



12-31-2018

### Effect of Aerobic Dance Training in Adults with Prader-Willi Syndrome: A Pilot study

Fei-Chuan Chen

Shih-yun Hon

Li-Ping Tsai

Follow this and additional works at: <https://rps.researchcommons.org/journal>



Part of the [Rehabilitation and Therapy Commons](#)

#### Recommended Citation

Chen, Fei-Chuan; Hon, Shih-yun; and Tsai, Li-Ping (2018) "Effect of Aerobic Dance Training in Adults with Prader-Willi Syndrome: A Pilot study," *Rehabilitation Practice and Science*: Vol. 46: Iss. 2, Article 5.

DOI: [https://doi.org/10.6315/TJPMR.201812\\_46\(2\).0005](https://doi.org/10.6315/TJPMR.201812_46(2).0005)

Available at: <https://rps.researchcommons.org/journal/vol46/iss2/5>

This Original Article is brought to you for free and open access by Rehabilitation Practice and Science. It has been accepted for inclusion in Rehabilitation Practice and Science by an authorized editor of Rehabilitation Practice and Science. For more information, please contact [twpmrscore@gmail.com](mailto:twpmrscore@gmail.com).

原著

# 成人普瑞德威利氏症候群經有氧舞蹈介入之成效初步研究

陳斐娟<sup>1</sup> 洪偲芸<sup>1</sup> 蔡立平<sup>2</sup>

<sup>1</sup> 佛教慈濟醫療財團法人台北慈濟醫院 復健科

<sup>2</sup> 佛教慈濟醫療財團法人台北慈濟醫院 小兒科

先前研究初步證實有氧舞蹈訓練可改善體適能表現；然而，卻少有文獻將有氧舞蹈運用在成人普瑞德威利氏症候群的患者身上。為了改善此療法在臨床上可行性與服從性，本研究主要是選取成人普瑞德威利氏症候群患者接受有氧舞蹈訓練，來探討其體適能之表現。

本研究採配對控制試驗之設計(match control trial)，共選取十二位普瑞德威利氏症候群成人患者(六位男性、六位女性)。實驗組的每位受試者均接受八週的有氧舞蹈介入(一週兩次、一次兩個小時)。訓練前後均進行體適能評估。評估內容包括：1.身體質量指數(Body Mass Index, BMI)、2.腰臀圍比(Waist Hip Ratio, WHR)、3.立定跳遠、4.一分鐘仰臥起坐、5.坐姿體前彎、6.三分鐘登階(心肺耐力指數)。以 SPSS 18.0 版(SPSS Inc., Chicago, IL)的統計軟體進行統計分析。使用無母數 Wilcoxon Signed Ranked test，檢測不同個案的介入後、及一個月後追蹤的差異性，並採雙尾檢定(two tailed test)，顯著水準訂  $p < 0.05$ 。

結果顯示受試者特徵皆無顯著差異。經過八週的有氧舞蹈訓練介入對於成年普瑞德威利氏症候群患者的瞬間爆發力、柔軟度、心肺耐力均有顯著改善；而統計分析結果顯示肌耐力雖有改善，但無達到顯著意義，可能原因除了個案數較少、另外肌耐力也相對需要較長期的訓練。未來也可以探討體適能的表現提升後，其動作功能與品質是否也能隨之提升。

成人普瑞德威利氏症候群患者經接受有氧舞蹈訓練，藉由音樂的節奏與律動，來提升普瑞德威利氏症候群患者的興趣及參與度，是一項不錯的選擇，進而改善體適能表現及運動的習慣。(台灣復健醫誌 2018；46(2)：91 - 99)

**關鍵詞：**普瑞德威利氏症候群(Prader-Willi Syndrome)、有氧舞蹈(Aerobic Dance)、體適能(Physical Fitness)

## 前 言

普瑞德威利氏症候群(Prader-Willi Syndrome, PWS)是一種罕見的先天性疾病，為第十五對染色體長臂 15q11-q13 部位出現缺陷而造成的病症，最早是 1956 年由三位瑞士籍醫師 Prader、Willi 及 Labhart 提出一系列相同症狀的研究報告，所發表的一種疾患。<sup>[1-4]</sup>其發盛行率約 1/10,000-30,000，並沒有性別或種族上的差異性。<sup>[5]</sup>常見的臨床表徵有：外觀呈現前額窄、長形頭、杏仁眼、小嘴、上唇薄、嘴角下垂等。有輕度到

中度智能障礙，並伴隨情緒與學習障礙。因下視丘部功能失常引起生長激素分泌不足，有體溫控制異常、睡眠障礙、身材矮小、過度進食、無控制食慾、有強烈的覓食行為而導致過度胖；性腺發育也不良(男性多隱睪、女性多無穩定月經)、第二性徵不明顯；皮膚因色素較少而顯得白皙。另外，在動作問題方面的臨床表徵除了過度肥胖外，在新生兒及嬰兒時期：肌肉張力低下(出生時，軟趴趴、哭聲虛弱)，嬰兒時期還有餵食困難(口腔的動作控制差)、生長緩慢、體重增加不易等。於一歲後至六歲間，進食能力逐漸正常，之後對食物的興趣亦逐漸提高、體重也會開始快速增加；若

