

2004-00408A

平成16年度厚生労働科学研究費補助金
子ども家庭総合研究事業

乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の
早期評価及び地域支援のマニュアル開発に関する研究

(課題番号 H16-子ども-018)

平成17年4月

主任研究者 神 尾 陽 子

(九州大学大学院 人間環境学研究院)

目次

全体の研究概要

研究1

乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の早期評価:M-CHAT日本語版の1歳6か月
集団健診導入に関する検討(福岡地区)

研究2

乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の早期評価:M-CHAT日本語版の1歳6か月
個別健診導入に関する予備的検討(東京地区)

研究3

家族支援のプログラム開発研究:自閉症診断後に実施できる「家庭支援プログラム」:
プログラムの開発と母親の満足度の分析

資料

乳幼児健康診査にかかわる実態調査報告(福岡・東京地区)

全体の研究概要

主任研究者 神尾陽子

本研究は、早期診断が困難な高機能広汎性発達障害児とその家族への支援は、地域の中でできるだけ早く始めるシステムの実現を最終目標としておこなわれたものである。高機能発達障害児は発達早期の言語や知能の発達が良好なため、これまで乳幼児健診が十分把握できておらず、早期からの支援に貢献できていなかった。また従来の乳幼児健診における精神機能の発達評価は、主に言語と全般的知能に向けられており、児の社会的発達の問題は主に養育の問題の結果とみなされる傾向が根強かった。実は児の社会的発達の弱さと養育の関係とはこのように単純な因果関係で説明がつくものではなく、きわめて複雑に絡み合っており、どちらも偏りを大きくしていくと発達上の相互学習の視点が抜け落ちていた。こうした発達早期の支援をめぐるわが国の現状を踏まえて、本研究では、高機能群を見逃さないよう広汎性発達障害の早期評価について、1歳6か月健診の場を活用した導入の試みを、研究1 乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の早期評価：M-CHAT日本語版の1歳6か月集団健診導入に関する検討（福岡地区）研では集団健診を実施している地域で、研究2 乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の早期評価：M-CHAT日本語版の1歳6か月個別健診導入に関する予備的検討（東京地区）では、個別健診を実施している地域で行ったので、最初の報告を行う。いずれも自閉症の早期発見のための先駆的な尺度の日本語版であるM-CHAT(Modified Checklist for Autism in Toddlers)を作成し用いており、わが国の乳幼児健診の実情に適切な手続きについても検討している。今回、研究は始まったばかりなので、一部ご報告するが、さらに検討を加え報告する予定である。

高機能広汎性発達障害の早期評価を行うことは早期介入の始まりでもある。個別評価によるニーズの把握に続いて、地域での実現可能性、介入の段階と程度、また短期目標、中期目標、長期目標に照らし合わせて児と家族に対して何を提供することを目的とするかについても、低コストで有効なプログラムの開発が急がれなくてはならない。研究3 家族支援のプログラム開発研究：自閉症診断後に実施できる「家庭支援プログラム」：プログラムの開発と母親の満足度の分析では、家族に対する短期的効果に絞って報告する。

地域支援に向けてマニュアル作成を行うためには、以上の実証的研究成果に加え、地域の乳幼児健診に携わる専門家の実態を調査し、保護者からのフィードバックとともに問題点を整理し、当面の目標を設定する必要がある。資料 乳幼児健康診査にかかわる実態調査報告（福岡・東京地区）はこのような目的で実施された。地域の保健師と小児科医、そして乳幼児健診を経験した親を対象とする質問紙調査の結果を報告する。わが国の地域の乳幼児健診における高機能広汎性発達障害の早期評価に向けての体系的研究の最初の報告となるはずである。

研究 1

乳幼児健康診査における高機能広汎性発達障害の早期評価(福岡地区): M-CHAT日本語版の1歳6か月集団健診導入に関する検討

主任研究者 神尾陽子 (九州大学大学院)

協力者 稲田尚子 (九州大学大学院)

