■総 説

舌喉頭変位症と呼吸障害 -舌喉頭矯正手術のすすめ

山本 伊佐夫

■ Review

ADEL and respiratory disorders—Recommendation of CGL

Isao Yamamoto

Abstract

In Ankyloglossia with Deviation of the Epiglottis and Larynx (ADEL) the tongue points forward and the epiglottis and larynx have moved up and forward. As a result, the upper airway resistance is increased and respiration is inhibited. The symptoms vary; babies display sleep apnea, colic crying, pale appearance; adults display headaches, stiffness of the shoulders, lumbago, cold extremities, snoring, daytime sleepiness, and fatigue. Correction of the glosso-larynx (CGL) includes the cutting of several bundles of the genioglossus muscle (GGM). The tongue then moves backward and the epiglottis and larynx move back and downward so they are aligned with the nasal cavity.

Key words 舌喉頭偏位症. 舌喉頭矯正術. 睡眠障害. 抗加齢

(WAARM Journal, 2020; 3: 23-30)

1. はじめに

舌喉頭偏位症(ADEL:Ankyloglossia with Deviation of the Epiglottis and Larynx)は、舌小帯の有無にかかわらず舌および喉頭蓋・喉頭の前上方への偏位により、上気道の抵抗が増加し呼吸を抑制しているために起きる病態である。乳幼児ではのけ反ってよく泣く、夜泣き、抱き癖、向き癖、顔色悪い、チアノーゼ、身体が硬い、腹部膨満、手足が冷たい、視線が合いにくい、あくび、鼾、夜尿症、哺乳障害など、成人では頭痛、肩こり、腰痛、冷え性、肌荒れ、目覚めが悪い、鼾、睡眠時無呼吸、慢性疲労など多様な症状が見られる。新生児から成人まで程度の差はあるが、ほとんどの人がADELと言える。一般には舌癒着症として知られているが、舌小帯の付着異常である舌小帯短縮症のことではない。

舌小帯およびオトガイ舌筋の前方の筋束を一部切除する舌喉頭矯正術(CGL: Correction of the epiglottis and larynx)により、喉頭は後下方に降り直立する

ため上気道の抵抗が減少し呼吸が楽になりこれらの 症状は劇的に改善される(図 1, 2). 乳児では身体 機能のみならず精神的にも安定し育てやすくなる.

2. 舌喉頭偏位症との出会い

ADELを知るきっかけとなったのは我が娘(第一子)の誕生の時である.長女は妊娠中特に異常なく助産院にて普通分娩で誕生した.ところが出生直後から顔色が悪く、額は赤黒くチアノーゼがみられた.頻繁に苦しげにのけ反って激しく泣くため昼夜ほとんど抱いていた.漸く寝たかとそっと床に置くと直ぐにギャーッ!と泣き出すのでまた抱っこという繰り返しの日々が続いた.やっと寝ても眠りは浅く、よくいびきをかき、突然泣き出すこともしばしばであった.また毎晩10秒以上の無呼吸が何度もあり、乳児の原因不明の疾患である乳幼児突然死症候群(SIDS)になるのではないかと不安であった.身体はとても硬く生後2週頃には首が据わりソファーに一人で座ることができた.黄疸は消えず、視線は合

神奈川歯科大学大学院災害医療歯科学講座法医歯科学 〒 238-8580 横須賀市稲岡町 82

Tel&Fax: 046-822-8863 E-mail:yamamoto@kdu.ac.jp

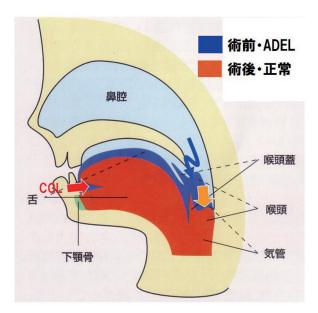


図1 舌喉頭偏位症(ADEL)の模式図 CGL 前は喉頭・喉頭蓋が前上方に偏位しているため上気道の抵抗が大きい(青色).

術後は喉頭・喉頭蓋が後下方に降り直立するため上気道 の抵抗が減少し呼吸が楽になる(赤色).

わず, 手足はいつも冷たく大理石模様が見られ, 腹部膨満であった. 哺乳は下手でコツコツと音を立てながら飲み, よく吐き, 母親は乳頭痛に苦しんでいた.

