み vs 最大舌圧
DMD群	$R=0.240, p=0.409$	$R=0.658, p=0.011^*$	$R=0.311, p=0.279$
LGMD群	$R=0.071, p=0.827$	$R=-0.254, p=0.426$	$R=-0.264, p=0.407$
DM1群	$R=0.539, p=0.057$	$R=0.310, p=0.302$	$R=0.206, p=0.500$
ALS群	$R=-0.013, p=0.949$	$R=0.131, p=0.514$	$R=0.375, p=0.049^*$

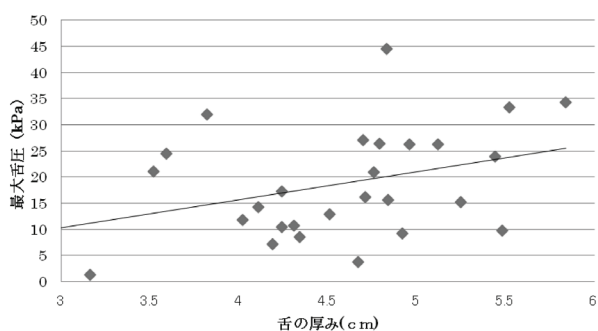


図5. ALS群における最大舌圧値と舌厚みの関係 ( $R = 0.375, p = 0.049$ )

## 【考察】

### 1. 各群間の比較について

本研究では、舌の厚みにおいてDMD群とALS群の間に有意差を認めたが、年齢や身長、体重を補正していないため、単純に比較することはできない。しかし、平均年齢の近いLGMD群とALS群の間には有意差はなかったものの舌の厚みに差があり、ALS患者の舌萎縮を舌の厚みの低下として捉えることができたと考えられた。

Engel-Hoekらは<sup>2)</sup>、超音波画像診断装置によって舌の厚みを、健常若年者の平均値は47.1mm、DMDの5症例は43.90～65.82mmと測定した。また、身長を補正すれば、年齢や体重は舌の厚みに著明な影響を及ぼさな

いと述べている。本研究の平均値は、DMD群が5.7cm、LGMD群が5.1cm、ALS群が4.5cmであり、Engel-Hoekらの結果と比較すると、DMDとLGMDは健常者以上、ALSは健常者以下となり、妥当なデータが得られたものと考えられる。今後、症例数が確保できれば、身長や体重を補正して再評価する必要はあるが、今回の結果から神経筋疾患は舌の体積変化を超音波画像診断装置によって簡便に評価できる可能性が示された。

### 2. 4項目間の相関関係について

ALS群では最大舌圧と舌の厚みの間に有意な相関関係を認めたのに対し、DMDやLGMDなどの筋ジストロフィー群では有意な相関関係はなかった。ALSは嚥下障害の進行に伴って舌が萎縮することが多いとされているが<sup>3)</sup>、我々が渉猟した限り、舌の萎縮を客観的に評価した研究はみられない。Weikampら<sup>7)</sup>は、ALS患者の舌筋力低下が疾患の予後に関連していることを示した。本研究のALS群に認められた、最大舌圧と舌の厚みの間の有意な相関関係は、疾患の進行に伴って舌筋力低下と舌の体積低下が進行することを示していると考えられた。

その一方で、DMD患者では疾患の進行に伴って、舌はしばしば肥大する<sup>1)</sup>ことが知られている。DMDの腓腹筋や舌筋には、筋線維が消失するのに、脂肪組織の浸潤や結合組織の増加がみられる仮性肥大が生じるとされ<sup>8)</sup>、見かけ上舌の体積が増加しても舌筋力はむしろ低下することが予想される。今回のDMD群において最大舌圧と舌の厚みの間に有意な相関関係を認めなかったという結果は、この予測に沿っていた。なおLGMD群については、DMD群のように顕著な舌肥大はないものの、DMD群に近い傾向があるものと考えられた。また、DM1群はDMD群やLGMD群に比べて舌圧が低く、舌厚みが小さかったことから、ALS群に近い傾向があると考えられた。佐々木は、筋ジストロフィー患者の舌のCT値を測定し、DM1患者の舌障害は筋萎縮に関連があると考察している<sup>8)</sup>。今回のDM1群の舌圧と舌厚みの低値はその考察に合致しており、他の筋ジストロフィーとは異なる特徴があることが示された。

