

# 先天性横隔膜ヘルニアで生まれた学童の運動能力を調査

～運動能力向上に向けた長期的な取り組みの必要性が明らかに～

## 【本研究のポイント】

- ・先天性横隔膜ヘルニア\*1 で生まれた 6～10 歳の子どもを対象に運動能力を調査し、四肢の筋力、バランス、持久力が低下していることを明らかにしました。
- ・運動時間について調べたところ、医師から特に制限を受けていないにもかかわらず、運動時間が少ないことが分かりました。
- ・先天性横隔膜ヘルニアの重症度と運動能力との関連を調査し、出生前の重症度の指標である「o/e LHR\*2」の値が低いほど、学童期の握力が弱いことが分かりました。
- ・運動時間を十分に確保し、四肢の筋力、バランス、持久力に重点を置いたフォローアップや運動プログラムを提供することで、運動能力の向上が期待されます。

## 【研究概要】

名古屋大学医学部附属病院小児科の光松 孝真(みつまつ たかまさ、筆頭著者)医師、伊藤 祐史(いとう ゆうじ、責任著者)医師、城所 博之(きどころ ひろゆき)講師、同大学大学院医学研究科小児科学の高橋 義行(たかはし よしゆき)教授、同大学医学部附属病院総合周産期母子医療センターの佐藤 義朗(さとう よしあき)病院准教授、小谷 友美(こたに ともみ)病院教授、愛知県三河青い鳥医療療育センター小児科の榎原 翔(ならはら しょう)医長、三次元動作解析室の伊藤 忠(いとう ただし)研究員らの研究グループは、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた学童期の子どもの運動能力を調査し、四肢の筋力、バランス、持久力の低下を明らかにしました。また、質問紙を用いた運動時間の調査により、医師から特に制限を受けていないにもかかわらず、運動時間が少ないことが分かりました。さらに、先天性横隔膜ヘルニアの重症度と運動能力との関連を検討し、出生前の重症度の指標である o/e LHR 低値が、学童期の握力低下と関連することを示しました。

先天性横隔膜ヘルニアは、先天的な横隔膜の欠損により腹部臓器が胸腔内に脱出し、正常な肺の発育が妨げられる疾患です。近年の周産期医療の進歩により、生存率が向上した一方で、長期的な合併症の発生率は増加しており、運動や歩行における生活の質の低下が注目されています。運動時間を十分に確保するとともに、四肢の筋力、バランス、持久力に重点を置いたフォローアップと運動プログラムを提供することで、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもの運動能力の向上が期待されます。

本研究成果は、2025年2月16日付(日本時間2月17日)で、英国 Royal College of Paediatrics and Child Health の公式機関誌である『Archives of Disease in Childhood. Fetal and Neonatal Edition』に掲載されました。

## 1. 背景

先天性横隔膜ヘルニアは、先天性な横隔膜の欠損により腹部臓器が胸腔内に脱出する疾患です。正常な肺の発育が妨げられるため、出生後は集中治療室での全身管理が必要となります。近年の周産期医療の進歩により、生存率が向上した一方で、長期的な合併症の発生率は増加しています。先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもは、神経発達の遅れを伴うリスクが高いことが報告されており、運動や歩行における生活の質の低下が注目されています。しかし、四肢の筋力、バランス、持久力、歩行能力などの運動能力を包括的に評価した研究は限られており、これらの運動能力と周産期の重症度因子との関連についても十分に検討されていませんでした。そこで本研究では、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた学童期の子どもの運動能力の特徴を明らかにするため、運動機能テストと三次元歩行解析を行いました。これにより、フォローアップ時に特に注意を要する運動能力を特定し、適切な介入プログラムを開発することを目指しました。さらに、運動能力と関連する周産期の重症度因子の特定を試みました。

## 2. 研究成果

先天性横隔膜ヘルニアで生まれた6～10歳の24名の子どもと、岡崎市運動器健診に参加した年齢および性別を一致させた72名の健康な子どもに、運動機能テスト(握力測定、5回椅子立ち上がり試験<sup>\*3</sup>、片脚立位試験<sup>\*4</sup>、6分間歩行試験<sup>\*5</sup>)と三次元歩行解析<sup>\*6</sup>(図1)を行い、運動能力を比較しました。その結果、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもは、健康な子どもに比べて、握力が弱く、5回椅子立ち上がり試験の所要時間が長く、片脚立位保持時間が短く、6分間歩行距離が短いことが分かりました(図2)。これらは、四肢の筋力、バランス、持久力における運動能力の低下を意味しています。一方、三次元歩行解析で、歩行能力(歩行速度、歩幅、Gait Deviation Index<sup>\*7</sup>)に差は認められませんでした。また、質問紙を用いて、運動時間(1週間における中高強度活動時間)の調査を行なったところ、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもは、医師から特に運動制限は受けていないにも関わらず、健康な子どもと比べて、運動時間が少ないことが分かりました(図2)。さらに、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもの中で、疾患の重症度(o/e LHR、出生体重、アプガースコア5分値<sup>\*8</sup>、酸素投与期間)と運動能力との関連を検討しました。その結果、出生前の重症度の指標であるo/e LHR低値が、学童期の握力低下と関連することが明らかになりました(図3)。