投稿日期：107 年 9 月 28 日 修改日期：107 年 12 月 20 日 接受日期：107 年 12 月 25 日

通訊作者：蔡立平醫師，佛教慈濟醫療財團法人台北慈濟醫院，231 新北市新店區建國路 289 號。

電話：(02) 66289779 轉 66752 E-mail：tsaiped@gmail.com

doi: 10.6315/TJPMR.201812\_46(2).0005

持續的體重增加又加上低張、肌肉無力則會造成嚴重的動作發展遲緩，包括：平衡穩定能力、動作協調能力、跳躍能力等發展不佳與體適能表現不理想。<sup>[1-2,6-8]</sup>除此之外，還有固執的行為問題與認知問題，對於挫折的容忍度也較低，容易放棄、也容易發脾氣。它們需要有良好的「飲食體重控制」與「情緒管理」。

針對普瑞德威利氏症候群患者的體重控制問題，應該盡早在飲食及運動上給予正確的觀念，以養成規律、適度的運動習慣及飲食管理的正確方法。對於已經肥胖的普瑞德威利氏症候群患者，除了嚴格執行飲食控制外，則應提供運動介入策略和其他方法來改善肥胖的狀況，避免造成日後更嚴重的後果。<sup>[6,9-10]</sup>而有氧舞蹈則是一種輕快、歡樂的運動，其動作簡單，只要隨著音樂和身體自由擺動，很容易就能帶動起來，有氧舞蹈除了有跑、跳、變換腳步、拍手、擺動、踢、點的基本動作外，也能培養患者的敏捷性、協調性、反應能力，再配合比賽、表演的應用，讓肥胖的普瑞德威利氏症候群患者，會因想跳舞而願意運動。

有氧舞蹈(Aerobic Dance)運動是體適能訓練的最佳運動項目之一，由美國 Jacki Sorensen 於 1976 年所創，它採用了有氧運動的基礎，將舞蹈動作配合有氧運動理論，創作出一套配合音樂、以各種舞蹈表現出有氧運動，其伴隨音樂進行各種舞蹈動作、持續性與全身大肌肉活動一起實施的健康運動，如韻律性的跳躍、跑步等。<sup>[11-26]</sup>主要的功能在於改善心肺耐力、肌力、肌耐力，增加柔軟度以及改善身體組成。大部分有關有氧運動生理學的研究重點著重於運動的頻率、強度、時間及有氧運動的型態等。<sup>[11,27-28]</sup>過去越來越多有關的研究文獻証實了有節奏性且規律，又有一定強度的有氧運動或有氧舞蹈項目對體適能是可以有效的改善。另外，也有學者<sup>[29]</sup>既有研究結果顯示有氧舞蹈對生理和心理皆有正面的效益。在生理方面可改善心肺及血液循環、減少體脂肪、有助於體重的控制；改善心肺耐力、增進肌力及肌耐力、增加柔軟度；改善生活品質；在心理方面促使身體均衡、美化體態、建立正向的身體自我概念、增加自信；改善參與活動的動機、增加體能活動等。<sup>[30]</sup>

綜合以上，有氧舞蹈所帶來的優勢，正好都是普瑞德威利氏症候群的患者最需要改善的部分。目前對於普瑞德威利氏症候群的患者之動作發展、身體結構組成與動作問題，已有使用生長激素與運動來介入，也有許多文獻探討其相關性與成效，<sup>[3-4,9-10]</sup>然而，卻鮮少人將有氧舞蹈運用在普瑞德威利氏症候群患者身上，故本研究想要探討：普瑞德威利氏症候群患者接受八週有氧舞蹈介入後的體適能表現，包括立即性療效

分析與持續性追蹤分析。

## 研究對象與方法

### 一、研究對象

本研究原選取 12 位普瑞德威利氏症候群(Prader-Willi Syndrome)患者，經受試者條件篩選後，符合本研究的受試者共 12 位普瑞德威利氏症候群患者(6 位男性、6 位女性)。參與本研究的普瑞德威利氏症候群受試者，必須具備以下條件：1. 必須被診斷為普瑞德威利氏症候群(Prader-Willi Syndrome)患者；2. 取樣年齡範圍介於 18 歲 0 個月 35 歲 0 個月之成年患者；3. 為配合治療及評估進行，個案需可遵從簡單口語指示。排除標準：1. 罹患關節炎、骨折或嚴重關節變形影響到測試運動功能能力者；2. 嚴重認知功能障礙、或視覺或聽覺有問題者，經矯正後難以溝通者。所有參與研究的受試者，在參與研究前會告知其訓練及研究內容，成年者會親自填寫參與同意書表示其願意參與，未達法定成年者則會由其法定監護人陪同一起了解研究內容並填寫參與同意書。本研究已通過台北慈濟醫院人體試驗倫理委員會審查核准。

### 二、研究方法

本研究採配對控制試驗之設計(match control trial)。介入治療主要由一位物理治療師具有五年以上的專業有氧舞蹈訓練來執行，而評估項目則主要由另兩位有三年以上臨床經驗的專業物理治療師一同執行評估。(兩位評估的治療師其再測信度與施測者間的信度測量 ICC 值均 $>0.75$ ，在可接受之範圍內)。每位受試者均在接受本研究時必須先接受前測評量，並進行八週的介入，結束後一週內進行後測評量，且在介入訓練後的一個月接受一次追蹤評量。

