

総括研究報告書

新生児期の効果的な聴覚スクリーニング方法と療育体制に関する研究

主任研究者 三科 潤 東京女子医科大学母子総合医療センター - 助教授

研究要旨：聴覚障害児の発症は 1,000 出生に 1~2 人と言われるが、聴覚障害児に対する療育を早期に開始すれば、言語能力や知能発達に著しい効果があることが示されている。聴覚障害を早期に発見するために、新生児期の効果的な聴覚スクリーニング方法について検討し、研究設計を作成して新生児期聴覚スクリーニングを実施した。全国の 19 施設において、初年度に作成したプロトコルに従って、平成 12 年 2 月までに、自動聴性脳幹反応（AABR）を用いて 9,590 名のスクリーニングを行い、両側難聴 12 名（0.13%）と片側難聴 8 名（0.08%）を発見した。両側難聴例に対しては早期療育を開始した。また、聴覚スクリーニング方法に関して、AABR と耳音響放射法(OAE)を比較検討した。また、スクリーニング陽性児が遅滞なく確定診断、早期療育を受けられる体制を整えるために、わが国の乳児期の療育体制の現状調査を行った。更に、スクリーニング実施により発見された例の早期療育方法について検討し、「聴覚障害児早期療育マニュアル」を作成した。また、米国では全出生児に対する新生児聴覚スクリーニングが広がっているが、米国における聴覚スクリーニングの現状を視察し、我が国に導入した場合の問題点を検討した。

分担研究者	坂田英明 埼玉県立小児医療センター - 耳鼻咽喉科医員
多田 裕 東邦大学新生児学教室 教授	森田訓子 帝京大学耳鼻咽喉科非常勤講師
田中美郷 帝京大学文学部 教授	山口 暁 山口病院院長
加我君孝 東京大学耳鼻咽喉科 教授	永井 泰 永井クリニック院長
久繁哲徳 徳島大学衛生学講座 教授	戸苅 創 名古屋市立大学小児科助教授
研究協力者	加藤稲子 名古屋市立大学小児科助手
大島 毅 東邦大学新生児学教室助手	側島久典 名古屋第二赤十字病院小児科部長
石井のぞみ 東京女子医科大学母子総合医療センター - 助手	渡辺 勇 名古屋市立城北病院小児科部長
田中大介 昭和大学小児科助手	藤村正哲 大阪府立母子保健総合医療センター - 副所長
川上 義 日赤医療センター - 新生児科部長	住田 裕 大阪府立母子保健総合医療センター - 新生児科部長
中島やよひ 日赤医療センター - 新生児科医員	中村 肇 神戸大学小児科教授
加部一彦 愛育病院新生児科部長	上谷良行 神戸大学小児科助教授
黄 麗輝 東京大学耳鼻咽喉科研究生	米谷昌彦 神戸大学小児科助手
都筑俊寛 帝京大学耳鼻咽喉科助手	久呉真章 姫路赤十字病院小児科部長
大野 勉 埼玉県立小児医療センター - 未熟児新生児科部長	三宅 潤 パルモア病院院長
野澤政代 埼玉県立小児医療センター - 未熟児新生児科	御牧信義 倉敷成人病センター - 小児科部長
	小西行郎 埼玉医科大学小児科教授

奈良隆寛 埼玉県立小児医療センター - 神経科部長
福島邦博 岡山大学耳鼻咽喉科助手
内山 勉 富士見台聴こえとことばの教室副施設長
針谷しげ子 帝京大学耳鼻咽喉科言語治療室

A.研究目的

聴覚障害を早期に発見し、療育を早期に開始すれば、言語能力や知能発達に著しい効果があるといわれている。極低出生体重児や重症仮死児などのハイリスク児においては聴覚障害の発症頻度は1~2%と高く、現在多くのNICUでは、ハイリスク児に対しては聴覚脳幹反応(ABR)を用いて聴覚障害の早期発見がはかられている。一方、聴覚障害児の約半数は他には何等の疾病を有しないロ-リスク児であるが、これまでは有効な聴覚スクリーニング方法がないために、聴覚障害の発見は2歳以降になってことばの遅れで発見されることが多く、診断および療育は更に遅くなっていた。早期療育の効果が顕著に現れるのは、これらロ-リスク児であり、ロ-リスク児の聴覚障害の早期発見が重要である。

