

論文の内容の要旨

論文題目 四肢の先天性麻痺・欠損を有する小児の四肢認知に関する研究

氏名 真野 浩志

私達人間は、自己の身体を通して他人や外的環境と接しており、自己および他人の身体の認識は人間の知覚の基礎である。ヒトの体の知識 (body knowledge) には sensorimotor body knowledge と呼ばれる、様々な感覚 (固有覚, 前庭覚, 触覚, 視覚, 遠心性コピーなど) や運動入力に基づいた自己の体の部位の相対的な位置の知識, visuospatial body knowledge と呼ばれる、体の部位の境界や近い遠いという関係を含む視覚情報に由来する地図的な知識, lexical-semantic body knowledge と呼ばれる、名前や機能といった体の知識の 3 つがあるとされる。

二分脊椎は下肢の先天性麻痺を示す疾患であるが、運動障害のほか、感覚障害による褥瘡形成が問題となる。先天性四肢形成不全は四肢の先天性欠損を示す疾患であるが、運動障害のほか、義肢を装着する上で断端部の皮膚病変が問題となる。四肢の先天性麻痺・欠損を有する小児がどのように身体を認識しているのかについては、欠損に対する幻肢・幻肢痛を除いては、これまで明らかでなかった。四肢の先天性麻痺・欠損を有する小児が身体、特に四肢をどのように認識しているかを明らかにすることで、運動機能向上を目的とした効果的なリハビリテーションの実施や、褥瘡・断端皮膚病変の予防に役立つことが期待される。本研究は、四肢の先天性麻痺・欠損が身体知識に与える影響を明らかにすることを目的とした。

本研究は、研究開始前に東京大学大学院医学系研究科・医学部倫理委員会にて承認を受け (承認番号 10706) 実施した。また、研究協力施設である静岡県立こども病院、心身障害児総合医療療育センターにおいても、それぞれの施設の倫理委員会にて承認を受け実施した。先天性麻痺として二分脊椎児、先天性欠損として先天性下肢形成不全児および先天性上肢形成不全児を対象として、各評価法の結果を対照児と比較することにより、各疾患児における身体知識の特徴について明らかにした。研究参加者は 5 歳以上 11 歳未満の二分脊椎症児 36 人、5 歳以上 15 歳未満の先天性下肢形成不全児 6 人、5 歳以上 12 歳未満の先天性上肢形成不全児 6 人、5 歳以上 11 歳未満の対照児 14 人であった。

身体知識の評価法としては、描画法、言語法、視線追跡法の 3 つを用いた。描画法は対象者に自己の人物画を描出させる方法で、描出された絵に頭・体幹・腕・手・脚・足といった体の部位が含まれているかどうかや、四肢の長さ・幅を評価した。描画法の結果は、ヒトの体の知識のうち **visuospatial body knowledge** を主に反映している。言語法は対象者に体の部位について言語を用いて質問する方法で、検者が対象者の体の部位を指したときに、対象者がその名称を答えることができるかどうかや、検者が体の部位の名称を言ったときに、対象者が自己の体の部位を指して示せるかどうかを調査した。頭部、体幹、上肢、下肢といった身体部位ごとの正答率を評価した。言語法の結果は、ヒトの体の知識として主に **lexical-semantic knowledge** を反映している。視線追跡法は対象者の視線を計測する方法で、対象者の写真をモニターに提示し測定を行い、頭、上肢、体幹、下肢といった身体の部位のどこを見ているかを調査した。指示なく自由に見た場合と、四肢への注意を促す指示を行った場合とを評価した。また、先天性四肢形成不全児では義肢の装着あり、装着なしの両方を評価した。視線追跡法の結果は、ヒトの体の知識のうち主に **visuospatial body knowledge** を獲得する上で必要となる視覚入力を反映している。

二分脊椎児は、描画法では、対照児と比較して、手、脚、足を描出する割合が有意に低く、また下肢の長さが有意に短かった。言語法では、対照児と比較して、体幹および上肢、手部、足部の正答率が有意に低かった。視線追跡法では、指示がない場合、自己の身体部位への視線の分布は対照児と差はなく、四肢への注意を促す指示により四肢への視線が有意に増えた。しかし、四肢への注意を促す指示をした場合に、二分脊椎児は対照児と比較して頭部領域への視線が多かった。二分脊椎児の身体知識は、**visuospatial body knowledge** および **lexical-semantic body knowledge** とも麻痺部位である下肢および下肢と相同性のある上肢について、対照児と比較して不足している。また、二分脊椎児は、四肢の視覚入力については対照児と基本的に同等であるが、四肢への注意を促した場合に注意障害が影響を与えている可能性がある。