首先，向受試者及照顧者詳細解說流程後，填寫基本資料，並簽署臨床試驗同意書後，配對分派實驗組(n=6)與對照組(n=6)；接著兩組在治療前一週內會完成前測評量；評量內容包括：身體組成(身體質量指數與腰臀比)測量、立定跳遠、一分鐘仰臥起坐、坐姿體前彎、三分鐘登階測試；評量完後兩組同時接受等量的頻率與時間之介入，包括進行一週兩次、一次兩個小時、為期八週的介入。所有的前、後測、追蹤的評量以及維持八週的介入訓練皆在小胖威利北區-社區日間作業設施中心(簡稱：小住所)內進行評量與介入。介入內容包括：兩組一開始都有前 20 分鐘的伸展操和暖身運動，目的伸展四肢肉群肌與增加關節活動的角

度，稍微加快心跳速度以慢慢達到有氧階段所設定的心跳率；再進入主要介入約 60 分鐘，(實驗組介入內容則是執行有氧舞蹈，控制組的介入內容則是執行一般傳統的復健)；最後兩組都會再進行 20 分鐘放鬆操和緩和拉筋運動，目的讓全身放鬆，增加柔軟度與乳酸的排除；實驗組所執行的有氧舞蹈內容會搭配適合普瑞德威利氏症候群患者的音樂、舞蹈、節奏、韻律，讓全身大肌肉一起活動其中。同時，在介入訓練的八週中，會要求受試者或照顧者填寫每週運動內容/時間/心跳，盡可能達成每週三次運動量、每次 30 分鐘以上、運動後心跳要達每分鐘 130 次以上之原則。

最後，在治療結束後一週內會進行後測評估，以及在一個月後有追蹤評估；而治療過程中，受試者仍持續接受原有的治療，包括：物理、職能或語言等相關治療

### 三、評估工具

本研究使用「體適能評估」來評估受試者的體能狀況。體適能評估項度五大分類，包括：身體組成、柔軟度、瞬間爆發力、肌耐力、以及心肺耐力等。體適能評估內容包含：1.身體組成部分包括「身體質量指數」與「腰臀比」。主要分析指體脂肪與非脂肪所佔的比率。本研究的身體質量指數(Body Mass Index, 簡稱 BMI)計算公式： $BMI = \text{體重 (kg)} / \text{身高}^2 (\text{m}^2)$ 。腰臀比例(Waist-hip ratio WHR)是指腰圍除以臀圍的比例來作計算。2.柔軟度測量，是以「坐姿體前彎」做測試，評估後腿與下背關節可動範圍的肌肉、肌腱與韌帶等組織的韌性和伸展度。檢測時，受測者膝蓋伸直，兩腿分開左右各 15 公分寬，腳尖朝上。受測者雙手相疊，盡可能前伸，並以鋪在地上的尺規丈量。3.瞬間爆發力

測量，是以「立定跳遠」做為測試，受測者站於起跳線後，雙腳打開與肩同寬，雙腳半蹲，膝關節彎曲，雙臂自然前擺，雙腳同時躍起、同時落地，並以鋪在地上的尺規丈量。4.肌耐力測試則是以「一分鐘仰臥起坐」做測量，是評估身體腹部的肌力與肌耐力。檢測時，雙手交叉胸前，手肘離開胸部，雙膝屈成 90 度，腳底平貼地面；腳背由施測者按住，測量在一分鐘內做起坐的動作(肩胛骨下緣必須離開地板才算是)。5.心肺耐力測試則是以「三分鐘登階測試」做為測量，檢測時會準備 35 公分高的台階和節拍器。配合節拍器節奏，以每分鐘九十六拍之速度，每四拍上下台皆一次，持續三分鐘。節拍 1 時，右腳上台階，節拍 2 時，左腳上台階，節拍 3 時，右腳先下左腳再下。檢測完後，測量 1 分至 1 分 30 秒、2 分至 2 分 30 秒、3 分至 3 分 30 秒的脈搏次數。心肺耐力指數=運動持續時間(秒) \* 100 / (恢復期三次脈搏數的總和) \* 2 做為計算。為維持良好的再測信度，所有測試(包括：前測/後測/追蹤測驗)皆會在一週內完成測驗，並詳細做紀錄。

### 四、統計分析

本研究資料使用 SPSS 18.0 版(SPSS Inc., Chicago, IL)的統計軟體進行統計分析。由於個案量僅有十二位，故選用柯-史兩樣本檢定(SK Kolmogorov-Smirnov test)驗證不同組別之性別、年齡、身高、體重、腰臀比、及身體質量指數；另外，再以無母數的魏克森符號等級檢定(Wilcoxon Signed Ranked test)，進行兩組間的介入前與介入後、以及一個月後的追蹤之比較，欲瞭解介入後受試者的體適能是否有變化，並採雙尾檢定(two tailed test)，顯著水準訂在  $p < 0.05$ 。

