

令和元年6月25日現在

機関番号：13601

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2016～2018

課題番号：16K01435

研究課題名(和文) 小児筋疾患を対象とした新しい6分間歩行試験とピッチアップ法の再現性及び感度の評価

研究課題名(英文) Evaluation of reliability and sensitivity of a new 6-minute walk test and pitch-up method for neuromuscular dystrophy

研究代表者

西澤 公美(Nishizawa, Hitomi)

信州大学・学術研究院保健学系・助教

研究者番号：90573379

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,600,000円

研究成果の概要(和文)：歩行距離では、新6MWT (791.3 ± 61.3 m)が旧6MWT (665.1 ± 73.8 m)より有意に延長していた ($p < 0.001$) ことが証明され、これらの再現性についてH28年度中に行った全被検者の2種類の6分間歩行を評価した。その結果、 $ICC=0.8$ と高い再現性が得られたことが分かった。さらに、臨床的に意義のある最少変化量(感度)については、9.2mであることが算出された。これらのことより、今後、筋ジストロフィーの患者に6分間歩行試験を実施する際は、9.2m以上の歩行距離の短縮がみられた際には、歩行機能において進行したと判断できる可能性が示唆された。

研究成果の学術的意義や社会的意義

神経筋疾患の中でもDuchenne型筋ジストロフィーは幼少期より発症し、約13歳で歩行不能になると言われており、個人差はあるものの比較的早い時間で症状が進行する。歩行可能な時期のほとんどを小学校で過ごす彼らは、体育の授業や運動会、または友達との遊びの中で筋肉の炎症を起こすことで症状が進行する場合もある。その進行のわずかな変化を定期的な理学療法評価でとらえることができれば、家族や学校への助言も適格に行え、症状の悪化を防ぐことも可能となる。本研究の成果は、症状の悪化を防げる点、当事者や関係者に対して病状の説明を行う際、具体的に呈示することができる点に社会的意義があると考えられる。

研究成果の概要(英文)：In walking distance, it was proved that the new 6 MWT (791.3 ± 61.3 m) was significantly longer ($p < 0.001$) than the old 6 MWT (665.1 ± 73.8 m). The subjects were evaluated for reliability two types of six-minute walking. As a result, it was found that a high reproducibility of $ICC = 0.8$ was obtained. Furthermore, the minimum clinically relevant change (sensitivity) was calculated to be 9.2 m. From these facts, it is suggested that when performing a 6-minute walk test on patients with muscular dystrophy, it can be judged that the symptom has progressed when a walk distance of 9.2 m or more is shortened.

研究分野：神経筋疾患

キーワード：神経筋疾患 6分間歩行 再現性

様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19、CK - 19 (共通)

1. 研究開始当初の背景

6分間歩行試験(以下,6MWT)は,2002年にAmerican Thoracic Society(以下,ATS)により,心肺機能疾患に対する持久力の評価法として,正確で再現性が高いことが報告された(ATStatement.2002)。一方,Duchenne型筋ジストロフィー症(以下,DMD)患者では6MWTが実施できる年齢は約12歳までとされており(PAUL L. ENRIGHT,et al.1998),その上,自閉傾向を伴うことが多いことから(Hendriksen JG,et al.2008),DMD患者が指示に従って正確に6MWTを実施することが困難である。この傾向は国際共同治験でも問題視されている。

2. 研究の目的

本研究ではDMD患者の6MWTを正確に行う方法を確立することを目的としている。

3. 研究の方法

7名の被検者(4~13歳),DMDを対象とした新しい6分間歩行試験(6MWT)と従来の6MWTについてピッチアップ法の再現性および感度を測定した。新しく考案した6MWTとは,メトロノームのピッチ音に合わせながら6MWTを行う方法で,ピッチの速さは被験者ごとに決める過程を設定し別途行った。

また,6分間歩行の継続が難しくなった被検者に対し,活動量計(歩数および消費エネルギー量)と筋ジストロフィーの行動評価ツールであるNorth Star Ambulatory Assessment(以下,NSAA),10m走行時間,床からの立ち上がり時間を新たな指標とし,それらがDMDの運動機能評価ツールとして相応かについて検討した。

4. 研究成果

7名の被験者(4歳~13歳)に対しそれぞれのICC(1,3)を求めたところ,両者とも0.8以上の値であったが,新しい6MWTは p 値=0.003で有意であったことが分かった。感度については,従来の6MWTに関しては先行研究より臨床的に意義のある最少変化量について,28.5mであると報告されている。この報告では,DMDに対して「臨床的に意義のある最少変化量を調べる項目として6MWTが最も適している」と結論付けられている。これに習い,我々のデータを同じ手順で計算をしたところ,従来の6MWTの最少変化量は21.0mであったのに対し,新しい6MWTは9.2mであったことが分かった。つまり,新しく考案された6MWTの方が9.2mというわずかな距離の変化で,患者の状態の変化を捉えることができると考えられた。

以上の結果より,新しく考案された6MWTは,再現性は有意に高く,また従来の6MWTに比べて感度(臨床的に意義のある最少変化量)も良い可能性があることが分かった。

しかし,患者の症状の進行が認められるためか,6MWTの実施を嫌がる患者が増えてきたことにより,新しく考案された6MWTの続行を全被験者に対して行うことは難しいのが現状であることが分かった。

そこで我々は,活動量計と筋ジストロフィーの行動評価ツールであるNSAA,10m走行時間,床からの立ち上がり時間を指標とし,それらがDMDの運動機能評価ツールとして適切かどうか検討した。

