

平成 30 年 6 月 18 日現在

機関番号：32206

研究種目：若手研究(B)

研究期間：2016～2017

課題番号：16K17472

研究課題名(和文)レット症候群児(者)の視線の動きに伴う手の常同運動の変化

研究課題名(英文)Changes in hand stereotypies associated with gaze movement in children and adults with Rett syndrome

研究代表者

平野 大輔(Hirano, Daisuke)

国際医療福祉大学・成田保健医療学部・講師

研究者番号：90572397

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 2,900,000円

研究成果の概要(和文)：本研究では、質問紙調査によって216名のレット症候群児(者)の情報を得た。163名に手の常同運動が増える因子があり、170名に減る因子があった。手の常同運動を減らす取り組みは半数に行われていた。194名に何らかの興味の対象があり、この多くは、人、映像等の見るもの、音楽等の聞くものであった。皮膚損傷は手、指に、関節拘縮は肩、肘に多く見られた。視線解析は視線の動きの詳細な評価を、動作解析は身体や上肢の運動の変化の評価を可能にし、レット症候群児(者)の評価に有用であることが示された。

研究成果の概要(英文)：In the current study, we collected information from 216 children and adults with Rett syndrome using a questionnaire. Factors that increased and decreased hand stereotypies were observed in 163 and 170 individuals, respectively. Effort to reduce hand stereotypies were demonstrated in approximately half of the study participants. A total of 194 individuals presented subjects of interest, such as images or music. Skin injuries were observed often on hands and fingers, and joint contractures were frequent in the shoulders and elbows. Gaze and motion analysis were shown to be useful in evaluating children and adults with Rett syndrome. Gaze analysis enables a detailed analysis of gaze movement, while motion analysis enables analysis of changes in the motion of the body and upper limbs.

研究分野：重症心身障害児者の療育

キーワード：レット症候群 常同運動 皮膚損傷 関節拘縮 視線 アイトラッカー 視線解析 動作解析

### 1. 研究開始当初の背景

レット症候群は、主に女兒に発症し、乳児期早期から筋緊張低下、自閉傾向、その後、四つ這い、歩行等のロコモーションの障害、言語発達遅滞、重度の知的障害等が出現し、目的をもった手の運動機能の消失、手もみ様手で絞る、片手を口にもっていき、他方の手で胸を叩く等の特異な手の常同運動が出現する。手の常同運動については、種類や経過、遺伝子変異との関係等が示されてきているが、手の常同運動がどのような時に増え、どのような時に減るかについての知見は少ない。また、これらに関連する目的的な手の動きの有無や種類、手の常同運動を減らす取り組みの実態、興味の対象等についての知見も限られている。手の常同運動は、同じ運動の繰り返しによって上肢の皮膚損傷や関節拘縮といった二次障害を引き起こすため、手の常同運動を減らす取り組みが求められる。これまで、レット症候群児(者)の手の常同運動に対しては、装具や感覚刺激等を用いた介入や目的的な手の使用を促す介入が、教育やリハビリテーション等の療育において行われてきたが、どれも介入の個別性が高く誰にでも般化できる知見が得られていないのが現状である。

### 2. 研究の目的

(1) レット症候群児(者)の手の常同運動の増減因子と興味の対象を調査することを第1の目的とし、これらに関連する目的的な手の動きの有無や種類、手の常同運動を減らす取り組みの実態等についても把握することとした。

(2) (1)において得られたレット症候群児(者)の情報から、手の常同運動を減らす取り組みが行われていた事例と行われていなかった事例の違いについて調査することを第2の目的とした。

(3) (1)において得られたレット症候群児(者)の情報から、上肢の皮膚損傷と関節拘縮について部位や年齢、重症度との関連等を分析することを第3の目的とした。

(4) 視線解析と映像からの動作解析を用いることで、視線の評価と手の常同運動の評価の実用性、これらの適応を検討することを第4の目的とした。

(5) 視線解析を使用することによって、追視と物の持続性課題の評価方法の可能性、および発達段階を検討することを第5の目的とした。

### 3. 研究の方法

本研究は、研究代表者の所属機関倫理審査会の承認を得て行った。

(1) 全国の特別支援学校1,016校の校長および医療型障害児入所施設130施設、独立行政法人国立病院機構重症心身障害児病棟73施設、国立研究開発法人国立精神・神経医療研究センター病院のリハビリテーション部門責任者に対し、郵送による質問紙調査を行った。調査項目には対象とした学校・施設を利用するレット症候群児(者)の年齢、横地分類、目的的な手の動き、手の常同運動の種類、手の常同運動が増える時・減る時、手の常同運動を減らす取り組み、興味関心の対象等を含めた。選択回答形式の項目については単純集計を行い、自由回答形式の項目についてはカテゴリー化を行った。