表 1. 受試者基本資料

基本資料	實驗組 (n=6)	對照組 (n=6)	組間差異 p
性別	女/男 3/3	女/男 3/3	0.366
年齡 (歲)	24.75±5.74	24.50±5.38	0.447
身高 (公分)	157.25±10.24	156.50±8.10	0.672
體重 (公斤)	61.63±25.36	63.75±25.56	0.479
腰臀圍 WHR	0.91±0.07	0.92±0.04	0.979
身體質量指數 BMI	26.85±8.60	26.83±7.29	0.338
心肺耐力指數	30.76 ± 6.24	30.77 ± 6.24	0.318

註：\* $p < .05$  表示具有統計顯著差異

表 2. 有氧舞到介入後的立即療效分析

	立即療效分析				Wilcoxon test	
	治療前		治療後		實驗組	對照組
	實驗組 (n=6)	對照組 (n=6)	實驗組 (n=6)	對照組 (n=6)	p	p
BMI	26.62 ± 6.96	26.82 ± 5.62	26.30 ± 6.48	26.80 ± 5.59	0.09	1.00
腰臀比	0.916 ± 0.07	0.93 ± 0.04	0.89 ± 0.07	0.92 ± 0.04	0.07	0.74
立定跳遠	69.44 ± 23.99	69.38 ± 8.43	75.44 ± 21.09	75.25 ± 8.92	0.01*	0.01*
坐姿體前彎	4.63 ± 4.51	4.5 ± 1.31	5.94 ± 5.82	4.75 ± 1.49	0.04*	0.16
仰臥起坐	5.38 ± 6.05	5.25 ± 2.76	6.75 ± 5.60	5.63 ± 2.88	0.10	0.08
心肺耐力指數	30.76 ± 6.24	30.77 ± 6.24	37.39 ± 7.77	31.26 ± 5.99	0.01*	0.78

註：\*p<.05 表示具有統計顯著差異

表 3. 一個月後的持續性追蹤分析

	持續性追蹤分析				Wilcoxon test	
	治療後		追蹤期		實驗組	對照組
	實驗組 (n=6)	對照組 (n=6)	實驗組 (n=6)	對照組 (n=6)	p	p
BMI	26.30 ± 6.48	26.80 ± 5.59	26.23 ± 6.03	26.80 ± 5.57	0.58	0.92
腰臀比	0.89 ± 0.07	0.92 ± 0.04	0.91 ± 0.06	0.93 ± 0.04	0.21	0.58
立定跳遠	75.44 ± 21.09	75.25 ± 8.92	79.98 ± 22.48	79.13 ± 8.97	0.02 *	0.01 *
坐姿體前彎	5.94 ± 5.82	4.75 ± 1.49	6.19 ± 6.34	4.63 ± 1.41	0.03 *	0.56
仰臥起坐	6.75 ± 5.60	5.63 ± 2.88	6.88 ± 5.51	5.5 ± 3.02	0.06	0.32
心肺耐力指數	37.39 ± 7.77	31.26 ± 5.99	31.26 ± 5.99	30.76 ± 6.24	0.01 *	0.78

註：\*p<.05 表示具有統計顯著差異

## 結 果

### 一、受試者之基本資料

兩組受試者之基本資料顯示如(表 1)所示，實驗組有 6 位、對照組有 6 位，共有 12 位普瑞德威利氏症候群患者；其中有 6 位是男性、另外有 6 位是女性。在這兩組間的性別、年齡、身高、體重、腰臀比、以及身體質量指數、心肺耐力指數等，各方面均未達顯著差異。

### 二、治療後的立即療效分析

治療後的立即成效如(表 2)所示，兩組共 12 位受試者在接受完一週兩次、一次兩小時，為期八週的介入後，其體適能的表現如下：

在實驗組中：身體組成部分包括身體質量指數(從 26.62 ± 6.96 到 26.30 ± 6.48 其 p 值=0.09) 與腰臀比(從 0.916 ± 0.07 到 0.89 ± 0.07，其 p 值=0.07) 的測試中、以及 一分鐘仰臥起坐的肌耐力測試中(從 5.38 次 ± 6.05 次到 6.75 次 ± 5.60 次，其 p 值=0.10)，雖有差異但皆未達到統計上的顯著差異性。另外，在立定跳遠的爆發力測試中(從 69.44 cm ± 23.99 cm 進步到 75.44 cm ± 21.09 cm，其 p 值=0.01)、與坐姿體前彎的柔度測試中(從 4.63 cm ± 4.51 cm 進步到 5.94 cm ± 5.82 cm，其 p 值=0.04)、以及三分鐘登階的心肺耐力測試中(從 30.76 ± 6.24 進步到 37.39 ± 7.77，其 p 值=0.01)，分數上不僅有進步，且達統計上的顯著差異(p < 0.05)。

在對照組中：不論是身體組成部分包括身體質量指數的測試中(從 26.82 ± 5.62 到 26.80 ± 5.59 其 p 值=0.09)與腰臀比(從 0.93 ± 0.04 到 0.92 ± 0.04，其 p 值=0.74)、以及一分鐘仰臥起坐的肌耐力測試中(從 5.25

