

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 28 年 6 月 21 日現在

機関番号：32692

研究種目：若手研究(B)

研究期間：2014～2015

課題番号：26750232

研究課題名(和文)痙直型脳性麻痺児におけるトレーニング種目別効果と下肢随意性との関係

研究課題名(英文)Reration of the selective voluntary motor control of the lower limbs and impacts of loaded sit-to-stand exercises at different speeds in children with spastic diplegia

研究代表者

楠本 泰士(KUSUMOTO, Yasuaki)

東京工科大学・医療保健学部・助教

研究者番号：60710465

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 1,000,000円

研究成果の概要(和文)：痙直型脳性麻痺患者における下肢随意性の評価法であるSCALEの翻訳を行い、日本語版SCALEの信頼性・妥当性を検証した。

次に速度の異なる負荷立ち上がり運動(STS)が歩行時エネルギー効率に及ぼす影響を検証した。脳性麻痺児16名を、ゆっくりな速度の立ち座り群(低速群)と任意の速度の立ち座り群(任意群)に分け、リュックに重りを入れての負荷STSを6週間実施した。介入前後で低速群の6分間最大歩行距離や歩行時エネルギー効率が改善した。脳性麻痺児へのゆっくりとした速度での負荷STSは、歩行時のエネルギー効率を改善させる可能性が示唆された。

研究成果の概要(英文)：First, we translated the SCALE tool from English to Japanese following the proposed guidelines and assessed the reliability and validity of the SCALE-J tool among Japanese patients with spastic cerebral palsy(CP).

Second, we determined whether differently loaded sit-to-stand exercises at different speeds improve the physiological cost of walking in children with spastic diplegia. Sixteen children with spastic diplegia were randomly allocated to a slow loaded sit-to-stand exercise group and a self-paced loaded sit-to-stand exercise group. Loaded sit-to-stand exercise was conducted for 6 weeks. 6-min walk distance (6MWD) and the Physiological Cost Index (PCI) improved after intervention in the slow sit-to-stand exercise group. Compared to loaded sit-to-stand exercise at a regular speed, slow low-loaded sit-to-stand exercise improved the 6MWD and PCI in children with CP, suggesting that this decrease in speed during exercise improves the physiological cost of walking in these children.

研究分野：小児リハビリテーション

キーワード：脳性麻痺 筋力 トレーニング 随意性 立ち上がり運動

1. 研究開始当初の背景

脳性麻痺患者における痙性や拘縮は大きな障害につながると考えられており、下肢随意運動の欠如も同様に重度な機能障害につながると言われている。以前より、下肢随意運動の重要性は認識されていたが、脳性麻痺患者の下肢随意運動の評価は、その病態の多様性・複雑性から日本をはじめ世界的に行われてこなかった。Fowler (2009) らが、痙直型脳性麻痺患者における下肢随意性の評価法として Selective Control Assessment of the Lower Extremity (SCALE) を開発した。SCALE では股・膝・足・距骨下・足指関節の計5つの関節の自動運動を0~2点で採点し、その合計点を下肢随意性としている。左右の下肢の測定に要する時間はおおよそ15分で、妥当性・信頼性が検証されている。SCALE と歩行時の股関節の動きや膝関節伸張加速度などが強く関係するという、いくつかの報告がある。筋力低下と同様に、下肢随意性の低下は運動機能障害と密接に関係し、運動障害を構成する重要な因子であると考えられている。そのため、下肢随意性の評価は機能的な予後や変形を予測する評価ツールとして、今後発展させ、臨床で広く用いることが可能と言える。

長年にわたり脳性麻痺における運動障害の主な問題は、痙性麻痺や運動学習機会の減少であると考えられ、筋力については軽視されてきた。しかし、Eek (2008) らの報告に代表されるように運動機能障害と筋力低下は密接に関係しており、筋力低下は運動障害を構成する重要な因子であると考えられるようになっている。

日常生活に行われる多くの動作は close-kinetic chain (CKC) の動作であり、多関節の複合運動である。そのため、課題特異的な介入である機能的トレーニング (Functional Strength Training : FST) が注目されており、脳性麻痺患者に対する筋力トレーニングとして、FST の効果がいくつか報告されている (Blundell, SW, et al. (2003). Scholtes, VA, et al. (2008). Seiler, HL, et al. (2013).)。FST とは、多関節、CKC での運動によって筋肥大や動作特有の課題特異性、多関節複合運動の協調性の改善を図る運動である。しかし、多くの研究がトレッドミルトレーニングやバランス練習のような課題を含んでおり、自重によるトレーニングだった。そのため、機能的トレーニングが筋力トレーニングの過負荷の原則による効果だったのか判断が難しかった。そこで、Gan らはパワーベストを用いて重りを背負った状態での立ち上がり運動にて、脳性麻痺児のバランス能力を含めた機能的筋力の測定法に高い信頼性があることを示した。また、Liao らは重りを背負った状態での立ち上がり運動 (最大負荷量 (1 Repetition Maximum : 1RM) の50%での負荷立ち上がり運動) による介入で立ち上がり動作時の最大