近年、自動聴覚脳幹反応(AABR)や耳音響放射(OAE)を利用した新しい聴覚スクリーニング方法が開発された。これらを利用して欧米では全出生児を対象とした新生児期聴覚ユニバ-サル・スクリーニング(UNHS)が進められ、米小児科学会もその実施を勧告している。現在、米国では生後6か月までに療育を開始することを目標にUNHSが行われ、1999年末までには約半数の州で、出生施設でのスクリーニングの義務が法制化されている。

米国の新生児聴覚スクリーニングの結果から、聴覚障害の発症頻度は1,000出生に1~2人とされており、もし発症頻度が米国と変わらなければ、わが国では年間約1,000~2,000人の聴覚障害児が発生していることになる。

そこで本研究では、わが国ではこれまで実施されていなかった全出生児に対する新生児期の聴覚スクリーニングを実施し、聴覚障害児の早期発見を有効に行える方法、ユニバ-サル・スクリーニングを実施しうる

体制などを検討し、わが国に於ける、新生児期の聴覚障害のスクリーニング方法の確立をはかる。さらに、スクリーニングで異常が発見された場合の確定診断の方法や、早期に発見された聴覚障害児の療育方法についても検討する。また、遅滞なく確定診断が受けられ、障害が診断された場合には地域で早期療育が直ちに受けられる体制づくりについても検討する。更に、スクリーニングの効果を判定するためには、スクリーニングで異常が発見された児を追跡するシステムが不可欠であるが、個人情報の保護に留意しつつ、追跡システムを構築する事を検討する。

またスクリーニングによる社会的経済的な効率についても検討する。

B.研究方法

第2年度の研究として以下のように、研究を分担して行った。

1. 新生児期の聴覚スクリーニング実施および追跡調査による効果的なスクリーニング方法の検討：
三科 潤、多田 裕
2. 新生児期の聴覚障害診断法に関する検討 - 特に、自動聴覚脳幹反応と耳音響反射法の比較検討：
加我君孝
3. わが国における早期療育の現状に関する調査：
三科 潤、久繁哲徳
4. 聴覚障害の診断および聴覚障害児の早期療育方法に関する検討および早期療育マニュアル作成：
田中美郷
5. 米国に於ける新生児期聴覚スクリーニング実施体制および早期療育体制に関する視察調査：
三科 潤、多田 裕、田中美郷
6. わが国における新生児期聴覚スクリーニング実施体制および早期療育体制に関する検討：
三科 潤、多田 裕

1. 新生児期の聴覚スクリーニング実施および追跡調査による効果的なスクリーニング方法の検討

初年度の作成したスクリーニング実施のプロトコルに従い、新生児期の聴覚スクリーニングを実施した。聴覚障害の発症頻度を考慮すると、聴覚スクリーニング検査の特異度および感度を有効に検討するためには、スクリーニングの対象例は少なくとも 10000 例が必要となる。現在、聴覚障害例発見後の早期療育が可能な地区である関東、中京、関西地区の 19 の医療機関において、研究参加施設の院内出生児およびNICU に収容された児のうち本研究への協力に、文書による同意が得られたものを対象として、スクリーニングを実施した。

新生児期の聴覚スクリーニング法としては今年度は特異度を重視して選択し、現在、特異度が最も高いスクリーニング法である、自動聴性脳幹反応聴力検査 AABR (ネイタス社製アルゴ 2) を用いた。検査は、自然睡眠下にベッドサイドで行った。ロ - リスクの正期産児は原則として入院中 (生後 1 週以内) に検査を実施した。NICU 入院例は、児の状態が安定し、コットに出た後、原則として修正 36 ~ 44 週頃とした。