(2) (1)において得られたレット症候群児(者)の情報から、手の常同運動を減らす取り組みが行われていた事例と行われていなかった事例の違いについて、平均年齢、横地分類、目的的な手の動き、手の常同運動の増減因子、上肢装具の使用等の側面から検討を行った。

(3) (1)において得られたレット症候群児(者)の情報から、上肢の皮膚損傷と関節拘縮について、部位や年齢、重症度との関連等から分析を行った。

(4) 10歳代前半女兒(横地分類A5)と20歳代前半女性(横地分類A1)に対して、視線解析を用い、視線の動きの評価と映像からの動作解析を用い手の常同運動の変化の評価を行い、視線解析と映像からの動作解析の実用性、これらの適応等について検討を行った。

(5) 20歳代前半女性(横地分類A1、遠城寺式乳幼児分析的発達検査法では2~6ヶ月の発達段階)に対して、視線解析装置を用い、視線を測定し解析を行った。測定課題はカップで犬が隠れる課題を作成し、パソコン画面上に提示した。なお、作業療法の時間に土日を除く2週間、同じ課題を提示して視線の動きを測定した。パソコン画面に対する注視時間から注視率を解析し、さらにカップへ視線を向けている時間から課題注視率も解析した。課題注視率より、対象者の追視と物の持続性について乳幼児の発達課題通過率と比較し発達段階を検討した。

### 4. 研究成果

(1) 216名(年齢3-53歳、横地分類A1-E6)のレット症候群児(者)の情報を得ることができた。目的的な手の動きは150名に見られ、手の常同運動は203名に見られた。163事例においては手の常同運動が増える因子があり(表1)、170事例においては減る因子があった(表2)。手の常同運動は主に快や不快によって増加し、傾眠や快、集中、食事によって減少した。手の常同運動を減らす取り組みを行っている事例は104事例、行っていない

事例は 104 事例と同数であった。また、194 事例においては何らかの興味の対象があり、この多くは、人、映像等の見るもの、音楽等の聞くものであった。本調査から、手の常同運動はほとんどの事例において認められた。一方で、目的的な手の動きも多く事例で確認でき、目的的な手の動きが多く見られるような介入や生活設計が求められることが示唆された。手の常同運動を減らす取り組みを行っている事例と行っていない事例が同数であり、手の常同運動に対する介入は十分確立されているとは言い難く、手の常同運動の増減因子と合わせて、今後各事例の経時的変化等も検討する必要がある。ほとんどのレット症候群児（者）は何らかの対象に興味を持っているため、療育者が児（者）と深く関わることによって、児（者）の興味の幅を広げることができ、目的的な手の動きのきっかけになることが示唆された。【雑誌論文、学会発表】

表 1. 常同運動の増加因子

Factors	N (%)
Absence	36 (18.1%)
Presence	163 (81.9%)
Displeasure	104 (63.8%)
Pleasure	79 (48.5%)
Audio stimulus/Music	26 (16.0%)
Somnolence	22 (13.5%)
Visual stimulus /Video	20 (12.3%)
Concentration	15 (9.2%)
Moving	13 (8.0%)
Food	12 (7.4%)
Elimination	9 (5.5%)
Swing	5 (3.1%)
Bathing	3 (1.8%)
Vibration	2 (1.2%)
Others	38 (23.3%)

表 2. 常同運動の減少因子

Factors	N (%)
Absence	24 (12.4%)
Presence	170 (87.6%)
Somnolence	74 (43.5%)
Pleasure	51 (30.0%)
Concentration	50 (29.4%)
Food	41 (24.1%)
Visual stimulus /Video	32 (18.8%)
Audio stimulus/Music	29 (17.1%)
Swing	27 (15.9%)
Moving	18 (10.6%)
Vibration	14 (8.2%)
Displeasure	13 (7.6%)
Elimination	12 (7.1%)
Bathing	4 (2.4%)
Others	34 (20.0%)

(2) (1)において得られたレット症候群児（者）の情報から、手の常同運動を減らす取り組みが行われていた 194 事例においては、平均年齢は 17 歳であり、横地分類は A1-17 名、A2-6 名、A3-17 名、A4-3 名、A5-1 名、A6-10 名、B1-2 名、B2-5 名、B3-4 名、B4-2 名、B5-4 名、B6-21 名、C6-1 名、D6-1 名で