ただの育てにくい子ではなく何か先天性疾患があるのではないかと思い、1ヶ月健診を待てず助産院へ相談に連れて行った。一目見るなり「典型的な舌癒着症だね」と言われた。私は出産時に真っ先に娘の口に指を入れ舌小帯がないことを確認しているのにと不思議に思った。そこで助産師さんより先述のような舌癒着症についての説明を受け初めて知り、向井診療所(神奈川県大和市)を紹介された。

ADEL の発見者で CGL の術式を確立した耳鼻科 医・向井將氏の診察を受けたところ、「重症の舌癒 着症. 声帯ポリープが4つもある. よく泣くだろう. 視線合わない、コミュニケーション障害. 手術をす れば楽になる.」と言われた. しかし. 私たちはで きるだけ自然な出産を望み, 助産院を選択し, 母乳 育児、自然育児と常々説いていたこともあり、生後 1ヶ月の乳児にメスを入れるなど到底受け入れられ ない心境であった. それから ADEL について徹底 的に調べた. 文献検索では英文も和文も向井氏の論 文が多数 1-9) あり、確かに娘の症状は全て当てはま るし術後はよく改善すると書かれていた。歯学部. 医学部、多くの先生に聞いて回ったが誰も知らな かった. 全員が舌小帯短縮症のことと勘違いしてい た. ADEL を理解しているのは助産師さんばかりで、 特に自然育児、母乳育児に熱心な助産師さんは



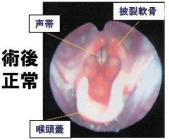


図2 経鼻ファイバースコープ 術前は披裂軟骨が被って気道を塞いでいる. 術後は喉頭 が下がり直立して気道、声帯がよく見える.

CGL を知っていて、必ず手術を勧められた。その頃には妻は育児疲れで憔悴しており、突然死の心配もあったので苦渋の決断で手術をお願いした。

3. CGL と術後の変化

CGL は、通常生後4ヶ月までは局所麻酔で行われ るが、娘は重度であったため全身麻酔下で実施され た. 半導体レーザーでオトガイ舌筋を1層,2層, 3層と結紮しながら切除、ほとんど出血もなく5分 ほどで終了した(図3). 術後の変化にはとにかく 驚いた. 直後から泣き声が透明感のあるかわいい声 に変わり、表情は穏やかになり、顔はピンク色、手 足は温かく、視線はよく合い、身体を抱こうとした らフニャッと全身柔らかいなど劇的な変化だった (図4). 睡眠は、寝つきがよく、寝息も鼾もなく、 無呼吸も消失した。あまりに静かに熟睡しているの で死んでしまったのではないかと心配になり、何度 も呼吸を確かめに行ったことを思い出す. 哺乳中. 苦しそうに顔色が悪くなることや吐くことも無くな り、術後数日で黄疸も消失し、向き癖も無くなっ た. 術後1ヶ月の診察では、4つの声帯ポリープは 全て消失していた. 我々も昼も夜もずっと抱っこの 生活から解放され育児は楽しくなり、我が子をかわ いいと思えるようになった. 「手術を受けて本当に よかった。逆にあのまま手術を受けなかったら・・・」 と考えるとゾッとした.

こんな素晴らしい手術なのになぜ知られていない のだろうか, 法医学的にも問題の突然死や虐待と関 係するかもしれない. 苦しんでいる赤ちゃんはきっ

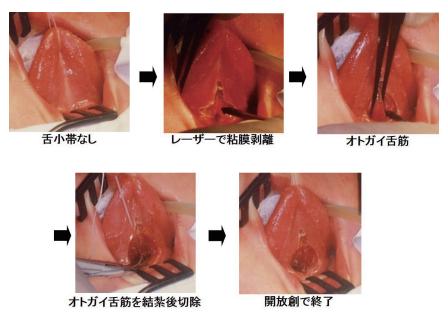


図3 舌喉頭矯正術 (CGL) 乳児の全身麻酔下の術式を示す.



図4 上:術前は顔色悪く,全身緊張し,腹部膨満であった. 下:術後翌日は顔色よく,全身リラックスし,表情が 穏やかになった.

と多いはず、我が家のような悩む親子を救えるのではないかと思い、向井先生に教えて頂きながら共同研究を始めた.

