

## 科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 26 年 6 月 17 日現在

機関番号：10101

研究種目：基盤研究(C)

研究期間：2011～2013

課題番号：23500578

研究課題名(和文) 重度心身障害を伴う大脳性視覚障害児・者を対象とした視覚行動評価尺度の開発

研究課題名(英文) Visual severity scale for patients with severe motor and intellectual disabilities and cerebral visual impairment: reliability and validity

研究代表者

境 信哉 (Sakai, Shinya)

北海道大学・大学院保健科学研究所・准教授

研究者番号：30299804

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 4,200,000円、(間接経費) 1,260,000円

研究成果の概要(和文)：本研究の目的は、重症心身障害児者(以下、重障児者)を対象とした大脳性視覚障害重症度評価スケールを開発することである。本スケールは8項目、3～4水準で構成された。コンジョイント分析により得点が重みづけされ、24名の重障児者に実施した重症度得点と視運動性眼振法によるコントラスト感度とを比較し妥当性が検討された。信頼性は専門職34名の一致度を級内相関係数(以下、ICC)にて確認した。結果、基準関連妥当性は $r=0.50$ 、検査者間信頼性は $ICC=0.59$ となり、いずれも中程度の有意な正の相関が認められた。本スケールは、重障児者に対する視覚の介入において有用な評価法となり得ることが示唆された。

研究成果の概要(英文)：The aim of this study was to develop a convenient non-motor visual functional scale for patients with severe motor and intellectual disabilities (SMID) and cerebral visual impairment (CVI). Severity of visual impairment was ranked, and conjoint analysis was undertaken for the obtained data. Validity of the scale was examined by comparing the score of the scale and contrast sensitivity functions (CSFs) obtained by observation of optokinetic nystagmus to drifting gratings in 24 patients with SMID and CVI or non-CVI. Inter-rater reliability was confirmed using intraclass correlation coefficient (ICC). Total score ( $r=0.50$ ,  $p<0.05$ ) and grating acuity ( $r=0.52$ ,  $p<0.01$ ) of the scale demonstrated a moderate significant correlation with composite CSFs and achromatic CSFs (4 cycles/degree), respectively. Inter-rater reliability was moderate ( $ICC=0.59$ ,  $p<0.05$ ). This scale may be a useful tool in occupational therapy for patients with SMID.

研究分野：人間医工学

科研費の分科・細目：リハビリテーション科学・福祉工学

キーワード：重症心身障害 大脳性視覚障害 スケール 視覚評価 CVI 視覚障害 尺度 リハビリテーション

## 1. 研究開始当初の背景

大脳性視覚障害 (cerebral visual impairment; 以下、CVI) とは、視交叉以降の視覚路あるいは視覚領域の損傷によって生じる視覚障害と定義される (Van Hof-van Duin et al., 1998)。小児における CVI の原因として低酸素性虚血が 36% と最も多く、続いて頻度が高い順に早期産、水頭症、脳奇形、てんかん、髄膜炎と報告されている (Khetpal et al., 2007)。これら CVI を引き起こす原因は、脳性麻痺 (cerebral palsy; 以下、CP) と共通の起源を有しており (Fazzi et al., 2010) CVI 児の約 58% が CP をはじめとする周産期の脳損傷による神経学的障害を合併していたという報告 (Huo et al., 1999) や、脳室周囲白室軟化症を示す CP 児のうち 66% が CVI を伴っていたという報告もある (Lanzi et al., 1998)。

新生児医療の進歩による超未熟児や病弱児の生存率の上昇により、先進国では CVI の増加と心身障害の重度化が進んでいる (Good et al., 1994; Surman et al., 2009)。これより、CVI をもつ重症心身障害児 (者) (以下、重障児 (者)) は増加していると推測されるが、彼らに対する視覚リハビリテーションは僅かにしか報告がない (Baker-Nobles et al., 1995; Malkowicz et al., 2006)。重障児 (者) は、重度の身体障害と知的障害を併せ持っているため、検査で求められる指示に従うことが困難であり、通常の視覚検査を施行することができない。そのため、対象の残存視覚を客観的に把握できず、視覚リハビリテーションに最適な視覚刺激を選択できないということが介入を停滞させている主な要因であると考えられる。

