

令和 6 年 9 月 24 日現在

機関番号：34603
研究種目：基盤研究(C)（一般）
研究期間：2019～2023
課題番号：19K03314
研究課題名（和文）筋強直性ジストロフィーにおける疲労感の解明とヘルスケア行動改善プログラムの開発

研究課題名（英文）Elucidation of fatigue in patients with myotonic dystrophy type 1 and the development of healthcare program

研究代表者
井村 修（IMURA, Osamu）
奈良大学・社会学部・教授

研究者番号：20176506
交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 3,200,000円

研究成果の概要（和文）：筋強直性ジストロフィータイプ1患者（DM1）の疲労感の測定と、彼らのQoL改善の要因を検討した。10名のDM1患者は、生体情報端末で活動量をセルフモニタリングしながら、体重のコントロールが求められた。また疲労感（MFI-20）、HbA1c、QoLも測定された。ベースライン、介入、フォローアップの期間はそれぞれ2か月であった。体重は平均で約4kg減少したが、HbA1cは変化が見られなかった。疲労と抑うつ感は低下したが、昼間の眠気の軽減は大きくなかった。DM1患者の健康管理の目標として、体重のコントロールが適切であることが示唆された。体重のコントロールは、疲労感や抑うつ感の改善にも効果的であった。

研究成果の学術的意義や社会的意義

筋強直性ジストロフィータイプ1は、難治性の神経筋疾患ではあるが、中枢神経障害も含む多くの合併症状を有する。疲労感、抑うつ、過度な昼間の眠気があることは報告されているが、その原因や促進要因は明確ではない。彼らのQoLを改善するには、身体的治療ばかりでなく、心理的要因についても配慮することが重要である。本研究では、生体情報端末を利用し、体重と活動量をセルフモニタリングすることで、彼らの健康管理への意欲を高め、疲労感の軽減など心理的要因改善を試みるプログラムを実施した。体重は平均で約4kg低下し、疲労感や抑うつ感の改善が認められた。本研究の成果は、疲労感の高い他の身体的な疾患でも適用可能と思われる。

研究成果の概要（英文）：This research was aimed to measure the fatigue and to find factors to improve the QoL in patients with myotonic dystrophy type 1(DM1). Ten patients with DM1 were required to control their weight by monitoring their activity wearing biometric information terminal. Fatigue (MFI-20), HbA1c and QoL related scales were measured. The duration of baseline, intervention and follow-up was two months in each. The mean of weights was reduced about 4kgs. HbA1c did not change. Fatigue and depression decreased. However, the change of excessive daytime sleepiness was small. It was suggested that controlling the weight of patients with DM1 is appropriate goal to maintain their health state. And also, it was effective to reduce their fatigue and depression.

研究分野：臨床心理学

キーワード：筋強直性ジストロフィー 疲労感 過度な眠気 QoL 生体情報端末 セルフモニタリング

1. 研究開始当初の背景

筋強直性ジストロフィータイプ1 (DM1) は、19 番染色体の DMPK 遺伝子の異常で生じ、筋強直や筋力低下の身体的主症状だけでなく、認知機能の低下や過度の昼間の眠気、疲労感などの心理的障害も呈する(「筋強直性ジストロフィー診療ガイドライン」作成委員会, 2020)。彼らの QoL を高めるためには、身体的治療だけでなく、患者自身の積極的な健康管理と心理的な支援が求められている。しかし一方では、DM1 患者の病気への自覚は乏しく(Baldanzi et al., 2016)、アパシー傾向や疲労感が高いことも指摘されており(Gallais et al., 2015)、彼らのヘルスケア行動への動機付けは必ずしも高くない。

2. 研究の目的

本研究は、活動量などの生体情報のセルフモニタリングを通して、体重の自己管理を行なう健康管理プログラムの試案を検討する。体重は計測が容易で、DM1 患者も変化を実感しやすいと考えられるため、第一のアウトカムメジャーに設定した。第二のアウトカムメジャーとして HbA1c、疲労感、昼間の眠気、アパシー傾向、抑うつ感、QoL 尺度、食生活と運動に関する重要度と自己効力感を測定することにした。