4. CGL のメカニズム

経鼻ファイバースコープによる喉頭の観察では, 術前, 喉頭は高い位置にあり披裂軟骨が前方に偏位 し気道を被っているが、術後、喉頭は後下方に移動し喉頭が直立し気道が開いている(図 2). また CGL の前後に単純エックス線写真撮影、歯科用頭部エックス線規格写真撮影および X 線 CT 撮影し解剖学的変化を調べた結果、術後、喉頭は下方へ、舌骨は前下方へ移動し、下咽頭の最狭窄幅、断面積および容積は増加するため呼吸が改善されることが示唆された 10-13)(図 5). 舌を前方に牽引しているオトガイ舌筋を一部切除するということは、舌を後退させ特に睡眠中の下咽頭は狭窄し睡眠時無呼吸を誘発するように思える. しかし実際にはオトガイ舌筋の付着部を中心に舌骨は下前方方向へ移動し下咽頭腔は拡大する.

また CGL 前後の成人の呼吸機能を検査したところ,肺活量は術前 93%から術後 107%に,1 秒率は 61%から 67%に有意に改善がみられた 6 .

5. ADEL 改善率

CGL を希望した乳児 433 名を対象に、術前と術後1か月来院時に母親に症状の状況をアンケートした結果、哺乳障害、乳児の身体症状、睡眠障害等全てにおいて高率に改善がみられた ^{12,14)} (図 6). 術前は顔色が悪いなどの症状は気づかないことが多い、術後はじめて元々は色白だった、ピンク色だったということに気づくことが多い.

成人では同様に 152 名を対象に、術前と術後 1 か月に本人に症状についてアンケート調査したところ、顕著な改善がみられた 15 (図 7). 特に手術を受け

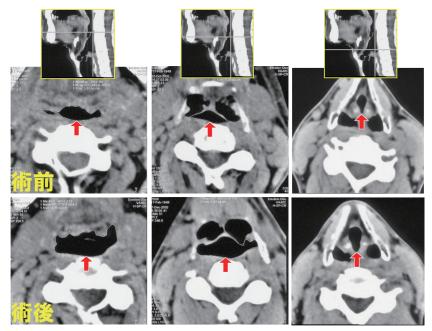


図5 CGL 前後の CT 画像(水平断)の比較 術前後の同部位の気道断面(矢印)を比較すると術後気道は拡大されている.

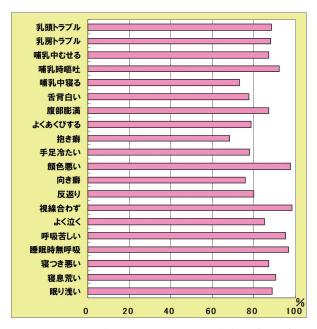
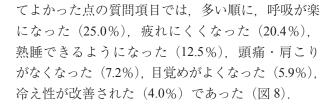


図6 乳児の術後1か月のADEL 症状改善率 (n=433) 乳児の主なADEL 症状と術後1か月の各症状の改善率を 示した. 哺乳,全身, 睡眠いずれも高率に改善された.



6. 睡眠障害

成人では、日中眠気、寝つきが悪い、夜中に起き る、目覚め悪い、熟睡できない、鼾、無呼吸、仰向



図7 成人の術後1か月のADEL症状改善率 (n=152) 成人の主なADEL症状と術後1か月の各症状の改善率を示した.特に睡眠に関する症状(濃い青色)が高率に改善された.

けに寝ることができないなどの睡眠障害を主訴としていることが多い. 睡眠障害は健康への悪影響のみならず, 事故や経済損失など社会的問題となっている

睡眠障害を主訴としCGLを希望して来院した成人を対象に、術前とCGL1か月後に汎用されている睡眠評価尺度質問紙であるエップワース眠気尺度(ESS)と睡眠の質を評価するピッツバーグ睡眠質問表(PSQI)を用いて評価したところ、日中の眠

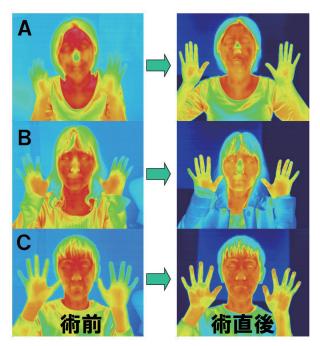


図8 術前後のサーモグラフィーによる表面体温の比較 A:24歳, B:32歳, C:48歳, いずれも冷え性の女性. 術直後から指先の表面体温が上昇した.

