厚生科学研究費補助金(こども家庭総合研究事業) 研究報告書

新生児期の聴覚障害診断方法と療育体制に関する研究

研究協力者 森田訓子 帝京大学医学部耳鼻咽喉科非常勤講師

研究要旨:自動化された聴性脳幹反応検査(Automated ABR)および耳音響放射検査は操作が簡便で測定時間も短いため、最近我が国でもこれらの検査を導入して新生児聴覚スクリーニングが行われるようになった。今回は Automated ABR を用いて、新生児聴覚スクリーニングの有効性を検討した。新生時期は脳幹の機能が未熟なため、難聴の確定診断にはその後数ヶ月の経過観察が必要である。そこで同スクリーニング検出児に聴力検査を行って経過を観察した。同時に、精査から難聴診断に至る間の保護者に対する指導および診断後の早期療育プログラムも併せて呈示した。

.新生児聴覚スクリーニングの成績と有効性 A.研究目的

我が国には従来から乳幼児健康診査(以下健診 と略)制度があり、難聴児発見にも貢献してき た。しかし、きこえについての質問票や音刺激 に対する聴性反射あるいは聴性行動反応を観察 する方法が用いられてきたため、難聴の見逃し 例が後を絶たなかった 1)。最近、判定が自動化さ Auditory Brainstem Response (Automated ABR)や耳音響放射(Otoacoustic Emissions : OAE)という他覚的聴力検査が可 能になり、欧米では新生児聴覚スクリーニング への導入が既に法制化の段階を迎えている。し かし、我が国では上記スクリーニングは試みが 始まったばかりである。今回 Automated ABR を用いた新生児聴覚スクリーニングを実施し、 その有効性を検討すると共に、利点および問題 点について考察した。

B.研究方法

平成 10 年 8 月から平成 11 年 7 月にかけて出 生した、生後2~5日目の新生児(ローリスク児) 1277 名のうち、natus®-ALGO™2e を用いた Automated ABR による聴覚スクリーニングに 同意の得られた 948 名(男 486 名、女 462 名)、 計 1896 耳を対象とした。聴覚スクリーニングの 検査には natus_®ALGO[™]2e を用いた。音刺激は 専用のイヤーカップラーを装着して、700~ 5000Hz、35dBnHL のクリック音を右側 37 回/ 秒、左側 34 回/秒の間隔で与えた。前額正中部 に関電極、後頚部に不関電極、肩部に接地電極 を置き、解析時間 25msec で反応を記録した。 得られた波形は、あらかじめ検査装置に入力さ れているテンプレート(ABR で聴力正常と判定 された乳児の、 波閾値の波形を基に作製され たもの)と照合され、アルゴリズム解析により 両者の波形が一致したと判定された場合は pass

と表示された。掃引回数 15000 回に達しても一致しない場合は refer と判定された。再検査でも refer となった例は小張総合病院耳鼻咽喉科にて 精査とし、耳鼻咽頭視診、聴覚発達チェックリスト検査、聴性脳幹反応検査(ABR)、聴性反射検査、ティンパノメトリー等を行った。ABR は Neuropack Four mini を用い、 波の消失を指標にして閾値を決定した。その後のフォローでは、年齢に応じて聴性行動反応聴力検査(Behavioral Observation Audiometry: BOA)、条件詮索反応聴力検査(Conditioned Orientation Reflex Audiometry: COR)、津守・稲毛乳幼児精神発達質問紙による検査なども行った。

さらに、平成 10 年 10 月の出生児から、 Automated ABR 未実施児および Automated ABR pass 児のうち同意の得られた者に対して、 「きこえについてのアンケート」の実施を開始 し、偽陰性例の有無を確認した。このアンケートは、田中らの聴覚発達チェックリスト²⁾を基に して作成した。今回は Automated ABR 実施児 のうち、4 か月および 6 か月時のアンケートを回 収できた 216 名について検討した。全体のフローチャートを図 1 に示す。4 か月および 6 か月時のアンケート項目を表 1、2 に示す。

C.研究結果

Automated ABR を一回目に pass した児は 936 名(男 478 名、女 458 名) refer 児は 12 名(男 8 名、女 4 名)であった。二回目も refer であった例は 5 名(両側:男 1 名、一側:男 2 名、女 2 名)であった。耳鼻咽喉科精査の結果、両側 refer1 名は一側高度難聴、一側 refer4 名は一側高度難聴 1 名、一側中等度難聴 3 名で、偽陽性例は 1 名(1耳)であった。なお、両側 refer 例は、耳鼻咽喉科初診時(1か月時)に ABR 波閾値が右耳 90dBnHL、左耳 50dBnHL と両