初回に "refer" が出た場合は、出来るだけ入院中に再検し、2 回目の検査でも両側で "refer" が出た場合は、スクリーニング「陽性」とし、精密検査として聴性脳幹反応 ABR を実施する。ハイリスク児に対しては全例に、ABR も実施する。

ABR は 40dbHL において分離不良の場合は異常と判定する。ABR が正常の場合は、スクリーニング「陰性」群と同様の扱いとする。

平成 12 年 2 月までに、9,590 名のスクリーニングを行った。スクリーニング陽性 (入院中 2 回 refer) 例は 40 例、0.42% であり、両側聴覚障害例は 12 例、0.13% であった。これまで欧米より報告されている refer 率は 3 ~ 8% であり、これに比して我々の refer 率は非常に低く、検査の特異度は 99.7% と非常に高かった。両側聴覚障害発症率 0.13% は米国での発症率 (1000 出生に 1 ~ 2) とほぼ同様であった。

また、refer 率、障害発症率をリスク別に見ると、ハイリスク児は 433 例で、refer 率は 5.1%、両側聴覚障害は 7 例、1.6% であり、ロ - リスク児は 9157 例で refer 率 0.2%、両側聴覚障害は 5 例、0.05% であった。ハイリスク児においては refer 率、障害発症率共に高いが、障害発症率は従来報告されている頻度と同様であった。

聴覚障害と診断された児に対しては、補聴器装着を含む早期療育を実施している。

また、スクリーニングにより、片側聴覚障害例も、8 例発見された。片側聴覚障害例に対しては、補聴器装用等は不要であるが、学業不振との関連も言われており、耳鼻科的なフォローも含めてこれらの児の学童期以降も含む長期予後も追跡する必要がある。

追跡調査のために、保護者の同意を得て、対象者全例の調査票を主任研究者のもとで登録した。第 3 年度に 1 歳 6 か月の予後調査を開始する予定である。

2. 新生児期の聴覚障害診断法に関する検討 - 特に、自動聴性脳幹反応と耳音響反射法の比較検討

現在欧米で、新生児聴覚スクリーニングに使用されている方法としては、自動聴性脳幹反応 (AABR) と耳音響反射 (DPOAE または TEOAE) がある。自動聴性脳幹反応 (AABR) は正確度が優れているが、器械および消耗品の価格が耳音響反射に比して高価である。耳音響反射 (DPOAE または TEOAE) は検査所用時間も AABR に比して、短時間で行えるが、偽陽性率が高い。特に、液体の存在に大きく影響を受けるため、出生直後は偽陽性率がより高くなる。また、内耳より中枢の異常による難聴の検出は出来ない。米国では OAE をスクリーニングに使用する場合は、AABR と組み合わせて使用している施設が多いようであり、ヨーロッパの各国では、OAE でスクリーニングし、陽性例には ABR を実施する方法が多いようであるが、スクリーニング用の簡便な DPOAE あるいは TEOAE 装置が開発されたのは、この 1 ~ 2 年以内である。

現在、わが国でスクリーニング装置として使用可能

なのは、自動聴性脳幹反応（AABR）のアルゴのみであるが、今後導入される可能性が強い耳音響反射（今回はDPOAE）に関しても、検討を行った。今回はスクリーニングを目的としたDPOAEのスクリーナーを用いて正しく難聴の診断が可能かどうか検討するために、30例の難聴疑いの乳幼児を対象にABRと比較検討した。その結果、93.3%はABRの結果と一致したが、2例6.7%はABRは正常であるのに、DPOAEの反応を認めなかった。ABR異常の8例はすべて、DPOAEの反応も認めなかった。すなわち、感度は100%であったが、特異度は91%であった。

OAEスクリーナーはAABRに比して偽陽性率は高いが、安価で使用法も簡単であり、全出生児を対象に聴覚スクリーニングを実施する場合には、小規模分娩施設などで用いることが出来ると考えられる。

