

筑波大学

博士（医学）学位論文

脳性麻痺患者（児）への
ロボットスーツHALの適応

2019

筑波大学大学院博士課程 人間総合科学研究科

中川将吾

目次

第1章 序章 ～脳性麻痺～.....	1
1.1 脳性麻痺の定義.....	1
1.2 脳性麻痺の疫学.....	2
1.3 脳性麻痺の分類.....	2
1.3.1 GMFM.....	3
1.3.2 GMFCS.....	3
1.4 診断.....	5
1.4.1 リスクファクター.....	5
1.4.2 臨床診断.....	6
1.4.3 画像診断.....	6
1.5 臨床所見.....	7
1.5.1 新生児期から乳幼児期.....	7
1.5.2 学童期から思春期.....	7

1.5.3 成人期.....	8
1.6 治療.....	8
1.6.1 理学療法.....	8
1.6.2 作業療法.....	9
1.6.3 装具療法.....	10
1.6.4 薬物療法.....	10
1.6.5 手術療法.....	11
1.6.6 ニューロリハビリテーション治療.....	12
1.6.7 ロボットを用いたリハビリテーション治療.....	12
1.6.7.1 Gait Trainer.....	13
1.6.7.2 Lokomat.....	14
1.6.7.3 Hybrid Assistive Limb.....	15
第2章 研究の課題と目的.....	17
2.1 脳性麻痺患者に対するHAL歩行訓練後の効果持続の可能性(研究1).....	17

2.2 整形外科的手術後へのHAL使用の実行可能性（研究2）	18
2.3 小型軽量の新しいHALを用いた歩行訓練の実行可能性（研究3）	19
第3章 倫理的配慮	20
3.1 研究の対象となる個人の人権擁護.....	20
3.2 倫理委員会承認.....	20
第4章 脳性麻痺患者に対するHAL歩行訓練後の効果持続の可能性（研究1）	21
4.1 対象と方法.....	21
4.2 結果.....	22
4.3 考察.....	24
4.4 小括.....	26
第5章 整形外科的手術後へのHAL使用の実行可能性（研究2）.....	27
5.1 対象と方法.....	27
5.2 結果.....	27
5.3 考察.....	29

5.4 小括.....	32
第6章 小型軽量の新しいHALを用いた歩行訓練の実行可能性 (研究3).....	33
6.1 対象と方法.....	33
6.1.1 症例.....	33
6.1.2 HAL訓練.....	34
6.1.3 評価.....	35
6.1.4 統計学的検討.....	36
6.2 結果.....	37
6.3 考察.....	43
6.4 小括.....	46
第7章 研究の限界.....	47
第8章 総括.....	48
第9章 結論.....	50
参考文献.....	51

略語一覽

ADL	activity of daily living
GMFM	gross motor function measure
GMFCS	gross motor function classification system
NDT	neuro developmental treatment
CI	constraint induced
AFOs	ankle foot orthoses
SDR	selective dorsal rhizotomy
OS	orthopaedic surgery
HAL	hybrid assistive limb
BWSTT	body weight-supported treadmill training
CVC	cybernic voluntary control
RF	rectus femoris
GM	gluteus maximus
VL	vastus lateralis
ST	semitendinosus
EMG	electromyogram
iEMG	integrated electromyogram

第1章 序章 ~脳性麻痺~

1.1 脳性麻痺の定義

「脳性麻痺」という用語は疾病そのものではなく、胎児期または新生児期に生じた脳障害によって引き起こされる様々な障害を含めた疾病概念である^{1,2}。「脳性麻痺リハビリテーションガイドライン」の第2版(2014年)の中で、近藤はその重症度の幅広さや医療・教育・福祉の場での取り扱いによる差異について言及し、統一した用語や概念の必要性を提唱している³。本邦における定義は1968年の「厚生省脳性麻痺研究班会議」での、この時点での疾患に対する理解を具現化したものであり、他国のものとも共通性が高く、現在においても頻用されている。これによると「脳性麻痺とは受胎から新生児期（生後4週以内）までの間に生じた脳の非進行性病変に基づく、永続的なしこしこ変化する運動および姿勢の障害である。その症状は満2歳までに発現する。進行性疾患や一過性運動機能障害または将来正常化する運動発達遅延は除外する。」とある。決まった疾患単位を指す用語ではなく、ある種のあいまいさを含んでいるため、その取扱いが難しくなっている原因とも考えられる。2004年に米国のMaryland州Bethesdaで開催された国際ワークショップにおいて再定義され²、その後さらにRosenbaumら¹によって改変され、「脳性麻痺は発生・発達段階の胎児または新生児に起こった非進行性の障害に起因する永続的な運動と姿勢の発達の異常を表し、活動の制限を引き起こす。脳性麻痺の運動障害には感覚、認知、理解、コミュニケーションや行動の障害によるもの、及びてんかんや二次障害によるものも含まれる」と定義された。どの定義においても胎生期から新生児期にかけて起こる脳の障害によって発達過程に異常が起き、日常生活動作（activity of daily living, ADL）が障害されているといった見解である。

1.2 脳性麻痺の疫学

脳性麻痺の詳細な記述は1800年代の中頃にイギリスの整形外科医Little⁴によって初めてなされたとされており、その後Little病という名で世に広まり、様々な定義のもと、ようやく疾患の全容が明らかになってきたことは前述した通りである。その発生頻度については諸国より様々な報告があるが、おおよそ出生1000あたり2.0前後とされてきた⁵⁻¹¹。日本国内においては1980年代にかけて減少し、出生1000あたり1.2であったが、その後増加に転じ、近年は諸国同様の結果が報告されている¹²⁻¹⁶。その原因は周産期・新生児期の医療技術の発展に伴い、以前は代表的な脳性麻痺の発生要因とされていた核黄疸が減少した^{13,15}が、早産・低出生体重児や染色体異常をもった新生児の周産期死亡率が減少したためであると考えられている^{13-15,17,18}。

1.3 脳性麻痺の分類

脳性麻痺の分類方法は多岐にわたっている。代表的な分類としてヨーロッパの脳性麻痺患者登録・調査に関する共同ネットワーク（The Surveillance of Cerebral Palsy in Europe）が推奨しているものがある⁸。ここでは筋緊張の異常状態と不随意運動、失調の有無により(1)痙直型(spastic)、(2)運動障害型(dyskinetic)、(3)失調型(ataxic)の3つに大別されている。このうち痙直型脳性麻痺は全体の約70-80%と最も多い¹⁹⁻²¹。(1)痙直型麻痺は中枢神経系の錐体路障害による運動障害が特徴的であり、その障害部位の分布によって片側性か両側性に分類され、(2)運動障害型は脳性麻痺全体の約15%に生じ^{20,22,23}、不随意運動の種類によってアトローゼ型かジストニア型に分類される。(3)失調

型は中枢神経系の錐体外路性運動障害，特に小脳の異常の特徴であり，脳性麻痺全体の約4%に存在すると言われてしている^{20,23}．運動機能に着目した分類方法として，座位や歩行などの粗大運動と呼ばれる機能を点数化した評価尺度（Gross Motor Function Measure, GMFM）²⁴や，粗大運動能力分類システム（Gross Motor Function Classification system, GMFCS）²⁵も汎用されている．

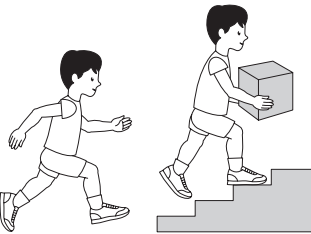
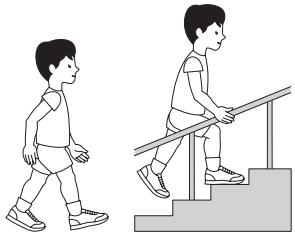
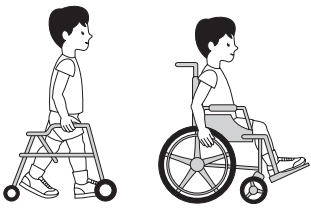
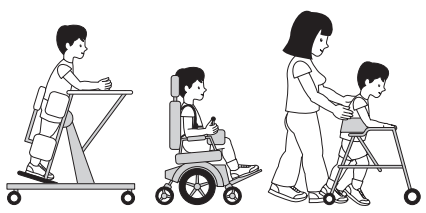
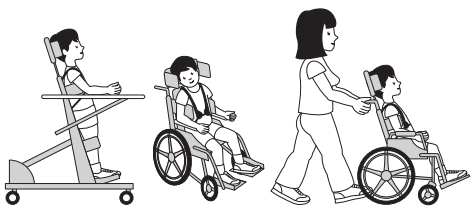
1.3.1 GMFM

GMFMは主に脳性麻痺児を対象とし，寝返り，座位，立位，歩行などの粗大運動能力の経時的な変化や医療的な介入の効果を計るために開発された評価尺度である²⁴．初期は88項目の運動課題による採点が行われていたが，1回の評価に1時間前後の時間がかかるため，66項目に絞ったGMFM-66が発表され²⁶，使用されている．

1.3.2 GMFCS

GMFCSは5段階の簡易評価による脳性麻痺の重症度分類であり，5つの年齢グループ（2歳の誕生日の前日まで，2～4歳の誕生日前日まで，4～6歳の誕生日の前日まで，6～12歳の誕生日の前日まで）に応じた分類基準が存在する．レベルI～IIIに関しては自力歩行が可能であり，レベルIV以上は自力での歩行不能に大別される（図1）．2歳未満の間は自然発達の過程を経るため，正確な判定が困難であり，GMFCSによる分類は2歳以降に行うことが望ましいとされている．一旦当てはめ（ページ5へ続く）

GMFCS E & R between 6th and 12th birthday: Descriptors and illustrations

	<p>GMFCS Level I</p> <p>Children walk at home, school, outdoors and in the community. They can climb stairs without the use of a railing. Children perform gross motor skills such as running and jumping, but speed, balance and coordination are limited.</p>	<p>レベル I 制限なしに歩く</p>
	<p>GMFCS Level II</p> <p>Children walk in most settings and climb stairs holding onto a railing. They may experience difficulty walking long distances and balancing on uneven terrain, inclines, in crowded areas or confined spaces. Children may walk with physical assistance, a hand-held mobility device or used wheeled mobility over long distances. Children have only minimal ability to perform gross motor skills such as running and jumping.</p>	<p>レベル II 制限を伴って歩く</p>
	<p>GMFCS Level III</p> <p>Children walk using a hand-held mobility device in most indoor settings. They may climb stairs holding onto a railing with supervision or assistance. Children use wheeled mobility when traveling long distances and may self-propel for shorter distances.</p>	<p>レベル III 手に持つ移動器具を使用して歩く</p>
	<p>GMFCS Level IV</p> <p>Children use methods of mobility that require physical assistance or powered mobility in most settings. They may walk for short distances at home with physical assistance or use powered mobility or a body support walker when positioned. At school, outdoors and in the community children are transported in a manual wheelchair or use powered mobility.</p>	<p>レベル IV 制限を伴って自力移動電動の移動手段を使用しても良い</p>
	<p>GMFCS Level V</p> <p>Children are transported in a manual wheelchair in all settings. Children are limited in their ability to maintain antigravity head and trunk postures and control leg and arm movements.</p>	<p>レベル V 手動車椅子で移送</p>

GMFCS descriptors: Palisano et al. (1997) Dev Med Child Neurol 39:214-23
CanChild: www.canchild.ca

Illustrations Version 2 © Bill Reid, Kate Willoughby, Adrienne Harvey and Kerr Graham,
The Royal Children's Hospital Melbourne ERC151050

図1 6～12歳時のGMFCSレベル毎の運動機能を示したイラスト（Royal Children's HospitalのWebサイトより転載し、注釈を追加して使用）

られた年齢が上がっても基本的に変化がなく，おおよその運動機能の成長は，判定された分類によって決まったカーブを描き，学童期にプラトーに達してしまうことが知られている^{27,28}（図2）。

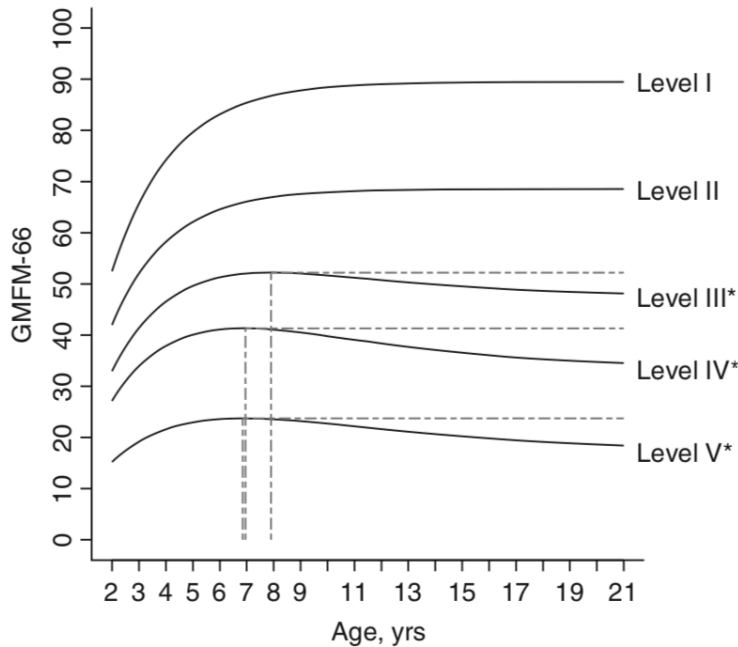


図2 GMFCSレベル毎のGMFM-66の値の推移. レベルIIIより上のレベルの脳性麻痺児では8歳以前に運動能力の限界が来てしまう.（文献28より引用）

1.4 診断

1.4.1 リスクファクター

国や地域の医療レベルによる違いはあるが，脳性麻痺発生のリスクファクターとして，(1)胎児期，(2)分娩時，(3)新生児期の3つのステージで考えることができる. (1)胎児期の異常としては，染色体異常などによる先天異常や胎盤機能障害などによる様々な発育不全. (2)分娩時においては胎便吸引，新生児仮死. (3)新生児期は新生児発作，呼吸窮