側の閾値上昇を認めたが、5か月時に右耳閾値90dBnHL、左耳閾値30dBnHLとなったため、一側高度難聴と判断した。検査の測定時間は平均3分14秒であった。

4 か月および 6 か月時のきこえについてのアンケート回答結果を表 3、4 に示す。4 か月時のアンケートでは、1項目以上×をつけた者は 77 名で、項目1の異常が多かった。6 か月時に1項目以上×をつけた者は7名であった。この7名は、その後の精査で難聴所見はなく、偽陰性例は認めなかった。

D.考察

新生児に対する聴覚スクリーニングの試みは、1960年代になって行われるようになった。Downs M.P.ら ³⁾は 90dBSPL のバンドノイズ (2500~3500Hz)を新生児にきかせ、眼瞼反射の有無を観察した。その後、Simmons F.B.ら ⁴⁾は Crib-O-Gram を用いて、92dBSPL のバンドノイズ (2000~4000)に対する新生児の体動を記録した。しかし眼瞼反射や体動などの聴性反射は閾値が高いため、高度難聴の検出に限られていた。また偽陽性例も多く聴覚スクリーニングに適した方法とは言えなかった。

1979 年、Schulman-Galambos C.ら ⁵⁾は聴性脳幹反応検査(ABR)を新生児に行い、聴覚スクリーニングに有用であると報告した。しかし従来の ABR は検査に時間がかかるため、新生児全例を対象とした聴覚スクリーニングの検査として適しているとは言い難く、おもに NICU において難聴のハイリスク因子をもつ子どもの聴覚スクリーニングに用いられてきた ⁶⁾。

1990 年代になって、35dBnHL のクリック音を両耳に同時に与えて、得られた波形を自動判定する Automated ABR が出現したことにより、新生児全例を対象に聴覚スクリーニングを行うことが可能になった。Automated ABR を用いた新生児聴覚スクリーニングの結果について、幾つかの報告がなされている $^{7)\sim13}$ 。検査の所要時間は約 $5\sim6$ 分 $^{10)12}$ と言われているが、今回の結果でも平均 3 分 14 秒であり、従来の ABR にくらべ測定時間は著しく短縮された。したがって、新生児は催眠剤なしに充分検査できると考えられた。

検査の refer 率は $1 \sim 11\%$ 、平均 $4\%^{7/\sim 12}$ と報告されているが、今回、1 回目の検査が refer の場合に再検査を行う 2 段階の判定を行ったところ、refer 率が初回の 1,3%から再検査時 0,5%に減少した。我が国では、新生児は通常生後 5

日目頃退院する。したがって、退院までに Automated ABR を再検査することにより、ス クリーニングの refer 率を低下させることが可能 である。

偽陽性率に関しては、0,6~4,7%⁷⁾⁻⁹⁾¹²⁾との報告が見られたが、初回検査で refer と判定された後、再検査を行う2段階判定を行った報告 ¹¹⁾では、偽陽性率は 0,3%に減少していた。今回の聴覚スクリーニングにおいても、2段階判定を行って偽陽性率は 0,3%であったので、精査に要する経費を軽減できると考えられた。

一方偽陰性率については、0% 8)9)12)および20%13)であった。しかし、偽陰性と判定した方法が明記されていたのは対象児全例に ABR を行った2 報告 8)12)のみであった。今回は検査で Passと判定された子どもに対して、 きこえについてのアンケートを用いた追跡調査を行ったが、生後6か月の時点では偽陰性例は見いだされなかった。本研究は、対象児が3歳になるまでアンケートによる追跡調査を継続するので、今後さらに検査の有効性について検討する予定である。

Automated ABR は刺激音圧が 35dBnHL であるため、軽・中等度難聴も発見可能である。したがって、早期から療育を開始することにより、難聴によるコミュニケーション障害の出現を予防することが可能となる利点がある。

しかし、いくつかの問題点も認められた。検査時に耳に装着するイヤーカップラーは現在使い捨てにされるため、コストが高くなるという問題点がみられた。

また検査が出生直後に行われるため、保護者は子どものきこえの様子に疑問を持つ時間的余裕がない。したがって、検査の結果、難聴があるかも知れないと告げられた時の保護者の精神的動揺は非常に大きい。この点に充分対応できる人材や受け入れ機関の確保が不可欠である。