DMD患者では舌の肥大に伴って舌の可動域が制限されることも予想されたが、今回の結果では舌の厚みと舌根運動量の間には有意な正の相関関係が認められ、舌が厚い方が嚥下までに舌がよく運動していたことになる。しかし、舌が肥大し可動域が制限されたことによって、口腔から咽頭までゼリーを送り込むのに非効率に舌根部が動いていた可能性もあり、今後さらにデータを追加して検討する必要があると考えられた。

今回の研究結果から、ALS患者においては舌筋の萎縮に伴って舌筋力が低下するのに対し、筋ジストロフィー患者では舌肥大の程度が必ずしも舌の筋力低下に

相関しないことが示唆された。

### 【結論】

DMD 患者 14 名、LGMD 患者 12 名、DM1 群 13 名、ALS 患者 28 名を比較した結果、舌の厚みは DMD 群の方が ALS 群よりも大きく、有意差を認めた。食形態スコア、最大舌圧、舌根運動量については群間に有意差を認めなかった。神経筋疾患における舌の体積変化は超音波画像診断装置によって簡便に評価できる可能性が示された。

ALS 群では舌の厚みと最大舌圧の間に有意な相関関係を認めたのに対し、DMD 群、LGMD 群、DM1 群では相関関係を認めなかった。ALS は舌筋の萎縮に伴って舌筋力が低下するのに対し、筋ジストロフィーは舌肥大の程度が必ずしも舌の筋力低下に相関しないことが示唆された。

### 【研究業績】

#### 1. 学会発表

1) 梅本丈二、古谷博和、酒井光明、北嶋哲郎、喜久田利弘：神経筋疾患患者の舌圧と舌の厚みとの関係について。第 17 回・第 18 回共催日本摂食・嚥下リハビリテーション学会，札幌，2012。

### 【研究協力者】

1. 古谷博和(国立病院機構大牟田病院臨床研究部 部長)

### 【文献】

1. Eckardt L, Harzer W. Facial structure and functional findings in patients with progressive muscular dystrophy (Duchenne). *Am J Orthod Dentofacial Orthod* 110:185-190,1996.

2. Engel-Hoek LV, Van Alfen N, De Swart BJ, De Groot IJ, Pillen S. Quantitative ultrasound of the tongue and submental muscles in children and young adults. *Muscle Nerve* 46: 31-37,2012.

3. 谷口裕重、大瀧祥子、梶井友佳、山田哲平好耿、井上 誠. 筋萎縮性側索硬化症例における舌萎縮と嚥下時の食塊移送との関係. *顎機能誌* 15 : 30-37, 2008.

4. Utanohara Y, Hayashi R, Yoshikawa M, Yoshida M, Tsuga K, Akagawa Y. Standard values of maximum tongue pressure taken using newly developed disposable tongue pressure measurement device. *Dysphagia* 23:286-290,2008.

5. 岡山浩美、田村文誉、戸原 雄、菊谷 武. 要介護高齢者の舌の厚みに関する研究. *障歯誌* 31 : 723-729, 2010.

6. Umemoto G, Tsuboi Y, Kitashima A, Furuya H, Kikuta T. Impaired Food Transportation in Parkinson's Disease Related to Lingual Bradykinesia. *Dysphagia* 26: 250-255, 2011.

7. Weikamp JG, Schelhaas HJ, Hendriks JCM, de Swart BJM, Geurts ACH. Prognostic value of decreased tongue strength on survival time in patients with amyotrophic lateral sclerosis. *J Neorol* : Published online: 24 April 2012.

8. 佐々木敏明. 筋ジストロフィーの口腔・学顔面領域の形態について. *医療* 61 : 654-651, 2007.

### 【謝辞】

本研究の一部は、福岡大学研究推進部の研究経費によるものである。(課題番号：117108)