3. 研究の方法

研究参加者：DM1 と診断された 10 名。参加の条件としては、年齢が 18 歳以上 70 歳未満、認知機能に問題がないこと、一人で立位姿勢を保持できることであった。

機器：生体情報端末(製品名 Fitbit alta HR) 腕時計式で歩数、移動距離、心拍、睡眠時間、睡眠深度が計測可能。体重計(製品名 TANITA DUAL innerScan)。

手続き：主治医による研究参加へのインフォームドコンセントの後に、研究者が、以下の健康管理プログラムの概要を説明した。2 か月間のベースライン測定(歩数の測定のみ) 2 か月間の介入(目標歩数と目標体重の達成、研究者からの週 1 回の電話またはメールによる励まし)、2 か月のフォローアップ。フォローアップ期間は、歩数と体重のセルフモニタリングを患者自身が行ない、健康管理行動をとるよう T3 の面談時に指示された。

評価尺度：

SF-36v2™：健康関連の QoL 尺度(Fukuhara et al., 1998)

INQoL：INQoL 日本語版(the Individual Neuromuscular Quality of Life)は、神経疾患の QoL を評価する尺度(Fujino et al., 2018)

MF1-20：日本語 Multidimensional Fatigue Inventory は、疲労感を測定する 20 項目からなる尺度(菅谷ら、2005)

JESS：エプワース眠気尺度 (Japanese version of the Epworth Sleeping Scale, 福原ら, 2006)

PHQ-9：Patients Health Questionnaire-9 (村松・上島, 2009) 9 項目からなる抑うつ尺度

生理的指標

体重：外来受診時のルーティーン of the 検査項目。

HbA1c：外来受診時のルーティーン of the 検査項目。

測定時期は、ベースライン開始時(T1)、介入開始(T2)、介入終了時(T3)、フォローアップ終了時を(T4)とした。また T1、T2、T3、T4 の時点で、研究者は研究参加者と面談を行い、プログラムの進捗状況を確認した。

4. 研究成果

(1) 研究参加者の属性を表 1 に示す。年齢の平均は 35 歳、男性 5 名、女性 5 名であった。CTG リピートとは DMPK 遺伝子の CTG が反復していることを示し、反復回数が多いほど重症化するとされている。通常の反復回数は 5 回から 37 回。

(2) 表2にT1~T4の時点での体重とHbA1Cの平均の推移を示す。体重はT1と比較してT3で4kg、T4で3.7kg減となったが、個人差が大きかったため統計的には有意でなかった。HbA1Cは1名を除き個人内では安定した数値であった。

(3) 表3にMFI-20(疲労感)、JESS(昼間の眠気)、PHQ-9(抑うつ)の結果を示す。T1とT2の平均値をベースライン期間(以下Bと略)の得点とした。MFI-20ではBとT4の間に有意差($t=2.49$, $df=8$, $p=.037$)、PHQ-9ではBとT4の間に傾向($t=2.01$, $df=8$, $p=.078$)がみられた。

(4) 体重はT1とT4を比較した場合平均で3.7kg減少した。詳しく検討すると4名が減少、4名が変動小($\pm 1\text{kg}$ 以内の変動)、2名が増加であった。HbA1Cに比べ体重の方が変動しやすい指標と考えられる。

参加者	年齢	性別	身長	体重	CTGレポート
A	25	M	173.0	97.0	120~170
B	28	M	172.0	79.4	500~700
C	20	M	164.3	71.0	350~420
D	29	F	155.0	51.2	NA
E	43	F	156.0	62.2	1300~1700
F	45	M	164.0	64.8	800~1300
G	43	F	160.0	73.0	600~800
H	44	F	161.0	77.5	233
I	45	F	160.0	62.0	800
J	45	M	163.9	53.2	100~200

