

令和 3 年 6 月 5 日現在

機関番号：15501

研究種目：研究活動スタート支援

研究期間：2019～2020

課題番号：19K24199

研究課題名（和文）ダウン症児における早期乳児期からの積極的運動リハビリテーション

研究課題名（英文）Assessing the Efficacy of Very Early Motor Rehabilitation in Children with Down Syndrome.

研究代表者

岡田 清吾 (Okada, Seigo)

山口大学・医学部附属病院・助教

研究者番号：50610680

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 900,000円

研究成果の概要（和文）：過去35年間（1984～2018年）に山口県下で運動リハビリを実施したダウン症児の臨床的特徴を後方視的に検討し、ダウン症児における乳児期早期からの運動リハビリ介入効果を検討した。生後6か月以前に運動リハビリを開始した児は、生後7か月以降に開始した児に比し早期に独歩を獲得していた。またリハビリ開始時期が早いほど早期に独歩を獲得していた。重回帰分析ではリハビリ開始年齢およびリハビリ実施期間が独歩開始年齢と関連していた。

研究成果の学術的意義や社会的意義

ダウン症児において生後まもない時期から介入することで、更なる運動発達能の改善効果が期待されることが本研究から示唆された。本結果はわが国の生産活動への貢献や、社会保障費の抑制につながる可能性がある。

研究成果の概要（英文）：There was a significant correlation between age at the start of motor rehabilitation intervention and corrected age at the onset of independent walking ($R^2 = 0.128$; $p = 0.043$). The univariable regression analysis revealed that both the age at the start of motor rehabilitation and the total number of minutes of motor rehabilitation completed before the acquisition of independent walking were significantly associated with corrected age at the onset of independent walking, with a regression coefficient of 0.96 (95% CI: 0.14-1.79; $p = 0.024$) and 0.006 (95% CI: 0.003-0.009; $p < 0.001$), respectively. However, in the multivariable regression analysis, this association did not change following adjustments for potential confounding factors such as gestational age and birth weight, with regression coefficients of 1.02 (95% CI: 0.36-1.68; $p = 0.003$) and 0.006 (95% CI: 0.004-0.009; $p < 0.001$), respectively.

研究分野：小児科学

キーワード：リハビリテーション ダウン症候群 療育医療

1. 研究開始当初の背景

ダウン症候群(21番染色体トリソミー)は最も頻度の高い染色体異常症である(表1)。高齢出産はダウン症者出産のリスク因子であり、女性婚姻年齢の上昇している我が国では今後もダウン症者出生率は上昇することが予測される。ダウン症者の多くは精神運動発達遅滞を生じ、先天性心疾患あるいは消化管疾患などの全身性合併症がさらに精神運動発達遅滞を助長する。しかしながら早期リハビリ介入がダウン症者の精神運動発達遅滞を改善することが過去の研究で明らかになっており、近年ダウン症者に対する可能な限り早期の療育介入の有用性が提唱されている。運動発達においても早期の運動リハビリ介入がその後の運動能改善に寄与することが明らかとなっている。しかしながら既報の多くは1歳以上の児を対象とした研究であり、乳児期からの運動リハビリ介入効果に関するエビデンスは不足している。

<ul style="list-style-type: none"> ・染色体異常のうち最多 ・精神運動発達遅滞をともなう ・各臓器の合併症が精神運動発達遅滞を助長する ・早期のリハビリテーション介入が有効である

