

肢体不自由児の障害内容と指導法

—神経原性発声発語障害と構音訓練に焦点を当てて—

郡山 翔平 川崎医療福祉大学大学院医療技術学研究科

要 旨：本研究においては肢体不自由児の構音の特徴と訓練法について展望する。脳性麻痺児の訓練法として、呼吸支援、発声、発話速度の制御、アイコンタクトの維持、頭頸部コントロール、声の模倣などがある。メビウス症候群(MS)児のほとんどが、弛緩性神経原性発声発語障害を示しており、特徴は構音器官の筋力低下、運動範囲の制限、運動速度の低下、子音音声の不正確さである。構音訓練の原則として、1.舌と口唇運動を模倣させる。2.伸長母音を模倣させる。3.可視的に子音を模倣させる。4.ストレスとイントネーションパターンを導入するために二重子音ペアを使う。構音点における変化を強調するために可視的な運動を伴わせる。5.視覚的入力のみ、もしくは聴覚刺激を組み合わせ導入する。6.子音母音子音の形を模倣させる。7.キャリアフレーズを使うという順に進む。構音訓練の方法として、多感覚入力の使用、運動の使用、知覚訓練などがある。

Key Words： 肢体不自由児，神経原性発声発語障害，脳性麻痺，メビウス症候群

I. はじめに

本研究においては肢体不自由児の構音の特徴と指導法について述べていきたい。まず、2章においては、神経原性発声発語障害に焦点を当てて肢体不自由児の障害内容について述べる。肢体不自由となる主な原因に脳性麻痺があるが、脳性麻痺児は高頻度に神経原性発声発語障害を有している。脳性麻痺は痙直型とアテトーゼ型とに分類されるが、痙直型とアテトーゼ型とで神経原性発声発語障害にどのような差が出るかについて述べる。また、脳性麻痺以外の子どもの神経原性発声発語障害の原因であるメビウス症候群についても述べる。3章においては、肢体不自由児の構音訓練を始めとしたコミュニケーションの指導法についての海外の先行研究をレビューする。脳性麻痺児の指導法と、肢体不自由児全般の構音訓練の原則に分けて述べる。

II. 肢体不自由児の障害内容 —神経原性発声発語障害—

1. 脳性麻痺児の発話特徴

Workinger et al.²⁹⁾によれば、痙直型脳性麻痺児は、よく認められる症状として、痙性、筋力低下、運動範囲の制限、運動速度の低下などの随意運動の異常を示す。痙直型脳性麻痺に認められる発話パターンは、低いピッチ、開鼻声、声の翻転、氣息性嘔声で、過剰で平板なストレスを特徴とする。アテトーゼ型は痙直型とは異なる発話パターンを示す。アテトーゼ型脳性麻痺の発話は、構音の不規則な崩れ、不適切な沈黙、発話の間の引き伸ばしと語音の引き延ばし、大きさの過度の変動、声の途絶を特徴とする。また痙直型とアテトーゼ型との2つのグループの間では、神経原性発声発語障害の重症度と経過に差異が認められるという。また、痙直型脳性麻痺の子どもでは比較的早く発話が発達するものの、成長するにつれ、姿勢とポジショニングの異常のため、発話を維持するための呼吸の障害が重症化すると Workinger et al.は述べた。この結果、痙直型脳性麻痺児の発話は、成

人期へと移行するにつれて低下する可能性がある。一方、アテトーゼ型の子どもにおいては、発話は遅れるものの成長するにつれて発達し、調節機能を獲得するとしている。

2. 脳性麻痺児の喉頭機能

Rutherford²⁷⁾は、脳性麻痺児は声の高さの変動が少なく単調であると述べた。低く小さい声で「しわがれ声」であると Clement et al.⁹⁾は述べた。過度の喉頭の内転が Ingram et al.¹⁴⁾により報告された。McDonald et al.¹⁸⁾によれば、脳性麻痺による喉頭筋群の内転スパズムによって、起声が妨げられたり、発話中に発声が中断したりすることがある。

3. 脳性麻痺児の鼻咽腔閉鎖機能

X線撮影検査を用いた研究において Hardy⁹⁾は、アテトーゼ型脳性麻痺がある者は、鼻咽腔閉鎖機能が不規則で調節不良であると表現した。このために開鼻声になりやすいと思われる。