はじめに

広汎性発達障害(Pervasive Developmental Disorders :PDD)は、相互的な対人関係、言語やコミュニケーション、共感性、想像力、柔軟性の障害を特徴とする、脳の発達異常を基盤とした遺伝的要因の強い障害で、最新の疫学研究では1万人に62.6人の割合で罹患すると報告されている(Chakrabarti & Fombonne, 2001)。PDDは知的水準の高低に関係なく発症し、社会的困難は、学校生活だけでなく家庭、地域、職業生活にも深刻な影響を及ぼし、終生、環境への適応面ではなんらかの問題を抱えることがわかってきた。なかでも、言語や知的発達に遅れのない高機能自閉症やアスペルガー症候群、非定型自閉症などの高機能サブグループ(高機能広汎性発達障害,High-Functioning Pervasive Developmental Disorders :HFPDD)は、今日では、PDD全体の約4分の3を占めているという報告(Chakrabarti & Fombonne, 2001)があるが、臨床ケースとなるのはそのなかのごく一部のみで、多くは未診断のまま、あるいは周囲の誤解や専門家による誤診を受けることはあっても、家庭でも学校、職場で適切な支援や処遇にアクセスする機会がないものと推測される。

近年になって、HFPDD児は、就学後に情緒や行動の問題、不登校、また思春期以降にひきこもり、合併精神医学的障害、反社会的行動などを顕在化させるなど、従来の楽観的な予後予測に反して、長期的な社会的転帰が決して楽観できるものでないことが明らかになってきた。普通児にとっては問題がない環境がPDDの特性を知らないと、PDD児には不適合な環境となりうるので、不適合状態が長期化すると、幼児期の問題が一見些細に見えても、2次的に不適応行動が強化され、自己評価の低下を来し、さらに複合的な行動障害の形成とやがて悪循環が生じるようになる。したがって、HFPDDの早期評価・早期介入システムの確立は、1次障害の軽減のみならず2次障害の予防の観点からも、きわめて高い必要性和緊急性を有することは明らかである。

HFPDDのなかのアスペルガー障害では、1歳代で単語をいくつか話し、2歳代で2語文、3語文を話すようになる。なかには1歳代で話すだけでなく、読み書きができるようになることも少なくない。ところが詳細に尋ねると語のレパートリーや用いる場面が独特であることがわかる。言語だけでなく、对人的反応、共同注意や遊びなど幼児が日常示す社会的行動もまた非定型的と考えられ

るが、大部分の親は漠然とした違和感を早くから抱きながらも問題の所在を言語化しにくいいため、専門機関での相談に至るには何年も要してしまう。この間、養育者は問題も対処法もわからないまま育児困難感と自信喪失、自責感に苦悩することになる。言語発達に明らかな遅れを伴う高機能自閉症の場合は、言葉の遅れを主訴に幼児期に診断を受けることもあるが、言語の遅れを伴わないアスペルガー障害の場合は、就学後、なかには大学入学後や就職後に初めて診断を受けることもしばしばある。わが国の乳幼児健診システムは身体的発達や知的・言語発達の早期発見・介入には重要な役割を果たしてきたが、もう一つの重要な社会的発達については取り組みが遅れている。これはわが国だけではなく、HFPDDの発達早期の情報は回顧的研究や少数の症例報告を除けば、実証的な根拠はほとんど存在しないのも事実である。

早期発見・早期介入によって、PDDの対人的行動がどの程度改善しうるのかはわかっていない。個人差が大きいことと、介入の方法、程度や日常生活とのバランスの問題もあり、理論的な立場によって見解が異なっており、一般論では論じにくい。それでも多くの臨床家は早期介入が望ましいと考える理由がある。それはできるだけ早い時期から児の特性を理解し、児の得意な領域や苦手な領域を把握することで、環境とのミスマッチからくる2次的な情緒・行動の問題を予防することができ、また児の興味を伸ばすことで有益な技能の開拓に繋がる可能性を秘め、また不得意とする社会生活へも得意技能を介して参加できる道を拓く。また成長の過程で全人的な価値を認められることで、人への信頼感を少しずつ育み豊かな社会生活参加への道に繋がる可能性も生じる。また親の精神的不健康を予防することにもなる。このような理由から、これまで見逃されてきた高機能群を含めたPDD児を早期に同定し、適切な個別評価にもとづく支援を出来る限り早期に開始しようとする試みが模索されるようになってきたのである。

本研究は、1) 家族がアクセスしやすい1歳6か月健康診査の場を活用して、問診票と聴き取り、行動観察から成るPDDに特化したスクリーニングを行い、精度の高い早期診断を提供する、2) 評価システムの信頼性と妥当性の検証、3) 全国地域での乳幼児健診への導入を想定して、多職種チーム(保健師・心理職・言語療法士・小児科医・児童精神科医)に向けての実践的マニュアルの基礎資料を提供する、ことを目的とするものである。現段階では追跡時間が限られているため、1)と3)について報告する。