CVI を呈する心身障害児の視覚評価には、乳児のために開発された行動学的および電気生理学的手法が応用されてきたが、それらをより重度の心身障害児者に用いるには多くの障壁が存在する。乳幼児の視覚検査に用いられる選好注視法や視覚誘発電位を用いた視力測定やコントラスト感度測定では、一定時間の固視が要求されるため、視覚性注意が低下した重障児 (者) への施行は難しい (Good et al., 2001)。Sakai ら (2002, 2008) の用いた視運動性眼振 (optokinetic nystagmus: OKN) 法によるコントラスト感度測定 (以下、OKN 法) は重障児 (者) にも利用が可能であるが、その測定には高価な刺激生成装置や熟練した検査者が必要であるため、臨床的に普及させることは容易ではないと推察される。また他の問題として、たとえ上記の評価法によって視力やコントラスト感度が測定できたとしても、CVI 児の中には視力低下を伴わない例が存在するほか (van Genderen et al., 2012) 広範な脳損傷からコントラスト感度、視野、注視など視知覚に関係する様々な要素で低下を示す者が少なくない (Hoyt, 2003; Dutton et al., 2004)。したがって、CVI 児の残存視覚を適切に捉え

るためには、視力だけでなくその他の視覚能力も加味した包括的な視覚検査が必要とされる。

## 2. 研究の目的

本研究では、CVI を呈する重障児 (者) を対象とした包括的かつ、特別な技術を必要としない普及性の高い視覚評価スケール (CVI 重症度評価スケール (以下、CVI スケール)) を開発する。本スケールの有用性が確認できれば、これまで視覚行動や環境面の制限のために評価が困難であった重障児 (者) の視覚障害の重症度を数量化して表すことが可能となり、重障児 (者) を対象とした視覚リハビリテーションの発展に寄与し得ることが期待される。

## 3. 研究の方法

### (1) CVI スケールの作成

#### 項目と水準および検査方法の決定

評価項目は、乳児の視覚発達および重障児 (者) や CVI 児の視覚評価に関する文献から選択した。項目は、健常乳児においておよそ生後 3 か月以内に発達するといわれている視覚機能を中心に構成した。

これら項目と水準および検査方法について視覚を専門とする研究者と小児神経科医を含む専門家会議にて内容的妥当性の検討を行った。

#### 専門職による重症度判定

CVI スケールの項目と水準をもとに直交計画を生成し、視覚機能の異なる複数の仮想患者カードを作成した。直交計画およびカードの作成には、IBM SPSS conjoint 21.0 の ORTHOPLAN と PLANCARDS 機能を用い、カードには各評価項目に関していずれかの水準を割り付けた。これらのカードに対し、作業療法士、言語聴覚士、理学療法士、養護学校教諭、視能訓練士等、医療福祉に関わる専門職 50 名にオフラインで重症度の順位づけを行ってもらった。より適正な重症度判定を実施するために、判定前には視覚と CVI の基礎知識に関する講習を実施した。

#### 統計学的分析

収集した判定データに対してコンジョイント分析を行った。専門職による重症度判定で得られた順位づけデータをもとに、SPSS conjoint を用いて順序数値の逆数をそのまま間隔尺度に変換して最小二乗法により解析し、出力として各属性 (以下、評価項目) の相対重要度およびその各水準の部分効用値 (以下、重みづけ値) 全体効用の推定式 (以下、重症度算出式) を得た。

### (2) CVI スケールの妥当性と信頼性の検討

統計解析には IBM SPSS 21.0 を用い、有意水準はすべて 5 % 未満とした。

#### 基準関連妥当性の検討

対象：重障児 (者) 入所施設、養護学校、在宅支援センターから以下の基準により重障

児(者)を募集した。対象となる CVI の選定基準は、対光反射が陽性である、末梢性の眼疾患が無いまたは軽度である、神経学的所見、脳画像等から視交叉以降の視覚路または後頭葉の損傷が推測される、視覚障害による行動制限がある、一時的な視覚障害でないことの全てを満たす者とした。また、軽度の CVI を対象に含めるため、日常生活上明らかな視覚的行動制限が認められない重障児(者)も同時に若干名募集した。

