

## 審査の結果の要旨

氏名 張雅素

本研究は先天性無痛無汗症(congenital insensitivity to pain with anhidrosis、以下、CIPA)患者の骨・関節障害現状の把握、原因の解明、予防法の確立を明らかにするため、日本のCIPA患者における骨・関節障害の特徴を調査し、患者の歩行の特徴を分析し、インソールの材質の違いが歩行に及ぼす影響を解析したものであり、下記の結果を得ている。

研究1では、東京大学医学部附属病院リハビリテーション科の外来受診患者、及びデータベース医学中央雑誌に掲載された先行文献の事例報告をまとめ、91名のCIPA患者の骨・関節障害発症の頻度、場所、年齢、発症原因及び管理方法を明らかにした。結果として、日本人CIPA患者は骨・関節障害が多く、そのうちの多数は下肢に発症していた。骨折は1歳から7歳までは頻発するが、その他の障害の発症は年齢と明らかな関係がなかった。原因は転倒、外力が多いが、明確な原因がない発症も多い。骨・関節障害の管理方法として、保存療法が、手術療法より多く行われていた。

研究2では、デジタルビデオカメラによって撮影した歩行動作の映像を客観的に分析することにより、CIPA患者の歩行の特徴を明らかにした。その結果、若年患者は健常小児より、歩行速度は速く、歩幅が大きく、踵接地から全足底が接地の角速度が速かった。この結果によりCIPA患者の下肢の骨折、変形の機序を説明できる可能性があった。

研究3では、20名の健常者を対象に、インソールの材質の違いが床反力及び足底の圧力分布に及ぼす影響を検討した。具体的には、材質の異なるインソールを装着時の、歩行中の時間・距離因子、及び足底圧を比較した。その結果、荷重に対する変位が大きく、反発性が低い材質で作製したインソールの装着により、歩行時の踵接地時床反力の最大値と床反力の最大値に達するまでの時間の比、及び踵部の圧力分布の最大値と踵部の圧力分布の最大値に達するまでの時間の比は有意に小さく、CIPA患者に対して有効であると考えた。

以上、本研究全体を通じて、CIPA患者の骨・関節障害の現状、CIPA患者の歩行の特徴及びインソールの有効性を確認した。これらはCIPA患者の骨・関節障害の解明と予防に重要な貢献をなすと考えられ、学位の授与に値するものと考えられる。