4. 脳性麻痺児の呼吸機能

アテトーゼ型脳性麻痺者は痙直型に比べ呼吸調節機能が低いと Achilles¹⁾は報告した。脳性麻痺がある発話者の呼吸機能を調査した一連の研究において Hardy¹⁰⁾は、痙直型脳性麻痺児の肺機能に関する研究から予備呼吸量が有意に低下しており、そのために肺活量が低下していると報告した。さらに、脳性麻痺児の呼吸パターンは定型発達児に比べて柔軟性にかけると報告した。この柔軟性の低下は、筋力低下や姿勢に加え、拮抗筋の過剰な不随意抵抗などの多様な要因によって生じた可能性があるという。痙直型麻痺群は、腹筋群の障害によって、安静時呼吸のレベルより深く呼吸を行う能力に低下が認められると Hardy は記して、このような観察を進展させた。

5. 脳性麻痺児・者の口腔機能

舌先が関与する語音は脳性麻痺児が誤って構音することが最も多く、このような子どもは無声音をその有声同族音より誤りやすいと Byrne⁴⁾は報告した。喉頭の痙性が高いため起こると思われた。発話障害に関連したこととして、子音・母音音節の反復速度と非発話反復運動の速度を Hixton et al.¹¹⁾は報告した。この結果から、舌後方可動域制限が、痙直型あるいはアテトーゼ型脳性麻痺児・者の発話産生に大きな影響を及ぼしたことが示唆された。

脳性麻痺のある成人の構音状態も、Kent et al.¹⁵⁾の X線撮影検査により研究されている。その結果、顎の動きの範囲が広く、舌の位置が不適切であり、鼻咽腔閉鎖の動きの範囲とタイミングに異常があることが分かった。痙直型脳性麻痺の者は、構音の誤りパターンに関してアテトーゼ型脳性麻痺の者とは異なっており、摩擦音と破擦音の構音様式が不正確で、構音空間が最も良い位置には達していないということ Platt et al.²⁴⁾は報告した。この研究の対象者には、同一構音内の誤りが多く認められ、構音様式の境界を超えた誤りはまれであった。また、語頭音に比べ、語尾音における誤りが多かった。

6. 脳性麻痺児の発話の全般的な適切度

アテトーゼ型と痙直型の神経原性発声発語障害における発話明瞭度の低下の一因として、母音構音時の口腔空間容積が小さく、子音構音時の舌前方の構音位置の正確性に欠け、摩擦と破擦子音の構音が不正確になる等の構音特徴があげられることを Andrew et al.²⁾は明らかにした。さらに Andrew et al.は、これらのふたつの脳性麻痺群の両方において、語尾子音の誤り、有声子音の無声化と、多数の同一構音様式内の誤りが認められたと述べた。脳性麻痺の成人男性発話者群において、発話明瞭度を予測できる音響特徴を見つけるための調査を Ansel et al.³⁾は実施した。その結果、母音の第1フォルマントと第2フォルマントの位置、ノイズの持続時間が、発話明瞭度得点の予測可能な因子であることがわかった。したがって、持続時間の調節と舌位置という生理学的な要素が、発話明瞭度に影響を及ぼしていると考えられた。

7. メビウス症候群児の神経原性発声発語障害

Merz et al.¹⁹⁾によれば、メビウス症候群は、顔面神経と外転神経が障害されるまれな先天性両側麻痺である。事例によっては、これら以外に他の脳神経への影響、筋骨格の形態異常、上肢の筋量の減少、眼瞼下垂、耳の形態異常など、多くの特徴が認められる。こうした子どものほとんどが、弛緩性神経原性発声発語障害を示すと Meyerson et al.²⁰⁾は述べた。この特徴は、構音器官の筋力低下、運動範囲の制限、運動速度の低下、子音音声の不正確さである。神経原性発声発語障害の重症度は、口唇閉鎖や舌の挙上が必要な音素が歪む程度の軽微なものから、発話がほとんど聞き取れない重度なものにまで及ぶ。開口障害と小顎症によりこもった

