

科学研究費助成事業 研究成果報告書

令和 2 年 6 月 3 日現在

機関番号：12601

研究種目：研究活動スタート支援

研究期間：2018～2019

課題番号：18H06411・19K21489

研究課題名(和文)先天性四肢障害児の認知機能および知能に関する研究

研究課題名(英文)Cognitive function and intelligence in children with congenital upper limb deficiency

研究代表者

真野 浩志 (Mano, Hiroshi)

東京大学・医学部附属病院・病院診療医

研究者番号：30647748

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 800,000円

研究成果の概要(和文)：本研究では、先天性上肢形成不全児の知能、適応行動はいずれも平均的であることが明らかになった。一般に運動障害のある児は、Wechsler系知能検査において、知能指数が低いとされているが、本研究における先天性上肢形成不全児では当てはまらなかった。理由のひとつとして、義手を含むリハビリテーション治療により上肢運動機能が十分獲得できており、知的発達が促されていた可能性が考えられた。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本研究は、小児における運動機能障害と知能・認知機能の関係について、一部ではあるが明らかにした。運動機能障害に対し適切な対応により運動機能を補うことにより、知能・認知機能、社会機能を伸ばすことができると考えられる。本研究の成果は、今後、四肢障害児・者に対するよりよい支援を構築する上で、運動面、知能および認知機能、社会面から役立つものとする。

研究成果の概要(英文)：This study showed that children with congenital upper limb deficiencies presented with average intelligence and adaptive behaviour. Reportedly, children with motor disabilities show a low intelligence quotient on The Wechsler Intelligence Scale for Children. However, this finding is not observed in children with congenital upper limb deficiencies. As a reason for it, rehabilitation therapy, including the use of prosthetic limbs might adequately compensate for their disabilities and facilitate intellectual development.

研究分野：リハビリテーション医学

キーワード：リハビリテーション 四肢形成不全 四肢欠損 認知機能 知能

1. 研究開始当初の背景

四肢形成不全は、胎生期に生じ出生時に四肢の形態異常を示す疾患の総称である。四肢の横軸性欠損、絞扼輪症候群の他、橈骨・尺骨形成不全、脛骨・腓骨形成不全、近位大腿骨限局性欠損症などが代表的である。サリドマイドのような環境的要因を除き、多くの疾患の原因は不明であるが、近年一部の疾患で遺伝子異常が明らかになっている。四肢形成不全は希少疾患であり、出生時から成長に伴い継続的な対応が必要であるにも関わらず、疾患概念や十分な医療体制は確立されていない。四肢形成不全の発生率は、海外の報告では1万出生に対し4.9-6.9人程度とされる。研究代表者らの全国疫学調査では本邦では1万出生に対し4.15人と推計されている(Mano H, et al. BMC Musculoskeletal Disorders. 2018.)。

一般に、四肢障害児のリハビリテーションでは、下肢障害児では歩行などの移動機能の獲得に重点が置かれ、上肢障害児では健側上肢や下肢による代償動作の獲得に重点が置かれ、運動機能に対する評価・介入は行われるが、認知機能や知能に対する評価・介入は行われてこなかった。特に上肢形成不全児では、片側上肢欠損の場合は対側の健常な手指が残っていれば、日常生活動作の9割以上のことができるとされ、当時は義手の機能も決して高くなかったことから、本邦では治療の対象にもならなかった。近年は電動義手を含む様々な機能の義手が発達し、様々な義手を使い分けて使用する事により、活動範囲を広げ社会参加の拡大とQOLの向上に寄与することが報告されており、本邦でも近年ようやく機能的な義手による治療が広がりはじめているのが現状である。