筋力や歩行時のエネルギー効率が向上したと報告している。しかし、対象者の年齢は7歳~12歳と低年齢であり、異なる年齢層や重症度での効果検証の必要性が唱えられている (Liao HF, et al. 2007, Dodd KJ, et al. 2003)。

脳性麻痺児にみられる皮質脊髄路の障害は、筋活動時の力やスピード、タイミングなどを妨げ、筋の随意的なコントロールを障害するため、運動機能障害の要因の一つとなる (Cook, et al. 2001, Staudt M, et al. 2003)。脳性麻痺児は健常者と比べて筋力、筋持久力が低く、運動の切り替えが遅い (Bohannon RW, et al. 1995)。そのため、脳性麻痺児はゆっくりとした動作が困難であり、健常児と比べ歩行時エネルギー効率を表す physiological cost index (PCI) の値が高い (Park ES, et al. 2003, Plasschaert F, et al. 2011)。PCI とは心拍数と歩行速度から算出する歩行時のエネルギー効率を示す指標であり、酸素消費量と相関関係がある (HF, et al. 2007, Bowen TR, et al. 1998)。

脳性麻痺児の立ち上がり運動 (sit to stand: STS) は、健常児と比べて骨盤前傾や股関節屈曲が増加し、早期に膝伸張が起こる (Park, ES, et al. 2003)。先行研究のように50%1RM の運動では負荷が大きく継続が困難なことがあり、本人の立ち上がりやすい動作速度では脳性麻痺の特徴的な動作を強化させる可能性がある。このような運動を長期間続けると腰痛や関節拘縮等の二次障害を助長する可能性がある。そのため、低負荷で効果的なトレーニングが求められている。

通常、STS では離臀までの体幹屈曲動作における前方への加速度を、離臀後の上方への加速度に変換しており、ゆっくりとした STS は任意の速度の STS と比較して、総筋活動量が高いと言われている。STS の介入研究では、動作速度を考慮した運動の効果は検証されていない。また、同様の運動機能レベル、同様の下肢随意性をもった脳性麻痺児であっても、ゆっくりな速度での低負荷 STS は、任意の速度での低負荷 STS より、歩行時エネルギー効率を向上させる可能性がある。

2. 研究の目的

そこで本研究の目的は、はじめに日本における脳性麻痺患者に対する下肢随意性検査として、SCALE の日本語版を作成し、信頼性と妥当性を検証することとした。

次に痙直型脳性麻痺児における速度の異なる低負荷 STS が歩行時エネルギー効率に及ぼす影響を検証することとした。

3. 研究の方法

(1) 翻訳作業

SCALE の翻訳は国際基準に則り行い、制作者である Fowler らの承諾を得てから母国語を日本語とするバイリンガル2名が順翻訳をそれぞれ行った。次に2つの順翻訳された版

の日本語版を、母国語を英語とするバイリンガル2名が逆翻訳を行った。最後に本研究の趣旨を理解している1名が、2つの逆翻訳版を一つのものに統合する作業を行った。以上の過程の下、日本語版の SCALE を完成させた。

(2) 日本語版 SCALE の測定

SCALE とは、痙直型脳性麻痺に対する下肢随意性の評価法で、股関節屈伸、膝関節屈伸、足関節底背屈、距骨下関節内外反、足趾屈伸の計5つの関節運動を、3秒間の言語指示中にそれぞれ選択的に動かし、運動の程度によって Normal (2点)、Impaired(1点)、Unable (0点)で採点する。左右それぞれが10点満点となり、両下肢合わせると20点満点となる。SCALE の評価用紙は採点表と実施方法の説明文、採点方法の説明文の計3ページからなる。1ページ目は採点表であり、患者情報や得点、減点要因について記載する。2ページ目は関節ごとの測定肢位や患者への一般的な指示が記載されている。3ページ目は関節ごとの評価基準が記載されている。

(3) 信頼性と妥当性の検討

対象

対象は痙直型脳性麻痺で粗大運動能力分類システム (Gross Motor Function Classification System; GMFCS) にてレベル ~ の者とした。本研究では GMFCS にてレベル ~ の者、過去6ヶ月以内に整形外科手術を行った者、ボツリヌス療法を行った者は対象から除外した。