以上のことから、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもには、四肢の筋力、バランス、持久力における運動能力の低下のリスクがあり、特に重症例において、握力測定が重要であると考えられました。運動時間が少ない要因については検討していませんが、本研究のような客観的な運動能力のデータを提供することで、子どもの運動への積極的な参加を促すことに繋がると考えています。

## (図 1)運動機能テストと三次元歩行解析

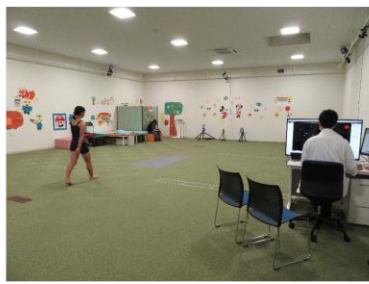
運動機能テスト（握力測定、5回椅子立ち上がり試験、片脚立位試験、6分間歩行試験）



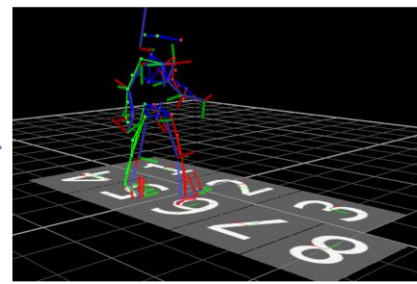
三次元歩行解析



①下肢にマーカーを装着



②歩行を記録



③コンピュータを用いて解析

## (図 2)運動能力と運動時間

	先天性横隔膜ヘルニアで 生まれた子ども (24名)	岡崎市運動器健診に 参加した子ども (72名)	p値
握力(kg)	8.8 ± 2.7	11.0 ± 3.3	0.004
5回椅子立ち上がり試験(秒)	7.4 (3.6－11.1)	6.0 (3.8－9.9)	0.014
片脚立位保持時間(秒)	21.0 (2.7－120.0)	109.8 (9.3－120.0)	<0.001
6分間歩行距離(m)	444.1 (317.1－595.4)	510.0 (400.0－750.0)	<0.001
歩行速度(m/s)	1.21 (0.96－1.58)	1.16 (0.80－1.65)	0.379
歩幅/下肢長	0.89 ± 0.13	0.87 ± 0.10	0.295
Gait Deviation Index(点)	91.4 ± 5.7	93.1 ± 6.0	0.244
運動時間(時間/週)	1.3 (0.0－6.0)	4.9 (0.0－24.0)	<0.001

数値は平均値±標準偏差 or 中央値(範囲)で提示。  
p値<0.05を統計学的有意と判断。

### (図 3)疾患の重症度と運動能力との相関

先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子ども (20名)\*

\*周産期情報が取得可能な症例

	o/e LHR (%)	出生体重 (kg)	アプガースコア 5分値 (点)	酸素投与期間 (日)
握力	0.47 (p=0.038)	0.38 (p=0.098)	0.39 (p=0.093)	-0.41 (p=0.071)
5回椅子立ち上がり試験	-0.33 (p=0.154)	0.29 (p=0.209)	-0.26 (p=0.276)	0.16 (p=0.495)
片脚立位保持時間	-0.16 (p=0.498)	0.12 (p=0.612)	0.09 (p=0.716)	0.26 (p=0.269)
6分間歩行距離	0.02 (p=0.950)	-0.23 (p=0.324)	0.24 (p=0.305)	-0.32 (p=0.166)

データは、相関係数(p値)で記載。

### 3. 今後の展開

十分な運動時間を確保するとともに、四肢の筋力、バランス、持久力に重点を置いたフォローアップと運動プログラムを提供することで、先天性横隔膜ヘルニアで生まれた子どもの運動能力が向上する可能性があります。