研究代表者らは、二分脊椎や四肢形成不全の小児を対象とした研究で、患児は麻痺・欠損部位の身体知識が視覚的にも言語的にも不足していること、患部と相同性のある部位(上肢障害児では下肢、下肢障害児では上肢)についても身体知識が不足していることを明らかにしている(下肢形成不全児: Mano H, et al. Pediatr Int. 2019., 上肢形成不全児: Mano H, et al. Brain Nerve. 2020., 二分脊椎児について投稿中)。また、研究代表者らは知的発達の遅れがない二分脊椎児を対象としウェクスラー式知能検査を行い、処理速度(情報を素早く正確に順序良く識別処理する能力)や認知熟達度(情報を流暢に処理する能力、知能の核心部分ではないが能力を効率よく発揮するためのスキル)が低いことを明らかにしている(Mano H, et al. Cogent Medicine. 2018)。これらの結果からは、四肢障害児・者は単に四肢の運動機能が障害されているだけでなく、四肢の運動機能障害から二次的に認知機能や知能が影響を受け、特徴を持っていることが示唆される。すなわち、これら四肢障害児が就学・就労等の社会参加を行う上で、単に運動機能のみを支援・補完するだけでなく、認知機能や知能の面からも支援・配慮や訓練を行うことで、社会においてより能力を発揮することが期待できると考えた。

2. 研究の目的

本研究課題の核心をなす学術的な問いとは、四肢障害が与える認知機能・知能への影響とは何か、また四肢障害児・者が社会参加をし、そこで能力を発揮するためにはどのような支援、特にリハビリテーション治療をすれば良いか、である。

本研究では、先天性四肢欠損児の運動スキルを含む適応行動と、認知機能および知能を明らかにすることを目的とした。

3. 研究の方法

対象は義手を使用している先天性の片側の四肢横軸形成不全(前腕、手関節または手根骨レベル)の小児とした。発達・適応行動検査として日本版 Vineland-II 適応行動尺度、知能検査としてウェクスラー式検査(日本版 WPPSI-III 知能検査)を実施した。得られた結果から、先天性四肢欠損児の適応行動、知能について解析・考察を行った。

4. 研究成果

研究期間(2018年度~2019年度)中、累計10人の児およびその保護者から研究参加の同意を得て、10人全員について、検査(1)として、日本版 Vineland-II 適応行動尺度(発達・適応行動検査として児の適応行動について保護者に半構造化面接法により質問を行い実施)を、検査(2)として、日本版 WPPSI-III 知能検査(知能検査・ウェクスラー式検査として実施)を実施した。それぞれ結果について解析・考察を行った。また、(3)適応行動と知能の関係として、上記2つの検査の相関について解析・考察を行った。

(1) 日本版 Vineland-II 適応行動尺度

適応行動総合点,および各領域(コミュニケーション,日常生活スキル,社会性,運動スキル)の領域標準得点とも平均的な値であり,先天性上肢形成不全児の適応行動は,いずれの領域においても平均的であった。また,各領域の標準得点は,領域標準得点中央値と比較して有意差はなく,適応行動において特に強み・弱みである領域はなかった。義手を全くまたはほとんど使用したことのない片側の上肢横軸形成不全児では,運動スキルが弱みであることが示されているが(Mano H, et al. Prosthet Orthot Int. 2018),本研究では運動スキルの弱みはなく,義手の使用を含むリハビリテーション治療により運動機能が改善されていたと考えた。

(2) 日本版 WPPSI-III 知能検査

全検査知能指数,および各領域(言語理解,知覚推理,処理速度)の指標とも平均的な値であり,先天性上肢形成不全児の知能は,いずれの領域においても平均的であった。また,各領域の指標は,言語理解指標の値が,知覚推理指標,処理速度指標より5点程度高かったものの,その差は有意ではなかった。一般に運動障害のある児は,Wechsler系知能検査において,知能指数が低いとされているが,本研究における先天性上肢形成不全児では当てはまらなかった。理由のひとつとして,義手を含むリハビリテーション治療により上肢運動機能が十分獲得できていた可能性が考えられた。

(3) 適応行動と知能の関係

適応行動総合点と全検査知能指数は,中程度の正の相関を示した。適応行動総合点と最も相関が強かった WPPSI-III 知能検査の領域は知覚推理指標であった。全検査知能指数と最も相関が強かった Vineland-II 適応行動尺度の領域はコミュニケーションであった。また,適応行動における運動スキルは WPPSI-III 知能検査の各合成得点とは相関を示さなかった。上肢機能障害は,非言語課題(知覚推理課題,処理速度課題)の実施に影響を及ぼすと考えられるが,本研究の研究参加者は,義手を含むリハビリテーション治療により上肢運動機能が十分獲得できていたため,これら知能検査課題の実施に問題が生じず,また当該領域の知的発達も十分得られていたと考える。