次  $\pm 2.76$  次到  $5.63 \pm 2.88$  次，其  $p$  值=0.08)、與坐姿體前彎的柔度測試中(從  $4.5 \text{ cm} \pm 1.31 \text{ cm}$  到  $4.75 \text{ cm} \pm 1.49 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.16)、及三分鐘登階的心肺耐力測試中(從  $30.77 \pm 6.24$  到  $31.26 \pm 5.99$ ，其  $p$  值=0.78)，雖有些許差異但皆未達到統計上的顯著差異性。只有在立定跳遠的瞬間爆發力測試中(從  $69.38 \text{ cm} \pm 8.43 \text{ cm}$  進步到  $75.25 \text{ cm} \pm 8.92 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.01)分數上不僅有進步，還達統計上的顯著差異( $p < 0.05$ )。

兩組共 12 位受試者在接受完一週兩次、一次兩小時，為期八週的介入後，在體能的表現：實驗組在立定跳遠的瞬間爆發力、坐姿體前彎的柔軟度、三分鐘登階的心肺耐力測試中有達顯著差異，對照組僅在立定跳遠的瞬間爆發力測試中有達顯著差異。

### 三、一個月後的持續性追蹤分析

治療後的追蹤成效如(表 2)所示，兩組共 12 位受試者在接受完一週兩次、一次兩小時，為期八週的介入後，相隔四週(一個月)再進行追蹤評估，其追蹤後的體適能表現如下：

在實驗組中：身體組成部分包括身體質量指數(從  $26.30 \pm 6.48$  到  $26.23 \pm 6.03$ ，其  $p$  值=0.58)與腰臀比(從  $0.89 \pm 0.07$  到  $0.91 \pm 0.06$ ，其  $p$  值=0.21)的測試中、以及一分鐘仰臥起坐的肌耐力測試中(從  $6.75 \text{ 次} \pm 5.60 \text{ 次}$  到  $6.88 \text{ 次} \pm 5.51 \text{ 次}$ ，其  $p$  值=0.16)，雖有差異但皆未達到統計上的顯著差異性。另外，在立定跳遠的爆發力測試中(從  $75.44 \text{ cm} \pm 21.09 \text{ cm}$  進步到  $79.98 \text{ cm} \pm 22.48 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.02)、與坐姿體前彎的柔度測試中(從  $5.94 \text{ cm} \pm 5.82 \text{ cm}$  進步到  $6.19 \text{ cm} \pm 6.34 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.03)都有達顯著差異。特別要看的是三分鐘登階的心肺耐力測試中(從  $37.39 \pm 7.77$  回到  $31.26 \pm 5.99$ ，其  $p$  值=0.01)，分數上不僅退步，又回到介入前的數值上下，且退步的差異達統計上的顯著差異( $p < 0.05$ )。

在對照組中：不論是身體組成部分包括身體質量指數(從  $26.80 \pm 5.59$  到  $26.80 \pm 5.57$ ，其  $p$  值=0.92)與腰臀比(從  $0.92 \pm 0.04$  到  $0.93 \pm 0.04$ ，其  $p$  值=0.58)的測試中、以及一分鐘仰臥起坐的肌耐力測試中(從  $5.63 \text{ 次} \pm 2.88 \text{ 次}$  到  $5.5 \text{ 次} \pm 3.02 \text{ 次}$ ，其  $p$  值=0.32)、坐姿體前彎的柔度測試中(從  $4.75 \text{ cm} \pm 1.49 \text{ cm}$  到  $4.63 \text{ cm} \pm 1.41 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.56)、三分鐘登階的心肺耐力測試中(從  $31.26 \pm 5.99$  到  $30.76 \pm 6.24$ ，其  $p$  值=0.78)，雖有些許差異但皆未達到統計上的顯著差異性。只有在立定跳遠的瞬間爆發力測試中(從  $75.25 \text{ cm} \pm 8.92 \text{ cm}$  到  $79.13 \text{ cm} \pm 8.97 \text{ cm}$ ，其  $p$  值=0.01)、分數上不僅有進步，還達統計上的顯著差異( $p < 0.05$ )。

兩組共 12 位受試者在接受完一週兩次、一次兩小

時，為期八週的介入後，相隔四週(一個月)再進行追蹤評估，其追蹤後的體適能表現：實驗組在立定跳遠的瞬間爆發力、坐姿體前彎的柔軟度中有達顯著差異，對照組僅在立定跳遠的瞬間爆發力測試中達顯著差異。

## 討 論

本研究主要目的探討：經過八週的有氣舞蹈訓練介入後，對於成年普瑞德威利氏症候群患者的身體組成部分(包括：身體質量指數與腰臀比)、立定跳遠、一分鐘仰臥起坐、坐姿體前彎及三分鐘登階測試，兩組治療介入後的立即性療效分析與持續性追蹤分析。