3. わが国における早期療育の現状に関する調査

新生児期の聴覚スクリーニング実施後に必要な難聴乳児の早期診断および早期療育体制の整備を行うために、わが国における乳児期における診断体制および早期療育体制の現状の調査を行った。米国の新生児聴覚スクリーニングの結果から、聴覚障害児の発症は1,000出生に1~2人とされている。わが国においては、我々の実施している新生児聴覚スクリーニングの結果からは、両側聴覚障害発症は0.1%であり、我が国では年間約1,200人の聴覚障害児が発生していると算定される。また、全新生児を対象とする聴覚スクリーニングを導入した場合に必要な精密検査実施は、我々の成績では要精検率は0.4%であったので、少なくとも年間5,000人の乳児への実施が必要となる。

6か月以下の乳児の聴覚障害の診断が可能とする機関は170あった。聴性脳幹反応（ABR）とティンパノメトリーは殆どの機関に備えられていた。しかし、乳幼児の聴覚障害の診断に不可欠な遊戯聴力検査などの検査法が実施できる医療機関は、その半数であり、耳音響放射（OAE）は新しい器械のためか、約3分の1の機関にしか備えられていなかった。これらの機関

で、1998年に診断した1歳以下の聴覚障害児の症例数は371例であったが、1例も診断していない医療機関が約半数であった。また、地域的な偏在もあるので、診断能力を各地域毎に検討して行く必要がある。

スクリーニングで発見された要精検児が確実に、遅滞なく確定診断を受けられ、早期療育につなげるシステムが必要である。それには、周産期センターが核となって、全体を把握してゆくことがもっとも合理的であると考えられる。

難聴幼児の療育を行うのは、厚生省所管の難聴幼児通園施設であるが、全国で26カ所しかない。今回の調査で、難聴幼児通園施設を含め1歳未満の難聴児の療育を行うと回答した施設は、通園施設および病院が104施設、聾学校幼稚部が75校あった。しかし、難聴幼児通園施設以外の通園施設の多くは、他の障害児との合同療育・保育が主であり、聴覚障害児に対しての補聴器装用や聴能訓練等を実施しているところは少なかった。聾学校幼稚部で1歳未満の難聴児の療育を行っているところは75校あり、1998年の難聴乳児療育数を見ると、1歳以下の乳児の3分の2が聾学校幼稚部で療育されている。これは、難聴幼児通園施設の絶対数が少ないためであり、今後スクリーニングにより、療育開始年齢が下がり、1歳以下の児が増加することに対応した整備が急務である。また、米国では3歳までの児は家庭で療育を行う方が望ましいとのこと、療育担当者、指導者を派遣して療育を行っているが、わが国でも長期的な視野の元で、聾学校幼稚部とも連携して、乳児の療育をどのようなシステムで実施することが望ましいか検討する必要がある。

4. 聴覚障害の診断および聴覚障害児の早期療育方法に関する検討および早期療育マニュアル作成

難聴児の早期検出・検査・診断・療育ネットワークのアウトライン、難聴児の理解のために、精密検査診断機関・キーステーション、療育機関、難聴乳幼児に対する早期介入、ホームトレーニング・プログラム、難聴を有する（あるいは疑われる）新生児、乳児に対する介入、地域

社会でのケアについて述べた、聴覚障害児の早期療育マニュアルを作成した。

5. 新生児期聴覚スクリーニングおよび早期療育の米国に於ける実施体制に関する視察調査結果とわが国に導入した場合の問題点

メリランド州ボルティモアおよびコロラド州デンバーにおいて、新生児期聴覚スクリーニング実施体制および早期療育体制の視察調査を行った。

米国では、Audiologist が聴覚スクリーニングおよび聴覚障害の診断を担当している。3 歳以下の乳幼児の療育は原則として、家庭訪問により行われていた。療育は speech pathologist, hearing pathologist, teacher など多種の職種の人材が担当しており、担当の coordinator が家族の希望に従った療育方法を受けられるようにしていた。