気が改善し睡眠の質が向上した.

終夜睡眠モニターにより評価したところ、術後、呼吸障害指数 (RDI) は有意に減少し、動脈血酸素飽和度 (SpO_2) 平均値、 SpO_2 最低値は有意に上昇した (図 9).

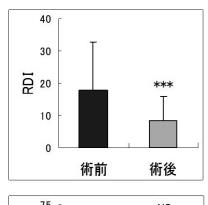
高感度の加速度センサーが内蔵された腕時計型ア

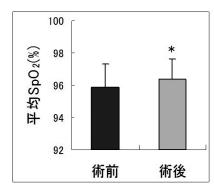
クチグラフを用いて評価したところ, 覚醒中の睡眠時間, 睡眠効率, 入眠後の覚醒時間, 最長の継続睡眠時間などに有意な改善がみられた (表 1). CGL後は, 睡眠中の呼吸が改善することにより, 中途覚醒も減少したため睡眠効率が上昇し, 昼間の眠気も減少したものと考えられた. 睡眠障害の新たな治療法として CGL の有効性が示唆された 16-18).

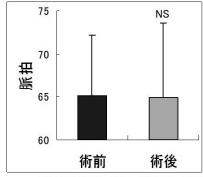
7. 抗加齢

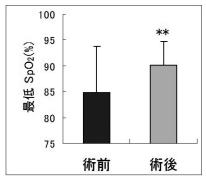
厚労省の疫学調査によると日本人の約6割が「疲労している」と感じ、そのうち約7割は半年以上継続して疲労を感じている。CGLを希望した成人患者の81.4%は「疲れやすい」と感じていた。CGL前、CGL1か月後、2か月後に疲労感VAS法検査、抗加齢QOL質問紙による検査を行った。VAS法および抗加齢QOL質問紙(身体・こころ)の結果、いずれも術後顕著な改善が見られた(図10).

また CGL 前と 1ヵ月後に,指先から数的採血し活性酸素自動分析装置 (FREE・ウィスマー社)を用い酸化ストレス度 (d-ROM) と抗酸化力 (BAP)を測定した.酸化ストレス度は,術後有意に減少し,抗酸化力は増加傾向が見られた. つまり酸化ストレス度が減少し活性酸素除去能が増加した (図11).抗加齢 QOL 質問紙を用いた術前,1 か月後,2 か月後の評価では,身体,精神いずれも健康度が増加









(* p<0.05, ** p<0.01, *** p<0.001, NS : not significant)

図9 CGL 前後の終夜睡眠モニターの変化 CGL 後,呼吸障害指数 (RDI) は減少し, SpO₂ 平均値と最低値は上昇した.

解析項目				術前	術後	p
1	Duration	Down	ベット時間 (分)	410.7	419.4	NS
2	Duration	O-O	眠っている時間 (分)	399.2	405.9	NS
3	Activity Mean	Up	覚醒中の活動数平均	202.8	197.3	NS
4	Activity SD	Up	覚醒中の活動数標準偏差	80.0	82.4	NS
5	Wake Minutes	O-O	覚醒時間	30.4	21.6	< 0.05
6	Wake Minutes	24-Hr	1日の覚醒時間(分)	900.6	884.7	NS
7	Sleep Minutes	Up	覚醒中の睡眠時間 (分)	26.9	12.1	< 0.05
8	Sleep Efficiency	Down	睡眠効率(%)	92.7	95.0	< 0.05
9	Sleep Latency	Down	入眠潜時 (分)	8.9	9.3	NS
10	Wakeafter Sleep Onset	O-O	入眠後の覚醒時間 (分)	30.6	21.9	< 0.05
11	Long Wake Episodes	O-O	睡眠中 5 分以上覚醒回数	1.8	1.3	< 0.05
12	Longest Wake Episodes	O-O	最長の覚醒時間 (分)	14.3	9.9	< 0.05
13	Longest Sleep Episodes	O-O	最長の継続睡眠時間 (分)	177.2	209.0	< 0.05

表 1 CGL 前後のアクチグラフ解析項目による睡眠評価(n=20)

NS: not significant

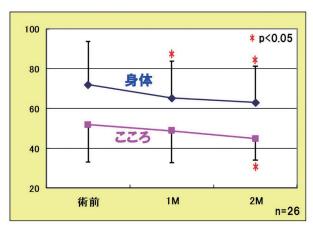


図10 抗加齢 QOL 質問紙による CGL 前後の変化 CGL 前と1か月後、2か月後を比較すると、身体、精神いずれもポイントが減少し健康度が増加した.