M-CHAT (Modified Checklist for Autism in Toddlers)について

本研究で用いる M-CHAT は、英国で 1992 年に考案された CHAT をベースに、米国で開発された自閉症・PDD の早期発見を目的とした 23 項目から成るスクリーニング用質問紙である(付

録1参照, CHAT との比較は内山の論文を参照)。CHAT 原版の 9 つの質問項目に 14 項目を追加して 2 歳児を対象に小児科クリニックで実施するために作られており、親が子どもの現在の発達状況について、はい・いいえ式で回答するものである。開発した米国コネチカット大学は現在われわれとの共同研究においてデータを継続収集中である。これまでに、健診目的で小児科医を訪れた 1122 名と PDD と特定されていないもののなんらかの発達的問題を抱え、早期療育に紹介済みのハイリスク児 171 名の合計 1293 名を対象とした結果が報告されている(Robins et al., 2001)。スクリーニングの手続きは、M-CHAT 質問紙を用いた第1段階のスクリーニングでカットオフを満たさなかった場合、電話面接を受け再度質問紙の内容を確認された後、平均 2.12 ヶ月後に評価面接を受ける、という流れとなっている。その結果、全対象の約3%が自閉症スペクトラム(PDD)と診断された。彼らが選定した重要6項目を用いた場合、感度は 0.95、特異性は 0.99、陽性的中率 0.79、陰性的中率 0.99 となり、全 23 項目を用いた場合、感度は 0.97、特異性は 0.99、陽性的中率 0.68、陰性的中率 0.99 となった。

中国の Wong ら(2004)は、M-CHAT 質問紙と CHAT の観察項目を組み合わせて用いることで、低コストで高い感度と特異性が得られたとして、18 ヶ月から 24 ヶ月の間に M-CHAT を試行し、カットオフに満たないケースを保健師が CHAT の観察項目についてチェックし、それもカットオフに満たしていない場合に、最終的に包括的評価と療育の専門チームに紹介する、という手続きを推奨している。

われわれは、以下の理由で CHAT ではなく M-CHAT を選んだ。1) わが国ではシステムの確立した1歳6か月健診の場を活用することが可能である。2) 乳幼児健診スタッフの現状を考慮すると、健診場面で児の自然な対人的行動を観察して PDD 徴候を判断することは、時間的、物理的、技術的に非現実的である。3) 質問紙に伴う親と専門家の間の判断のズレは、その後のフォロー過程で修正可能である。4) M-CHAT は、従来、乳幼児健診で重視されてこなかった対人的発達に関連する行動を多く含む。PDD の早期徴候はまだ実証的に同定されていないので、臨床目的では仮説にもとづく少数の項目に絞ることは望ましいとは言えず、むしろ幅広い社会的発達をカバーしながら、PDD 児やハイリスク児の社会的発達を追跡することが臨床、研究いずれにとっても有益と思われる。以上の観点から M-CHAT は HFPDD を含めた PDD の早期発見という目的に照らし合わせて、適切なツールであると判断された。またバイアスのかからない地域母集団を対象とした研究として、本研究は最初の試みとなる。

日本版 M-CHAT の作成にあたっては、原著者とのバックトランスレーションの手続きを経た後、地域子育てサークルや自閉症親の会において予備調査を行い、日本語に馴染む用語の選定を