さらに、聴覚スクリーニングの実施時期についての検討も必要である。今回の Automated ABR 両側 refer 例のように、ABR の閾値は経時的に変化する可能性があり、新生児期がスクリーニングに最適な時期とは言い難い。我が国には、従来から乳幼児健診の制度が確立しており、3~4か月児健診の際にきこえの検査を行っている地域が多い。しかし今までは他覚的聴力検査の導入が困難であったため、聴性反射や聴性行動反応を指標にした検査を用いざるを得ず、難聴の見逃し例も多かった¹)。Automated ABR に関しては、電極を装着する煩雑さ、装置の価格や検

査にかかる費用が高い、月齢の高い乳児は活動が活発になり偽陽性率が高くなる、等の点から乳児健診への導入は困難であろう。

最近、判定が自動化された耳音響放射 (Otoacoustic emissions:OAE)の装置が開発 された。OAE は中耳炎の存在などにより、refer 率が Automated ABR より高くなる問題点もある ¹⁰⁾が、電極装着が不要、また判定の自動化による測定時間の短縮等により、今後乳児の聴覚スクリーニングに導入できる可能性がある。したがって、今後は聴覚スクリーニングの有効性について Automated ABR と OAE を比較検討する際、実施時期も考慮に入れる必要があると考えられた。

また、難聴は後天性あるいは進行性の場合もあるので、新生時期を含めた乳児期の聴覚スクリーニングの結果に固執していると、その後の難聴の存在を見逃す危険性もある。したがってParving A.¹⁴⁾も述べているように、乳児期から学童期まで継続した健診体制の充実が今後一層重要になると思われた

F 結語

1.平成 10 年 8 月から平成 11 年 7 月にかけて、 生後 2~5 日の新生児 948 名に Automated ABR を用いた聴覚スクリーニングを実施した。

2.偽陽性例は1名、偽陰性例はなく、Automated ABR の信頼性は高いと考えられた。

3.Automated ABR は操作が簡便、測定時間も短く、多数の新生児に検査可能と考えられた。また軽・中等度難聴の発見も可能で、早期療育を開始できる利点も認められた。

4.一方、スクリーニングを実施するにあたっては、 保護者の精神的負担に充分対応できる受け入れ 機関の整備が不可欠と考えられた。また、聴力 閾値は経時的に変化する可能性があり、聴覚ス クリーニング実施時期についての検討も必要と 思われた。

5.今後は、乳児期から学童期まで継続した健診体制の充実が必要と考えられた。

.新生児聴覚スクリーニング後の経過とフォロープログラム

A.研究目的

新生児期は脳幹の機能が未熟なため、月齢と 共に聴性脳幹反応聴力検査(ABR)の閾値は変 化する可能性があり、難聴の診断にあたっては 経過を観察する必要がある。そこで新生児聴覚 スクリーニング検出児について、5~12 か月間 聴力検査を行って経過を観察した。また、精査から難聴診断に至る間の保護者に対する指導、および診断後の早期療育プログラム等も併せて考察した。

B.研究方法

Automated ABR が両側または一側 refer で精査を受けた8名(refer 13耳、pass 3耳)と、pass したが受診した1名(2耳)を対象とした。

方法は、ABR と聴性行動反応聴力検査 (Behavioral Observation Audiometry: BOA)あるいは条件詮索反応聴力検査 (Conditioned Orientation Reflex Audiometry: COR)を行い、5~12 か月間経過を観察した。ABR は日本光電 Neuropack MEB-2200 あるいは Neuropack Four miniを用い、 波消失を指標に閾値を決定した。経過観察は、帝京大学附属病院および小張総合病院の耳鼻咽喉科でおこなった。

なお、精査から難聴診断に至るまでの間は親指導を、また診断後は早期療育プログラム(ホームトレーニング ¹⁵⁾)に基づく指導を行った。 C.研究結果

Automated ABR で refer となった 13 耳は、 耳鼻咽喉科初診時、すべて ABR の 波閾値が 50dBnHL 以上であった。Automated ABR pass 5 耳中 3 耳は初診時 波閾値が 30dBnHL であ ったが、2 耳は 50 および 70dBnHL であった。 その後 5~9 か月間に refer 2 耳、pass 2 耳の 波閾値が 20dBnHL 以上改善し、その内 refer 1 耳、pass 2 耳は 30dBnHL 以内となった。ABR の経時的変化を図 2 に示す。