	T1	T2	T3	T4
体重	75.1	73.25	71.1	71.4
HbA1C	5.2	5.4	5.4	5.2

	T1	T2	T3	T4
MFI-20	70.6	70.1	68.2	63.9
JESS	10.7	12.6	12	9.9
PHQ-9	9.3	9.6	7.8	6.4

DM1のMFI-20は、Fujino et al. (2017)によると64.2であり、今回のT4の63.9に近い値であった。しかしT1では70.6であり、疲労感DM1のQoLに影響を与える要因と考えられる。菅谷ら(2005)では、健常成人のMFI-20は51.5であった。慢性疲労症候群様の訴えを有する米国人成人のMFI-20は67.0であった(Jim-Mann, S. Lin et al, 2009)したがってDM1の疲労感、慢性疲労症候群に匹敵するものと推定される。MFI-20とPHQ-9で得点の低下がみられ、疲労感や抑うつ感の改善にある程度有効性が示唆された。しかしPHQ-9は9.3から6.4への得点の低下であり、依然5~9の軽度の抑うつ範囲であった。昼間の眠気(JESS)は11以上が問題ありの基準である。T1とT4はわずかに下回っていたが、T2とT3は基準を越えていた。昼間の眠気もQoLに影響を与える要因と考えられる。体重や活動量はモニタリングしやすく、DM1患者の健康管理には有益な目標となり得る。

またDM1患者の行動変化に敏感な指標であり、HbA1cよりも成果の実感が得られやすく、DM1患者の健康管理への動機づけを高めた可能性がある。HbA1cは1~2か月間の血糖値の平均値であり、短期間の行動変化では変動しにくい指標である。したがって本研究の介入では低下しなかったと考えられる。しかし健康管理は長期的なものであり、体重や活動量のコントロールが、HbA1cのような安定した指標にも影響を及ぼすことが望まれる。研究参加者は長期間のプログラムであったが積極的に研究に協力した。また参加者DやCは体重の変化は小であったが、PHQ-9はそれぞれ18、2、15、6に変化した。生体情報端末を活用した健康管理プログラムは、DM1患者の健康管理への関心を高め、積極的に関与することで能動性、主体性を促進したものと考えられる。

本プログラムは、DM1患者のQoL改善を目的としたものであったが、他の身体疾患や障害心理的支援のツールとしても適用可能ではないだろうか。

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計2件（うち査読付論文 1件/うち国際共著 0件/うちオープンアクセス 1件）

1. 著者名 Fujino Haruo, Saito Toshio, Takahashi Masanori P., Takada Hiroto, Nakayama Takahiro, Imura Osamu, Matsumura Tsuyoshi	4. 巻 22
2. 論文標題 Quality of life and subjective symptom impact in Japanese patients with myotonic dystrophy type 1	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 BMC Neurology	6. 最初と最後の頁 1-7
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1186/s12883-022-02581-w	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 -

1. 著者名 井村修, 松村剛, 諏訪園秀吾, 上田幸彦, 藤野陽生, 高橋正紀	4. 巻 7
2. 論文標題 筋強直性ジストロフィータイプ1 (DM1)における疲労感の問題	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 筋ジストロフィー医療研究	6. 最初と最後の頁 18~23
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計4件（うち招待講演 1件/うち国際学会 1件）

1. 発表者名 井村修
2. 発表標題 DM1における疲労感の要因
3. 学会等名 第9回筋ジストロフィーのCNS障害研究会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 井村修, 上田幸彦
2. 発表標題 生体情報端末を活用した筋強直性ジストロフィー患者の健康管理プログラム開発の試み
3. 学会等名 日本リハビリテーション心理学会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 井村修
2. 発表標題 患者さんと協働するヘルスケア行動プログラムの試み
3. 学会等名 日本神経学会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 UEDA, Y., IMURA, O., SHINGAKI, H., OHNO, M., SUWAZONO, S., MATUI, M., FUJINO, H., SAITO, T., MATSUMURA, T., FUJIMURA, H., TAKAHASHI, M.
2. 発表標題 Pilot study of Cognitive-Behavioral Therapy for Myotonic Dystrophy Type 1 patients by using a Biometric Information Monitor
3. 学会等名 IDMC 12 International Myotonic Dystrophy Consortium (国際学会)
4. 発表年 2019年

〔図書〕 計1件

1. 著者名 井村修	4. 発行年 2023年
2. 出版社 遠見書房	5. 総ページ数 11
3. 書名 筋ジストロフィーという慢性難病を抱えること『喪失のこころと支援（山口智子編）』	

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考

7. 科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕 計0件

8. 本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関
---------	---------