由初評結果顯示，不論在治療介入後的「立即性療效分析」中，或是在八週的有氣舞蹈介入完畢後，再相隔一個月後進行的「持續性追蹤分析」中，發現：實驗組不論在立定跳遠的瞬間爆發力、坐姿體前彎的柔軟度中，其立即性的療效與持續性追蹤療效，皆有達顯著差異。而在三分鐘登階的心肺耐力測試中，僅在立即性的療效中有達顯著差異。此結果與先前研究結果相近。<sup>[12-15]</sup>在本研究中，普瑞德威利氏症候群患者經有氣舞蹈介入後，體能的部分皆有改善；但在身體組成(包括：身體質量指數與腰臀比)、仰臥起坐的腹部肌耐力表現皆不佳。普瑞德威利氏症候群患者的身體組成(包括：身體質量指數與腰臀比)無法藉由八週的有氣舞蹈介入後，有立即性的介入療效。其推測原因可能有：研究樣本數過少，僅有十二位普瑞德威利氏症候群患者，無法達到統計上的差異性。其次身體組成的改變相對除了需要長時間的運動外，飲食的攝取與控制也需長時間的介入，方能見效。<sup>[14,16-18]</sup>一般而言，身體組成是以體脂肪百分比來判定，它與遺傳、生活作息以及飲食習慣息息相關；要降低身體質量指數，最好的方法除了運動外，飲食的控制也是相當重要，同時也要瞭解改變身體組成不是短時間就可達成的，除了在飲食以及作息調整必須詳細計畫外，最重要的是持之以恆。<sup>[16-18]</sup>本研究的介入時間僅有一週兩次一次兩小時、為持八週；這樣的介入時間太少、難已達成培養良好的運動習慣及維持好的飲食控制效果。

另外，在一分鐘仰臥起坐的肌耐力測試中，立即性與持續性追蹤療效皆無達顯著差異( $p > 0.05$ )。根據過去的文獻<sup>[11,13,19-23]</sup>指出：要提升仰臥起坐的次數必須先提升腹部的核心肌群，腹部的核心肌群包括腹直肌、腹內/外斜肌、背闊肌、豎直肌等肌耐力；故本研究無法有效改善仰臥起坐的腹部肌耐力，其推測可能原因

為本研究介入方式是以有氧舞蹈進行，未針對腹部的核心肌群加以進行訓練，所以在仰臥起坐的肌耐力測試中，始終未達到任何顯著差異性。

在立定跳遠的瞬間爆發力測試中，不論在實驗組或對照組的部分，其立即性的療效與持續性追蹤療效，皆有達顯著差異( $p < 0.05$ )。這與過去的研究顯示相關：<sup>[11,24-25]</sup>人體肌肉類型簡單的可大致分為第 I 型紅肌(慢肌)和第 II 型白肌(快肌)：第 I 型紅肌(慢速收縮肌纖維)又稱「穩定肌」，長時間的運動與耐力提升就靠它，例如：長跑或游泳。第 II 型白肌(快速收縮肌纖維)是運動中先啟動的肌肉，負責人體的爆發力，又稱「動作肌」，例如：短跑或跳遠。而在立定跳遠的瞬間爆發力測試中，所用到的肌肉群較多為第 II 型白肌(快肌)，在是運動中容易被啟動的肌肉；因此，想要增加爆發力，最好方式是透過跳躍、投擲等快速動作，將肌力與速度兩個要素發揮極致，才能把爆發力最佳化。而在本研究中，不論在實驗組/對照組或在立即性/追蹤性的分析中，其立定跳遠的瞬間爆發力可以持續有效改善的原因，其推測為本研究的有氧舞蹈動作中，有許多跳上跳下的訓練動作(約 35 公分的矮凳)，以及要配合音樂速度，來做肢體的變化，雖然執行過程中顯得疲憊不堪，但卻也能讓人看出成效與成果。

坐姿體前彎的柔軟度測試中，其柔軟度的表現從介入前的  $4.63\text{cm} \pm 4.51\text{cm}$  進步到  $5.94\text{cm} \pm 5.82\text{cm}$ (其  $p$  值  $< 0.05$ )；而在停止介入有氧舞蹈的一個月後追蹤發現，柔軟度的表現由介入後的  $5.94\text{cm} \pm 5.82\text{cm}$  持續進步到  $6.19\text{cm} \pm 6.34\text{cm}$ (其  $p$  值  $< 0.03$ )，達顯著差異。其可能原因除了每次有氧舞蹈課程結束後，都會接受 20 分鐘的放鬆操以及緩和拉筋運動，同時加上教育個案及家屬在每次的居家運動後也都要執行同樣的放鬆操和緩和拉筋運動。這樣不僅可以排除乳酸的堆積外，還可以讓全身性的肌肉放鬆，增加柔軟度。同時，可以降低潛在的運動風險，保護過度使用的肌肉避免受傷，提升身體的柔軟度及靈活度，舒緩緊繃的肌肉，達到促進血液循環及降低肌肉痠痛的目標。<sup>[11,15,22,24-25]</sup>

在心肺耐力指數的三分鐘登階測試中，其兩組的在執行有氧舞蹈前的心肺耐力指數是處於相似水準，有實驗組為  $30.77 \pm 6.24$  對照組  $30.76 \pm 6.24$ ( $p > 0.5$ )。依據教育部體適能網站(2006-2016)之 20-64 歲臺閩地區男、女三分鐘登階心肺耐力指數百分等級常模對照表，兩組在有氧舞蹈介入前之心肺耐力指數皆落在「不好」區塊中。經過八週的有氧舞蹈介入後，心肺耐力指數雖仍在「不好」區塊中，但實驗組的分數已從  $30.77 \pm 6.24$  進步到  $37.39 \pm 7.77$  ( $p < 0.01$ ) 趨向「稍差」區塊中；在停止介入有氧舞蹈後追蹤一個月發現，其心肺耐