したことから CGL の疲労回復効果およびアンチエイジング効果が示唆された 19 .

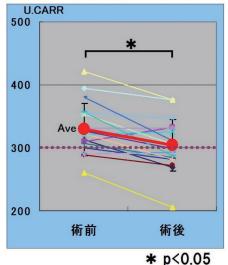
8. 私自身の体験

私は、特に既往歴も無く、頭痛、肩こりや疲労感なども無く、体力、健康には自信があったが CGLを受けた。手術中、オトガイ舌筋第2層を切除した時、気道が突然2倍くらいに拡がった感じがし、呼吸が急に抵抗なく楽になったことを体感した。術後、疼痛はほとんど無く、翌日からは普通に仕事をした。

術前 ADEL 症状がほとんどなかったのであまり 術後の変化は期待していなかったがいくつか改善が 見られた. 翌朝の目覚めがすっきりとして気持ちよ



抗酸化力(BAP)



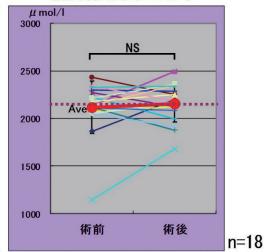


図11 CGL 前後の酸化ストレス度と抗酸化力の変化 CGL 後,酸化ストレス度が減少した (p<0.05).

かったのをよく覚えている. うるさかった鼾が静かになったと家では喜ばれた. カラオケでは声がよく通り高音域が出しやすく気持ちよく歌えるようになった. スキンダイビングをしたとき, 息が長く続き深く潜れるようになり驚いた. 1 か月後, 肺活量は22%増加していた.

9. 最後に

「産経」によると紀元前、中国・周では哺乳、発音などの改善のために舌小帯切除が行われていた.日本では「医心方」(984年)に舌小帯切除の記載がある.15世紀、近代外科医の父と言われた Pare (仏)により舌小帯の有無に関わらずオトガイ舌筋まで口腔底から剥離する術式が確立され、欧州では新生児期にほぼ全員に行われていた²⁰⁾.1980年代、向井氏により哺乳障害のみならず呼吸改善のためにオトガイ舌筋を一部切除する CGL が開発され、3万例以上行われてきた.

CGL は呼吸の改善を目的として行われる,「生きる」の語源は「息をする」だそうだ。食べなくても飲まなくてもある程度は生きられるが、呼吸を止めれば直ちに死に至る。それだけ大事な呼吸を抑制していたのが ADEL だったとも言える。CGL は、比較的侵襲も軽く特に副作用がなく安全な上、一度の手術で永続的に呼吸改善効果が得られる。

CGL は哺乳トラブル改善を主訴として受診することが多いが、小児ではアトピー性皮膚炎、夜泣き、疳の虫など育児困難症状、発達障害の改善を目的として受診する子供も増えている²¹⁻²⁵⁾.成人では、慢性疲労・うつ病の改善やアンチエイジングのため、声楽家は声質、音域、声量の向上のため、またアスリートは持久力、集中力、疲労回復のために受ける人が多い、さらには医療費抑制、少子化対策、人類の幸福のために CGL が広まることを期待する.

10. 謝辞

本編は、令和元年10月6日、国際抗老化再生医療学会総会にて講演させて頂いた内容をまとめた. 貴重な機会を与えて頂いた関係の先生方に深く感謝申し上げます.

文 献

- 向井將,向井千加子,浅岡一之. 先天性舌癒着症・ 喉頭蓋・喉頭偏位症—新生児・乳児の呼吸不全—. 耳鼻臨床, 1990; 83: 1043-1065.
- 2) 滝口守, 向井将, 浅岡一之. 舌小帯短縮症児の酸