迫症候群，低血糖，新生児感染症があげられる²⁹。また多胎妊娠についてもその脳性麻痺発生率の高さが報告されている¹⁷。脳性麻痺の原因解明のために様々な研究がなされているが，これらのリスクファクターには予防不可能なものも含まれているため，その発生頻度の減少にはつながっていない。

1.4.2 臨床診断

後に脳性麻痺と診断される場合であっても，新生児期には異常を認めないことも多いと言われている³⁰。染色体異常や明らかな先天奇形を有する場合は妊婦超音波検査などにより発見される。または出生時のその可能性を指摘されることもあるが，先に述べた脳性麻痺の定義の通り，その後の運動発達に異常の無い場合は除外される。通常は2歳以降に診断することが可能になるとされており，詳しい発達歴の聴取と神経学的診察を行い，症状の出現が一過性のものではなく，進行性疾患が除外された場合に脳性麻痺と診断される。

1.4.3 画像診断

脳性麻痺が疑われる低出生体重児や分娩時に異常を認めた場合は，超音波を用いたスクリーニング検査が行われる。頭蓋内の出血病変の有無が確認でき，脳室周囲白質軟化症の診断には，生後1週間以内に脳室周囲の高エコー域が見られ，その後数週で低エコーの嚢胞性病変となる³¹。CTはX線被爆のため積極的には使用されないが，出血性病変の判定に有用である。MRIは脳室周囲白質軟化症の診断や，脳の先天奇形，急性期脳梗塞の描出に優れている³²。

1.5 臨床所見

1.5.1 新生児期から乳幼児期

脳性麻痺の症状はリスクファクターのある児や重症例の場合を除いて早期からの発見が難しい。通常生後6～12ヵ月までに運動発達の遅れや、下肢の筋緊張亢進、原始反射の残存などで現れてくる³³。片麻痺の場合は左右どちらかの肢の運動機能が明らかに低下する。発達の退行が明らかな場合は代謝異常や変性疾患を検討する。痙直型麻痺の場合、筋緊張は下肢に多く観察され、足関節の底屈や股関節の内転作用に対して強く働き、尖足や股関節脱臼などの障害を引き起こすことが知られている³⁰。運動機能は幼児期にもっとも発達することが分かっており²⁷、日本では療育というシステムを用いて早期からの介入を行っている³⁴。しかし、軽症の場合は診断が遅延してしまうこともあり、医療・療育・行政・教育の連携が必要といわれている³⁵。

1.5.2 学童期から思春期

脳性麻痺の運動発達は学童期前半にかけてピークがくることが知られている²⁸。その理由として、就学による運動機会の減少、思春期前後における身長体重の増加、筋バランスの変化による関節可動域減少、骨関節の変形などが挙げられる³⁰。特に自立移動が制限されているGMFCSレベルIII以上の患者にその傾向が強いとされており、この時期に生じる骨関節の変形を二次障害と呼んでいる。徐々に出現してくる筋の短縮、関節拘縮、大腿骨、下腿骨の回旋変形、股関節の亜脱臼、脱臼や脊柱側弯変形が知られており^{30,36}、そのために運動機能が低下してくることが問題となっている。

1.5.3 成人期

成人期の脳性麻痺患者は歩行能力によってその予後が大きく変わってくる。思春期以降の骨関節変形が悪化し、疼痛の増強により歩行機会がさらに減少することで筋力が低下し、歩行がより困難になるという悪循環が生まれる。45°以上の側弯を有する患者は成人期以降も増悪する可能性が高いと言われており、悪化によって呼吸状態の悪化や腹部内臓機能に影響を与える可能性もあり、手術が奨められている³⁷。股関節脱臼は初期には症状がないこともあるが、保存的に経過をみた場合は約半数にADLを低下させる疼痛が出現すると言われてている³⁸。

1.6 治療

ここでは脳性麻痺患者の運動機能障害に対して、主に整形外科で処方される治療について述べることにする。脳性麻痺患者は発達による能力や身体特性の変化が起こるため、年齢や体格、運動能力によってその時々最適な治療方法を選択し、使い分ける必要があると考えられる。幼少期より漫然とした治療法を繰り返すことが成長の妨げとなってしまうてはならない。

1.6.1 理学療法

理学療法は運動機能障害を有する脳性麻痺患者に対して行われており、神経発達学的治療法（neuro developmental treatment, NDT）によって、歩行や立位動作を導く試みがなされている。古くは1970年代に日本に広まったBobathのアプローチ³⁹を継承してい

るが、その効果の優位性は確立していないとされている³。その理由として、脳性麻痺患者の多様性による背景の統一の困難さという問題があり、さらにNDTを行う施設や療法士間での方法の統一性（アプローチの方法や頻度、対象など）が得られていないことなどが考えられる。しかし、その効果は様々な研究で認められており⁴⁰、特にNDTに関しては、集中的に訓練を行うことでその効果が期待されている⁴¹⁻⁴⁴。その他に下肢の筋力強化に対するアプローチや関節拘縮予防のためのストレッチ、バランストレーニング、有酸素トレーニングなどの方法を組み合わせて行われている。歩行に関するトレーニングも理学療法で積極的に行われている。歩行補助のための装具や歩行器などを用いてトレーニングを行うが、自立歩行が困難な脳性麻痺患者に対しては部分免荷型の歩行器や、免荷を行った状態でのトレッドミル歩行訓練⁴⁵（body weight-supported treadmill training, BWSTT）が行われている。いずれの方法も個々の患者の特性によって効果に差が出てくると考えられるが、十分なエビデンスを持った効果は確立されていない³

1.6.2 作業療法

主に脳性麻痺患者の上肢機能障害の改善を目的に治療が行われる。脳性麻痺患者では上肢の変形や関節可動域制限によって機能が障害されている。作業療法を行う事で自動的な回外運動が改善し、ADLの改善が得られると考えられている。近年、上肢機能訓練に関してCI療法（constraint induced movement therapy）⁴⁶やボツリヌス療法⁴⁷の報告が多くなっている。CI療法は片麻痺患者の健側を拘束し、運動を制限して患側への介入を行うものであるため、介入対象となる脳性麻痺患者が限られてくる。ボツリヌス療法を併用した作業療法は上肢機能の改善により効果的であると言われている⁴⁸。また、施設によっては坐位保持装置や車椅子の処方の際にポジショニングの確認を行ったり、作業療法を円滑に行うための簡易な装具を作成したりすることもある。

1.6.3 装具療法

リハビリテーションの一環として使用する装具に関しては、リハビリテーション専門医または整形外科医などによって処方されている。主な機能としては歩行の安定や保持であるが、重症の患者に対して関節拘縮の矯正や進行抑制をすることで、二次障害の発生子防を目的とした処方がされることもある。短下肢装具（ankle-foot orthoses, AFOs）は歩行可能な脳性麻痺患者が立位や歩行の際に、安定した支持面を提供することができる⁴⁹。立位が安定することで、足関節のみならず、膝関節や股関節の安定性にも寄与する。歩行時は遊脚期のクリアランス獲得にも作用する。また、関節固定型の短下肢装具を最低6時間装着することで尖足予防が可能であったといった報告もある⁵⁰。しかし長期的な使用による効果に関連した研究はまれであり、エビデンスの構築には至っていない。さらにGMFCSレベルIV～Vの患者に対する立位訓練用の長下肢装具についてもその効果を示せるエビデンスレベルの研究がないのが現状である⁴⁹。

1.6.4 薬物療法

主に痙直型脳性麻痺患者に対して薬物投与による痙縮のコントロールが行われている。痙縮をコントロールすることで、患者の活動性の向上や疼痛の減弱、変形の抑制が可能となる⁵¹。脳性麻痺患者に対して使用される薬剤には経口バクロフェンなどを中心とした抗痙縮薬、チザニジンなどの筋弛緩薬やバルプロ酸ナトリウムなどの抗てんかん薬があるが、小児神経を専門とする医師から処方されていることが多い。経口薬でコントロールが困難な重症患者に対しては、局所のコントロール目的にA型ボツリヌス毒素を投与するボツリヌス療法⁴⁷が行われ、全身の痙縮コントロールには持続的バクロフェン髄腔内投与療法^{52,53}が行われている。ボツリヌス毒素は理学療法や作業療法などと組

み合わせることで効果が増強されるとされているが、長期使用によって体内に抗体が形成され、効果の減弱が起きることが指摘されている。また、関節拘縮に対しては効果が乏しく、二次障害発生前の学童初期までが良い適応であるとしている報告が多い^{54,55}。

1.6.5 手術療法

脳性麻痺患者の運動機能障害に対して行われる手術療法として、選択的後根切断術 (selective dorsal rhizotomy, SDR)^{53,56,57}と腱延長術や骨切り術などの整形外科的手術 (orthopaedic surgery, OS)⁵⁸⁻⁶⁰がある。SDRは腱の短縮や関節拘縮の少ない6歳以下の学童で良い適応とされており、胸腰椎移行部の椎弓を切除し脊髄円錐と馬尾神経を露出させて電気刺激を行い、下肢に取りつけた筋電図による反応で異常と判断される後根細糸を選択的に切除する方法である。QOLを向上させる長期的な効果の報告もあるが⁶¹、再発や効果不十分な例も報告されており⁶²、比較的軽症例 (GMFCSレベルII~III)で行われることが多い。成長による骨関節形態の変化を妨げないために、ボツリヌス療法などの薬物療法を併用し、整形外科的手術の時期を遅らせることが可能となってきた⁵⁵が、その後も痙縮がコントロール不良のため骨関節の変形が問題となってくる例に対しては腱延長術が行われる。骨関節変形の起こり始める成長期前が良い適応である。主にアキレス腱延長術⁶³や股関節周囲筋解離術⁶⁴が選択されるが、重症例では膝関節後方のハムストリング延長術が行われることもある⁶⁵。以前は単関節に対して手術を行い、その後の経過で追加手術 (staged surgery) が行われていたが、現在では多数の下肢手術を1回で済ませる一期的多部位手術 (single-event multilevel surgery)^{60,66}が提唱され、手術回数や入院日数の軽減や歩容の改善に効果を上げている⁶⁷。

1.6.6 ニューロリハビリテーション治療

近年、脳科学の進歩により、脳の可塑性を利用したニューロリハビリテーションという新しい運動学習の概念が一般化し、リハビリテーションの分野において様々な方法で行われている。元来成人の脳は変化しないと信じられてきたが、Nudoらのリスザルを用いた実験⁶⁸によって、リハビリテーションを行う事で脳の運動関連領域に構造的な変化をもたらすことが示された。また、運動神経のシナプスへ信号が入力された際に、その信号が繰り返して入力されることでシナプスが強化され、単純な入力でも出力が増強されるというHebbの法則⁶⁹も脳の可塑性を支持している。運動学習を行うには正しいとされる運動を認識しながら自らの意思で繰り返す事が重要であると考えられる。これらを効率的に臨床に取り入れるため、ロボットを用いたニューロリハビリテーションが考案され、マサチューセッツ工科大学で開発されたMIT-MANUS⁷⁰から始まり、その後も数々のロボットがリハビリテーションの現場に登場している。

1.6.7 ロボットを用いたリハビリテーション治療

近年、脳性麻痺患者に対するロボットを用いたリハビリテーション治療の報告が増加しており、盛んにシステマティックレビューが行われている。しかし、脳性麻痺の疾患多様性のため、エビデンスレベルの高い報告の数が少なく、その効果については未だ確立されていないとされている^{3,71-76}。脳性麻痺患者のリハビリテーションにロボットを用いる利点として、患者の運動機能低下を補い、動作の反復頻度を増加することで効果を得る目的のものや、仮想現実（virtual reality）を利用した課題を遂行することでフィードバック効果を狙ったものなどがある。歩行支援を目的としたロボットは主に前者であり、エンドエフェクタを介してロボットに固定されるGait Trainer（Reha-Stim社）⁷⁷

や、直接装着可能な外骨格型のLokomat (Hocoma社)⁷⁸, Hybrid Assistive Limb (HAL, CYBERDYNE社)⁷⁹が代表的である。

1.6.7.1 Gait Trainer

Gait Trainerはコンピュータで設定された歩行周期を繰り返し実行することを可能にしている。患者は免荷用のハーネスと下肢の動きをコントロールするための2本のフットプレートの上に固定され、あらかじめ求められた歩幅と速度で歩行訓練を開始する。膝関節の支持が可能であれば、訓練中に徐々に免荷量を減じていき、免荷なしでの歩行も可能となる。体に取り付けた2本のロープで重心の位置を調整することで、ロボットなしのBWSTTでは実現困難であった体幹や骨盤のコントロールを行いつつ、正確な歩行をアシストしている(図3)⁷⁷。現在はGait Trainer 3に改良され、体幹に装着する免荷装置とトレッドミルの仕様となっている。装着が簡便であるため使用しやすいが、下肢の運動を調節する機構がないため、速度の変化に対応することが困難である。