力指數又回到  $31.26 \pm 5.99$ 。這表示了持續的有氧運動是可以提升心肺耐力指數，但停止有氧舞蹈後一個月後，心肺耐力指數立刻回復到原先指數，故持續培養良好的有氧運動習慣是很重要的。<sup>[16-18]</sup>

此外，影響本研究結果的因素還包括了普瑞德威利氏症候群患者的固執性行為問題與認知問題；他們對於挫折的容忍度也較低，容易放棄、也容易發脾氣；對於參與運動或體能活動的意願低落。<sup>[17]</sup>故在研究執行中，必須針對普瑞德威利氏症候群患者得行為特徵，給予適當的鼓勵、支持與陪伴；當它的固執性出現時，避免用話催促他們趕時間，改用很興奮的語氣，歡樂的旋律或讚美來讓他們加快動作；同時，必須將有氧舞蹈的動作簡單化、增加重複性、達到易學習的效果，在歌曲的選擇必須大眾化，節奏明確、且要維持一定的音樂速度；將有氧舞蹈透過音樂的結合，加深了運動的趣味性，提升普瑞德威利氏症候群患者參與有氧運動的動機，使得活動參與與持續性得以延續。

臨床意義：為了改善成年普瑞德威利氏症候群患者的體適能，可透過有氧舞蹈介入，來增加普瑞德威利氏症候群患者參與的動機及興趣，提升其瞬間爆發力、柔軟度等，進而改善立即性的整體心肺耐力之表現。未來研究建議：1. 本研究因樣本數不夠多，其誤差機率較高：未來可增加其樣本數來做改善；2. 可持續追蹤三個月以上，來探討有氧舞蹈訓練對身體組成(身體質量指數、腰臀比)是否也有明顯改善效果；3. 另外，施測情境可以再增加一些功能性的動作能力測試(包括：身體平衡、肢體協調、球類技巧等)動作功能測試，以及測量生活品質等。

## 結 論

有氧舞蹈與其他運動相比較之下，是具有節律性、透過與音樂律動的結合，加深了運動的可行性與服從性，提升參與者的動機和趣味性。鑑於國內外鮮少人將有氧舞蹈運用在普瑞德威利氏症候群患者身上，故本文期望能提供普瑞德威利氏症候群患者另一種體能運動的選擇。多鼓勵普瑞德威利氏症候群患者參與不同社團的體能活動，進而培養出良好的運動習慣，並將飲食控制與生活習慣融入日常生活中，讓更多的好習慣從日常中開始慢慢養成。培養普瑞德威利氏症候群患者規律運動的習慣，享受參與運動的樂趣，建立健康的生活型態，擁有健康快樂的人生。

## 致 謝

本研究承蒙社團法人中華民國小帥威利病友關懷協會北區小作所之協助，僅此致謝。

## 參考文獻

1. Cassidy SB. Prader-Willi syndrome. *J Med Genet* 1997;34:917-23.
2. Cassidy SB, Schwartz S, Miller JL, et al. Prader-Willi syndrome. *Genet Med* 2012;14: 10-26.
3. Ledbetter DH, Riccardi VM, Au WW, et al. Ring chromosome 15: phenotype, Ag-NOR analysis, secondary aneuploidy, and associated chromosome instability. *Cytogenet Cell Genet* 1980;27:111-22.
4. Whittington JE, Holland AJ, Webb T, et al. Population prevalence and estimated birth incidence and mortality rate for people with Prader-Willi syndrome in one UK Health Region. *J Med Genet* 2001; 38:792-8.
5. Kosaki K, McGinniss MJ, Veraksa AN, et al. Prader-Willi and Angelman syndromes: diagnosis with a bisulfite-treated methylation-specific PCR method. *Am J Med Genet* 1997; 73:308-13.
6. Dykens E, Shah B. Psychiatric disorders in Prader-Willi syndrome: epidemiology and management. *CNS Drugs* 2003;17:167-78.
7. Hurren BJ, Flack NA. Prader-Willi Syndrome: A spectrum of anatomical and clinical features. *Clin Anat* 2016;29:590-605.
8. Greenswag LR. Adults with Prader-Willi syndrome: a survey of 232 cases. *Dev Med Child Neurol* 1987;29:145-52.
9. Butler MG, Bittel DC, Kibiryeve N, et al. Behavioral differences among subjects with Prader-Willi syndrome and type I or type II deletion and maternal disomy. *Pediatrics* 2004;113:565-73.
10. Carrel AL, Myers SE, Whitman BY, et al. Long-term growth hormone therapy changes the natural history of body composition and motor function in children with prader-willi syndrome. *J Clin Endocrinol Metab* 2010;95:1131-6.
11. Anne A. Delextrat, Sarah Warner, Sarah Graham et al. Effects of a Twelve-Week Aerobic Dance Exercises on Body Compositions Parameters in Young Women. *Int. J. Morphol.* 2013; 31:1243-50.
12. Lafortuna CL, Minocci A, Capodaglio P, et al. Skeletal muscle characteristics and motor performance after 2-year growth hormone treatment in adults with Prader-Willi syndrome. *J Clin Endocrinol Metab* 2014; 99:1816-24.
13. Carrel AL, Myers SE, Whitman BY, et al. Growth hormone improves body composition, fat utilization, physical strength and agility, and growth in Prader-Willi syndrome: A controlled study. *J Pediatr* 1999;134:215-21.
14. Valeria Jia-Yi Chiu, Li-Ping Tsai, Jang-Ting Wei, et al. Motor Performance in P Prader-Willi syndrome patients and its potential influence on caregiver's quality of life. *Peer J* 2017;13:e4097.
15. Reus L, Zwarts M, Van Vlimmeren LA, et al. Motor problems in Prader-Willi syndrome: a systematic review on body composition and neuromuscular functioning. *Neurosci Biobehav Rev* 2011;35: 956-69.
16. McCandless SE, Committee on Genetics. Clinical report health supervision for children with Prader-Willi syndrome. *Pediatrics* 2011;127:195-204.
17. Dykens EM. Maladaptive and compulsive behavior in Prader-Willi syndrome: new insights from older adults. *Am J Ment Retard* 2004;109:142-53.
18. Castner DM, Tucker JM, Wilson KS, et al. Patterns of habitual physical activity in youth with and without Prader-Willi Syndrome. *Res Dev Disabil* 2014;35: 3081-8.
19. Vismara L, Cimolin V, Grugni G, et al. Effectiveness of a 6-month home-based training program in Prader-Willi patients. *Res Dev Disabil* 2010;31:1373-9.
20. Eiholzer U, Nordmann Y, l'Allemand D, et al. Improving body composition and physical activity in Prader-Willi Syndrome. *J Pediatr* 2003; 142: 73-8.
21. Amaro AS, Teixeira MC, de Mesquita ML, et al. Physiological adaptation after a 12-week physical activity program for patients with Prader-Willi syndrome: two case reports. *J Med Case Rep* 2016;10:181.
22. Grolla E, Andrighetto G, Parmigiani P, et al. Specific treatment of Prader-Willi syndrome through cyclical rehabilitation programmes. *Disabil Rehabil.* 2011;33:1837-47.
23. Edouard T, Deal C, Van Vliet G, et al. Muscle-bone characteristics in children with Prader-Willi syndrome. *J Clin Endocrinol Metab* 2012;97:E275-81.