D.考察

Automated ABR を用いた新生児聴覚スクリーニングの有効性については、前項 で報告した如く信頼性は高いと考えられた。

しかし Automated ABR と精査時の初回 ABR の結果が必ずしも一致しない例が報告されている $^{8)}$ 。今回の結果では、Automated ABR と初回 ABR の一致率は 80 だった。また、その後の追跡調査で聴力閾値が改善していった例も報告されている $^{8)11}$ 。図 2 に示したように、筆者の検査結果においても 5 から 5 12か月の間に、 5 18耳中 5 4耳の 5 4目の 5 6日に、 5 7日の日に、 5 8日においても 5 7日の日に、 5 8日によった。

ABR は新生児期でも記録可能であるが、蝸牛神経の髄鞘化が出生時ほぼ完成しているのに対して、脳幹の聴覚伝導路は髄鞘化の完成までに 1~2 年を要する 16)といわれている。したがって、

聴力正常な乳児でも ABR の波形や潜時は発達とともに変化していく可能性がある。難聴が疑われる乳児については、その後の療育の有無にも関係するので、難聴診断にあたっては新生児期のみでなく引き続き経過をみていくことが必要である。

親にとって、精査機関を受診して難聴の診断がつくまでの期間は、精神的な負担が非常に大きい。したがって、諸検査と同時に親指導も行っていくことが不可欠である。この時期は、良好な母子関係の確立に重点を置くことが大切と考える。

筆者は親指導に際しては、「家庭における難聴 児指導の手引きーお誕生から 2 歳までー」 177 を 用いている。この手引きは、年齢を 6 か月ごと に区切って、理解、表出、聴能、探索、社会の 各項目の能力を伸ばす方法について、わかりや すく解説している。したがって、親は子どもに どのように接したらよいかを理解することが きる。また家庭での記録は、保護者や保育園の 員が子どものきこえや発声の様子など日常の行 動を記録するもので、聴能や理解力、その他全 般的な発達の状態を把握するのに有用である。

また難聴診断後は、早期療育指導としてホームトレーニングプログラム ¹⁵⁾を実施している。 内容の概略を表 5 に示す。同プログラムは約 2 か月で終了する。この間に、難聴児は補聴器の フィッティングと初期調整が行われる。保護者 は難聴に関する基礎知識を習得し、その後の療 育に際しての親の役割を理解する事ができる。

以上をまとめて、新生児聴覚スクリーニングから精査・診断、療育、聴覚管理までのフォロープログラムを図3に示す。現在、産科、新生児科を中心にして、Automated ABR を用いた

新生児の聴覚スクリーニングが各地で行われ始めている。今後は耳鼻咽喉科として、有効性の検討その他の研究と同時に、乳幼児難聴の診断機関の整備、療育機関との連携、等も計っていくことが重要であると考えられた。

E.結語

Automated ABR を用いた新生児聴覚スクリーニング検出児の Automated ABR と初回 ABR の 波閾値の一致率は 88.9%であった。又その後の 5~9 か月間に ABR の 波閾値改善例が 4 耳あり、難聴の診断にあたっては経過をみていくことが必要であった。本スクリーニングは出生直後に実施するため、保護者が子どものきこえに疑問を持つ前に、難聴があるかもしれないと告げられることになり、精神面の支援が不可欠である。今回、精査から難聴診断に至るまでの親指導と、診断後の早期療育指導の実際について紹介した。

<参考文献>

- 1)森田訓子:難聴児と乳幼児健康診査 健康診査 時の対応方法についての検討 ,チャイルドへ ルス 2(8): 47-49 , 1999
- 2) 田中美郷,小林はるよ,進藤美津子・他:乳児の聴覚発達検査とその臨床および難聴児早期スクリ-ニングへの応用,Audiology Japan 21:52-73,1978
- 3) Downs MP and Sterritt GM: A Guide to Newborn and Infant Hearing Screening Programs, Arch Otolaryngol 85: 15-22, 1967 4) Simmons FB, McFarland WH and Jones FR: An Automated Hearing Screening Technique for Newborns, Acta Otolaryngol 87: 1-8,1979
- 5) Schuman-Galambos C and Galambos R: Brain Stem Evoked Response Audiometry in Newborn Hearing Screening, Arch Otolaryngol 105: 86-90,1979
- 6) Watson DR, McClelland RJ and Adams DA: Auditory brainstem response screening for hearing loss in high risk neonates, Int J Pediatr Otorhinolaryngol 36: 147-183, 1996
- 7) Downs MP: Universal newborn hearing screening The Colorado story, Int J Pediatr Otorhinolaryngol 32:257-259,1995
- 8) Herrmann BS, Thornton AR and Joseph JM: Automated Infant Hearing Screening Using the ABR: Development and Validation, Am J Audiol 4: 6-14,1995