発話になる者もいる。Meyerson et al.によれば対象児の半数以上で摂食嚥下障害が認められた。こうした対象児に起こる問題としては他に口蓋裂、聴覚障害、知的障害、特異的言語発達障害がある。Defeo et al.⁹⁾によれば、メビウス症候群児が行う代償行為として、たとえば/p/と/b/の音を生成するのに舌先と上唇を接触させるというものがある。Defeo et al.の事例報告によると、聞き手は話している子どもを見ないときのほうが、この代償的な語音をより正確に理解した。たとえば/p/の音の場合、舌先の運動パターンが聞き手に影響を及ぼして、代償的な/p/の音としてではなく/t/の音として知覚される。

4-18歳のメビウス症候群児87名の構音位置、唾液分泌過多の有無、および発話了解度をPamplona et al.²¹⁾は研究した。唾液分泌過多は対象児の23%に認められた。両唇音の異常な構音位置は、患者の68%で観察された。患者の50%は、他の音素で構音位置の誤りを示した。発話了解度は、18%の対象児は適切、51%は軽度障害、20%は適切な理解は不能、11%は理解不能と分類された。

Ⅲ. 肢体不自由児の指導法

一 構音訓練とコミュニケーション訓練一

1. 脳性麻痺児の指導法一言語聴覚療法など

呼吸支援、発声、発話速度の制御に焦点を当てた構音訓練により、脳性麻痺児の発話了解度を高めることができることをPennington et al.²²⁾は示した。

コミュニケーションの研究として、wh 質問、はいいいえの反転質問、叙述という3つの統語構造においてis / are を正しく生成するための介入を行ったCampbell et al.⁹⁾のものがある。ベースラインと変わらず低い水準の語産生であったが、介入中に着実な増加が認められた。介入していないコミュニケーション状況への般化が認められた。

これと同様にコミュニケーションの介入と般化の研究として、Hunt et al.¹²⁾は、4つの一連の行動が中断された状況において、物品またはイベントを要求するように教えた。一連の行動が中断された時にコミュニケーション反応を教えるための典型的なオペラント指導が、歯を磨いたりボールをプレーしたりする予測可能な一連の行動の中に挿入された。1つの一連の行動において取得されたコミュニケーション

ン機能と応答形式が、介入がまだ行われていない少なくとも2つの一連の行動へ追加指示なしに般化されたことを示した。さらに、3名の学生のうち2名は、介入以外の状況に般化された各コミュニケーション応答の適切な内容の選択に必要な画像識別スキルを身に着けた。

前者2つの研究と同様にコミュニケーションの研究であるが会話の拡張に焦点を当て、コミュニケーションパートナーが高頻度に要求場面を設定する介入により、会話の拡張を目指したDavis et al.⁷⁾のものがある。被験者たちは「休憩時間に何をしましたか?」という質問などの義務的会話に応答する傾向と、「休憩時間にキックボールをした」というコメントなどの非義務的会話に応答しない傾向を有していた。介入の結果、被験者たちの会話維持能力が向上した。

ブリスシンボルシステムと象徴的な画像システムを比較したHurlbut et al.¹³⁾の研究がある。ブリスシンボルシステムは、Blissによって開発された図によるコミュニケーションシステムである。文字を理解したり使用したりすることができない人でも理解できる。ブリスシンボルを取得するために象徴的な画像の約4倍の試行を必要とした。刺激の般化は両方の言語システムで発生したが、応答の般化について調べたなかでの正しい応答の数は、象徴的なシステムの方が多かった。毎日の自発的な使用は、ブリス応答よりも象徴的な応答が多かった。結果は、ブリスより象徴的なシステムがより容易に取得され、維持され、日常の状況に般化される可能性があることを示唆した。

アイコンタクトについてのPinder et al.²³⁾の研究において、子どもたちは物品を要求するか、もしくはより多く視線を向けて到達して把握するように教えられた。教育方略には、モデリング、予期された遅延、強化が含まれた。ベースラインで目標行動が表出されることはめったになかったが、訓練中には目標行動が増加した。また、訓練していない要求への般化が認められた。