表1 ダウン症者の特徴

2. 研究の目的

- (1) ダウン症児の積極的早期運動リハビリ介入効果を明らかにする
山口県では以前からダウン症児に対し早期乳児期から積極的にリハビリ介入を行っている施設が複数あり、症例が蓄積されている。過去に県下で運動リハビリを受けたダウン症児の臨床的特徴を解析することで、早期乳児期からの運動リハビリ介入効果を検証する。
- (2) ダウン症児およびその家族に明るい未来を提供する
ダウン症児において運動発達および精神発達は正の相関関係を示すことが明らかとなっている。早期の運動リハビリ介入によりその後の精神運動発達能を改善することでダウン症児が自立した生活を送られる可能性を高めることが期待できる。またダウン症児が自立した生活を営むことができれば、家人の将来的な不安の軽減にもつながる。
- (3) 社会保障費の抑制
ダウン症者は器質的合併症のほか、早期に認知症を発症したり、成人期以降の退行現象を生じたりすることが明らかとなっており、長期的な医療や療育を必要とする。早期の運動リハビリ介入によりダウン症者の精神運動発達面を改善すれば、社会保障費を抑制できる可能性がある。

3. 研究の方法

過去35年間(1984-2018年)に山口県下で運動リハビリが実施されたダウン症者を対象とし、乳児期からの積極的早期運動リハビリ介入効果を診療録を用いて後方視的に検討した。これらのダウン症児を運動リハビリ早期介入群(生後6か月以内に運動リハビリを開始)および非早期介入群(生後7か月以降に運動リハビリを開始)に分け、運動リハビリ介入時期による効果の違いを比較検討した。

4. 研究成果

解析可能なダウン症児は全40例(女児21例)であった。先天性心疾患合併18例(45%)、消化管疾患合併5例(13%)、甲状腺疾患合併1例(3%)であった。リハビリ開始年齢は修正7(1-17)か月であった。生後6か月以内に運動リハビリを開始した群は、生後7か月以降に開始した群に比し早期に独歩を獲得していた(それぞれ修正23か月および修正26か月、 $p = 0.029$)(図1)。リハビリ開始年齢および独歩獲得年齢の間に正の相関関係がみとめられた($r^2 = 0.128$, $p = 0.043$)。独歩開始年齢を目的変数とした重回帰分析では、リハビリ開始年齢およびリハビリ実施期間が有意な説明変数であった(それぞれ偏回帰係数1.02[95%信頼区間0.36-1.68; $p = 0.003$]および0.006[95%信頼区間0.004-0.009; $p < 0.001$])(表2)。合併症あるいは手術既往の有無で独歩獲得時期に差はなかった。

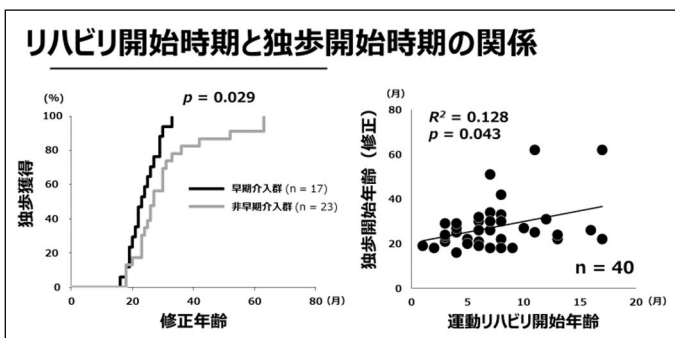


図1 リハビリ開始時期が早いほど独歩開始時期も早くなる

説明変数	回帰係数	95% 信頼区間		p 値
		下限	上限	
在胎週数	-0.079	-1.787	1.629	0.926
出生体重	-0.003	-0.010	0.004	0.372
運動リハビリ開始年齢	1.023	0.361	1.684	0.003*
総リハビリ時間	0.006	0.004	0.009	< 0.001*

表2 独歩開始時期に影響する因子

本研究結果は論文化され、査読付き国際雑誌に受理された (Okada S, et al. *J Pediatr.* 2019;213:227-231.e1. [2019 Journal Impact Factor 3.700])、