図3 Gait Trainerでの歩行訓練の様子。(文献77より引用)

1.6.7.2 Lokomat

Lokomatはコンピュータ2台で歩行解析と運動制御を行う外骨格型ロボットとしてスイスで開発され⁷⁸、免荷装置とトレッドミルを合わせて使用されている。患者はLokomatを下肢に固定し、股関節と膝関節部分に内蔵されたアクチュエーターによって関節運動をコントロールされながら受動型の歩行訓練が行われる（図4）⁸⁰。関節運動のアシストレベルは多段階に設定ができ、100%の完全受動歩行から随意性を残した低アシストレベルでの歩行訓練が可能である。2017年にCarvalhoらが行ったメタアナリシスによると、脳性麻痺患者に対してLokomatを使用した歩行訓練で、歩行速度と歩行耐久性の向上、GMFM値の増加が得られたと報告されている⁸¹。これまで療法士の感覚のみで行われてきた歩行動作の調節がコンピュータを介して正確に繰り返す事が可能となり、歩行訓練の質の向上に有効であると考えられている。しかし、他動的な運動アシストであり、フィードバックを利用した運動学習が行われにくいといった特徴がある。近年のデジタル技術の発展に伴い、仮想現実と合わせてスポーツを行ったり、障害物を設定したりと様々なパターンでの訓練が可能になり、視覚を介したフィードバック効果や訓練に対するモチベーション維持により効果の向上が期待されている⁸²。



図4 Lokomatでの歩行訓練の様子。（文献80より引用）

1.6.7.3 Hybrid Assistive Limb

HALは筑波大学大学院システム情報工学研究科で開発された双方向性バイオフィードバック（interactive bio-feedback）機構を特徴とする外骨格型のロボットスーツである。使用目的によって形状の異なる4つのタイプが存在するが、歩行訓練では主に両脚、片脚の下肢タイプを使用する。ニューロリハビリテーション治療に適した使用方法として、股関節と膝関節の伸展、屈曲を司る筋表面の皮膚に貼付された生体電位センサーによって、装着者の運動意図をくみ取り、股関節と膝関節部分に設置されたアクチュエーターが作動し、動作をアシストするサイバニック随意制御（Cybernic Voluntary Control, CVC）モードがある⁷⁹。HALを装着することで随意的な運動がアシストされ、装着なしの状態では行う事ができなかった運動を実際に経験することができ、その情報が運動と同時に脳にフィードバックされる（図5）。同様の運動を繰り返す事で脳の可塑性を促し運動学習が行われ、HALを外した時にも運動を再現することが可能になると考えられている⁸³。この機構を用いた歩行訓練が行われている（図6）。

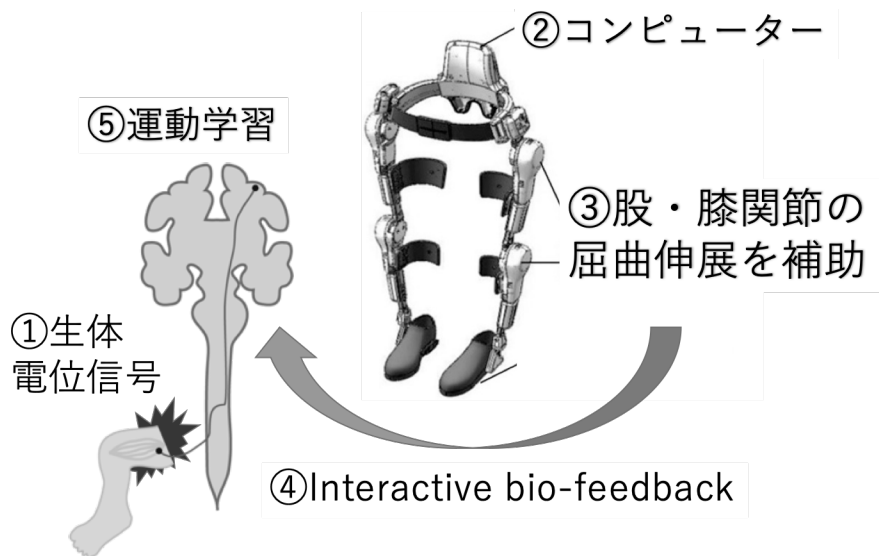


図5 HALの仕組みと双方向性バイオフィードバック（Interactive bio-feedback）

HALを用いた歩行訓練の有効性については、Taketomiら⁸⁴が2012年に脳性麻痺患者に対してHALを使用して歩行訓練を行い、その使用可能性について初めて報告した。Takahashiら⁸⁵は平均年齢15.0歳の脳性麻痺患者20例にHALを用いた歩行訓練を1回のみを行い、訓練後に歩行速度と歩幅が有意に増加したと報告している。Matsudaら⁸⁶は平均年齢16.8歳の脳性麻痺患者6例にHALを用いた歩行訓練を計12回を行い、快適歩行中の歩行速度の増加と歩行率の改善、GMFM値の増加を認めたと報告している。HALはすでに述べてきた通り、患者の随意運動意図にシンクロしてアシストが得られるため、その結果に対するフィードバックが自分の筋関節に存在する感覚神経を介して即座に得られることが特徴である。他の機種と比較してより運動学習効果が高いと期待されている。徐々に脳性麻痺患者に対してのHALの使用経験が増加しており、エビデンスが蓄積されている。



図6 HALでの歩行訓練の様子。

第2章 研究の課題と目的

脳性麻痺は脳の障害自体が悪化することはないとされているが、粗大運動機能の成長障害による活動制限に加えて、思春期前後の体の成長に伴って、さらなる能力の低下や二次障害が問題となってくる。ほとんどの症例で成長のピークは学童期前半にくるため、その後に介入を行ったとしても能力の大幅な改善は難しいと考えられる。前章で述べた様に現状では脳性麻痺に対する根本的な治療法はなく、特に学童期以降はリハビリテーションによる関節拘縮の予防や手術による変形矯正などの対症療法が行われているのみである。しかし、脳の可塑性を促す方法を用いて成長による運動機能改善を促進させることができれば、日常生活での運動機会の増加や、体力の増強につながり、その後の持続的な改善と二次障害の予防が可能となると考えられる。ロボットスーツHALという、双方向性のバイオフィードバック効果が得られる機器を用いてリハビリテーションをすることで、脳の可塑性を促すことができると考える。本研究の目的は小児脳性麻痺患者に対するHALを用いたリハビリテーションが有効に働く可能性があるか検討することである。

2.1 脳性麻痺患者に対するHALを用いた訓練後の効果持続の可能性（研究1）

これまで脳性麻痺患者に対してHALを用いて歩行訓練を行い、歩行能力の改善の可能性が示されてきた⁸⁵⁻⁸⁸が、その持続可能性については明らかにされてはいなかった。効果が訓練後も継続するのであれば、より若年期に使用することで、日常生活動作の質も向上し、能力の低下が起こってくるとされる学童中期以降も維持できるのではないかと考える。研究1では脳性麻痺患者に対してHALを用いた歩行訓練を行い、その効果の持続について検証する。

2.2 整形外科的手術後へのHAL使用の実行可能性（研究2）

HALを効果的に使用するためには、運動機能の発達段階であり、なおかつ骨関節の変形などの二次障害をきたしていない時期の方が良いと考えられる。しかし、診断遅延や重症例の場合は、若年であったとしてもすでに関節拘縮をきたしている場合もある。HALを使用する以前にすでに二次障害をきたしている場合は、HALの装着が困難な場合や、歩容や筋出力の安定化が得られないことがあるため、手術による治療を先行することによって、より良い効果が期待できる。これまではOSを行った場合、手術侵襲や筋バランスの変化、術後の固定の影響で運動機能障害が一旦低下してしまうことが問題となっていた。

HALは関節運動をアシストすることが可能であり、人工膝関節手術の術後訓練に導入され効果を上げている⁸⁹⁻⁹¹。同様の効果が、脳性麻痺患者の術後にも期待できる可能性があるが、現時点ではまだ術後患者に対して早期から使用した経験は報告されていない。

研究2ではOS後の脳性麻痺患者にHALを用いた歩行訓練を行い、その実行可能性を検証する。

2.3 小型軽量の新しいHALを用いた歩行訓練の実行可能性（研究3）

脳性麻痺に対するHALを用いた初期のリハビリテーションでは、Sサイズ(S-HAL)が主に用いられていた。適応となる身長が140cmから165cmであり、機器の総重量が14kgと重いため、小柄で筋力の低下している小児脳性麻痺患者に対して使用するのは困難で

あった。2018年に新しく開発された2SサイズのHAL(2S-HAL)は適応身長が100cmから150cmであり、金属の使用を減らして骨格にはカーボン素材を採用しているため総重量が約5kgと軽量化されている⁹² (図7)。この2S-HALが適応可能となればより若年の脳性麻痺患者の運動機能障害の改善が期待できると考えられる。

研究3ではこの軽量化された2S-HALを用いて小児脳性麻痺患者に対して歩行訓練を行い、その実行可能性と即時効果を検証する。

2018年秋～
2S-HAL
適応：
身長 100-150cm
体重 15-40kg
本体重量 5kg
定格トルク 約4Nm



従来最小サイズ
S-HAL
適応：
身長 150-165cm
体重 40-100kg
本体重量 17kg
定格トルク 約14Nm

図7 左, 2S-HAL 右, S-HAL

第3章 倫理的配慮

3.1 研究の対象となる個人の人権擁護

対象者の個人データは茨城県立医療大学の動作解析室内の金庫で保管し、公表されるデータにおいては個人の特特定ができないように配慮した。

3.2 倫理委員会承認

研究 1～3 は茨城県立医療大学倫理委員会の承認 臨床研究題目(682,e83,e119)を得て行われた。

第4章 脳性麻痺患者に対するHALを用いた訓練後の効果持続の可能性（研究1）

4.1 対象と方法

対象とした症例は17歳の脳性麻痺の男性。在胎31週で出生し、脳室内出血の既往があり、その後脳性麻痺と診断されている。当院には5歳時からリハビリテーション治療のために通院しているが、運動能力の向上は両杖を使用した歩行が可能になる程度にとどまり、GMFCSレベルIIIに分類された。その後成長期を迎え、身長と体重の増加があり、徐々に体を支えて歩行することが困難となり、歩行機会が減少し、日常生活では電動車いすを使用した生活を行うようになった。この時点でGMFCSレベルはIV程度に低下した。

本症例に対して入院HAL歩行訓練プログラムを行った。Matsudaらが報告した方法⁸⁶と同様に、HALを使用した訓練は週3回の4週で計12回行った。両脚型S-HALをCVCモードで使用した。CVCモードは装着者の筋活動を生体電位として感知し、膝関節と股関節の屈曲伸展運動をアシストすることで随意動作を容易にする方法である⁷⁹。HAL装着後に屈曲伸展のバランス調整を行い、免荷式吊り下げ型歩行器のハーネスを装着して歩行訓練を行った。全体で1時間の介入のうち、実際の歩行時間は20分程度であった。

歩行能力の評価にはVICON三次元動作解析装置を用いて訓練前、すべての訓練終了後および1、4、7ヵ月後に行った（図8）。歩行器を用いた快適歩行を8台のカメラで記録した。歩行解析には、それぞれ2～3回の歩行を記録し、最も解析に適したトライアルを使用し、3歩行周期の平均値を計測値とした。歩行速度、1歩行周期における立

脚期と遊脚期のバランス，歩幅，股関節と膝関節の可動域を測定した．股関節と膝関節の屈曲伸展角度については初期接地時，立脚終期時に測定した．股関節に関しては，最大屈曲角度と最大伸展角度の差を歩行時の可動域として定義した．

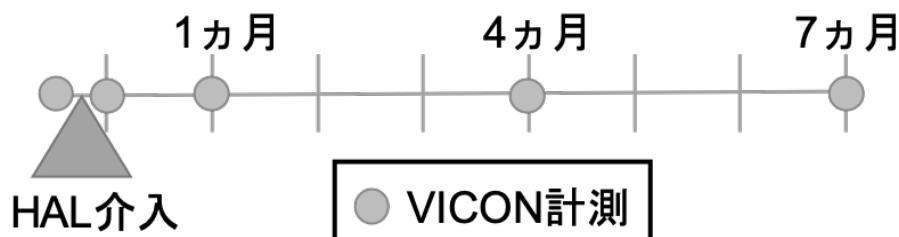


図8 HAL介入とVICON計測のタイムスケジュール

4.2 結果

歩行訓練は合計238分（平均19.9分）行った．訓練中に中止や計画を変更するような不具合事象は起こらなかった．計測期間全体における歩行能力の変化については表1に，関節可動域の変化に関しては表2に記載した．歩行速度は介入前に17.9m/minであり，介入直後の評価時を除いて増加がみられ，最終評価時の7ヵ月時点では21.2m/minであった（図9）．1歩行周期における両脚支持の割合はすべての評価時において介入前の53%から低下し，7ヵ月時点では48%であった．歩幅に関しても介入直後以降は右が0.29mから0.39mへ，左が0.30mから0.31mへと増加していた（図9）．