あり、目的的な手の動きが 75 例、手の常同運動の減少因子が 90 例、増加因子が 85 例、上肢装具の使用が 53 例に認められた。手の常同運動を減らす取り組みが行われていなかった 194 事例においては、平均年齢は 21 歳であり、横地分類は A1-18 名、A2-7 名、A3-15 名、A4-9 名、A5-6 名、A6-5 名、B1-9 名、B2-0 名、B3-8 名、B4-3 名、B5-3 名、B6-14 名、C6-0 名、D6-0 名であり、目的的な手の動きが 75 例、手の常同運動の減少因子が 87 例、増加因子が 83 例、上肢装具の使用が 47 例に認められた。本調査から、手の常同運動を減らす取り組みが行われていた事例と行われていなかった事例において、平均年齢、横地分類、目的的な手の動き、手の常同運動の減少因子・増加因子、上肢装具の装用の観点から著明な違いは示されなかった。このことから手の常同運動に対する介入は確立されているとは言い難く、今後どのような事例にどのような介入を行っているかの集積が求められる。【学会発表】

(3) (1)において得られたレット症候群児（者）の情報から、上肢の皮膚損傷は 41%、関節拘縮は 49%に観察された。皮膚損傷の部位は、手（19%）、指（21%）といった末梢に目立ち、摩擦（24%）と湿潤（19%）による理由からが多かった。皮膚損傷については年齢や重症度の関連は認められなかった。関節拘縮の部位は、肩関節（33%）、肘関節（29%）に多く見られた。関節拘縮については、10 歳以上になると約半数の児（者）に確認され、重症度との関連は、横地分類 A1、A2、B1、B2 の児（者）において、確認される傾向にあった。【雑誌論文】

(4) 画面に対する注視の有無や程度に関わらず、映像からの動作解析を用いることで、身体や上肢の運動の変化を評価でき、手の常同運動の増減等を評価できる可能性が示された。今回、課題や刺激によって、視線の動きや目的的な手の動きが促される時に、手の常同運動が減る児（者）を確認できたが、常同運動の増減因子は様々であり、今後被検者数を増やし検討を進めたい。

(5) パソコン画面に対する注視率は初回時 46%、最終時 59%とパソコン画面上の課題を見る時間が増加した。課題注視率は犬が 1/2 隠された場面で初回及び最終時ともに 100%となった。また、完全にカップに隠された場面でも課題注視率は 100%となった。このことから、対象者の追視と物の永続性課題は 8 ~ 12 ヶ月前後の発達段階であることが示唆された。本対象者のように既存の評価バッテリーでは、発達段階の評価が難しい場合であっても、視線解析装置を用いることでより詳細な評価が可能であることが分かった。客観的なデータとして発達段階が示されたことで、対象者の発達段階に合わせた遊びや玩具

の選択、関わり方等の一助となると考えられる。【学会発表】

## 5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕(計2件)

Hirano D, Taniguchi T. Skin injuries and joint contractures of the upper extremities in Rett syndrome. Journal of Intellectual Disability Research 62(1) 53-59, 2018.  
DOI: 10.1111/jir.12452. 査読有.

Hirano D, Taniguchi T. What are patients with Rett syndrome interested in? Journal of Physical Therapy Science 30(2) 258-261, 2018.  
DOI: 10.1589/jpts.30.258. 査読有.

〔学会発表〕(計4件)

平野大輔, 谷口敬道. レット症候群児(者)における手の常同運動を減らす取り組み. 第52回日本作業療法学会, 2018.

Hirano D, Taniguchi T. Variation of stereotypical hand movements and objects of interest in individuals with Rett syndrome. Rett Syndrome International Symposium 2017 in Kobe, 2017.

平野大輔, 谷口敬道. レット症候群児(者)における手の常同運動の増減因子と興味の対象. 第51回日本作業療法学会, 2017.

米田歩, 平野大輔, 谷口敬道, 下泉秀夫. 視線入力装置を用いた Rett 症候群の認知機能評価の試み 追視と物の永続性課題による1事例検討. 第43回日本重症心身障害学会学術集会, 2017.

〔図書〕(計0件)

〔産業財産権〕

出願状況(計0件)

取得状況(計0件)

## 6. 研究組織

(1)研究代表者

平野 大輔 (HIRANO, Daisuke)

国際医療福祉大学・成田保健医療学部・講師

研究者番号: 90572397