これと同様にアイコンタクトの研究として、Sigafos et al.²⁴⁾は、視線を向けることによって物品を要求するように訓練した。コミュニケーション環境の構築、予期された遅延、口頭によるプロンプト、予期された遅延の増加、応答の強化を生み出すことによって訓練を行なった。ベースラインにおいて変動があり、訓練段階においてすぐに要求の増加が認められた。しかし、訓練終了時に減少傾向の可能性が認められた。

前者2つのアイコンタクトの研究に加え別の

訓練も行い、子どもを励ますためにオペラント教育方略を使った Richman et al.²⁵⁾の研究がある。アイコンタクトの維持、頭頸部コントロール、および声の模倣の表出を 10 分行った。ベースラインを通して変動があった。訓練中に目標行動の表出が増加した。その後反転し、訓練中に減少した。訓練の第 2 段階において再び増加したが、訓練の第 1 段階よりは減少していた。

2. 肢体不自由児全般の構音障害の指導法

—構音訓練の原則—

3 人の研究者の提言を示したい。まず 1 人目の研究者として、7 つの原則を挙げた Resenbek et al.²⁶⁾の研究がある。1. 子どもが身体的制限の範囲内で定型発達に最も近い意図的発話を獲得できるよう支援する。2. 運動系列を強調する。3. 構音原理に従って作られた連続課題を使う。4. 刺激の数を制限する。5. 集中的、体系的ドリルを使う。6. 視覚モダリティを使う。7. リズム、イントネーション、ストレス、運動を体系的に使うことで適切に反応することを促進する。

2 人目の研究者 Yoss et al.³⁰⁾は 9 つの提案をした。1. 全種類の舌と口唇運動の模倣課題から始める。2. 伸長母音を模倣させる。3. 可視的に子音を模倣させる。4. ストレスとイントネーションパターンを導入するために二重子音ペアを使う。これに構音点における変化を強調するために可視的な運動を伴わせる。5. 視覚的入力のみ、もしくは聴覚刺激を組み合わせて導入することには多大な利益がある。6. 子音母音子音 (consonant vowel consonant 以下 CVC) の形を模倣することに進む。7. キャリアフレーズを使い、続けた努力を拡大する。キャリアフレーズは、最初のいくつかの音が一定で、最後の音のみが変化するフレーズである。8. 自己モニタリングを促進させる。しばしば自己モニタリングは発話を遅くすることを必要とする。9. 子どもの行動が最も効果的なものになるように手がかりを提供する。

3 人目の研究者として、8 つの原則を推奨した Marquardt et al.¹⁷⁾の研究がある。1. 教えるべき構音の順番を決めるために発達の基準を使う。2. 構音の運動パターンを確立するため、聴覚、視覚、触覚という多感覚入力を最大限使う。3. 目標音の産生を確立するために促進効果を確認する。4. 自己修正を促進するための自己モニタリングスキルを早期に導入する。5. 構音のパターンを反復するため集中的、体系的ドリルを与える。6. 構音系列を産生するためのリズム

ム、ストレス、イントネーション、運動のための努力を促すことを強調する。7. 訓練は階層的な順序に従って進める。比較的単純で標準的な形からより複雑な系列へ進む。個々の構音の産生よりも運動系列と音素結合を多大に強調する。8. 訓練開始時における異なる訓練アプローチに子どもが対応するスキルと応答性のレベルに基づいて、訓練を導く必要性を認識する。

以上の 3 研究者による提言の共通点として、段階的訓練、多感覚入力の使用、運動の使用が挙げられていることに注目したい。

IV. まとめと今後の展望

脳性麻痺児の痙直型とアトーゼ型との 2 つのグループの間では、神経原性発声発語障害の重症度と経過に差異が認められる。メビウス症候群児のほとんどが、弛緩性神経原性発声発語障害を示す。構音訓練の方法として、多感覚入力の使用、運動の使用、知覚訓練などが挙げられている。

海外では、構音訓練を含むコミュニケーション訓練の研究が多く行われてきた。訓練中は効果が認められるものの、訓練終了後にはその効果が消失してしまったという研究結果も散見され、訓練の持続が重要であると考えた。また、私が調べた範囲では日本の肢体不自由児の構音訓練の研究は見あたらなかった。