股関節の屈曲角度は介入直後に増加し，その後は一定の傾向がみられなかった．歩行時の股関節可動域は介入直後に減少したが，その後は特に左に関して増加がみられた．

膝関節の屈曲角度は介入後の調査で低下しており、脳性麻痺の特徴である膝の屈曲した屈み姿位の改善が得られていた。

表1 歩行能力の変化

	介入前	介入直後	1ヵ月後	4ヵ月後	7ヵ月後
歩行速度 (m/min)	17.9	14.2	21.9	21.5	21.2
1歩行周期に対する割合 (%)					
右立脚	76	68	70	74	58
左立脚	77	80	76	78	70
両脚	53	36	36	40	48
歩幅 (m)					
右	0.29	0.26	0.32	0.39	0.39
左	0.30	0.21	0.41	0.33	0.31

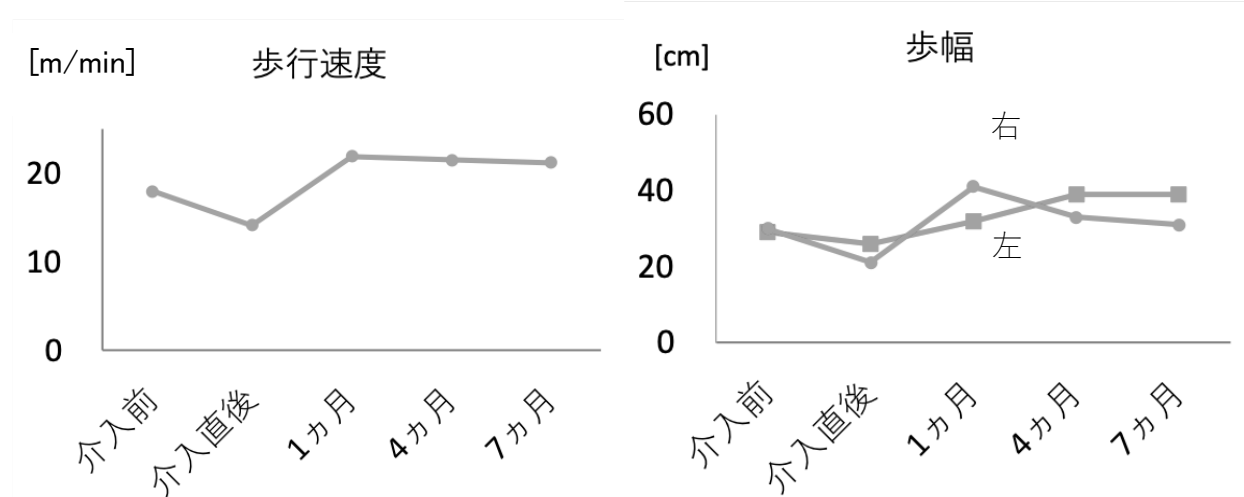


図9 HAL介入後の歩行速度と歩幅の経時的な変化。介入後7ヵ月の時点においても、歩行速度と歩幅は介入前より増加している

表2 歩行時の関節可動域の変化

		介入前	介入直後	1ヵ月後	4ヵ月後	7ヵ月後
股関節屈曲角 (°)						
初期接地						
	右	27.9	50.7	22.3	34.2	30.9
	左	28.1	47.2	29.8	27.2	32.8
立脚後期						
	右	-4.2	24.8	-5.8	-1.0	-0.9
	左	-4.6	20.3	-9.7	-11.2	-1.7
股関節可動域 (°)						
	右	32.1	25.9	28.1	35.2	31.8
	左	32.7	26.9	39.5	38.4	34.5
膝関節屈曲角 (°)						
初期接地						
	右	29.6	43.5	22.2	18.6	22.9
	左	33.2	28.1	29.1	19.8	25.5
立脚後期						
	右	26.3	25.7	17.7	23.7	14.0
	左	32.3	30.8	22.3	18.4	17.6

4.3 考察

研究1は1症例の経過ではあるが、HALを使用した歩行訓練後の経時的な変化について三次元動作解析を併用して記録したものである。歩行能力を含めた運動機能はGMFCSレベルIIIでは成長終了後に低下してしまうことが知られている²⁸。集中訓練を行うことで、能力の改善が得られるが⁹³、その効果は訓練終了後半年程度で元に戻ってしまうとも言われている⁹⁴。本研究では歩行速度や歩幅などの歩行能力に加えて、股関節や膝関節の可動域に関しても介入後7ヵ月という長期間の改善効果がみられている。

介入直後にいったんは股関節と膝関節の屈曲が増強し、屈み姿位が強くなった。吉川ら⁹⁵は、脊髄損傷後にHALを用いて歩行訓練を行った際にも同様の結果が得られ、HALを使用して歩行訓練を行った際に、装着したままで最適な歩行が学習されるため、HALを外した状態でその動きをすぐに再現することが困難になったためではないかと述べている。またIkumiら⁹⁶はHALを用いた訓練を行うことで脊髄損傷患者の痙縮が軽減されたと報告しており、痙縮を利用して関節の安定性を得ている可能性のある脳性麻痺患者は^{97,98}、訓練によって体の安定性を欠くことにつながり、歩行能力の低下が起こった可能性も考えられる。

HALを使用した歩行能力の改善についてはこれまで双方向性バイオフィードバック効果というものがあると述べられている^{83,99}。Saitaら⁹⁹は亜急性期の脳卒中患者に対してHALを用いたトレーニングを行い、側頭葉半球の一次運動野における脳皮質の活性化をもたらすことで即時の改善につながったと述べている。この効果が歩行の最適化を促し、記憶されることで、介入後もその動きを継続して行うことが可能となり、効果の持続が得られたと考えられる。

脳性麻痺患者に対してロボットを使用した訓練は他にも存在し、スイスで開発されたLokomatはヨーロッパ諸国を中心に幅広く使用されている⁷⁸。しかし、Lokomatは他動的に装着者の体をコントロールしており、HALの様な双方向性のバイオフィードバック効果は働かないと考えられる。

本研究は症例報告のため、この結果が多数ある脳性麻痺のレベルや分類すべてに当てはめて考えることは難しい。しかし、これまで不可能とされてきた成長終了後の脳性麻痺患者の運動機能障害を改善させ、しかもその効果を持続させることが可能となれば、能力の向上のみではなく、ADLが改善し、二次障害の予防、成人以降の症状増悪まで予防可能となるかもしれない。今後は様々な症例を同様に追跡調査するとともに、さらに効果が継続するかを注意深く観察する必要があると考える。

4.4 小括

成長終了後の脳性麻痺患者に対してHALを用いた歩行訓練を12回行い、その後の歩行能力の変化について経時的に7ヵ月まで調査を行った。最終調査時まで歩行能力の改善が維持されており、双方向性バイオフィードバック効果による影響が考えられ、今後も持続する可能性がある。

第5章 整形外科的手術後へのHAL使用の実行可能性（研究2）

5.1 方法と対象

2017年1月から2019年5月までに当院で整形外科的手術（OS）を行い，入院中にHALによる歩行訓練を行った脳性麻痺患者6例を対象とした．手術は脳性麻痺患者の関節拘縮を伴う二次障害に対して行われている方法⁵⁸⁻⁶⁰で対応した．術後の固定期間，リハビリテーション開始期間については術者の判断に従った．HALを使用したリハビリテーションの方法については研究1と同様に行った．初回は歩行が困難な症例も存在したため，その場合は立ち上がり訓練などを行った．

関節可動域が改善し，有害事象なく訓練終了となれば訓練が可能であったと判断した．有害事象とは骨折や脱臼，腱断裂や過延長などの再手術を要する様な状態や，訓練を中止しなければならないような創治癒遷延，感染，疼痛増大の出現などの大きなものを対象としたが，皮膚の障害や発赤，軽度の疼痛や疲労などの小さなものまで調査した．また，運動機能の変化を評価するため，手術前と退院時のGMFM値の計測を行った．

5.2 結果

症例の内訳は男性4例，女性2例，平均年齢は18.2歳であった．OS後にHALを装着するまでの期間は平均51.8日（36-64日）であった．以下に各症例の詳細を提示する．

（表3）

表 3 症例詳細

	症例 1	症例 2	症例 3	症例 4	症例 5	症例 6
年齢 (歳)	11	16	16	24	13	16
GMFCS	2	4	4	3	2	2
麻痺型	痙性片麻痺	痙性両麻痺	痙性四肢麻痺	痙性両麻痺	痙性片麻痺	痙性両麻痺
罹患関節	足	足	膝	膝	足	足
術式	アキレス腱延長	アキレス腱延長	ハムストリング延長	ハムストリング延長	アキレス腱延長	アキレス腱延長
身長 (cm)	131.6	144.5	152.0	165.0	151.2	148.9
体重 (kg)	33.8	44.7	34.6	45.1	34.5	56.8
固定期間(日)	14	21	28	42	35	28
入院期間(日)	58	82	114	161	87	100
ope-HAL (日)	36	47	62	64	51	51
膝関節						
右-術前 (°)	-	-	-40	-45	-	-
右-術後 (°)	-	-	-30	-30	-	-
屈曲						
左-術前 (°)	-	-	-40	-50	-	-
左-術後 (°)	-	-	-15	-25	-	-
足関節						
右-術前 (°)	-30	-20	-	-	-20	-20
右-術後 (°)	20	10	-	-	0	0
背屈						
左-術前 (°)	0	-30	-	-	10	10
左-術後 (°)	5	10	-	-	20	20
GMFM						
術前	99.17	36	37.79	57.91	87.35	57.91
退院時	99.44	43.37	34.3	48.79	89.36	48.79

GMFCS, Gross Motor Function Classification Scale. GMFM, Gross Motor Function Measure, ope-HAL 術後からHAL開始までの日数

足関節拘縮に対するVulpius法によるアキレス腱延長手術が4例，膝関節拘縮に対する内外側ハムストリングス延長手術が2例に行われていた．固定期間，入院期間，手術からHAL開始までは手術方法による違いは明確ではなかった．

罹患関節の可動域は全例で改善が得られており（図10），再手術が必要であったり，訓練を中止したりしなければならぬ有害事象の発生はなく，全員が歩行訓練を行えた．退院時のGMFM値は膝関節の手術症例で入院時より低下がみられていた．

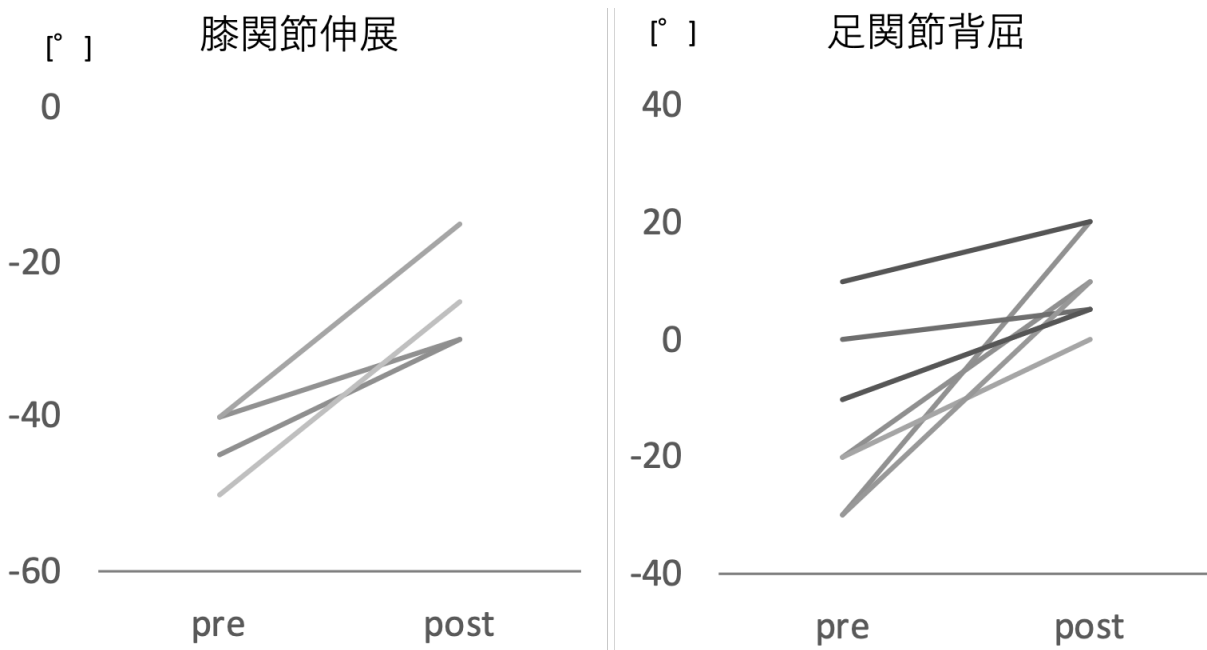


図10 手術前後での関節拘縮の変化

5.3 考察

脳性麻痺患者に対するOS後のリハビリテーションについて，半年以上経過後にどの種類の介入方法が良いか検討した報告はあるが¹⁰⁰，術後早期からのリハビリテーション方法に言及した報告はない．本研究では術後平均1ヵ月半の時点でHALを装着して歩行訓