本研究は,小児における運動機能障害と知能・認知機能の関係について,一部ではあるが明らかにした。本研究の成果は,今後,四肢障害児・者に対するよりよい支援を構築する上で役立つものとする。四肢障害児・者は単に四肢の運動機能が障害されているだけでなく,四肢の運動機能障害から二次的に認知機能や知能に影響を受けている可能性があるが,リハビリテーション治療を含む適切な治療・支援を行い,十分な運動機能を獲得または補完できるのであれば,その影響を最小限にすることができると考えられ,実施すべきである。しかしながら,現代の医学をもってして,十分な運動機能を獲得または補完できないような四肢障害も多く,その場合は二次的な影響に対しても支援が必要であると考えられる。

なお,本研究の結果および成果については,第57回日本リハビリテーション医学会学術集会にて研究代表者が筆頭演者として発表予定(演題採択済み)である。また,英文誌への投稿を予定している。

< 引用文献 >

Mano H, Fujiwara S, Takamura K, Kitoh H, Takayama S, Ogata T, et al. Congenital limb deficiency in Japan: a cross-sectional nationwide survey on its epidemiology. BMC Musculoskeletal Disorders. 2018;19(1):262.

Mano H, Fujiwara S, Haga N. Body knowledge in children with congenital lower limb deficiency. Pediatr Int. 2019 Feb;61(2):158-65.

Mano H, Fujiwara S, Haga N. Body knowledge in children with congenital upper limb deficiency. Brain Nerve. 2020 Apr;72(4):445-51.

Mano H, Takikawa K, Haga N. Intellectual characteristics using WISC-IV in children with myelomeningocele. Cogent Medicine. 2018 Nov;5(1):1-9.

Mano H, Fujiwara S, Haga N. Adaptive behaviour and motor skills in children with upper limb deficiency. *Prosthet Orthot Int.* 2018 Jul;42(2):236-40.

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計1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 0件）

1. 著者名 Hiroshi Mano, Sayaka Fujiwara, Nobuhiko Haga	4. 巻 72 (4)
2. 論文標題 Body knowledge in children with congenital upper limb deficiency	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Brain and Nerve	6. 最初と最後の頁 445-451
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.11477/mf.1416201543	査読の有無 有
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6件（うち招待講演 0件／うち国際学会 2件）

1. 発表者名 真野浩志, 藤原清香, 芳賀信彦
2. 発表標題 上肢の先天性切断・形成不全患児における上肢を含む身体の視空間的認知
3. 学会等名 第34回日本義肢装具学会学術大会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 Hiroshi Mano, Satoko Noguchi, Sayaka Fujiwara, Nobuhiko Haga
2. 発表標題 Hours of Wearing a Prosthesis and its Efficacy in Activities of Daily Living in Children with Congenital Upper Limb Deficiency
3. 学会等名 The 17th World Congress of the International Society for Prosthetics and Orthotics (国際学会)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 Hiroshi Mano, Sayaka Fujiwara, Kazuyuki Takamura, Hiroshi Kitoh, Shinichiro Takayama, Tsutomu Ogata, Nobuhiko Haga
2. 発表標題 Congenital Transverse Limb Deficiency in Japan: Clinical Features from the Cross-Sectional Nationwide Survey
3. 学会等名 13th International Society of Physical and Rehabilitation Medicine World Congress (国際学会)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 真野 浩志, 藤原 清香, 芳賀 信彦
2. 発表標題 先天性上肢形成不全児における自己の身体の視覚認知
3. 学会等名 第35回日本義肢装具学会学術大会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 真野 浩志, 藤原 清香, 芳賀 信彦
2. 発表標題 先天性下肢形成不全児における自己の身体の視覚認知
3. 学会等名 第56回日本リハビリテーション医学会学術集会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 真野 浩志, 藤原 清香, 芳賀 信彦
2. 発表標題 先天性上肢形成不全児の知的特徴
3. 学会等名 第57回日本リハビリテーション医学会学術集会
4. 発表年 2020年

〔図書〕 計0件

〔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
研究協力者	芳賀 信彦 (Haga Nobuhiko) (80251263)	東京大学・医学部附属病院・教授 (12601)	