**手続き:**各対象に対して、CVI スケールと OKN 法の 2 つの検査を行った。両検査は、同一被験者に対して同日または 1 か月以内に実施した。OKN 法は、Sakai ら(2002)の方法に従い実施した。用いた刺激は、水平軸に沿って正弦波状に輝度あるいは赤緑色度が変化する縞とし、3 種の空間周波数(輝度は 1.0 と 4.0 cycles/degree、赤緑色度は 0.25 cycles/degree)それぞれにつき、コントラストを段階的に変化させて提示した。

**統計学的分析:**CVI スケールの重症度得点と OKN 法の混合得点を比較し、Spearman の順位相関係数を用いてその相関を調べた。混合得点は、3 種の検査の成績を検査ごとに対象者間で順位づけし、その順位和を 3 で割って算出した。

#### 検査者間信頼性の検討

**対象:**作業療法士、言語聴覚士、理学療法士、養護学校教諭などの医療福祉に関わる専門職 34 名を対象とした。

**手続き:**より適正な判定を実施するために、事前に視覚と CVI の基礎知識に関する講習を実施した。判定には、予備的検査時に撮影した重障児(者)5 名の評価 VTR を CVI スケールの各項目にランダムに割り付けて上映し、判定者にオフラインでの判定を依頼した。

**統計学的分析:**複数の評価者による評価結果の一致の程度を示す指標として級内相関係数(intraclass correlation coefficient; 以下、ICC)を用い、二元配置変数モデルにおける絶対一致に基づいて評価者間信頼性を調べた。

本研究は北海道大学大学院保健科学研究院倫理審査委員会の承認を得て実施した(承認番号 12-16)。

## 4. 研究成果

### (1)CVI スケールの作成

#### 項目と水準および検査方法の決定

本スケールは、瞳孔反応、眼瞼反射、視野、注視、追視、縞視力、コントラスト感度、色覚の 8 項目をもち、各項目の水準が 3 ~ 4、検査に必要な 11 枚の用紙で構成された。

#### 専門職による重症度判定

CVI スケールの評価項目と水準数をもとにした直交計画により、32 枚の仮想患者カードが作成された。50 名の重症度判定者は、作業療法士 24 名、養護学校教諭 10 名、言語聴覚士 5 名、理学療法士 5 名、その他の専門職 6 名となり、経験年数は 1 年未満 ~ 32 年(中央

値 9.0 年、平均  $10.8 \pm 8.4$  年)であった。

#### 統計学的分析

コンジョイント分析の結果、各評価項目の相対重要度は瞳孔反応が 25.6%で最も高く、次いで高い順に、縞視力 14.1%、コントラスト感度 12.9%、視野 11.5%、眼瞼反射 10.6%、注視 9.9%、追視 7.6%、色覚 7.8%となった。重症度算出式は、各項目における水準に割り当てられた重み付け値の和に定数 16.864 を加えたものとなり、重症度得点の範囲は -0.758(重度) ~ 32.604(軽度)となった。

### (2)CVI スケールの妥当性と信頼性の検討

#### 基準関連妥当性の検討

対象は、3 ~ 57 歳の重障児(者)24 名となった(平均  $19.7 \pm 13.3$  歳、男性 20 人、女性 4 人)。22 名は視覚的反応がきわめて乏しく、親や療育者から「視覚障害の程度が不明」と言われる者であった。残りの 2 名は日常生活上の観察からは明らかな視覚障害による行動制限が認められない者であった。全例が大島の分類 1 であり、重度な心身障害を有していた。

これらの対象における CVI スケールの重症度得点と、3 種の空間周波数における OKN 法の混合得点とを比較した結果、順位相関係数  $r=0.50$  となり中程度の有意な正の相関を示した( $p < 0.05$ )。なお、CVI スケールの一人あたりの所要時間は 20 分程度であった。