練を行っていたため、術後どの程度の早期にHALを用いてリハビリテーションを開始するのが良いかを今回の結果のみで論じることは困難であると考える。術後疼痛の軽減や創部の安定目的にギプス固定を行い、疼痛が軽減した後に関節の自動運動を開始し、立位や歩行に際しては、短下肢装具や膝関節装具などの着用し行っていることが多い¹⁰¹。通常創部の治癒には2～4週程度の時間を要すると言われており¹⁰²、確実な創部治癒を待ってからHALの装着を開始したため、開始の時期が遅くなったと考えられる。創部を待つことで、HALを装着することに対しての創部への問題は少なくなるが、もともと筋力低下のある患者に長期の固定期間はさらなる筋力低下を引き起こす原因となり得る。ハムストリングの手術後の患者では手術創に大腿部のカフが当たってしまうなど（図11）、創部とカフの問題があげられるが、カフの位置を工夫したり、クッションを適宜活用したりするなどの対策を行い、早期からの介入を行うことでさらなるリハビリテーションの効果向上になる可能性があると考える。

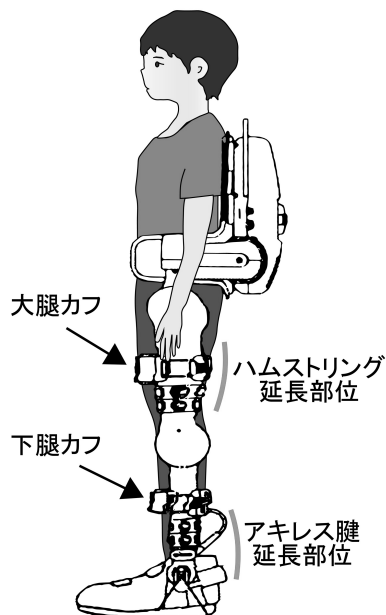


図11 HAL装着時のイメージと創部の位置関係

罹患関節可動域は全例で改善したが、本効果は主に手術の結果であり、HALを行ったことによる関節への影響は確認できなかった。膝関節の屈曲筋延長を行った症例では、HALを使用しても術前よりGMFM値の改善が得られていなかったが、その理由として膝関節屈曲筋力が低下したためと思われた。これらはHALを使用した歩行訓練を行ったことで最小限の低下となっている可能性は考えられる。今後症例を積み重ね、さらに経時的な変化を記録していくことで、HALを使用すべき症例を見出す必要があると考える。

HALを使用したリハビリテーションを行う際に下肢の変形のためにHALが装着困難となる症例があることが報告されている⁸⁵。そうした症例に対しては、HALを装着したとしても一般的に正しいとされている動作の実現が困難であり、フィードバック効果が有効的に得られない可能性が考えられる。今後HALを使用した歩行訓練を行っていく際に、手術を先行して行った方が良いと考えられる。

本研究は手術を行う症例が少なく、短期間の調査であったため、術後の歩行訓練にHALを使用する優位性までは明らかにはなっていない。また、手術症例は腱延長を行った症例のみであり、もう一つのOSのメインの術式である骨切り後の使用が可能かどうかは検討していない。今後症例を積み重ね、様々な手術後の使用に対する有効性が明らかとなれば、若年で手術が必要な重症例に対しても、術後の運動機能の改善がさらに得られる可能性が考えられる。

5.4 小括

HALを用いて整形外科術後の脳性麻痺患者の歩行訓練を行った。歩行能力の改善については十分な検証が得られていないが、症例を検討することで安全に施行することが可能である。

第6章 小型軽量の新しいHALを用いた歩行訓練の実行可能性(研究3)

6.1 対象と方法

6.1.1 症例

2018年10月から2019年6月の間に当院で2S-HALを用いて歩行訓練を行った14歳以下の脳性麻痺児19例を対象とした。その際、体格や変形によってHALの装着が困難であったり、健康上、運動負荷が禁止されていたり、協力の得られないと判断した症例は除外した。診療録上、または両親から患児の年齢、性別、脳性麻痺の原因疾患、麻痺型、GMFCSレベル、言語障害の有無、歩行や装具の使用の有無について調査した。参加症例は男児13例、女児6例、平均年齢が8.5歳、平均身長120.5cm、平均体重23.2kgであった。痙直型の16例のうち、1例のみ片麻痺であり、残り15例は両麻痺であった。ほかの症例は2例が失調型、1例がアテトーゼ型であった。GMFCSレベルはレベルIが2例、IIが2例、IIIが7例、IVが7例であった。(表4)

表4 患者背景

年齢 (歳)		8.5 (3-14)
性別		
	女	6
	男	13
身長 (SD) (cm)		120.5 (16.6)
体重 (SD) (kg)		23.2 (7.4)
麻痺型 (n)		
	痙性両麻痺	15
	痙性片麻痺	1
	失調型	2
	アテトーゼ型	1
GMFCS レベル		
	I	2
	II	2
	III	8
	IV	7
言語障害		
	なし	12
	あり	7

GMFCS, Gross Motor Function Classification System

6.1.2 HAL訓練

訓練前に股関節，膝関節，足関節の可動域の計測を行った。HALは小型軽量化された2S-HALを使用した。この機体は総重量が5kgと以前のものの半分以下に軽量化されており，適応身長も100cm以上となっている（図7）。下肢に装着する際，歩行時に下垂足となる症例に対してはセンサーシューズの中にプラスチック製の短下肢装具を使用した。装着後，屈曲伸展バランスを確認し，出力の調整を行った。転倒予防に歩行器を使用した。訓練の際は前後に1名ずつ理学療法士がつき，進行方向の誘導や，歩行のリズ

ム調整を行った。歩行訓練は休憩時間も含めて約20分、1回のみ行った。歩行速度は患者が自由に調節可能であり、療法士が適宜バランスの調整を行った。できる限りCVCモードを使用した。

6.1.3 評価

本研究では第一に小児脳性麻痺患者に対する2S-HALを用いた歩行訓練の安全性と実行可能性とした。そのため有害事象の発生について記録し、訓練後には患児に体調を確認し、皮膚障害などが起こっていないか全身を確認した。

第二の目的として、2S-HAL歩行訓練の即時効果を検討した。関節可動域の値を訓練前後で記録した。また歩行器のありなしにかかわらず、人の援助なしで歩行可能な児に関しては、10m快適歩行時の歩行速度、歩幅、歩行率を計測した。また10m快適歩行を側面から動画撮影し、二次元動作解析ソフトウェアFlameDIASを用いて関節角度変化を計測した(図13)。関節角度は膝関節の立脚期の最大伸展時と初期接地時の屈曲角度を計測し、股関節の最大屈曲と最大伸展角度の差を股関節可動域として求めた。また、肩峰と大転子のなす直線と地面に対する垂線のなす角を体幹の傾きと定義し、前方後方への振れ幅を体幹動揺角度として計測した。10m歩行は往復で計測し、より歩行が安定していた方の試技に対して3-4周期の歩行を選んで解析に使用した。理解力が良好な3名(症例番号3, 6, 16)に関しては筋電図計を用いて大腿直筋(rectus femoris, RF)、大殿筋(gluteus maximus, GM)、外側広筋(vastus lateralis, VL)、半腱様筋(semi-tendinosus, ST)の表面筋電図(electromyogram, EMG)を記録した。サンプリング周波数は2000Hzとし、20-450Hzのフィルターで処理した。その後単位時間当たり

の筋電図の絶対値を積分した値をiEMG (integrated electromyogram) として記録した。

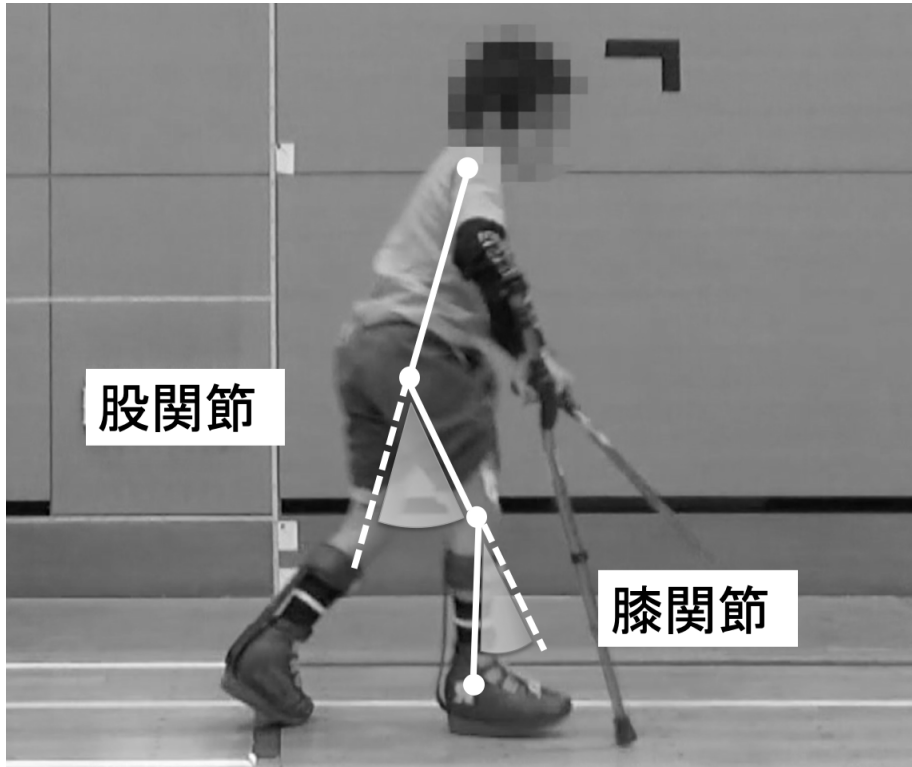


図13 10m歩行時の右股関節と右膝関節の関節角度計測. 肩峰と大転子, 膝関節外側, 足関節外果をマーキングし, それぞれの屈曲角度をプラスの値として計測した.

6.1.4 統計学的検討

計測値の訓練前後における変化を評価するため対応のある t 検定を用いて統計学的処理を行った. 有意水準を 5 %として検討した.

6.2 結果

すべての患児で歩行訓練を行うことができた。総歩行距離が最も長かった症例は480mで、最も短かった症例は20mと症例間の差が大きかった。実際の総歩行時間は平均11.8分であった。それぞれの症例の詳細を以下に示す。（表5）

表5 患者プロフィールと介入内容

番号	年齢	性別	身長 (cm)	体重 (kg)	GMFCS レベル	言語 障害	病因	麻痺型	歩行器/装具	10MWT	歩行距離 (m)	歩行時間 (min)	歩行速度 (m/min)
1	8	男	123	21.5	II	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	短下肢装具	可	480	14.3	33.5
2	13	女	141	23.0	IV	あり	染色体異常	失調型	歩行器, 短下肢装具	不可	20	10.4	1.9
3	11	男	130	29.0	III	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	クラッチ, 短下肢装具	可	200	7.0	28.4
4	10	男	138	29.8	IV	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	歩行器, 短下肢装具	不可	150	6.5	23.0
5	12	女	134	21.0	IV	あり	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	歩行器, 短下肢装具	不可	90	13.4	6.7
6	10	男	127	29.0	III	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	クラッチ, 短下肢装具	可	120	6.1	19.8
7	5	男	100	16.0	IV	あり	染色体異常	痙性両麻痺	歩行器, 長下肢装具	不可	30	19.6	1.5
8	7	女	127	30.0	I	なし	水頭症	痙性四肢麻痺	短下肢装具	可	320	8.2	39.1
9	3	男	92	11.4	III	あり	不明	痙性両麻痺	歩行器, 短下肢装具	不可	40	12.5	3.2
10	9	男	124	26.6	IV	あり	水頭症	失調型	歩行器, 短下肢装具	不可	200	19.5	10.2
11	10	男	129	29.0	III	なし	不明	痙性両麻痺	クラッチ, 短下肢装具	可	360	16.4	22.0
12	8	女	120	24.6	III	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	クラッチ, 短下肢装具	可	160	11.3	14.2
13	10	男	122	26.3	III	なし	新生児髄膜炎	痙性両麻痺	歩行器, 短下肢装具	可	400	11.0	36.3
14	4	男	99	12.7	IV	あり	不明	アトニー型	なし	不可	50	12.5	4.0
15	4	女	93	14.5	I	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	短下肢装具	可	120	6.3	19.2
16	6	男	112	18.6	III	なし	低酸素性脳症	痙性両麻痺	歩行器	可	200	8.4	23.7
17	7	女	119	20.9	IV	あり	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	長下肢装具	不可	40	22.1	1.8
18	14	男	154	41.0	II	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	なし	可	280	7.6	37.0
19	8	男	108	16.4	III	なし	脳室周囲白質軟化症	痙性両麻痺	歩行器	可	200	10.2	19.6

GMFCS, Gross Motor Function Classification System. 10MWT, 10-m walking test, 10m歩行テスト

症例番号1と10にバンドの痕とみられる皮膚の軽度の発赤が出現したがすぐに軽快した。症例番号4は介入後に膝痛を訴えたが、自然軽快した。機器の配線トラブルによって訓練が後日に延期された症例が存在した。その場合は評価も訓練前に再度行っている。