その結果,活動量(歩数および消費エネルギー量),NSAA,10m走行時間,床からの立ち上がり時間はおおむね6分間歩行同様,DMD児の運動機能を反映していることが分かった。しかし6分間歩行試験は運動機能(歩行機能)の中でも持久力の評価法として用いられ,瞬発的評価よりも長期的な評価が求められるため,これらの評価の中でもとくに活動量が注目された。活動量の測定は,日常生活の中で実施されるため,来院時にのみ行われる定点的な評価よりも,運動量に関してより詳細な情報を得ることができる。また,活動量計は安価で非侵襲的であるため,測定しやすいメリットもある。

我々は,活動量として歩数と消費エネルギー量を算出した。両指標ともステロイド投与前後の機能改善の過程が10m走行などの運動機能と同傾向を示し,非侵襲的かつ日常生活にて測定可能であることからも有用なツールと考えられた(図1,2)。

進行性の神経筋疾患患児に対する運動機能評価に求められることは、再現性および感度の良い評価であることとともに、疾患の特性を踏まえ、彼らの日常生活活動を反映できることと考えられる。我々のこれまでの研究結果より、ピッチアップによる新たな6分間歩行の再現性は非常に高く、また9.2 mの距離の減少がみられたときに症状の進行を疑うことができる可能性が示唆された。そして、6分間歩行が不可能となった際には活動量の変化を捉えることで、10 m走行や床からの立ち上がり時間の大きな傾向を推察することができることも示唆された。

これらの成果を医療者だけでなく患児に関わる関係者へ開示することで、関係者の理解を深めるとともに症状の悪化を防ぐことができると期待される。

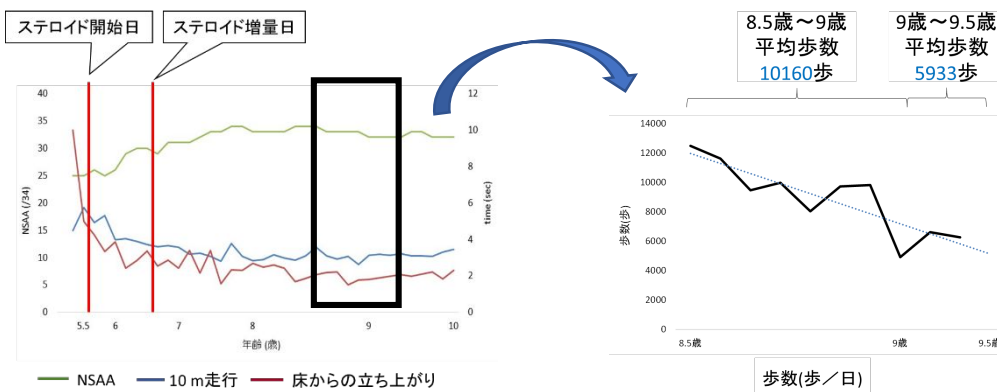


図1．理学療法評価の推移と活動量の傾向

ステロイド剤投与後から徐々に機能が改善されている。歩数が漸減しているのは、身長伸びと行動の落ち着きに影響されると思われるが、症状が進行しつつある時期でも活動量は維持されている。

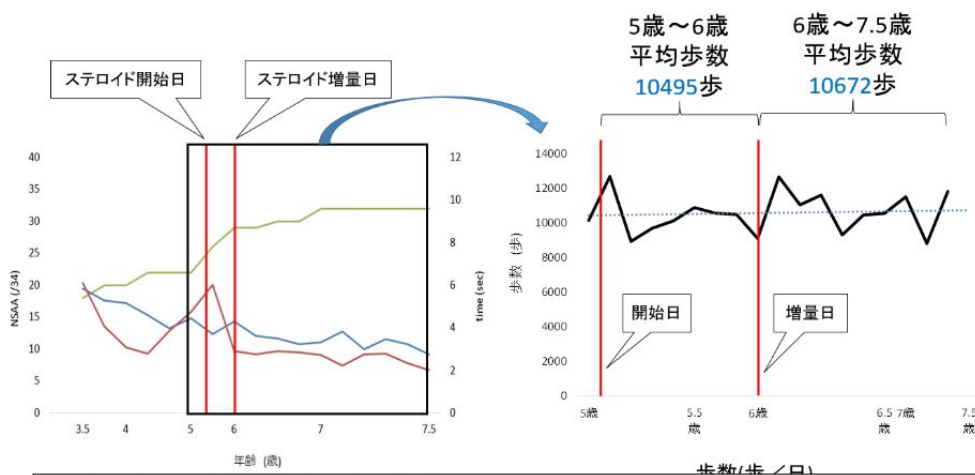


図2．多動が疑われた児の理学療法評価の推移と活動量の傾向

図1同様に、ステロイド剤投与後より機能の改善はみられるが、身長が伸びたにも関わらず、歩数の変化はほぼ見られない。これは本児の多動傾向を著明に表していると考えられた。

〔雑誌論文〕(計0件)

〔学会発表〕(計0件)

〔図書〕(計0件)

〔産業財産権〕
出願状況(計0件)

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
出願年：
国内外の別：

取得状況(計0件)

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
取得年：
国内外の別：

〔その他〕
ホームページ等
なし。

6. 研究組織

(1)研究分担者

研究分担者氏名：中村昭則，柴 直子

ローマ字氏名：Nakamura Akinori¹⁾, Shiba Naoko²⁾

所属研究機関名：1) 信州大学，まつもと医療センター 2) 信州大学

部局名：1) 第三内科，脳神経内科 2) 小児科

職名：1) 特任教授 2) 特任研究員

研究者番号(8桁)：1) 10303471 2) 00639289

(2)研究協力者

研究協力者氏名：

ローマ字氏名：

科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。