本研究は南多摩整形外科病院倫理審査委員会 (承認番号: 第004号) 及び東京工科大学倫理審査委員会 (承認番号: 第E13HS-008号)、首都大学東京荒川キャンパス倫理審査委員会 (承認番号: 14051) の承認を得て行った。

検者内信頼性の検討

対象者の属性を表1に示した。前述の対象の内、GMFCSレベル ~ の痙直型脳性麻痺患者18名(平均年齢14.7歳, 7~35歳, 片麻痺1名, 両麻痺13名, 四肢麻痺4名, GMFCSレベル 5名, 4名, 4名, 5名)を対象とした。完成した日本語版の SCALE を用いて、1名の理学療法士が1ヵ月以内に同一の対象者に対して SCALE の測定を2回試行した。各測定値を基に級内相関係数 (ICC1.1) を算出した。

検者間信頼性の検討

前述の対象の内、GMFCSレベル ~ の痙直型脳性麻痺患者18名(平均12.6歳, 7~28歳, 片麻痺1名, 両麻痺13名, 四肢麻痺4名, GMFCSレベル 5名, 4名, 4名, 5名)を対象とした。2名の理学療法士が1ヵ月以内に同一の対象者に対して SCALE の測定を1回ずつ行った。各測定値を基に級内相関係数 (ICC2.1) を算出した。

表1 信頼性の対象者属性 (n=18)

	検者内信頼性	検者間信頼性
年齢 (歳)		
平均値 ± 標準偏差	14.7 ± 8.2	12.6 ± 5.5
幅	6-35	7-28
性別	11, 7	12, 6
(男性, 女性:人)		
分類 (人)		
両麻痺	13	13
片麻痺	1	1
四肢麻痺	4	4
GMFCS レベル (人)		
	5	5
	4	4
	4	4
	5	5

GMFCS, Gross Motor Function Classification System.

構成概念妥当性の検討

対象者の属性を表2に示した。対象は GMFCS レベル ~ の痙直型脳性麻痺患者29名(平均15.4歳, 7~44歳, 片麻痺2名, 両麻痺21名, 四肢麻痺6名)を対象とした。重症度分類である GMFCS と SCALE との相関関係を Spearman の順位相関係数にて検討した。統計処理には IBM SPSS Statistics Ver.19 を使用し、有意水準を5%とした。

表2 構成概念妥当性の対象者属性 (n=55)

年齢 (歳)	
平均値 ± 標準偏差	14.7 ± 6.9
幅	6-35
性別 (男性, 女性:人)	34, 21
分類 (人)	
両麻痺	41
片麻痺	4
四肢麻痺	10
GMFCS レベル (人)	
	15
	16
	13
	11

GMFCS, Gross Motor Function Classification System.

(4) STSによる運動介入

対象

東京、神奈川の5つの小児病院にて募集を募った。取り込み基準は1. 12歳～18歳, 2. 脳性麻痺直型両麻痺, 3. 粗大運動能力分類システムレベル ~ , 4. 1人で立ち上がり可, 5. 男性とした。除外基準は1. 1年以内に整形外科手術を受けた者, 2. 半年以内にボトックス注射を受けた者, 3. 整形外科的問題のある者とした。対象者の属性を表3に示した。取り込み基準を満たした19名の患児の内, 16名をゆっくりな速度の立ち座り群(低速群, 8名)と任意の速度の立ち座り群(任意群, 8名)にランダムに割り付けた。

ランダム化は4名を1つの組み合わせとしたブロック法にて実施した。なお, 本研究は東京工科大学倫理委員会(第E14HS-004号), 首都大学東京荒川キャンパス研究安全倫理委員会(14052)の承認を得て行った。

表3 対象者の属性

	低速群 (n=8)	任意群 (n=8)	p 値
年齢 (歳)	16.3±2.1	15.0±2.0	0.25
幅	13-18	12-18	
身長 (cm)	157.4±7.6	150.4±6.7	0.07
体重 (kg)	51.1±10.6	42.2±11.6	0.13
GMFCS (, , ;名)	3,3,2	1,4,3	0.51
初回負荷量 (kg)	6.5±3.2	4.4±1.8	0.12
中間負荷量 (kg)	7.8±3.5	5.1±2.0	0.08
立ち上がり速度(秒)	5.7±0.7	2.9±0.6	0.00 *
着座速度(秒)	5.5±0.7	2.9±0.6	0.00 *
介入期間 (日)	47.6±3.8	47.0±4.9	0.78
試行回数 (回)	20.0±2.1	19.3±3.0	0.58

*: 低速群 vs 任意群, *: p < .05.