関節可動域の変化を表6に示した。右股関節の外転可動域の平均値は介入前の32.9°から介入後の35.3°へと有意に増加したが、左は有意な変化はなかった。股関節の回旋可動域の平均値は内旋が右58.2°から63.2°に、左が57.4°から66.2°に、外旋が右57.6°から64.1°に、左が52.9°から61.5°へと両側ともに有意な可動域の増加を認めた。膝関節の可動域は有意な変化はなかった。足関節の関節動域については右足関節の膝屈曲位の場合を除き関節可動域は有意に増加した。

表6 関節可動域変化

	介入前	介入後	P値	
股 (R/L) (°)	伸展	8.2 ± 9.1 / 10.3 ± 8.8	8.5 ± 10.2 / 11.2 ± 8.2	0.250 / 0.104
	屈曲	125.6 ± 13.6 / 125.0 ± 15.2	127.1 ± 12.3 / 126.2 ± 14.9	0.070 / 0.163
	内転	20.0 ± 8.5 / 20.6 ± 6.4	20.6 ± 8.4 / 20.9 ± 6.8	0.430 / 0.331
	外転	32.9 ± 11.5 / 34.1 ± 13.0	35.3 ± 11.2 / 36.5 ± 11.5	0.016* / 0.185
	内旋	58.2 ± 22.2 / 57.4 ± 22.8	63.2 ± 17.5 / 66.2 ± 16.0	0.040* / <0.005**
	外旋	57.6 ± 16.1 / 52.9 ± 15.8	64.1 ± 12.9 / 61.5 ± 14.8	0.003* / <0.001**
膝 (R/L) (°)	伸展	-2.1 ± 5.2 / -3.5 ± 7.2	-2.6 ± 3.9 / -4.1 ± 6.7	1.000 / 0.668
	屈曲	140.3 ± 7.6 / 140.3 ± 7.6	141.5 ± 5.5 / 141.8 ± 5.7	0.331 / 0.236
	膝窩角	39.4 ± 17.0 / 39.4 ± 18.9	37.4 ± 16.2 / 37.9 ± 19.3	0.130 / 0.236
足 (R/L) (°)	屈曲 (膝伸展)	3.2 ± 12.5 / 1.2 ± 12.4	5.0 ± 13.0 / 2.9 ± 13.8	0.015* / 0.028*
	屈曲 (膝屈曲)	16.5 ± 17.0 / 17.4 ± 13.2	18.5 ± 17.5 / 19.4 ± 16.0	0.057 / 0.046*

* P < 0.05, ** P < 0.01

歩行能力の変化を表7に示した。歩行可能な全11症例の結果である。歩行速度の平均値は47.1m/minから54.7m/minへと増加し、歩幅は39.9cmから43.5cmへと増加し介入後に有意に改善した(図14)。歩行率は介入前の115.6step/minから122.1step/minへと増加したが、統計学的な有意差はなかった。図14に訓練前後の歩容の変化を示す。歩

行時の関節運動に関しては訓練後に股関節の可動範囲が38.7°から43.0°へと有意に拡大していた。立脚時の膝関節屈曲角度が介入前の22.5°から介入後の18.8°に低下しており、初期接地時の膝関節屈曲角度は増加が見られたが、統計学的な有意差はなかった。体幹動揺についての有意な変化はなかった。

表7 HAL歩行訓練前後の歩行能力の比較

	介入前	介入後	P値
歩行速度 (SD) (m/min)	47.1 (18.4)	54.7 (22.2)	0.019 *
歩幅 (SD) (cm)	39.9 (10.1)	43.5 (9.8)	<0.008 **
歩行率 (SD) (step/min)	115.6 (30.3)	122.1 (31.2)	0.127
動作解析データ			
立脚期膝関節角度 (SD) (°)	22.5 (14.1)	18.8 (14.1)	0.508
初期接地時膝関節角度 (SD) (°)	37.0 (17.7)	38.5 (18.0)	0.316
股関節可動域 (SD) (°)	38.7 (8.0)	43.0 (10.7)	0.028 *
体幹動揺角度 (SD) (°)	19.3 (5.0)	22.2 (4.2)	0.082

膝関節角度は屈曲側をプラスで表記

HAL, hybrid assistive limb. SD, standard deviation

* $P < 0.05$, ** $P < 0.01$



図14 訓練前後の歩容の変化（動画スナップの合成写真）。上段：訓練前，下段：訓練後。

iEMGを確認すると（図15：症例番号3，図16：症例番号6，図17：症例番号16），症例番号3ではRF，GM，VLにおける初期接地時のiEMG値が約2倍に増加しており，その後，立脚中期から後期にかけては低下していた。遊脚後期は全ての筋におけるiEMG値が増加しており，伸筋群であるGMとVLで100%を超えていた。症例番号6では介入前後の変化は少ないものの，立脚終期のRF，ST，GMのiEMG値が20～30%増加していた。立脚期のVLは低下が見られたが，スケールが1桁違う結果であった。症例番号16では初期接地時のVLのiEMG値が約50%低下していたが，立脚後期から遊脚初期にか

けてのGMとVLのiEMG値は約5倍に大幅な増加が見られた。STに関しては立脚、遊脚期ともiEMG値の増加が見られたが、スケールが1桁異なる結果であった。

症例番号 3

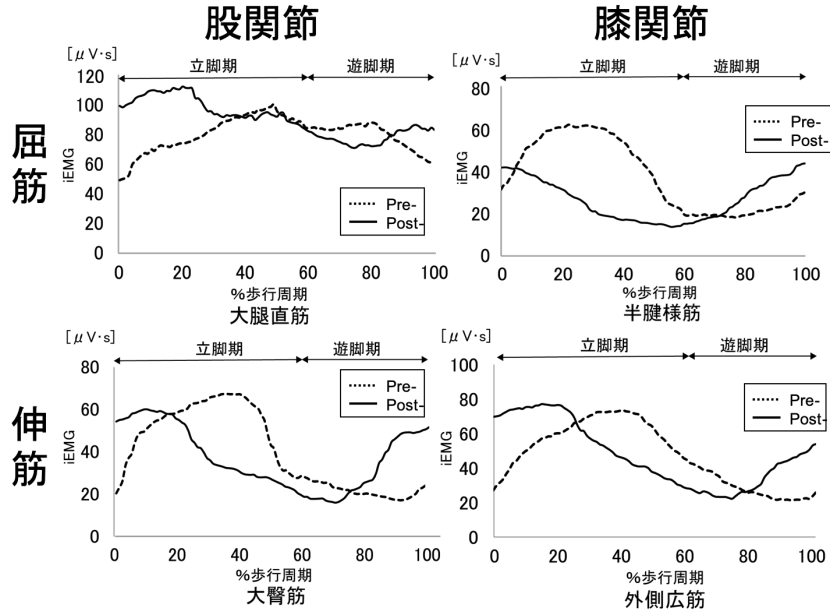


図15 筋電図変化 (症例番号3)

症例番号 6

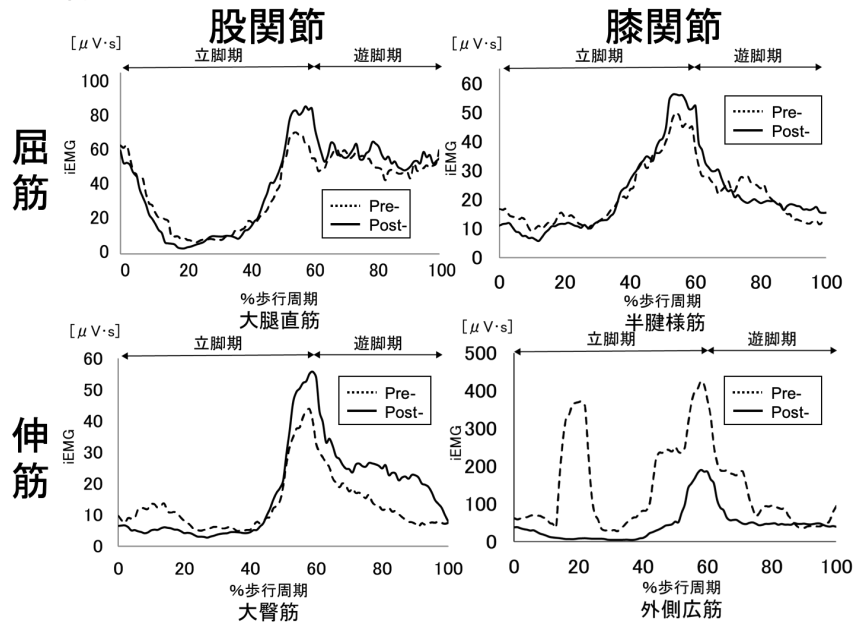


図16 筋電図変化 (症例番号6)

症例番号 16

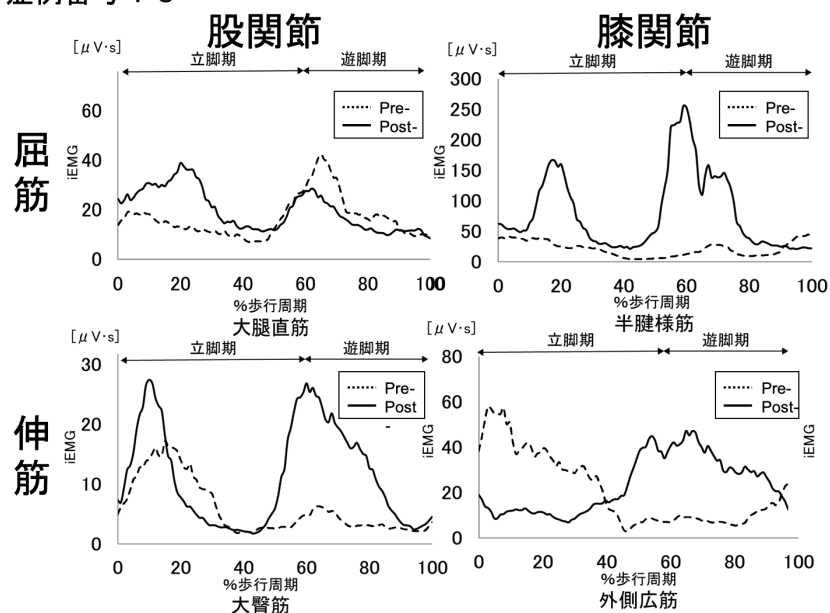


図17 筋電図変化（症例番号16）

6.3 考察

当院にリハビリテーション通院している小児脳性麻痺患者を対象に、新しく開発された2S-HALを用いて歩行訓練を行った。訓練は全例可能であり、重大な有害事象の発生はなかった。今回の症例の中には未就学児も含まれており、彼らには特に恐怖感を与えず、安全に訓練が行えるように配慮し、事前に動画を見てもらうことで滞りなく訓練が可能となった。これまで報告されてきたLokomatやGait Trainer GT1での歩行訓練^{71,73,81}は4歳以上が対象であったため、本研究の最小年齢3歳はそれよりも小さな年齢での使用であった。

総歩行距離が100m以下だった症例が6例存在した。その内訳としてGMFCSレベルIVの症例が5例であり、残りの1例は3歳のGMFCSレベルIIIの症例であった。全例に言語

障害を認めた。約20分の訓練時間において、100m以下の歩行距離は歩行訓練としては十分な距離とは考えにくく、中には20mしか歩行訓練が行えなかった症例も存在した。言語障害を有する患者は、訓練の意図が理解できず、HALと運動の同期が困難であると考えられる。今回の研究では歩行可能距離とその効果については検討できていないが、今後は知能検査などの評価も追加し、年齢や知的レベルを考慮した適応についての検討が必要であると考えられる。

2S-HALは金属部品の使用を減らし、カーボンフレームを用いて小型軽量化されたHALの新しい機体である。軽量化のために固定部分が動きやすくなっているため、配線への負荷が大きく、電気システムのトラブルが起こったと考えられる。フレーム自体の剛性は、今回使用した体格の小児患者に対して問題なかった。

2S-HALの取扱説明書によると駆動部における定格トルクは約4Nmである。歩行開始に関しては股関節屈曲トルクの値が重要となる。小児脳性麻痺患者の体格を仮に本研究の参加者平均の身長120.5cm、体重23kgと仮定し、同程度の体格の歩行可能な脳性麻痺児の動作解析を行った報告（平均年齢7.7歳、体重25.5kg、身長125cm、下肢長65cm）¹⁰³によると、歩行時の股関節周囲モーメントの最大値は0.98Nmであった。体格による差はあるが、歩行補助に関しては十分な駆動力を有していると考えられる。

Takahashiら⁸⁵によると、下肢の変形が重度になるとHALの装着が困難になる。小児脳性麻痺患者では6歳を超えると下肢変形のため手術を受ける患者が増加するといわれている⁵⁵。さらに、粗大運動機能の成長は7歳頃にプラトーに達することが広く知られて

おり²⁸，痙性対麻痺の脳性麻痺患者については，年齢が若い方が集中リハビリテーションを行う事で，より効果的であったということが報告されている⁹³．脳性麻痺患者は個々の症例によって背景が大きく異なるため，今回の結果を他の年長児の結果と直接比較することは難しいが，若年齢でHALを行う方がより効果的である可能性が考えられる．