今後は、運動能力の長期的な評価を行い、重点的なフォローアップと運動プログラムの効果を検証していくことを計画しています。

### 4. 支援・謝辞

本研究の参加者の整形外科診察を行なっていただいた、愛知県三河青い鳥医療療育センター整形外科の先生方に、深く感謝申し上げます。

#### 【用語説明】

\*1)先天性横隔膜ヘルニア:

先天性横隔膜ヘルニアは、先天的な横隔膜の欠損により腹部臓器が胸腔内に脱出する疾患です。胎児期の正常な肺の発育が妨げられるため、出生後は集中治療室での全身管理が必要となります。発症率は出生 2000-5000 人に 1 人と報告されており、日本では年間 200 例弱が出生します。

\*2)o/e LHR(observed-to-expected lung area-to-head circumference ratio):

胎児期の健側肺の大きさ示す指標で、先天性横隔膜ヘルニアの重症度の評価に広く用いられています。o/e LHR が低いほど重症度が高いと評価できます。LHR は、健側肺の横断面積を頭囲で除した値として求められます。o/e LHR(%)は、観察された LHR を在胎週数に基づく予測 LHR で除し、100 を掛けることで算出されます。

\*3)5 回椅子立ち上がり試験:

腕を組んで座った状態で素早く立つ、座るという動作を 5 回繰り返すのにかかる時間を測定します。下肢筋力の指標として用いられます。

＊4)片脚立位試験:

利き足の立位保持時間(最大 120 秒)を測定します。バランス機能の指標として用いられます。

＊5)6 分間歩行試験:

被験者に 6 分間出来るだけ速く歩行してもらい、歩行距離を測定します。持久力の指標として用いられます。

＊6)三次元歩行解析:

被験者の体に貼られた反射マーカ―に赤外光を照射して光らせ、光学式カメラで記録して数値化することで、各関節の三次元空間における動きを定量的に評価できます。

＊7)Gait Deviation Index:

三次元歩行解析により得られる指標の一つで、歩容の包括的な評価指標です。100 点は健常児平均であり、数値が高いほど歩行の質が高いことを意味します。

＊8)アプガースコア 5 分値:

アプガースコアは、出生直後の新生児の全身状態を評価する指標で、高い評価点が良い全身状態を意味します。アプガースコア 5 分値は、出生後 5 分時点での評価点です。

**【論文情報】**

雑誌名:Archives of Disease in Childhood. Fetal and Neonatal Edition

論文タイトル:Motor and Functional Characteristics in School-age Survivors of Congenital Diaphragmatic Hernia: a cross-sectional observational study

著者:Takamasa Mitsumatsu<sup>1</sup>, Yuji Ito<sup>1</sup>, Yukako Muramatsu<sup>2</sup>, Yoshiaki Sato<sup>2</sup>, Tadashi Ito<sup>3</sup>, Sho Narahara<sup>4</sup>, Ryosuke Miura<sup>2</sup>, Hiroyuki Yamamoto<sup>1</sup>, Miharuru Ito<sup>2</sup>, Anna Shiraki<sup>1</sup>, Tomohiko Nakata<sup>1</sup>, Tomomi Kotani<sup>5</sup>, Jun Natsume<sup>1,6</sup>, Masahiro Hayakawa<sup>2</sup>, Yoshiyuki Takahashi<sup>1</sup>, and Hiroyuki Kidokoro<sup>1</sup>

所属名

<sup>1</sup>Department of Pediatrics, Nagoya University Graduate School of Medicine, Nagoya, Japan

<sup>2</sup>Division of Neonatology, Center for Maternal-Neonatal Care, Nagoya University Hospital, Nagoya, Japan

<sup>3</sup>Three-Dimensional Motion Analysis Laboratory, Aichi Prefectural Mikawa Aitori Medical and Rehabilitation Center for Developmental Disabilities, Okazaki, Japan

<sup>4</sup>Department of Pediatrics, Aichi Prefectural Mikawa Aitori Medical and Rehabilitation Center for Developmental Disabilities, Okazaki, Japan

<sup>5</sup>Division of Reproduction and Perinatology, Center for Maternal-Neonatal Care, Nagoya University Hospital, Nagoya, Japan

<sup>6</sup>Department of Developmental Disability Medicine, Nagoya  
University Graduate School of Medicine, Nagoya, Japan

DOI: [10.1136/archdischild-2024-327942](https://doi.org/10.1136/archdischild-2024-327942)

English ver.

[https://www.med.nagoya-u.ac.jp/medical\\_E/research/pdf/Arc\\_250221en.pdf](https://www.med.nagoya-u.ac.jp/medical_E/research/pdf/Arc_250221en.pdf)