今後の展望について述べてみたい。肢体不自由児には筋力の低下が認められることが多いため、低下した筋力を最大限活用する訓練の研究が必要であると思われる。Pennington の呼吸支援、速度制御の研究に類似するが、1 単語話ごとに息を吸う、全身の姿勢が良くなるようにすることで、発話が伝わりやすくなる。この方法であれば筋力そのものが上昇しなくても、すでにある筋力を最大限に活用することができる。

また、2 章で述べたように、多くの肢体不自由児には嗄声が認められるが、嗄声のような音声障害に対する訓練の研究は少ないと思われる。

成人の声門閉鎖不全に対するアプローチとしては、強い正門閉鎖の後に、急速に呼気を流出させる硬起声発声という方法がある。

また、一色の喉頭マニュアルテストを応用して、甲状軟骨を側方から内方へ向かって圧迫することによって、麻痺により固定されている声帯を正中へ寄せて、気息性嗄声の改善を目指すものがある。

成人に対する包括的訓練としては、内喉頭筋の強化だけでなく、声道共鳴の特性を高めることにより、呼吸、発声、共鳴を上手く協調させる発声機能拡張訓(Vocal Function Exercise : VFE)がある。

また、レザックとマドソンの共鳴強調訓練(Lessac-Madsen Resonant Voice Therapy : LMRVT)という方法があり、レゾナントボイスという「ンー」とハミングした際に、「顔の前面(鼻梁)に振動感覚を感じることができる」「響きのある声で発声することができる」といった特徴を備えた声を目指とすることで、声道の使い方をトレーニングし、上手に共鳴させることで楽に大きな声でコミュニケーションをとる方法である。

これらの成人の音声障害に対する訓練を小児に応用する研究が今後は必要であると思われる。

また、近年法律の改正により医療的ケア児に対する支援が強化されることになったが、今後医療的ケア児を含む小児の構音障害やコミュニケーション障害に対する訓練が多く行われるようになることを希望している。それにより日本においてもこれらの研究が盛んになっていくものと思われる。

文 献

- 1) Achilles, R. (1955) : Communication anomalies of individual with cerebral palsy : I analysis of communication processes in 151 cases of cerebral palsy. *Cerebral Palsy Review*, 16, 5-24.
- 2) Andrew, G., Platt, L. J. and Young, M. (1977) : Factors affecting intelligibility of cerebral palsied speech to the average listener. *Folia Phoniatica*, 29, 292-301.
- 3) Ansel, B. M. and Kent, R. D. (1992) : Ascoustic-phonetic contrasts and intelligibility in dysarthria associated with mixed cerebral palsy. *Journal of Speech and Hearing Research*, 35, 96-308.
- 4) Byrne, M. (1959) : Speech and language development of athetoid and spastic children. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 24, 231-240.
- 5) Campbell, C. R. , and Stremel-Campbell, K. (1982). Programming "loose training" as a strategy to facilitate language generalization. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 15(2), 295-301.
- 6) Clement, M. and Twitchell, T. (1959) : Dysarthria in cerebral palsy. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 4, 118-122.
- 7) Davis, C. A. , Reichle, J. , Southard, K. and Johnston, S. (1998) : Teaching children with severe disabilities to utilize nonobligatory conversational opportunities : An application of highprobability requests, *The Association for Persons with Severe Handicaps*, 23, 57-68.
- 8) DeFeo, A. B. and Schaefer, C. M. (1983) : Bilateral facial paralysis in a preschool child : Oral-facial and articulatory characteristics : A case study. In Berry, W. (Ed.) *Clinical dysarthria*, Austin, TX, PRO-ED, 165-190.
- 9) Hardy, J. (1961) : Intraoral breath pressure in cerebral palsy. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 26, 310-319.
- 10) Hardy, J. (1964) : Lung function of athetoid and spastic quadriplegic children. *Developmental and Child Neurology*, 6, 378-388.
- 11) Hixton, T. and Hardy, J. (1964) : Restricted motility of speech articulators in cerebral palsy. *Journal of speech and Hearing Research*, 29, 293-306.
- 12) Hunt, P., Goetz, L. and Sailor, W. (1986) : Using an Interrupted Behavior Chain Strategy to Teach Generalized Communication Responses, *The Association for Persons with Severe Handicaps*, 11, 196-204.
- 13) Hurlbut, B. I. , Iwata, B. A. , and Green, J. D. (1982) : Nonvocal language acquisition in adolescents with severe physical disabilities : Blissymbol versus iconic stimulus formats. *Journal of Applied Behavior Analysis*, 15(2), 241-258.
- 14) Ingram, T. and Barn, J. (1961) : A description and classification of common speech disorders associated with cerebral palsy. *Cerebral palsy Bulletin*, 2, 254-277.
- 15) Kent, R. and Netsell, R. (1978) : Articulatory abnormalities in athetoid cerebral palsy. *Journal of Speech and Hearing Disorders*, 43, 353-373.
- 16) La Riviere, C. , Wintz, H. , Reeds, J. and Herriman, E. (1974) : The conceptual reality of selected distinctive features. *Journal of Speech and Hearing Research*, 17, 122-133.