- 9) Mehl AL and Thomson V: Newborn Hearing Screening: The Great Omission, Pediatr 101: 1-6, 1998
- 10) Doyle KJ, Fujikawa S, Rogers P, et al: Comparison of newborn hearing screening by transient otoacoustic emissions and auditory brainstem response using ALGO-2-, Int J Pediatr Otorhinolaryngol 43: 207-211, 1998
- 11) Mason JA and Herrmann KR: Universal Infant Hearing Screening by Automated Auditory Brainstem Response Measurement, Pediatr 101: 221-228, 1998
- 12)荒尾はるみ,柴田康子,柳田則之・他:新生 児用自動 ABR 検査装置 ALGO2e と TEOAE, ABR との比較, Audiology Japan 42:585-586, 1999
- 13) Von Wedel H, Schauseil-Zipf U and Doring WH: Horscreening bei Neugeborenen und Sauglingen, Laryngol Rhinol Otol 67:307-311,1988
- 14) Parving A: Hearing screening aspects of epidemiology and identification of hearing impaired children, Int J Pediatr Otorhinolaryngol 49 (Supple 1): S287-S292, 1999
- 15)田中美郷,工藤多賀,廣田栄子:帝京大学医学部クリニックの実践,中野善達編,聴覚障害児の早期教育,福村出版,東京,pp35-86,1991 16) Kaga K and Tanaka Y: Auditory brainstem response and behavioral audiometry: Developmental correlates, Arch Otolaryngol 106: 564-566, 1980
- 17)田中美郷,小林はるよ,工藤多賀,他:家庭 における難聴児指導の手引きーお誕生から2歳

までー,帝京大学医学部附属病院耳鼻咽喉科言語室小児難聴言語外来,東京,1980 F.研究発表

1.論文発表

畄)

- ・森田訓子:新生児聴覚スクリーニングの成績 とその後のフォロープログラム,高度先進医療, 平成 11 年度号, 27-31, 2000
- ・森田訓子 ,更級則夫 ,山口暁:Automated ABR を用いた新生児聴覚スクリーニングの検討 , Audiology Japan , 投稿中
- ・森田訓子:新生児聴覚スクリーニング後のフォローアップと早期療育プログラム,小児耳鼻咽喉科,21(1),2000 掲載予定2.学会発表
- ・森田訓子 ,更級則夫 ,山口暁: Automated ABE を用いた新生児聴覚スクリーニングの検討 ,第 44 回日本聴覚医学会 , 平成 11 年 10 月 15 日 (福
- ・森田訓子,山口暁:早期乳児聴覚スクリーニングの試み,第46回日本小児保健学会,平成11年10月16日(札幌)
- ・森田訓子:新生児聴覚スクリーニング検出児の ABR 経過について,第 41 回日本小児耳鼻咽喉科研究会,平成 11 年 12 月 4 日(東京)
- ・森田訓子:新生児聴覚スクリーニングの成績 とその後のフォロープログラム,第 15 回高度先 進医療研究会,平成 12 年 2 月 24 日(東京)

本研究にご協力頂いた、山口産婦人科病院の山口暁医学博士、元小張総合病院耳鼻咽喉科の石川弥生子言語聴覚士に深謝いたします。

表 1 きこえについてのアンケート(4か月時)

反応のあるものは , 反応のないものは×を記入

- 1 () 眠っていて突然音がすると, まぶたをピクッとさせたり, 指を動かすが, 全身がピクッとなることはほとんどない。
- 2() ラジオの音,テレビのスイッチの音,コマーシャルなどに顔(または眼)を向けることがある。
- 3()怒った声や,やさしい声,歌,音楽などに不安そうな表情をしたり,喜んだり,またはいやが ったりする。
- 4()日常のいろいろな音(玩具,テレビの音,楽器音,戸の開閉など)に関心を示す(振り向く)。
- 5() 名を呼ぶとゆっくりではあるが顔を向ける。
- 6()人の声(とくに聞き慣れた母の声)に振り向く。
- 7() 不意の音や聞き慣れない音,珍しい音に,はっきり顔を向ける。