歩行能力の改善と歩行パターンの変化は筋活動の変化によってもたらされるとされており⁹⁸，本研究でも筋活動に変化がみられた．症例番号3のRF，ST，GMや症例番号16のVLにおける初期接地時iEMG値の低下は，HAL後に共収縮が改善し，筋バランスが正常化された結果であると考えられる．この変化によって歩行時の下肢の振出が容易になったと考えられる⁹²．今回の研究ではさらに症例番号16で，立脚後期のSTおよびGM，VLの筋活動の増加が見られ，最大5倍もの増加幅であった．同時期の膝関節伸展が保持され，対側の遊脚クリアランスの増加と股関節可動域の増加につながっていると考えられる．症例番号6では立脚後期のRF，ST，GMのiEMG値がわずかに増加したのみであった．HAL装着での歩行時間が6.1分と短かったため，効果が現れなかった可能性が考えられる．EMGを測定することが可能であった3人の脳性麻痺児の歩行パターンはばらついた結果であった．年齢によっても歩行時のEMGは影響を受けると考えられる¹⁰⁴ため，筋活動の状態は患者によって大きく異なること，歩行改善に必要な筋活動変化というものは患者によって異なっているものと考えられる．なお，症例番号6のVLおよび症例番号16のSTのiEMG値はスケールが他の筋にくらべて1桁違っているが，ノイズ混入の影響と考えられる．

本研究では安静時の関節可動域も介入前後で改善していた。HALを用いたリハビリテーション後に共収縮の軽減が得られたためと思われる^{92,96,105}。今回の症例では膝関節の可動域改善効果は認めなかったことに関しては、これはある程度歩行可能な患児が選択されており、もともと可動域が良かったことが選択バイアスとなっている可能性が高い。脳性麻痺患者は痙縮の影響による可動域制限が問題となることが多いが、今回可動域の拡大に結びつく可能性が示され、これまで痙縮治療として使用していたボツリヌス毒素⁴⁷、SDR^{56,57,106}、OS^{60,67}などに代わり、今後はHALを使用した随意運動トレーニングが選択肢の一つとなりうると考える。

6.4 小括

新しく開発された2S-HALを用いて、小児脳性麻痺患者に対して歩行訓練を行い、その安全性、実行可能性について検討した。さまざまな年齢、タイプの脳性麻痺患者に対しての使用が可能であった。また関節可動域、歩行解析、筋電図解析を行い、即時効果について検討した結果、HALは筋活動に影響を与え、歩行度と歩幅の改善につながると考えられる。

第7章 研究の限界

本研究の限界点として、第一に症例数が少ないことが挙げられる。研究1では症例が1例のみであるため、効果の継続を明確に示せた訳ではない。研究2では手術方法が統一されていないため、その効果については言及できていない。研究3では対象となった疾患にばらつきがあるため、個々の疾患についてはさらに症例数が少なくなっている。また、筋電図を計測できた症例も限られており、今後さらに症例数を増やして調査を行う必要があると考える。第二に2S-HALに関しては短期的な結果しか示せていない点が挙げられる。小児脳性麻痺患者の真のADL改善のためには、成長終了後までの長期的な追跡調査を行う必要があると考える。第三の限界点として、効果的なりハビリテーションプロトコルが確立していない点が挙げられる。HALの効果は何歳で、どのくらいの期間、どの様な方法で行えば良いかは今回の研究では明らかになっていない。最も効果を上げるためには様々なプロトコルでの比較研究が必要であると考えられる。

第8章 総括

HALを使用した歩行訓練は、訓練終了後も継続した動きを繰り返し行うことを可能とし、効果の持続性が従来の方法よりも優れている可能性が考えられる。これはHALの持つ双方向性のバイオフィードバック効果の特徴であり、様々な疾患でその効果が確認されている。2S-HALの登場で今後HALを使用する年齢が若年化していくことで、運動機能の発達とリンクしてさらにその効果が増強することも予想される。学童期において歩行能力の改善が得られれば、その後は自立した活動が可能となり、成長終了後に迎える能力の低下が予防できる可能性がある。

これまで手術加療が良いか、リハビリテーションでの保存的加療が良いかの議論が行われていたが、HALを使用した場合の効果を予想して、リハビリテーションや装具、薬物、手術療法などの手段を包括的に検討し、対応していくことが望まれる。手術が先行して行われることとなった場合は、術後の筋力低下を最小限にとどめることもHALにて実現可能と思われる。

小児脳性麻痺患者に対してロボットスーツHALを使用した歩行訓練の可能性について検討してきた。様々な脳性麻痺患者に対して使用し、その安全性と実行可能性について明らかになった。2S-HALを用いることで、歩行訓練が必要なほぼあらゆる症例に対して応用が可能となった。年齢が若いことの利点はその発達に与える影響が大きいとともに、二次障害の予防などに関しても有益であると考えられる。しかし、脳性麻痺の疾患多様性及び特異性を考慮し、歩容や運動機能に合わせて使用していくことが必要であり、個々の症例に対して適応には慎重にならなければいけないと考える。

今後さらに症例を積み重ね、効果を立証していくことで、小児脳性麻痺患者の運動機能向上につながっていくと確信している。

第9章 結論

HALは小児脳性麻痺患者（児）の運動機能改善に有効に働く可能性がある。

参考文献

1. Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, et al. A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Developmental medicine and child neurology Supplement* 2007; 109: 8-14.
2. Bax M, Goldstein M, Rosenbaum P, et al. Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Developmental medicine and child neurology* 2005; 47(8): 571-6.
3. 近藤和泉. 脳性麻痺リハビリテーションガイドライン 第2版. 第2版 ed: 金原出版; 2014.
4. Little W. THE CLASSIC: Deformities of the Human Frame. *Clinical Orthopaedics and Related Research (1976-2007)* 2007; 456: 15-9.
5. Winter S, Autry A, Boyle C, et al. Trends in the prevalence of cerebral palsy in a population-based study. *Pediatrics* 2002; 110(6): 1220-5.
6. Reid SM, Carlin JB, Reddihough DS. Rates of cerebral palsy in Victoria, Australia, 1970 to 2004: has there been a change? *Developmental Medicine & Child Neurology* 2011; 53(10): 907-12.
7. Himmelmann K, Hagberg G, Beckung E, et al. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. IX. Prevalence and origin in the birth - year period 1995–1998. *Acta paediatrica* 2005; 94(3): 287-94.
8. Cans C. Surveillance of cerebral palsy in Europe: a collaboration of cerebral palsy surveys and registers. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2000; 42(12): 816-24.
9. Himmelmann K, Hagberg G, Uvebrant P. The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. X. Prevalence and origin in the birth - year period 1999–2002. *Acta paediatrica* 2010; 99(9): 1337-43.
10. Van Naarden Braun K, Doernberg N, Schieve L, et al. Birth Prevalence of Cerebral Palsy: A Population-Based Study. *Pediatrics* 2016; 137(1).
11. Himmelmann K, Uvebrant P. The panorama of cerebral palsy in Sweden part XII shows that patterns changed in the birth years 2007–2010. *Acta Paediatrica* 2018; 107(3): 462-8.
12. Touyama M, Touyama J, Toyokawa S, et al. Trends in the prevalence of cerebral palsy in children born between 1988 and 2007 in Okinawa, Japan. *Brain and Development* 2016; 38(9): 792-9.
13. 石川源, 中井章人. 脳性麻痺の疫学: 周産期医療の進歩は脳性麻痺の減少につながっているのか?(特集 脳性麻痺と産科医療補償制度). *周産期医学* 2013; 43(2): 155-60.
14. 小寺澤敬子, 中野加奈子, 宮田広善ら. 姫路市における 15 年間の脳性麻痺発

生の動向. 脳と発達 2007; 39(1): 32-6.

15. 平田正吾, 奥住秀之, 北島善夫ら. 脳性麻痺の疫学についての研究動向. 千葉大学教育学部研究紀要 2013; 61: 39-43.

16. 鈴木順子, 伊藤正利, 富和清隆. 滋賀県における脳性麻痺の発生動向-1977~1986. 脳と発達 1996; 28(1): 60-5.

17. 鈴木順子, 宮嶋智子, 藤井達哉. 滋賀県の脳性麻痺の疫学的検討—1977~2000— 第2編 滋賀県の脳性麻痺の発生要因. 脳と発達 2009; 41(4): 284-8.

18. 鈴木順子, 宮嶋智子, 藤井達哉. 滋賀県の脳性麻痺の疫学的検討—1977~2000— 第1編 滋賀県の脳性麻痺の発生動向—出生体重別・在胎週数別分析. 脳と発達 2009; 41(4): 284-8.

19. Blair E, Stanley F. Issues in the classification and epidemiology of cerebral palsy. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews* 1997; 3(2): 184-93.

20. Westbom L, Hagglund G, Nordmark E. Cerebral palsy in a total population of 4–11 year olds in southern Sweden. Prevalence and distribution according to different CP classification systems. *BMC pediatrics* 2007; 7(1): 41.

21. Krägeloh-Mann I, Cans C. Cerebral palsy update. *Brain and development* 2009; 31(7): 537-44.

22. Himmelmann K, Hagberg G, Wiklund L, et al. Dyskinetic cerebral palsy: a population - based study of children born between 1991 and 1998. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2007; 49(4): 246-51.

23. Odding E, Roebroek ME, Stam HJ. The epidemiology of cerebral palsy: incidence, impairments and risk factors. *Disability and rehabilitation* 2006; 28(4): 183-91.

24. Russell DJ, Rosenbaum PL, Cadman DT, Gowland C, Hardy S, Jarvis S. The gross motor function measure: a means to evaluate the effects of physical therapy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 1989; 31(3): 341-52.

25. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, et al. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1997; 39(4): 214-23.

26. Russell DJ, Avery LM, Rosenbaum PL, Raina PS, Walter SD, Palisano RJ. Improved scaling of the gross motor function measure for children with cerebral palsy: evidence of reliability and validity. *Physical therapy* 2000; 80(9): 873-85.

27. Rosenbaum PL, Walter SD, Hanna SE, et al. Prognosis for gross motor function in cerebral palsy: creation of motor development curves. *Jama* 2002; 288(11): 1357-63.

28. Hanna SE, Rosenbaum PL, Bartlett DJ, et al. Stability and decline in gross motor function among children and youth with cerebral palsy aged 2 to 21 years. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2009; 51(4): 295-302.

29. McIntyre S, Taitz D, Keogh J, et al. A systematic review of risk factors for cerebral

palsy in children born at term in developed countries. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2013; 55(6): 499-508.

30. Graham HK, Selber P. Musculoskeletal Aspects of Cerebral Palsy. *The Journal of Bone and Joint Surgery British volume* 2003; 85-B(2): 157-66.

31. de Vries LS, Eken P, Dubowitz LM. The spectrum of leukomalacia using cranial ultrasound. *Behavioural brain research* 1992; 49(1): 1-6.

32. Himmelmann K, Horber V, De La Cruz J, et al. MRI classification system (MRICS) for children with cerebral palsy: development, reliability, and recommendations. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2017; 59(1): 57-64.

33. Sankar C, Mundkur N. Cerebral palsy-definition, classification, etiology and early diagnosis. *The Indian Journal of Pediatrics* 2005; 72(10): 865-8.

34. 小崎慶介. 日本における障害児療育の歴史. *The Japanese Journal of Rehabilitation Medicine* 2016; 53(5): 348-52.

35. 前田知己. 脳性麻痺の診断と小児科治療. *Monthly book medical rehabilitation* 2019; (232): 1-7.

36. Kalen V, Conklin MM, Sherman FC. Untreated scoliosis in severe cerebral palsy. *Journal of pediatric orthopedics* 1992; 12(3): 337-40.

37. McCarthy JJ, D'Andrea LP, Betz RR, et al. Scoliosis in the child with cerebral palsy. *JAAOS-Journal of the American Academy of Orthopaedic Surgeons* 2006; 14(6): 367-75.

38. Ramstad K, Terjesen T. Hip pain is more frequent in severe hip displacement: a population-based study of 77 children with cerebral palsy. *J Pediatr Orthop B* 2016; 25(3): 217-21.

39. Bobath K, Bobath B. The neuro-developmental treatment of cerebral palsy. *Physical Therapy* 1967; 47(11): 1039-43.

40. Butler C, Darrach J. Effects of neurodevelopmental treatment (NDT) for cerebral palsy: an AACPD evidence report. *Developmental medicine and child neurology* 2001; 43(11): 778-90.

41. Knox V, Evans AL. Evaluation of the functional effects of a course of Bobath therapy in children with cerebral palsy: a preliminary study. *Developmental medicine and child neurology* 2002; 44(7): 447-60.

42. Martin L, Baker R, Harvey A. A systematic review of common physiotherapy interventions in school-aged children with cerebral palsy. *Physical & occupational therapy in pediatrics* 2010; 30(4): 294-312.

43. Tsorlakakis N, Evaggelinou C, Grouios G, et al. Effect of intensive neurodevelopmental treatment in gross motor function of children with cerebral palsy. *Developmental medicine and child neurology* 2004; 46(11): 740-5.

