

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 29 年 5 月 20 日現在

機関番号：12601

研究種目：挑戦的萌芽研究

研究期間：2014～2016

課題番号：26560272

研究課題名（和文）先天的に四肢の麻痺・欠損を示す小児における四肢視覚認知に関する研究

研究課題名（英文）Visual perception of limbs in children with congenital limb paralysis or deficiencies

研究代表者

芳賀 信彦（HAGA, Nobuhiko）

東京大学・医学部附属病院・教授

研究者番号：80251263

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 3,000,000円

研究成果の概要（和文）：先天的に四肢の麻痺・欠損を示す小児における四肢認知を明らかにするため、二分脊椎、四肢形成不全の小児および対照児に対し、自己の描画（視覚認知）、体の部位の名称に関する言語的質問（言語的認知）、自己の画像を見せた際のアイトラッキング（視覚入力）を用いて研究を行った。二分脊椎児は、四肢への視覚入力は対照児と差がないが、足およびその相同部位である手の視覚認知、言語的認知が低かった。下肢形成不全児は義肢を自己の体として視覚認知していたが、上肢形成不全児は四肢の視覚認知が低かった。下肢・上肢形成不全児とも言語的認知は欠損部とその相同部位で低かった。

研究成果の概要（英文）：This study aimed to clarify how children with congenital limb paralysis or deficiencies perceive visually their bodies, particularly their limbs. Participants were children with spina bifida, congenital limb deficiencies, and control children. We examined (1) self-portraits (visual cognition), (2) body part labels (verbal cognition) and (3) eye-tracking (visual inputs). There were no significant differences in visual inputs between spina bifida children and control children; however their visual and verbal cognition of feet and hands, which is homologous organ with feet, were significantly lower than those of control children. While children with congenital lower limb deficiencies visually cognize their artificial limbs as their limbs, children with upper limb deficiencies had lower visual cognition of their limbs than did control children. Both children with upper and lower limb deficiencies had significantly lower verbal cognition of limbs.

研究分野：リハビリテーション医学

キーワード：四肢形成不全 二分脊椎 視覚認知

1. 研究開始当初の背景

研究代表者は長年にわたり肢体不自由児のリハビリテーションに関与し、特に先天的に四肢の運動感覚麻痺や欠損を示す二分脊椎、先天性無痛症、先天性四肢形成不全の研究を進めてきた。これらに対する従来のリハビリテーションは、残存機能を生かした上肢機能や移動能力向上に主体が置かれ、患児が麻痺・欠損部位をいかに認識・認知しているかは意識されてこなかった。一方、成人のリハビリテーションでは、脳卒中後の麻痺、四肢切断後の幻肢痛を対象とするミラー療法など、四肢の認知を利用した手法がすでに取り入れられている。

一方、これらの運動感覚麻痺や欠損を示す疾患には、運動面以外にも様々な問題がある。二分脊椎症では、感覚障害による褥瘡が問題となる。日常生活が座位姿勢の場合は坐骨部や仙骨部、歩行可能な場合は足部に発生しやすい。座位での座り直し、適切な下肢装具の使用による減圧や、感覚麻痺部位の皮膚ケアが重要である。先天性無痛症では痛覚消失に伴う様々な骨関節病変が問題となる。痛覚消失のため、患者や家族が気付かないうちに骨折、脱臼を受傷・発症し、適切な治療が行われずに進行すると骨破壊や関節破壊に至る。四肢形成不全、四肢切断では断端部の皮膚病変が義肢を装着する上で問題となる。断端部の皮膚病変として接触性皮膚炎、アレルギー性皮膚炎、潰瘍、感染などがある。断端皮膚のトラブルにより、義肢の装着が妨げられ、活動制限、参加制約が生じる。

認知を利用したリハビリテーションを小児にも実施することで、麻痺や欠損の部位を含めた身体認識を向上させ、運動機能の改善のほか、褥瘡、外傷、皮膚病変といった障害を予防、減少させることができる可能性がある。これは児の生活の質の向上や活動、参加の促進につながる。認知を利用したリハビリテーションを小児へ導入するには、まず患児が四肢をどのように認識・認知しているのかを知る必要があり、本研究を行った。

2. 研究の目的

先天的に四肢の運動感覚麻痺や欠損を示す小児において、麻痺・欠損部位の認識が正常とどのように異なるかを知ること、である。

3. 研究の方法

研究計画に関して、研究組織の各所属施設の倫理委員会に申請を行い、承認を得た。3歳以上15歳未満の二分脊椎症、先天性四肢形成不全症児および健常対照児を募集し、下記の研究を行った。

(1) 「描画を用いた四肢認識研究」

児に自分自身の絵を描いてもらい、二分脊

椎症児、先天性四肢形成不全症児と健常小児で比較した。描かれた絵の①頭、体幹、腕、手、脚、足などの体の部位の描出の有無について、②四肢の長さや幅について比較を行った。