わが国には Audiologist に相当する職種はなく、難聴乳幼児の療育の経験がある人材も少ないが、今後、言語聴覚士に乳幼児療育の教育を行って人材育成につとめる必要がある。

また、米国では分娩数が多い病院での出生が殆どであるのに反し、わが国では小規模の分娩施設での出生が多い。これは、スクリーニングを実施する上で、不利な点であるが、小規模分娩施設では、比較的安価な耳音響放射 (TOAE または DPOAE) を使用し、refer 例はその地域を担当する NICU で AABR を実施後、確定診断が必要な症例は耳鼻科へ紹介するシステムを作ることで、Universal Neonatal Hearing Screening が可能になる。

6. わが国における新生児期聴覚スクリーニング実施体制に関する検討

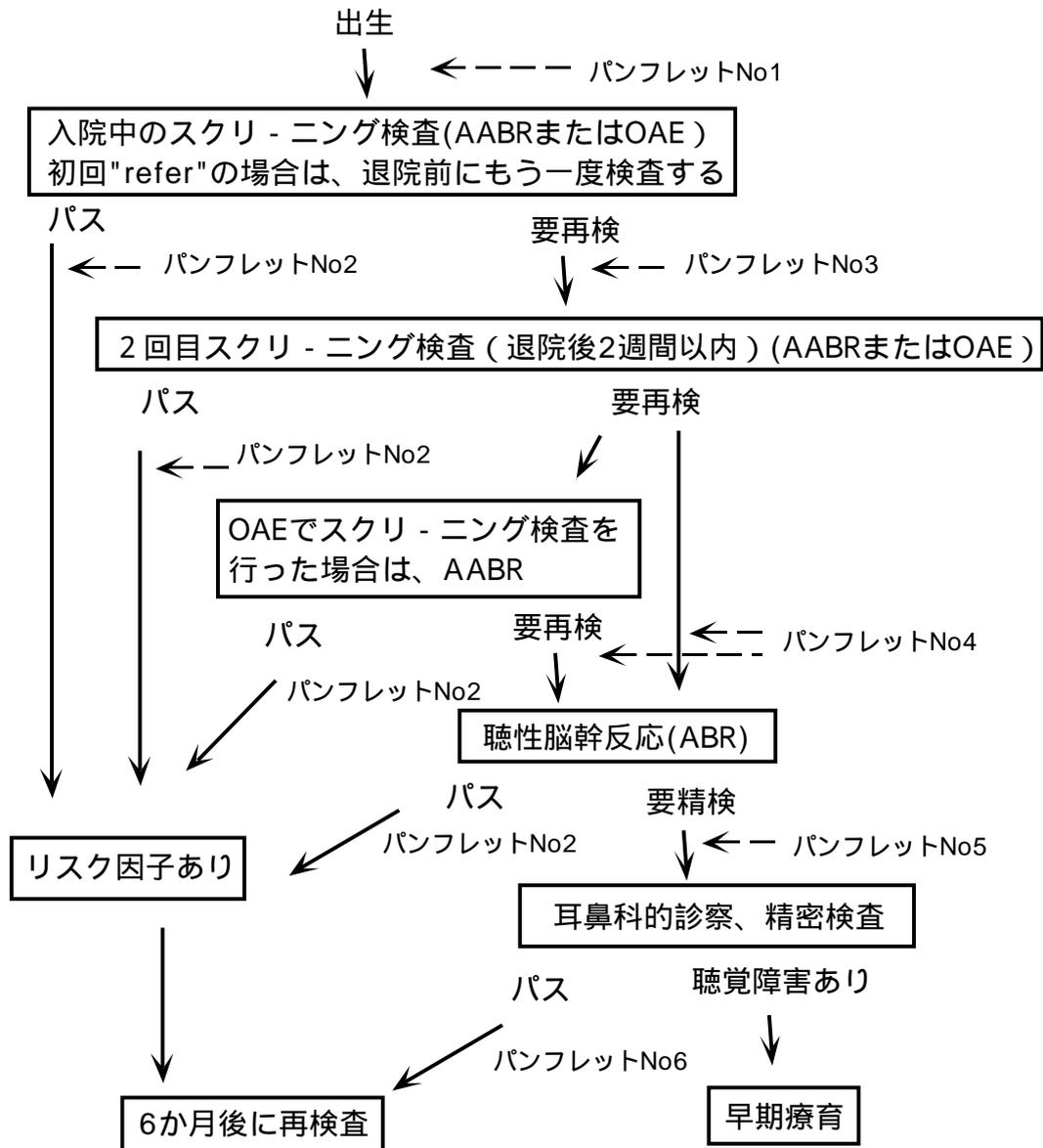
わが国で、全新生児に聴覚スクリーニングを実施する方法につき検討した。自動聴性脳幹反応検査 (AABR) および耳音響反射検査 (DPOAE または TEOAE) を併用すれば全出生施設での実施は可能であり、確定診断や聴覚障害児の療育体制は周産期医療