### (3)検査者間信頼性の検討

VTR による CVI スケールの評価者は、作業療法士 16 名、養護学校教諭 8 名、言語聴覚士 5 名、理学療法士 5 名の計 34 名であり、経験年数は 1 年未満 ~ 31 年(中央値 8.00、平均  $10.8 \pm 7.27$  年)であった。判定者全体における評価者間信頼性は  $ICC=0.59$  となり、中程度ながら有意な正の相関を示した( $p < 0.01$ )。また、職種別の分析においても、作業療法士  $ICC=0.54$ 、養護学校教諭  $ICC=0.62$ 、言語聴覚士  $ICC=0.60$ 、理学療法士  $ICC=0.59$  と、いずれも中程度の有意な正の相関が認められた( $p < 0.01$ )。項目ごとの評価の一致率にはばらつきが認められ、眼瞼反射や縞視力では 94.0 ~ 100.0%と非常に高かったのに対し、瞳孔反応および追視では最頻値が 41.2 ~ 50.0%と低値を示した。

### (4)得られた成果の国内外における位置づけとインパクトと今後の展望

重症児(者)を対象とした視覚評価スケールは国内外を問わず、これまで作成されてこなかった。我々が開発した CVI スケールは、CVI を伴う重症児(者)の視覚機能を包括的かつ定量的に評価できる唯一の尺度である。さらにその簡便さから国内において普及が促進され、視覚障害を有する重症児(者)の療育に大きく貢献できるものと思われる。

本尺度は、日本語版であるため、海外での利用および普及は容易ではない。今後は、海

外の研究者等と協力し、外国語版の作成に尽力したい。

#### 5. 主な発表論文等

(研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線)

[雑誌論文](計1件)

1. 池田 歩、境 信哉、星有理香、桜庭 聡、吉田雅紀、平元 東、加藤光広、八田達夫、平山和美、重症心身障害児(者)を対象とした大脳性視覚障害重症度評価スケールの開発、日本重症心身障害学会誌(印刷中)、査読あり

[学会発表](計5件)

1. Ayumi IKEDA、Satoshi SAKURABA、Masanori YOSHIDA、Tatsuo HATTA、Shinya SAKAI、Visual severity scale for patients with severe motor and intellectual disabilities and cerebral visual impairment: reliability and validity、16<sup>th</sup> International Congress of the World Federation of Occupational Therapists、2014年6月、横浜
2. Shinya SAKAI、Visual assessment and rehabilitation for children with cerebral visual impairment、LECTURER EXCHANGE AND SCIENTIFIC MEETING “The role of rehabilitation on improving health and quality of life”、2013年12月、Semarang, Indonesia
3. 境 信哉、シンポジウム発達障害と視覚-基礎研究から臨床応用に向けて 重度心身障害児の視機能評価への挑戦、日本視覚学会 2013年夏季大会、2013年7月、札幌
4. 境 信哉、星有理香、加藤光広、CVI 重症度評価スケールの紹介、滑脳症親の会定例会/厚労科研 PPS 班共催合同シンポジウム、2013年6月、大分
5. 境 信哉、八田達夫、池田 歩、星有理香、桜庭 聡、加藤光広、平山和美、平元 東、鳥井希恵子、吉田雅紀、水上未香、古川章子、高木陽出、大脳性視覚障害を伴う重度心身障害児・者を対象とした非運動性視覚行動評価尺度の開発、第1回北海道重症心身障害医療研究会、2013年1月、札幌

[その他]

ホームページ等

<http://www.ot-hokudai.info>

#### 6. 研究組織

(1)研究代表者

境 信哉(SAKAI Shinya)

北海道大学・大学院保健科学研究院・准教授

研究者番号：30299804

(2)連携研究者

平山 和美(HIRAYAMA Kazumi)

山形県立保健医療大学・教授

研究者番号：00218819

加藤光広(KATO Mitsuhiro)

山形大学医学部小児科学講座・講師

研究者番号：10292434

(3)研究協力者

池田 歩(IKEDA Ayumi)

医療法人社団聖稜会 聖稜リハビリテーション病院・作業療法士