(2) 「言語を用いた四肢認識研究」

児に体の部位の名称について質問を行い、二分脊椎症児、先天性四肢形成不全症児と健常小児で比較した。①児の体の部位を指し示してその名称を尋ねる、②体の部位の名称を言って児に自身の体の部位を指し示させる、の2つの方法を行った。体の各部位は、頭部、体幹、上肢（上肢近位、手部）、下肢（下肢近位、足部）の領域に分類し解析を行った。

(3) 「非接触型アイトラッカーを用いた四肢認識研究」

児の静止画を撮影し、モニター上にそれを映し出した時の児の視線について、先天性四肢形成不全症児と健常小児で比較した。①指示なし（指示をせず自然に見てもらおう）、②指示あり（四肢への注意を促す指示をして見てもらおう）、の2つの条件で実施した。児が義肢装具を使用している場合は、装着していない画像、装着している画像の両方について視線計測を実施した。画像は、頭部、体幹、上肢（上肢近位、上肢遠位）、下肢（下肢近位、下肢遠位）の領域に分類し解析を行った。図1に実際の検査の様子のイメージを示す。



図1：非接触型アイトラッカーを用いた四肢認識研究の風景（イメージ）。

4. 研究成果

研究結果の概略を表1に示す。

(1) 「描画を用いた四肢認識研究」

二分脊椎症児では、対照児と比較して、鼻、手、脚、足の描出が有意に少なかった。また、下肢の長さが対照児と比較して有意に短かった。

先天性下肢形成不全症児では、対照児と比較して、描出の有無に有意差がある体の部位はなかった。四肢の長さや幅、左右差についても有意差はなかった。片側の下肢形成不全児では、描出した左右の下肢の長さ・幅に差

なかった。明らかに左右が異なる下肢を描いた児は1人で、義足を描出していた。

先天性上肢形成不全症児では、対照児と比較して、鼻、腕、手、足の描出が有意に少なかった。描出した上肢の長さや幅、左右差についても有意差はなかった。

図2に例として5歳の対照児と先天性上肢形成不全児の描画を示す。

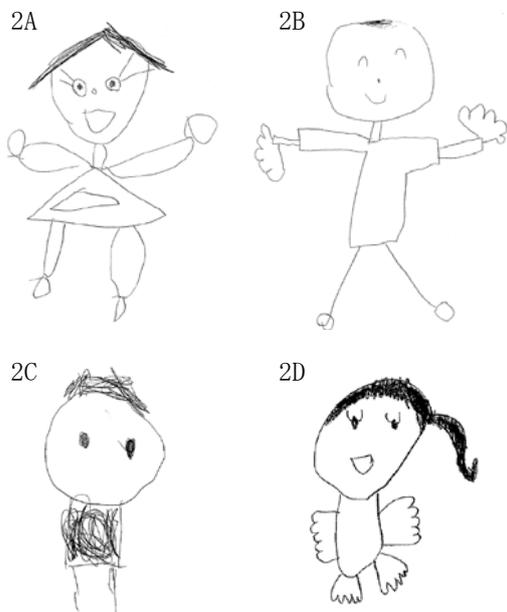


図2：5歳の対照児(2A, 2B)と上肢形成不全児(2C, 2D いずれも左手部の形成不全で義手を使用している)の自己の描画。対照児は腕と手、脚と足をそれぞれ区別して描出し、上肢は肩に相当する場所で体幹と結合している。また衣服を描出している。上肢形成不全症児(2C)は、上肢の描出が一侧ではなく両側ともなく、脚はあるものの足の描出がない。上肢形成不全症児(2D)は、手と足の描出はあるが、腕や脚がなく体幹から直接手足が描出されており、上肢と体幹の結合部が肩ではなく体幹中央の高さとなっている。児自身は左手部が欠損しているものの、絵では両手指が描出されている。

(2)「言語を用いた四肢認識研究」

二分脊椎症児では、対照児と比較して、体幹、上肢、手部、足部の正答率が有意に低かった。頭頸部には差がなかった。

先天性下肢形成不全児では、対照児と比較して、体幹、上肢、上肢近位部、手部、足部で正答率が有意に低かった。頭頸部には差がなかった。

先天性上肢形成不全児では、対照児と比較して、上肢、上肢近位部、手部、足部で正答率が有意に低かった。頭頸部・体幹には差がなかった。

(3)「非接触型アイトラッカーを用いた四肢認識研究」

二分脊椎症児では、対照児と比較して、①

指示なしでは視線に有意差のある領域はなかった。②指示ありでは体幹、上肢、下肢では両群間に有意差はなかったが、頭部への視線は対照児に比較して二分脊椎症児で多かった。①と②を比較すると、指示により頭部への視線が有意に減少し、上肢および下肢への視線が有意に増加した。