介入前後の測定項目

測定項目はリュックに重りを入れた状態で計測する立ち上がりの最大負荷量(1RM STS; kg), 最大等尺性膝伸展筋力(Nm/kg), SCALE (点), PCI (拍/m)とした。1RM STSは5分間のウォーミングアップ後, 検査者によるデモを行い, 快適速度にて上肢はフリーで2回試行し, 足踏みすることなく立てた最大負荷量を測定した。試行間は2分間休憩し, 負荷は体重の30%から開始し, 1~4kg単位で増減させ測定した。膝伸展筋力は徒手筋力計(ミュータス F-1)にて測定し, トルク体重比を算出した。SCALEは股・膝・足・距骨下関節・足趾の単関節ごとに3秒間の往復運動を行い, 0~2点の計20点で採点した。PCI

は65mのサークル歩行路にて心拍数と歩行速度を測定し, 算出した。

運動介入方法

リュックに重りを入れたの負荷STSを行った。椅子の高さは膝関節90度屈曲位となる高さとし, 負荷量は1RM STSの30%とした。低速群は5秒で立ち上がり5秒で着座し, 任意群は任意の速度(1~2秒)とした。10回×4セットの運動を3~4回/週, 6週間実施した。3週目に負荷量の再設定を行った。

Shapilo wilk 検定で正規性を確認後, 対象者の属性は対応のないt検定を行った。介入方法の異なる2群を対応のない要因, 各パラメータを対応のある要因とした反復測定二元配置分散分析, および単純主効果の検定にて検討した。

4. 研究成果

(1) 信頼性と妥当性の検討

各種信頼性の結果を表4に示した。また, SCALEとGMFCSとの相関係数は-0.93だった。級内相関係数はICC1.1, ICC2.1ともに0.93~0.96と高い値が得られた。また, Cronbachのアルファ係数は各信頼性の検討で0.97~0.98と概ね良好な結果が得られたことから, SCALEの臨床での使用が可能と考えられる。

随意運動のコントロールは「随意運動の要求に反応する選択的なパターンにおける筋の独立した活動能力」と定義されている。皮質脊髄路の損傷は, 筋活動時の力や速度, タイミングなどを妨げるため, 痙直型脳性麻痺の主な原因である脳室周囲白室軟化症による皮質脊髄路の障害では, 筋の随意的なコントロールが障害されることが運動機能障害の要因の一つと考えられている。今回, SCALEとGMFCSとの相関係数は-0.93と, 両者の間に高い相関が得られた。粗大運動機能レベルを示すGMFCSとの相関関係では, 膝伸展筋力や筋厚などの筋の状態との関係, 生活機能の状態を評価するPEDIとの関係, 粗大運動機能を測定するGMFMとの関係など, 多くの報告がされている。粗大運動機能レベルを規定する要因の一つとして, 各パラメータの重要性が認識されている。本研究の結果より, 痙直型脳性麻痺における運動機能障害の要因の一つとして, 下肢随意性の重要性が示唆された。

脳性麻痺における二次障害の一つに脊柱の側弯や後弯, 股関節・膝関節屈曲拘縮, 尖足変形などの各関節の変形・拘縮がある。脳性麻痺直型両麻痺患者における下肢随意性検査が広く使用されることで, 縦断的な調査により下肢変形の程度とSCALEとの関係が明らかになれば, 予防的な理学療法介入の重要な指標になると考えられる。また, 痙直性に対する治療であるボツリヌス毒素療法や整形外科的治療の効果判定として, 使用できると思われる。

表 4 SCALE の各種信頼性の結果

	下肢	Cronbach の		95%信頼区間	p 値
		係数	信頼性		
ICC(1.1)	右	0.98	0.96	0.90-0.99	0.00
	左	0.97	0.94	0.85-0.98	0.00
ICC(2.1)	右	0.97	0.94	0.84-0.98	0.00
	左	0.97	0.93	0.83-0.98	0.00

SCALE: Selective Control Assessment of the Lower Extremity.