- 素飽和度 術前, 術中, 術後の SpO₂ モニターの有用性. 臨床モニター, 1990; 1: 437-443.
- 3) Mukai S, Mukai C, Asaoka K. Ankyloglossia with deviation of the epiglottis and larynx. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 100: 3-20, 1991.
- 4) 向井將, 向井千珈子, 浅岡一之. 先天性舌癒着症・ 喉頭蓋・喉頭偏位症 - 成人の症状と術前後の呼吸 機能の変化. 耳鼻臨床, 84(12): 1991; 1753-1762.
- 5) Mukai S, Mukai C, Asaoka K. Congenital ankyloglossia with deviation of the epiglottis and larynx. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 100: Suppl 1991;153:1-22.
- Mukai S, Mukai C, Asaoka K. Congenital ankyloglossia with deviation of the epiglottis and larynx: symptoms and respiratory function in adults. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993; 102: 620-624.
- 7) 向井將, 向井千珈子, 永杉さよ子. 喉頭矯正術の 呼吸数に及ぼす影響. 舌研報, 1995; 5(1): 1-9.
- 8) 向井將, 永杉さよ子, 東野良恵. 泣き声の心理的 印象と音声分析(第一報). 音声言語医学, 1997; 38:1-10.
- 9) 向井將:舌・喉頭蓋・喉頭偏位症(舌癒着症). 舌 研報, 1998; 8: 1-53.
- 10) Nitta M, Mukai S, Mukai C: The expansion of the hypopharynx by correction of glosso-larynx. *Psychiatry and Clinical Neurosciences*; 2000; 54: 344-345.
- 11) Mukai S, Nitta M. Correction of the glosso-larynx and resultant positional changes of the hyoid bone and cranium. *Acta Otolaryngol* 2002; 122: 644-650.
- 12) Yamamoto I, Yamada Y, Ohira H, Ohtani S, Inagaki M, Kawamata R, Kashima I. Mechanism of respiratory improvement by correction of the glosso-larynx. BKDC, 2003; 31: 81-83.
- 13) Yamamoto I, Mukai S, Nakagawa K, Ohira H, Yamada Y. Analysis of hypopharyngeal airway space after correction of glosso-larynx (CGL) by both cephalometry and computed tomography: Analysis of hypopharyngeal airway space. *Ann ADEL*, 2011; 17: 13-18.
- 14) 西崎靖仁,山本伊佐夫,北川有華他. 舌喉頭矯正 術による哺乳トラブル改善評価. 神奈川歯学, 2009; 44(1): 6-23.
- 15) Yamamoto I, Yamada Y, Ohira H, Ohtani S. Changes in Sleep Disorders after Operation on the Ankyloglossia with Deviation of the Epiglottis and Larynx. BKDC, 2005; 33(2): 106-108.
- Yamamoto I, Nakagawa K, Kitagawa Y. Correction of the epiglottis and larynx (CGL) improves sleep disorders. BKDC, 2009; 37(2): 152-154.
- 17) 山本伊佐夫,中川貴美子,大平寛,山田良広,向 井將.舌喉頭矯正術による成人の睡眠障害改善効 果.日舌誌,2010;16:13-19.
- 18) 篠田健一, 山本伊佐夫, 中川貴美子, 大平 寛, 山田良広, 向井 將: アクチグラフを用いた舌喉 頭矯正術による睡眠障害改善の評価. 神奈川歯 学, 2013; 48(2), 80-87.
- 19) 山本伊佐夫,中川貴美子,永野純子他. 舌喉頭矯 正術による成人の生理的変化. 日舌誌, 2014; 17:

68-69.

- 20) 向井將. 舌癒着症の父, パレ. 日舌誌, 2011; 17: 1-12
- 21) 向井 將, 永杉さよ子. 泣き声の評価 (主観的評価と客観的音声分析の比較) (第二報). 音声言語 医学, 1999; 40: 349-356.
- 22) Yamamoto I, Yamada Y, Ohira H, Ohtani S. Possibilities of prevention of the child abuse and of release from stress of childcare by correction of the glosso-larynx. BKDC, 2004: 32: 101-103.
- 23) 中川貴美子, 山本伊佐夫, 永野純子他. 小児における CGL 前後の ADEL 症状の変化について. 日舌誌, 2011; 17, 43-49.
- 24) 山本伊佐夫, 中川貴美子, 大平 寛, 他. 舌喉頭 矯正術による乳児啼泣改善と母親の愛着度変化. 日舌誌, 2012; 18: 14-19.
- 25) 長沼睦雄, 山本伊佐夫, 津野宏子, 向井將. 舌癒 着症矯正術によるアスペルガー症候群女児の改善 例. 舌研報, 2006; 14(1): 11-16.