

脊髄小脳変性症における上肢運動失調の定量評価に関する研究

研究分担者 勝野雅央 名古屋大学医学部医学系研究科 神経内科学

研究要旨

脊髄小脳変性症患者の運動機能を定量的に評価し、その重症度を適切に反映する臨床的バイオマーカーを開発することである。今年度は、上肢運動機能評価のためのデバイスを用い、上肢運動失調の定量評価を行った。評価デバイスには、3次元触覚/力覚インターフェイスデバイスである Geomagic Touch®（日本バイナリー株式会社）を使用し評価した。失調測定デバイスでは、定量的に失調を測定できる可能性があり、既存の評価指標と良好に相関することが分かった。本法によって、小脳失調症の失調が適切かつ精度高く定量評価できることが示唆され、自然歴の確立、治験における評価指標等への応用が期待できる。

A. 研究目的

脊髄小脳変性症は確立された根本的治療の存在しない緩徐進行性の希少疾患群である。近年の研究により分子レベルの病態解明が進んでおり、病態を反映する客観的指標を同定し、各疾患・病型の自然歴を定量的に解析することが、疾患修飾治療法の開発に向けて重要となってきた¹⁾²⁾。しかし、比較的研究が進んでいる多系統萎縮症を除き、脊髄小脳失調症のバイオマーカーや自然歴に関する詳細な検討を行った研究は極めて少ない³⁾⁴⁾。本研究の最終目的は、脊髄小脳変性症患者の運動機能を定量的に評価し、その重症度を適切に反映する臨床的バイオマーカーを開発することである。今年度は、上肢運動機能評価のためのデバイスを用い、上肢運動失調の定量評価を行った。

B. 研究方法

評価デバイスには、3次元触覚/力覚インターフェイスデバイスである Geomagic Touch®（日本バイナリー株式会社）を使用し、運動失調計測用の装置を自作した。運動失調の計測は、水平方向に17.0cm離れた2点間の中央に

11.2cmの障壁を設置し、左側の点には底面に垂直方向に押すボタンを、右側の点には高さ8.0cmの位置に水平方向に押すボタンを設置し、左右のボタン間を9往復するのにかかる時間、及び軌跡を分析した。

（倫理面への配慮）

本研究の研究計画について倫理申請を行い、倫理委員会による承認を得た。

C. 研究結果

評価対象は、脊髄小脳変性症患者4例（SCA 31 2例、遺伝子検査未実施の遺伝性脊髄小脳変性症2例）及び健康被験者3例である。被験者の年齢は、脊髄小脳変性症患者 64.5 ± 13.3 歳、健康被験者 45.7 ± 6.7 歳であった。脊髄小脳変性症患者の SARA 総点は 18.8 ± 4.3 であった。左右のボタン間の一往復移動にかかる平均軌跡長は、脊髄小脳変性症患者で 583.2 ± 48.8 mm であり、健康被験者では 487.4 ± 20.0 mm であった（図1）。また、平均所要時間は、脊髄小脳変性症患者で 2.30 ± 0.33 秒であり、健康被験者では 0.91 ± 0.11 秒であった。SARA が重症である脊髄小脳変性症患者において、総軌長が延長する傾向がみ

られた。

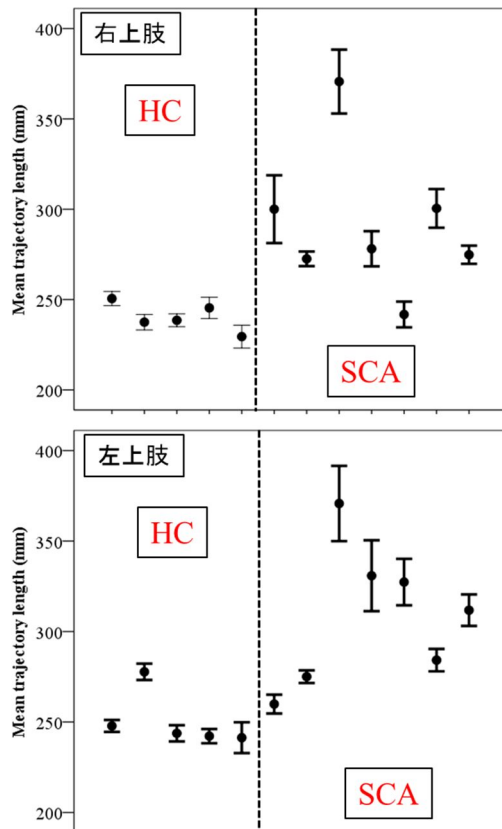


図 1. 各被験者の平均軌跡長分布

D. 考察

我々が開発した失調評価デバイスでは、失調を定量的に評価できる可能性があり、特に総軌跡長ならびに平均所要時間が、既存の評価指標である SARA と相関することが示唆された。

E. 結論

我々が開発した失調測定デバイスでは、定量的に失調を測定できる可能性があり、既存の評価指標と良好に相関することが示された。

[参考文献]

- 1) Nakamura K, Yoshida K, Matsushima A, Shimizu Y, Sato S, Yahikozawa H, Ohara S, Yazawa M, Ushiyama M, Sato M, Morita H, Inoue A, Ikeda SI. Natural History of Spinocerebellar Ataxia Type 31: a 4-Year Prospective Study. *Cerebellum*. 2017; 16(2).
- 2) Moriarty A, Cook A, Hunt H, Adams ME, Cipelotti L, Giunti P. A longitudinal investigation into cognition and disease progression in spinocerebellar ataxia types 1, 2, 3, 6, and 7. *Orphanet J Rare Dis*. 2016 22; 11: 82.
- 3) Ashley M. Brouillette, Gülin Öz,

Christopher M. Gomez. Cerebrospinal Fluid Biomarkers in Spinocerebellar Ataxia: A Pilot Study. *Dis Markers*. 2015: 413098.

- 4) Maas RP, van Gaalen J, Klockgether T, van de Warrenburg BP. The preclinical stage of spinocerebellar ataxias. *Neurology*. 2015 7; 85: 96-103.

F. 健康危険情報

なし

G. 研究発表

1. 論文発表

なし

2. 学会発表

なし

H. 知的財産権の出願・登録状況（予定を含む）

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他

なし