<参考文献>

1. de Graaf G, Buckley F, Skotko BG. Estimates of the live births, natural losses, and elective terminations with Down syndrome in the United States. *Am J Med Genet A* 2015; 167A:756-67.
2. Kajii T. Predicted prevalence of Down syndrome live births in Japan, 1970-2006. *Am J Med Genet A* 2008; 146A:1387-8.
3. Diamandopoulos K, Green J. Down syndrome: An integrative review. *J Neonatal Nurs* 2018; 24:235-41.
4. Bull MJ; Committee on Genetics. Health supervision for children with Down syndrome. *Pediatrics* 2011; 128:393-406.
5. Rodenbusch TL, Ribeiro TS, Simão CR, Britto HM, Tudella E, Lindquist AR. Effects of treadmill inclination on the gait of children with Down syndrome. *Res Dev Disabil* 2013; 34:2185-90.
6. de Graaf G, Levine SP, Goldstein R, Skotko BG. Parents' perceptions of functional abilities in people with Down syndrome. *Am J Med Genet A* 2019; 179:161-76.
7. Martin T, Smith A, Breatnach CR, Kent E, Shanahan I, Boyle M, et al. Infants Born with Down Syndrome: Burden of Disease in the Early Neonatal Period. *J Pediatr* 2018; 193:21-6.
8. Wentz EE. Importance of Initiating a "Tummy Time" Intervention Early in Infants With Down Syndrome. *Pediatr Phys Ther* 2017; 29:68-75.
9. Corrado B, Sommella N, Ciardi G, Raiano E, Scala I, Strisciuglio P, et al. Can early physical therapy positively affect the onset of independent walking in infants with Down syndrome? A retrospective cohort study. *Minerva Pediatr* (2018). doi: 10.23736/S0026-4946.18.05041-7.
10. Valentín-Gudiol M, Mattern-Baxter K, Girabent-Farrés M, Bagur-Calafat C, Hadders-Algra M, Angulo-Barroso RM. Treadmill interventions in children under six years of age at risk of neuromotor delay. *Cochrane Database Syst Rev* 2017; 7:CD009242.
11. Rondal JA, Perera J. Down syndrome. *Neurobehavioural Specificity*. West Sussex: John Wiley and Sons Ltd; 2006.
12. Teipel SJ, Alexander GE, Schapiro MB, Möller HJ, Rapoport SI, Hampel H. Age-related cortical grey matter reductions in non-demented Down's syndrome adults determined by MRI with voxel-based morphometry. *Brain* 2004; 127:811-24.
13. Martin S. *Teaching Motor Skills to Children with Cerebral Palsy and Similar Movement Disorders: A Guide for Parents and Professionals*. Bethesda (MD): Woodbine House; 2006.
14. Lauteslager PEM. In Heeren Loo Zorggroep, eds. *Kinderen met het syndroom van Down Motorische ontwikkeling en behandeling*. Amersfoort: Universiteit Utrecht; 2000. p. 1-372.
15. Winders PC. The goal and opportunity of physical therapy for children with Down syndrome. *Down Syndrome Quarterly* 2001; 6:1-5.
16. Pinter JD, Eliez S, Schmitt JE, Capone GT, Reiss AL. Neuroanatomy of Down's syndrome: a high-resolution MRI study. *Am J Psychiatry* 2001; 158:1659-65.
17. Malak R, Kostiurow A, Krawczyk-Wasielewska A, Mojs E, Samborski W. Delays in Motor Development in Children with Down Syndrome. *Med Sci Monit* 2015; 21:1904-10.

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 Okada S, Uejo T, Hirano R, Nishi H, Matsuno I, Muramatsu T, Fujiwara M, Miyake A, Okada Y, Fukunaga S, Ishikawa Y.	4. 巻 213
2. 論文標題 Assessing the Efficacy of Very Early Motor Rehabilitation in Children with Down Syndrome.	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 The Journal of Pediatrics	6. 最初と最後の頁 227-231
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1016/j.jpeds.2019.05.038.	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1件（うち招待講演 0件 / うち国際学会 0件）

1. 発表者名 岡田 清吾
2. 発表標題 ダウン症児における早期運動リハビリテーション：単施設における過去35年間のまとめ
3. 学会等名 第123回日本小児科学会学術集会
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
---------------------------	-----------------------	----

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
---------	---------