表 2 きこえについてのアンケート(6か月時)

反応のあるものは , 反応のないものは×を記入

- 1() 耳元に目覚まし時計を近づけると,コチコチという音に振り向く。
- 2()父母や人の声,録音された自分の声など,よく聞き分ける。
- 3()突然の大きな音や声に,びっくりしてしがみついたり,泣き出したりする。
- 4()話しかけたり歌をうたってやると,じっと顔を見ている。
- 5() 声をかけると意図的にサッと振り向く。
- 6()テレビやラジオの音に敏感に振り向く。

表3 アンケート回答結果(4か月時)

アンケート <u>項目</u>	×記入数 (人)	異常率 (%)
1	62	35,2
2	3	1,7
3	1	0,6
4	0	0,0
5	17	9,7
6	5	2,8
7	9	5,1

アンケート回答者数:176人 (1項目以上×を記入した者:77人)

表 4 アンケート回答結果(6か月時)

アンケート	×記入数	異常率
項目	(人)	(%)
1	5	3,1
2	1	0,6
3	1	0,6
4	0	0,0
5	1	0,6
6	3	1,9

アンケート回答者数:162人 (1項目以上×を記入した者:7人)

表 5.ホームトレーニングプログラム

- 1.難聴児に対するプログラム
 - 1)聴力検査
 - 2)イヤモールド作成と補聴器の選択・調整
 - 3)体験学習(夏期合宿)
- 2.保護者に対するプログラム
 - 1)両親講座
 - ・家庭の重要性と親の役割
 - ・難聴についての基礎知識
 - ・聴能や言語の発達とその育て方
 - ・補聴器の扱い方と管理の仕方
 - ・教育制度とその選択
 - ・福祉制度と相談
 - 2)育児記録のチェックとアドバイス
 - 3)両親支援

親の会の結成と支援

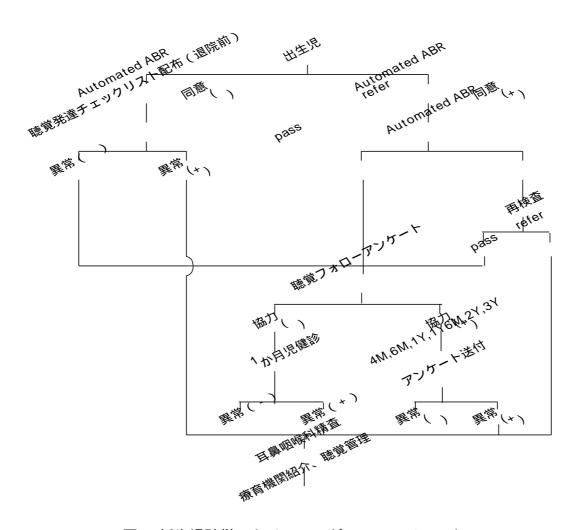


図 1 新生児聴覚スクリーニングのフローチャート

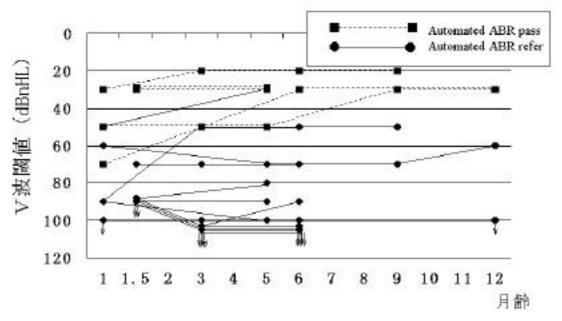


図2. ABR **の経時的変化 (**18 耳)

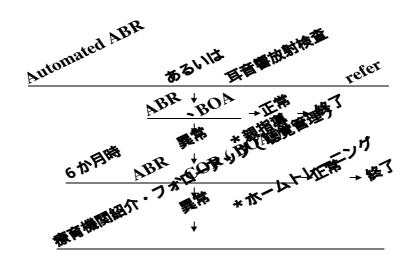


図 3. 新生児聴覚スクリーニング検出児のフォロープログラム