(2) STS による運動介入

介入前後の各パラメータの変化を表 5 に示した。1RM STS と PCI は速度の違いと経過との間に交互作用が確認された。1RM STS は介入群で介入後に向上し、介入群と対照群とで介入後に差があった。PCI は介入群で介入後に向上した。

表 5 各パラメータの介入前後の値

		介入前	介入後
1RM STS (kg)	低速群	21.4 ± 11.5	29.1 ± 15.0 * †
	任意群	14.2 ± 6.3	16.8 ± 5.9
膝伸展筋力 (Nm/kg)	低速群	1.44 ± 0.39	1.47 ± 0.52
	任意群	1.32 ± 0.39	1.49 ± 0.43
SCALE (点)	低速群	12.8 ± 3.9	13.1 ± 3.5
	任意群	10.9 ± 3.5	11.3 ± 2.9
PCI (拍/分)	低速群	0.68 ± 0.28	0.46 ± 0.17 *
	任意群	0.71 ± 0.27	0.76 ± 0.41

*: 介入前 vs 介入後, †: 低速群 vs 任意群, *, †: p < .05.

両群で膝伸展筋力は改善せず、介入群で 1RM STS が改善した。動作課題時の筋収縮形態が等張性筋収縮だったのに対し、測定時は等尺性筋収縮だった。運動時と測定時の筋収縮形態の違いからも、筋力強化における課題特異性の重要性が示唆された。また、両群で SCALE は改善しなかった。随意性は、「随意運動の要求に反応する選択的なパターンにおいて筋の独立した活動能力」と定義されている。機能的トレーニングは筋肥大に加え、動作特有の課題特異性や多関節複合運動の協調性の改善を図ると言われていることから、負荷 STS の課題としての限界があったと考えられる。

多関節運動で筋力や持続性が求められる PCI が改善した。PCI が改善するということは、同じ心拍数でたくさん歩けるようになったということであり、循環機能が上がったか、筋の酸素消費が変わった可能性がある。機能的トレーニングは筋肥大に加え、動作特有の

課題特異性や多関節複合運動の協調性の改善を図ると言われている。ゆっくりとした動作での負荷 STS は、下肢随意性が改善するのではなく、多関節運動時の協調的な運動が改善することで PCI に効果的だった可能性がある。

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕(計 2 件)

Yasuaki Kusumoto, Kenji Takaki, Osamu Nitta: Impact of loaded sit-to-stand exercises at different speeds on the physiological cost of walking in children with spastic diplegia: A single-blind randomized clinical trial. Research in Developmental Disabilities. (査読あり, 印刷中)

Yasuaki Kusumoto, Kenji Takaki, Osamu Nitta, Tadimitsu Matsuda: Relation of selective voluntary motor control of the lower extremity and extensor strength of the knee joint in children with spastic diplegia. The Journal of Physical Therapy Science 28(6). (査読あり, 印刷中)

〔学会発表〕(計 5 件)

楠本泰土, 新田収, 松田雅弘, 高木健志: 脳性麻痺直型両麻痺児における速度の異なる低負荷立ち上がり運動が歩行時エネルギー効率に及ぼす影響 Single blind randomized clinical trial. 第 51 回日本理学療法学会大会. 2016 年 5 月 27 日. 札幌コンベンションセンター (北海道・札幌市)

高木健志, 楠本泰土, 西野展正, 松尾沙弥香, 若林千聖, 津久井洋平, 干野遥: 脳性麻痺直型患者の尖足変形に対する足関節選択的筋解離術と下肢随意性の関係. 第 51 回日本理学療法学会大会 2016 年 5 月 27 日. 札幌コンベンションセンター (北海道・札幌市)

楠本泰土, 高木健志, 新田収, 松田雅弘: 直型脳性麻痺患者における下肢随意性と膝伸展筋力の関係 Selective Control Assessment of the Lower Extremity (SCALE). 第 2 回日本小児理学療法学会学術集会. 2015 年 10 月 18 日. はまぎんホール ヴィアマール (神奈川県・横浜市)

高木健志, 楠本泰土, 西野展正, 松尾沙弥香, 若林千聖, 津久井洋平, 干野遥: 脳性麻痺患者の尖足変形に対する足関節選択的筋解離術と下肢随意性の関係 二症例での検討. 第 34 回 関東甲信越ブロック 理学療法士学会. 2015 年 9 月 12 日. アピオ甲府 (山梨県・昭和町)

楠本泰土, 高木健志, 新田収, 松田雅弘:

痙直型脳性麻痺患者における日本語版
Selective Control Assessment of the Lower
Extremity (SCALE) の信頼性と妥当性
の検討．第 50 回日本理学療法学会
2015 年 6 月 7 日．東京国際フォーラム（東
京都・千代田区）

6．研究組織

(1) 研究代表者

楠本 泰士 (KUSUMOTO, Yasuaki)
東京工科大学・医療保健学部・助教
研究者番号：60710465