先天性下肢形成不全児では、対照児と比較して、義足を装着しないで撮影した静止画を用いた場合、①指示なしでは頭部への視線が有意に少なく、下肢遠位部への視線が有意に多かった。②指示ありでは有意差はなかった。①と②を比較すると、頭部への視線が有意に減少したが、上肢および下肢への視線は有意な増加はなかった。義足を装着して撮影した静止画を用いた場合は、①指示なしでは頭部および上肢近位部への視線が有意に少なく、下肢への視線が有意に多かった。②指示ありでは上肢近位部への視線が有意に少なかった。①と②を比較すると、指示により各領域とも有意な視線の変化はなかった。

先天性上肢形成不全児では、対照児と比較して、義手を装着しないで撮影した静止画を用いた場合、①指示なし、②指示ありとも有意差はなかった。①と②を比較すると、頭部への視線が有意に減少したが、上肢および下肢への視線は有意な増加はなかった。義手を装着して撮影した静止画を用いた場合は、①指示なしでは下肢近位部への視線が有意に少なかった。②指示ありでは有意差はなかった。①と②を比較すると、指示により各領域とも有意な視線の変化はなかった。

表1：研究結果の概略

	二分脊椎症児	先天性下肢形成不全児	先天性上肢形成不全児
障害部位	下肢の麻痺	下肢の欠損	上肢の欠損
描画	手 脚 足の描出が少ない	対照児と差なし	腕 手 足の描出が少ない
言語	体幹 上肢 手部 足部の正答率が低い	体幹 上肢 上肢近位 手部 足部の正答率が低い	上肢 上肢近位 手部 足部の正答率が低い
アイトラッキング	対照児と差なし(四肢への視線の低下なし)	下肢への視線が多い	対照児と差なし(四肢への視線の低下なし)

上記3つの方法による結果から、二分脊椎症児は、麻痺部位へ視線が向いているものの、下肢およびその相同器官である上肢の視覚

認知および言語的認知が低いと言える。四肢への注意は、指示にて促すことが可能である。先天性下肢形成不全児は下肢、先天性上肢形成不全児は上肢に視線が向きやすいものの、四肢の言語的認知が低い。欠損部を含む四肢の視覚認知は下肢形成不全児で保たれる一方で、上肢形成不全では低い。理由として、義肢の使用および定着の程度の差が考えられる。下肢形成不全児では立位・歩行といった移動に義足は不可欠で、低年齢より装着し使用している一方、上肢形成不全児では、特に本邦では義手の処方があまり積極的にされて来なかったという背景もあり、研究参加者の義手の使用期間は短かった。四肢への注意は指示にて促すことができなかったが、これは指示をしなくても欠損部に注意が向いていたことが影響している。

麻痺のある四肢への注意や認識は、指示にて向上させることが可能であり、麻痺部への注意を促すリハビリテーションアプローチにより、移動能力の改善や褥瘡・外傷・皮膚病変の予防に役立つ可能性がある。一方、欠損のある四肢への注意や認識は、指示よりもむしろ適切な義肢の使用が重要と考えられる。例えば図2に示すように、片側遠位の上肢形成不全であっても、両側上下肢の認識低下に影響している。四肢欠損児者の運動機能の改善や断端トラブルの予防には、早期に義肢を導入し、義肢を自分自身の体の一部と認識できることが重要であると考えられ、それを達成できるリハビリテーションアプローチを行う必要がある。

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕(計 0 件)

〔学会発表〕(計 4 件)

- ① 真野浩志, 藤原清香, 矢吹さゆみ, 田中弘志, 滝川一晴, 芳賀信彦. 二分脊椎の小児における下肢の言語的認知. 第54回日本リハビリテーション医学会学術集会. 2017年6月9日-6月11日. 岡山コンベンションセンター(岡山県岡山市)
- ② 芳賀信彦. 小児の義肢～四肢形成不全に対する成人後を見据えた集学的治療～. 第32回日本義肢装具学会学術大会. 2016年10月15日～16日. 札幌コンベンションセンター(札幌市)
- ③ 真野浩志, 藤原清香, 芳賀信彦. 下肢の先天性切断・形成不全患児における下肢の言語的認知. 第53回日本リハビリテーション医学会学術集会. 2016年6月8日～10日, 京都国際会館(京都府京都市)
- ④ Haga N, Fujiwara S, Mano H, Okada K, Tanaka H, Shibata T. Delayed amputation and prosthetic fitting in patients with congenital tibial deficiency. 10th ISPRM World Congress. 2016. 5. 29-6. 2, Kuaka Lumpur

(Malaysia)

〔図書〕(計 0 件)

〔産業財産権〕

○出願状況(計 0 件)

○取得状況(計 0 件)

〔その他〕

なし

6. 研究組織

(1) 研究代表者

芳賀 信彦 (HAGA, Nobuhiko)
東京大学・医学部附属病院・教授
研究者番号: 80251263

(2) 研究分担者

なし

(3) 連携研究者

四津 有人 (YOZU, Arito)
東京大学・医学部附属病院・特任助教
研究者番号: 30647368

(4) 研究協力者

滝川 一晴 (TAKIKAWA, Kazuharu)
伊藤 順一 (ITO, Junichi)
田中 弘志 (TANAKA, Hiroshi)
真野 浩志 (MANO, Hiroshi)