先天性下肢形成不全児は、描画法では、対照児と比較して、描出の部位、四肢の長さや幅、左右差とも有意な差はなかった。言語法では、対照児と比較して、体幹および上肢、上肢近位部、手部、足部の正答率が有意に低かった。視線追跡法では、指示なしの場合、対照児と比較して、義足を装着していない静止画を見た際に頭部への視線が有意に少なく、下肢遠位への視線が有意に多かった。義足を装着した静止画を見た際は、下肢への視線が有意に多かった。しかし、四肢に注意を向ける指示をした際の各領域の視線に、有意な変化はなかった。先天性下肢形成不全児の身体知識は、**visuospatial body knowledge** の低下はないが、**lexical-semantic body knowledge** は欠損部位である足部および足部と相同性のある手部について、対照児と比較して不足している。また、四肢の視覚入力については、対照児と比較して下肢への注意がむしろ高いが、指示がない状態でも下肢への注意が高いため、四肢への注意の指示の効果は乏しい。

先天性上肢形成不全児は、描画法では、対照児と比較して、手を描出する割合が有意に低かった。四肢の長さや幅、左右差には有意な差はなかった。言語法では、対照児と比較して、上肢、上肢近位部、手部、下肢近位部、足部の正答率が有意に低かった。視線追跡法では、指示なしにおいて、義手を装着していない静止画を見た際は、上肢および上肢遠位の視線が中央値としては

対照児の2~3倍と多いものの有意差はなく、各領域において対照児と有意差はなかった。先天性上肢形成不全児が義手を装着している静止面を見た際は、対照児と比較して、上肢および上肢遠位への視線が有意に多かった。ただし、義手の有無による差は有意ではなかった。指示ありでは、対照児と有意差はなかった。しかし、四肢に注意を向ける指示をした際、頭部への視線は有意に減少したものの、義手ありにおける下肢で視線が有意に増加したほかは有意な変化はなかった。先天性上肢形成不全児の身体知識は、**visuospatial body knowledge** は欠損部位である手部について、**lexical-semantic body knowledge** は欠損部位である手部および手部と相同性のある足部について、対照児と比較して不足している。また、先天性上肢形成不全児は四肢の視覚入力については、対照児と比較して上肢への注意がむしろ高いが、指示がない状態でも上肢への注意が高いため、四肢への注意の指示の効果は乏しい。

先天性四肢形成不全でも上肢と下肢で結果が異なることには、義肢の使用が影響していると考えられる。先天性下肢形成不全児は、そのままでは歩行開始できないことが多く、必要に応じて手術を行った後、義足を装着し、歩行等の日常生活を行う。一方、先天性上肢形成不全児は、片側の前腕以遠の形成不全では、義手を使用しなくても日常生活動作の多くは代償可能であり、重度の形成不全、例えば両側の肩関節レベルの形成不全では実用的な義手の作成が技術的に困難で、日常生活動作は足での代償や介助となる。このため、義足は装着することにより移動能力が著しく向上するなど運動機能の面から日常生活になくしてはならないもので、装着開始時期が早く、1日の装着する時間も長い。義手は運動機能の面から日常生活で有効な場面もある一方あまり有効でない場面もあり、装着開始時期が遅く、装着する時間が限られる。

本研究の限界として、先天性下肢形成不全児、先天性上肢形成不全児はそれぞれ6名と少なく、結果に影響を与えている可能性がある。また、本研究での麻痺の対象は二分脊椎であり、合併する下肢麻痺は両側性、すなわち対麻痺である。単麻痺では身体知識の特徴が本研究と異なる可能性、具体的には健側下肢が存在することで対麻痺よりも身体知識が良い可能性がある。

本研究では、各疾患児における身体知識の特徴と、四肢の身体知識の低下について明らかにすることができた。本研究の成果をリハビリテーションに応用することで、先天性麻痺・欠損のある小児の運動発達促進や二次障害予防に役立つことが期待される。二分脊椎児の四肢の認知を向上させるための手段として、下肢の運動麻痺に対しては適切な装具や補助具の使用を含めた運動療法により下肢を使用すること、下肢の感覚麻痺に対しては視覚での下肢の認知や他部位の感覚を通じた下肢の認知（例えば手で触って下肢を認識するなど）を促すことが考え得る。麻痺部位の身体知識を向上させることにより、運動機能の向上や褥瘡の予防につながる可能性がある。先天性四肢形成不全児の四肢の認知を向上させるための手段として、欠損に対しては適切な義肢の使用を含めた運動療法による運動機能の向上と、視覚および断端からの体性感覚を通じた義肢の認知の促進が考え得る。欠損部位の身体知識を向上させることにより、さらなる運動機能の向上や断端部の皮膚病変予防につながる可能性がある。