- 17)Marquardt, T. P. and Sussman, H. (1991): Developmental apraxia of speech : Theory and practice. In Vogel, D. and Cannito, M. (Ed.), Treating disordered speech motor control. Austin, TX, Pro-Ed., 341-390.
- 18)McDonald, E. and Chance, B. (1964) : Cerebral palsy . Englewood Cliff, NJ, Prentice-Hall.
- 19)Merz, M. , and Wojtowicz, S. (1967) : The Moebius syndrome . American Journal of Ophthalmology, 63, 837-840.
- 20)Meyerson, M. and Foushee, D. (1978) : Speech, language and hearing in Moebius syndrome . Developmental Medicine and Child Neurology, 20, 357-365.
- 21)Pamplona, M. D. C. , Ysunza, P. A. , Telich-Tarriba, J. , Chávez-Serna, E. , Villate-Escobar, P. , Sterling, M. and Cardenas-Mejia, A. (2020) : Diagnosis and treatment of speech disorders in children with Moebius syndrome , International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology, 138, 110316.
- 22)Pennington, L. , Miller, N. , Robson, S. and Steen, N. (2010) : Speech and language therapy for older children with cerebral palsy : a systems approach. Developmental Medicine and Child Neurology, 2010, 52, 337-44.
- 23)Pinder, G. L. and Olswang, L. B. (1995) : Development of Communicative Intent in Young Children with Cerebral Palsy : A Treatment Efficacy Study , Infant-Toddler Intervention : The Transdisciplinary Journal, 5(1), 51-69.
- 24)Platt, L. , Andrew, G. , Young, M. and Quinn, P. T. : (1980) : Dysarthria of adult cerebral palsy : I . intelligibility and articulatory impairment. Journal of Speech and Hearing Disorders, 23, 28.
- 25)Richman, J. S. and Kozlowski, N. L. (1977) : Operant training of head control and beginning language for a severely developmentally disabled child. Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry, 8, 437-440.
- 26)Rosenbek, J., Hansen, R., Baughman, C. H. and Lemme, M. (1974) : Treatment of developmental apraxia of speech : A case study . Language Speech and Hearing Services in Schools, 5(1), 13-22.
- 27)Rutherford, B. (1944) : A comparative study of loudness, pitch rate, rhythm, and quality of speech of children handicapped by cerebral palsy . Journal of Speech and Hearing Disorders, 9, 262-271.
- 28)Sigafos, J. and Souzens, D. (1995). Teaching functional use of an eye gaze communication board to a child with multiple disabilities. British Journal of Developmental Disabilities, 41(81), 114-125.
- 29)Workinger, M. S. and Kent, R. D. (1991) : Perceptual analysis of the dysarthria in children with athetoid and spastic cerebral palsy. In Moore, C. A. , Yorkston, K. M. and Beukelman, D. R. (Ed.)Dysarthria and apraxia of speech : Perspectives on management 109-126, Baltimore, Brooks.
- 30)Yoss, K. A. and Darley, F. L. (1974) : Therapy in developmental apraxia of speech. Language Speech and Hearing Services in Schools, 5(1), 23-31.

(受稿 2022.2.7, 受理 2022.5.16)