44. 朝貝芳美. 脳性運動障害児の粗大運動に対する訓練治療効果に関する研究. 発達障害児のリハビリテーション (医療 療育) の標準化と地域における肢体不自由児施設の機能に関する研究 2003; 92-118.
45. Schindl MR, Forstner C, Kern H, et al. Treadmill training with partial body weight support in nonambulatory patients with cerebral palsy. Archives of physical medicine and rehabilitation 2000; 81(3): 301-6.
46. Huang H-h, Fettters L, Hale J, et al. Bound for success: a systematic review of constraint-induced movement therapy in children with cerebral palsy supports improved arm and hand use. Physical therapy 2009; 89(11): 1126-41.
47. Borton D, Walker K, Pirpiris M, et al. Isolated calf lengthening in cerebral palsy: outcome analysis of risk factors. The Journal of bone and joint surgery British volume 2001; 83(3): 364-70.
48. Hoare BJ, Wallen MA, Imms C, et al. Botulinum toxin A as an adjunct to treatment in the management of the upper limb in children with spastic cerebral palsy (UPDATE). Cochrane database of systematic reviews 2010; (1).
49. Morris C, Bowers R, Ross K, et al. Orthotic management of cerebral palsy: recommendations from a consensus conference. NeuroRehabilitation 2011; 28(1): 37-46.
50. Tardieu C, Lespargot A, Tabary C, et al. For how long must the soleus muscle be stretched each day to prevent contracture? Developmental Medicine & Child Neurology 1988; 30(1): 3-10.
51. Chung C-Y, Chen C-L, Wong AM-K. Pharmacotherapy of spasticity in children with cerebral palsy. Journal of the Formosan Medical Association 2011; 110(4): 215-22.
52. 平孝臣, 堀智勝. バクロフェン髄腔内投与療法. 医学のあゆみ 1999; 189: 833-7.
53. Albright AL. Neurosurgical options in cerebral palsy. paediaTRicS and cHild HealTH 2008; 18(9): 414-8.
54. Gaebler-Spira D, Revivo G. The use of botulinum toxin in pediatric disorders. Physical medicine and rehabilitation clinics of North America 2003; 14(4): 703-25.
55. Panteliadis CP. Cerebral Palsy: A Multidisciplinary Approach: Springer; 2018.
56. Peacock W, Arens LJ. Selective posterior rhizotomy for the relief of spasticity in cerebral palsy. South African medical journal= Suid-Afrikaanse tydskrif vir geneeskunde 1982; 62(4): 119-24.
57. McLaughlin J, Bjornson K, Temkin N, et al. Selective dorsal rhizotomy: meta-analysis of three randomized controlled trials. Developmental medicine and child neurology 2002; 44(1): 17-25.
58. Graham HK, Fixsen J. Lengthening of the calcaneal tendon in spastic hemiplegia by the White slide technique. A long-term review. The Journal of bone and joint surgery

British volume 1988; 70.

59. Ma FY, Selber P, Nattrass GR, et al. Lengthening and transfer of hamstrings for a flexion deformity of the knee in children with bilateral cerebral palsy: technique and preliminary results. *J Bone Joint Surg Br* 2006; 88(2): 248-54.
60. McGinley JL, Dobson F, Ganeshalingam R, et al. Single - event multilevel surgery for children with cerebral palsy: a systematic review. *Developmental Medicine & Child Neurology* 2012; 54(2): 117-28.
61. Park TS, Dobbs MB, Cho J. Evidence Supporting Selective Dorsal Rhizotomy for Treatment of Spastic Cerebral Palsy. *Cureus* 2018; 10(10): e3466.
62. van Schie PE, Schothorst M, Dallmeijer AJ, et al. Short-and long-term effects of selective dorsal rhizotomy on gross motor function in ambulatory children with spastic diplegia. *Journal of Neurosurgery: Pediatrics* 2011; 7(5): 557-62.
63. Javors JR, Klaaren HE. The Vulpius procedure for correction of equinus deformity in cerebral palsy. *Journal of pediatric orthopedics* 1987; 7(2): 191-3.
64. Silver R, Rang M, Chan J. Adductor release in nonambulant children with cerebral palsy. *Journal of pediatric orthopedics* 1985; 5(6): 672-7.
65. Abel MF, Damiano DL, Pannunzio M, et al. Muscle-tendon surgery in diplegic cerebral palsy: functional and mechanical changes. *Journal of Pediatric Orthopaedics* 1999; 19(3): 366-75.
66. Norlin R, Tkaczuk H. One-session surgery for correction of lower extremity deformities in children with cerebral palsy. *Journal of pediatric orthopedics* 1985; 5(2): 208-11.
67. Thomason P, Selber P, Graham HK. Single event multilevel surgery in children with bilateral spastic cerebral palsy: a 5 year prospective cohort study. *Gait & posture* 2013; 37(1): 23-8.
68. Nudo RJ, Wise BM, SiFuentes F, et al. Neural substrates for the effects of rehabilitative training on motor recovery after ischemic infarct. *Science* 1996; 272(5269): 1791-4.
69. Hebb DO, Hebb D. *The organization of behavior*: Wiley New York; 1949.
70. Krebs HI, Hogan N, Aisen ML, et al. Robot-aided neurorehabilitation. *IEEE transactions on rehabilitation engineering* 1998; 6(1): 75-87.
71. Lefmann S, Russo R, Hillier S. The effectiveness of robotic-assisted gait training for paediatric gait disorders: systematic review. *J Neuroeng Rehabil* 2017; 14(1): 1.
72. Wiart L, Rosychuk RJ, Wright FV. Evaluation of the effectiveness of robotic gait training and gait-focused physical therapy programs for children and youth with cerebral palsy: a mixed methods RCT. *BMC Neurol* 2016; 16: 86.
73. Zhang M, Davies TC, Xie S. Effectiveness of robot-assisted therapy on ankle

rehabilitation--a systematic review. *J Neuroeng Rehabil* 2013; 10: 30.

74. Druzicki M, Rusek W, Snela S, et al. Functional effects of robotic-assisted locomotor treadmill therapy in children with cerebral palsy. *J Rehabil Med* 2013; 45(4): 358-63.

75. Qiu Q, Adamovich S, Saleh S, et al. A comparison of motor adaptations to robotically facilitated upper extremity task practice demonstrated by children with cerebral palsy and adults with stroke. *IEEE Int Conf Rehabil Robot* 2011; 2011: 5975431.

76. Brusch K, Koenig A, Zimmerli L, et al. Virtual reality for enhancement of robot-assisted gait training in children with central gait disorders. *J Rehabil Med* 2011; 43(6): 493-9.

77. Smania N, Bonetti P, Gandolfi M, et al. Improved gait after repetitive locomotor training in children with cerebral palsy. *Am J Phys Med Rehabil* 2011; 90(2): 137-49.

78. Jezernik S, Colombo G, Keller T, Frueh H, Morari M. Robotic orthosis lokomat: A rehabilitation and research tool. *Neuromodulation: Technology at the neural interface* 2003; 6(2): 108-15.

79. Kawamoto H, Sankai Y. Power assist method based on phase sequence and muscle force condition for HAL. *Advanced Robotics* 2005; 19(7): 717-34.

80. Meyer-Heim A, Ammann-Reiffer C, Schmartz A, et al. Improvement of walking abilities after robotic-assisted locomotion training in children with cerebral palsy. *Arch Dis Child* 2009; 94(8): 615-20.

81. Carvalho I, Pinto SM, Chagas DDV, et al. Robotic Gait Training for Individuals With Cerebral Palsy: A Systematic Review and Meta-Analysis. *Arch Phys Med Rehabil* 2017; 98(11): 2332-44.

82. Koenig A, Wellner M, Köneke S, et al. Virtual gait training for children with cerebral palsy using the Lokomat gait orthosis. *Studies in health technology and informatics* 2008; 132: 204-9.

83. Morishita T, Inoue T. Interactive Bio-feedback Therapy Using Hybrid Assistive Limbs for Motor Recovery after Stroke: Current Practice and Future Perspectives. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 2016; 56(10): 605-12.

84. Taketomi T, Sankai Y. Stair ascent assistance for cerebral palsy with robot suit HAL. 2012 IEEE/SICE International Symposium on System Integration (SII); 2012: IEEE; 2012. p. 331-6.

85. Takahashi K, Mutsuzaki H, Mataka Y, et al. Safety and immediate effect of gait training using a Hybrid Assistive Limb in patients with cerebral palsy. *J Phys Ther Sci* 2018; 30(8): 1009-13.

86. Matsuda M, Iwasaki N, Mataka Y, et al. Robot-assisted training using Hybrid Assistive Limb(R) for cerebral palsy. *Brain Dev* 2018; 40(8): 642-8.

87. Matsuda M, Mataki Y, Mutsuzaki H, et al. Immediate effects of a single session of robot-assisted gait training using Hybrid Assistive Limb (HAL) for cerebral palsy. *J Phys Ther Sci* 2018; 30(2): 207-12.
88. Mataki Y, Kamada H, Mutsuzaki H, et al. Use of Hybrid Assistive Limb (HAL((R))) for a postoperative patient with cerebral palsy: a case report. *BMC Res Notes* 2018; 11(1): 201.
89. Yoshikawa K, Mutsuzaki H, Sano A, et al. Training with Hybrid Assistive Limb for walking function after total knee arthroplasty. *Journal of orthopaedic surgery and research* 2018; 13(1): 163.
90. Yoshioka T, Sugaya H, Kubota S, et al. Knee-extension training with a single-joint hybrid assistive limb during the early postoperative period after total knee arthroplasty in a patient with osteoarthritis. *Case reports in orthopedics* 2016; 2016.
91. Tanaka Y, Oka H, Nakayama S, et al. Improvement of walking ability during postoperative rehabilitation with the hybrid assistive limb after total knee arthroplasty: a randomized controlled study. *SAGE open medicine* 2017; 5: 2050312117712888.
92. Nakagawa S, Mutsuzaki H, Mataki Y, et al. Newly developed hybrid assistive limb for pediatric patients with cerebral palsy: a case report. *Journal of Physical Therapy Science* 2019; 31(8): 702-7.
93. Lee SH, Shim JS, Kim K, et al. Gross Motor Function Outcome After Intensive Rehabilitation in Children With Bilateral Spastic Cerebral Palsy. *Ann Rehabil Med* 2015; 39(4): 624-9.
94. Bower E, Michell D, Burnett M, et al. Randomized controlled trial of physiotherapy in 56 children with cerebral palsy followed for 18 months. *Developmental Medicine and Child Neurology* 2001; 43(1): 4-15.
95. 吉川憲一, 水上昌文, 佐野歩ら. ロボットスーツ HAL を用いた脊髄損傷不全麻痺者に対する継続的歩行練習の効果. *理学療法科学* 2014; 29(2): 165-71.
96. Ikumi A, Kubota S, Shimizu Y, et al. Decrease of spasticity after hybrid assistive limb® training for a patient with C4 quadriplegia due to chronic SCI. *The journal of spinal cord medicine* 2017; 40(5): 573-8.
97. Baratta R, Solomonow M, Zhou B, et al. Muscular coactivation: the role of the antagonist musculature in maintaining knee stability. *The American journal of sports medicine* 1988; 16(2): 113-22.
98. Damiano DL, Martellotta TL, Sullivan DJ, et al. Muscle force production and functional performance in spastic cerebral palsy: relationship of cocontraction. *Arch Phys Med Rehabil* 2000; 81(7): 895-900.
99. Saita K, Morishita T, Arima H, et al. Biofeedback effect of hybrid assistive limb in stroke rehabilitation: A proof of concept study using functional near infrared

spectroscopy. PloS one 2018; 13(1): e0191361.

100. Seniorou M, Thompson N, Harrington M, et al. Recovery of muscle strength following multi-level orthopaedic surgery in diplegic cerebral palsy. *Gait & posture* 2007; 26(4): 475-81.

101. Rodda J, Graham HK, Nattrass G, et al. Correction of severe crouch gait in patients with spastic diplegia with use of multilevel orthopaedic surgery. *JBJS* 2006; 88(12): 2653-64.

102. Gonzalez ACdO, Costa TF, Andrade Zda, et al. Wound healing-A literature review. *Anais brasileiros de dermatologia* 2016; 91(5): 614-20.

103. Davids JR, Bagley AM, Bryan M. Kinematic and kinetic analysis of running in children with cerebral palsy. *Developmental Medicine & Child Neurology* 1998; 40(8): 528-35.

104. Desloovere K, Molenaers G. Age related changes in EMG profiles and muscle length patterns during gait in healthy growing children and adults. *International Symposium on 3D Analysis of Human Movement*, Date: 2006/06/28-2006/06/30, Location: Valenciennes; 2006; 2006.

105. Endo Y, Mutsuzaki H, Mizukami M, et al. Long-term sustained effect of gait training using a hybrid assistive limb on gait stability via prevention of knee collapse in a patient with cerebral palsy: a case report. *J Phys Ther Sci* 2018; 30(9): 1206-10.

106. Wright FV, Sheil EM, Drake JM, et al. Evaluation of selective dorsal rhizotomy for the reduction of spasticity in cerebral palsy: a randomized controlled trial. *Developmental Medicine & Child Neurology* 1998; 40(4): 239-47.

謝辞

本論文の作成にあたり，御校閲を賜りました筑波大学医学医療系整形外科 山崎正志教授に厚く御礼申し上げます。また，筑波大学医学医療系整形外科 鎌田浩史講師，茨城県立医療大学医科学センター 六崎裕高教授のご指導に心から感謝いたします。研究をすすめるにあたり，多大な協力をいただいた茨城県立医療大学整形外科 俣木優輝講師，茨城県立医療大学附属病院リハビリテーション部理学療法科 吉川憲一療法士，松田真由美療法士，高橋一史療法士，茨城県立医療大学附属病院職員 末益裕香さん，宮本景子さんに感謝します。