整備事業と関連させて整備することが適当である。

スクリーニングで発見された要精検児が確実に、遅滞なく確定診断を受けられ、早期療育につなげるシステムづくりが必要であり、また、スクリーニングの効果を判定するためにも、個人情報の保護に留意した上での登録・追跡システムが必要である。(図 1)

全新生児聴覚スクリーニングのフローチャート

「新生児期の効果的な聴覚スクリーニング方法と療育体制に関する研究」班



お子さんにはお母さんの声が聞こえていますか？

赤ちゃんは1才前でも、色々な音を聞いたり、声を出したりして、話し始めるための準備をしています。ことばの発達の上で、とても大切な時期です。

ことばの発達が遅れないように、聴こえの障害を早く発見する事が大切です。出生後すぐに、聴こえの障害が無いかどうかのスクリーニングをしますが、これでパスした場合でも、中耳炎やおたふく風邪によって、後から聴こえの障害が起こることもありますので、スクリーニングをパスしても、お子さまの聴こえに異常がないかどうかの注意を続ける必要があります。

お子さまの聴こえとことばの発達を月齢毎に書き出してあります。出来る項目にチェックをして、各月齢でチェックした項目が半分以下なら主治医に相談して下さい。

<3か月頃>

- 大きな音に驚く。
- 大きな音で目を覚ます。
- 音がする方を向く。
- 泣いているときに、声をかけると泣きやむ。
- あやすと笑う。
- 話しかけると、「ア -」「ウ -」などと声を出す。

<6か月頃>

- 音がする方を向く。
- 音が出るおもちゃを好む。
- 両親など、よく知っている人の声を聞きわける。
- 声を出して笑う。
- 「キヤッキヤ」などと声を出してよるこぶ。
- 人に向かって声を出す。

<9か月頃>

- 名前を呼ぶとふりむく。
- 「イナイイナイバ -」の遊びを喜ぶ。
- 叱った声「ダメッ!」「コラ!」などというと、手を引っ込めたり、泣き出したりする。
- おもちゃに向かって声を出す。
- 「マ」「パ」「バ」などの音を出す。
- 「チャ」「ダダ」などの音を出す。

<12か月頃>

- 「ちょうだい」「ねんね」「いらっしやい」などのことばを理解する。
- 「バイバイ」のことばに反応する。
- 大人のことばをまねようとする。
- 意味のある言葉ではないが、さかんにおしゃべりをする。
- 意味があることばを1つか2つ言える。
(食べ物のことを「マンマ」、おかあさんを「ママ」など)
- 単語の一部をまねて言う。

<1才6か月頃>

- 絵本を読んでもらいたがる。
- 絵本を見て知っているものを指す。
- 簡単ないいつけがわかる。(「その本を取って」「このゴミを捨てて」など)
- 意味があることばを1つか2つ言える。
- 意味があることばを3つ以上言える。
- 絵本を見て知っているものの名前を言う。