

厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業）

運動失調症の医療基盤に関する調査研究班 分担研究報告書

### 痙性対麻痺に対するITB療法の有用性の検討

研究分担者 瀧山嘉久 山梨大学大学院総合研究部医学域 神経内科学 教授

研究協力者 一瀬佑太，高 紀信 山梨大学医学部神経内科学

#### 研究要旨

痙性対麻痺に対する ITB 療法の有用性を示すため、全国多施設共同研究の立案を行なった。ITB 療法導入済痙性対麻痺患者 50 例と ITB 療法非導入痙性対麻痺患者 50 例において、Spastic Paraplegia Rating Scale、SF-36v2、当院作成の症状自己評価票の 3 つをスコアリングする。今後、全国 ITB 療法実施施設や当院が事務局をしている JASPAC の登録患者の主治医に本研究の情報提供と協力を呼びかけ、研究を進めていく。

#### A.研究目的

本研究では痙性対麻痺に対する髄腔内バクロフェン（ITB：intrathecal baclofen）療法の有用性を示すことが目的である。

#### B.研究方法

多症例で ITB 療法の治療効果を実証するために、多施設共同研究の計画を立案した。

ITB 療法導入済痙性対麻痺患者 50 例と ITB 療法非導入痙性対麻痺患者 50 例において、Spastic Paraplegia Rating Scale（SPRS）、SF-36v2、当院作成の症状自己評価票の 3 つをスコアリングする。SPRS は、ITB 療法導入前後の治療効果を検討するための臨床評価において我々がこれまで評価してきた 10 メートル歩行機能と modified Ashworth scale(MAS)に加えて、階段昇降、椅子からの立ち上がり、筋力、痙縮による痛み、排尿障害などを含めた計 13 項目からなる評価スケールであり、スコアの高さと罹病期間や重症度との相関が報告されている<sup>1, 2)</sup>。SF-36v2 は健康関連 QOL の国際的評価尺度であり、どのような疾病においても科学的な信頼性と妥当性を持った QOL 評価が可能である<sup>3)</sup>。サブ解析として各スコアと罹病期間や ITB 療法投与量の関連、病型毎の比較などを行う。また、当院作成の症状自己評価票と SF-36v2 の相関の有無についても検討し、自己評価票の有用性を検討する。

（倫理面への配慮）

個人情報の取り扱いについて、山梨大学個人情報保護規定に従って管理を行なった。

#### C.研究結果

現在、研究の具体的な実施に向け、SPRS の日本語版の作成を行なっている。完成後、全国多施設共同研究を開始する予定である。

#### D.考察

研究実施にあたり、どのように対象患者をリクルートするかが課題である。全国 ITB 療法実施施設へ本研究の情報提供と協力を書面で呼びかけ、当院ホームページへの研究情報掲載も行う予定である。また、当院が事務局をしている JASPAC の登録患者の主治医にも広く協力を呼びかけようと考えている。ITB 療法認可後 10 年を経過し、HSP における本邦初のエビデンスデータとすること、治療ガイドラインの作成へ繋げることを目標に本研究を進めたいと考えている。

#### E.結論

痙性対麻痺に対する ITB 療法の有用性を示すために、全国多施設共同研究を開始する予定である。

#### 【参考文献】

- 1) R Schule, et al. The Spastic Paraplegia Rating Scale (SPRS) A reliable and valid measure of disease severity. Neurology 2006; 67: 430-434.
- 2) 一瀬佑太ら。 遺伝性痙性対麻痺における髄腔内バクロフェン療法の治療効果の検討。 山梨医学 2016; 43: 25-29 .
- 3) Fukuhara S, et al. Translation, adaptation, and validation of the SF-36 Health Survey for use in Japan. J Clin Epidemiol 1998; 51: 1037-44.

#### **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**

一瀬佑太、高紀信、長坂高村、新藤和雅、石浦浩之、辻省次、瀧山嘉久 .痙性対麻痺に対するITB療法の治療効果の検討。第35回日本神経治療学会総会。埼玉県さいたま市。2017年11月18日。

#### **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