24. Wilson JM1, Loenneke JP, Jo E, et al. The effects of endurance, strength, and power training on muscle fiber type shifting. *J Strength Cond Res.* 2012 Jun;26:1724-9.
25. Fitts RH1, Widrick JJ. Muscle mechanics: adaptations with exercise-training. *Exerc Sport Sci Rev.* 1996;24:427-74.
26. 魏正：十八週有氧舞蹈課程對大學學生健康體適能影響之研究。屏東教大體育學刊 2009；12：75-87。
27. 丁翠苓、王秀銀、黃碧月：十二週有氧舞蹈課程對健康體適能之影響。文化體育學刊 2005；3：119-122。
28. 林素君、林瑞興：有氧舞蹈運動對肥胖學童動作表現與體適能之影響。屏東教大體育學刊 2011；14：114-122。
29. 張世沛、陳培季、李翠娥等：大學生身體組成、心肺耐力與運動參與行為之關係。運動與遊憩研究 2013；7：33-43。
30. 謝幸珠。有氧舞蹈對大學女生健康體適能的影響。中華體育 1995，9，111-18。

# Effect of Aerobic Dance Training in Adults with Prader-Willi Syndrome: A Pilot study

Fei-Chuan Chen<sup>1</sup>, Shih-yun Hon<sup>1</sup>, Li-Ping Tsai<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Taipei Tzu Chi Hospital, Buddhist Tzu Chi Medical Foundation, Department of Rehabilitation Medicine;

<sup>2</sup>Taipei Tzu Chi Hospital, Buddhist Tzu Chi Medical Foundation, Department of Pediatrics.

**Objective:** Aerobic Dance Training has beneficial effects in improving physical fitness. However, there were few studies validating the physical fitness effectiveness of Aerobic Dance Training in Prader-Willi Syndrome patients (PWS). This study aims to investigate the effects of Aerobic Dance Training in PWS adults, by using integrated clinical measurements of physical fitness.

**Methods:** This is a matched controlled study design. Twelve Prader-Willi Syndrome patients received either Aerobic Dance Training or conventional physiotherapy for 8 weeks (2 times per week for 2 hours each session). Clinical measurements of physical fitness were analyzed before and after the intervention and were followed at 1 month after treatment. Clinical measures included (1) anthropometrics (body mass index \ waist-hip ratio), (2) functional muscle strength (standing long jump), (3) flexibility (chair sit and reach test), (4) muscle endurance (one-min sit-up), (5) cardiopulmonary endurance (3 minutes step test).

**Result:** After 8 weeks of intervention, the aerobic dance training PWS group shows significant improvements in the muscle strength, flexibility and cardiopulmonary endurance. However, there was no significant improvement in the muscle endurance.

**Conclusion:** Aerobic Dance Training for individuals with PWS inncreases the motivation and participation of PWS patients which could also be effective in improving physical fitness. Larger sample size with analysis of movement patterns should be included as future research. ( Tw J Phys Med Rehabil 2018; 46(2): 91 - 99 )

**Key Words:** Prader Willi Syndrome, Aerobic Dance Training, Physical Fitness