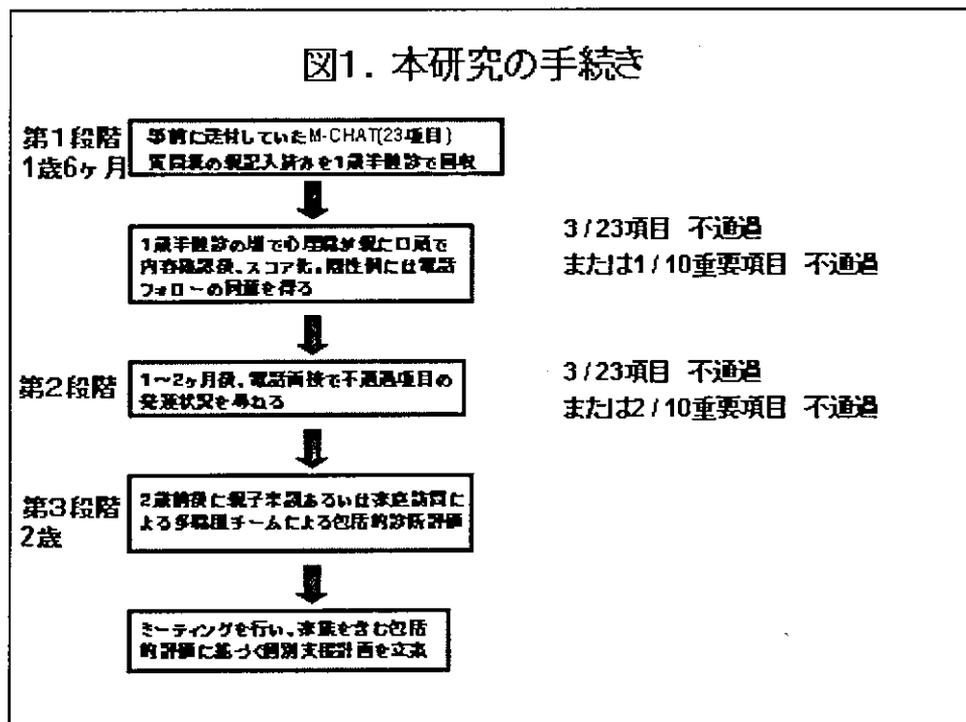
行って改訂を重ね最終版としたもの(付録1)を本研究で用いた。本稿では、昨年度の研究のうち評価面接を終えたデータについてのみ分析結果を報告する。尺度としての感度、特異性、陽性的中率、そして陰性的中率を算出するには、3歳健診の場を待って偽陽性や偽陰性の確認をする必要があるために、今回は報告できない。

対象と方法

表1. 対象

	1歳6か月健診を受診時 第1段階スクリーニング	電話面接フォロー 第2段階スクリーニング	評価面接 第3段階スクリーニング
男子(人数)	152	25	1
女子(人数)	165	35	4
合計人数	317	60	5
年齢幅(ヶ月)	18-19	19-24	19-26

九州大学と共同研究委託契約を締結した福岡県下 F 自治体において地域の保健業務センターで実施した。対象は表1に示した。手続きは以下の通りである。



第1段階スクリーニング: 健診に先だって送付した M-CHAT 質問紙を保護者に記入してもらい、健診時に回収する。健診の場で M-CHAT のカットオフ値に満たないケースを対象に、心理職が保護者に聴取しながら内容を確認し、カットオフ値に満たないことが確認されれば、次に進む。

第2段階スクリーニング: 健診から約1~2ヶ月後に、心理職及び保健師が電話面接を行う。前回、

不通過であった項目を中心に、電話面接用のアルゴリズムに従って M-CHAT の再評価を行い、カットオフ値に満たないことが確認されれば、次に進む。このとき、幼児期の社会的発達について一般的な説明をするなどして、いたずらに不安をあおらないように配慮し、日常生活で保護者が気をつけるとよいと思われる児の対人的行動の芽生えについての心理教育も合わせて行うように努めた。

第3段階スクリーニング:2歳前後で児童精神科医・心理職・保健師チームによる評価面接と相談の場を設ける。評価面接は、1時間半に及ぶ半構造化された親面接と自由遊びまたは構造化された遊び場面での児の行動観察、発達検査を実施する。これらをもとに、児の対人反応、情緒、遊び、身体運動、感覚、言語・非言語コミュニケーションなどの発達状況を包括的に評価する。同時に早期介入として、フィードバックと、その後の児に適切な遊びや日常生活での助言を行う。保護者と児のニーズに応じたフォローについては個別に計画する。

スクリーニングに用いた基準は、第1段階では全項目中不通過3項目あるいは重要10項目中不通過1項目、第2段階では全項目中不通過3項目あるいは重要項目中不通過2項目とした(重要10項目は、米国版に4項目追加した項目2, 6, 7, 9, 13, 14, 15, 20, 21, 23である)。米国版との相違点は、実施年齢を2歳ではなく1歳6ヶ月に引き下げた点、実施場所が小児科クリニックではなく集団検診の場とした点、実施年齢の引き下げに伴い、第1段階のカットオフを引き下げた点、の3点である。

結果と考察

1. 信頼性の検討

1歳6か月健診時の親記入による1回目 M-CHAT の信頼性

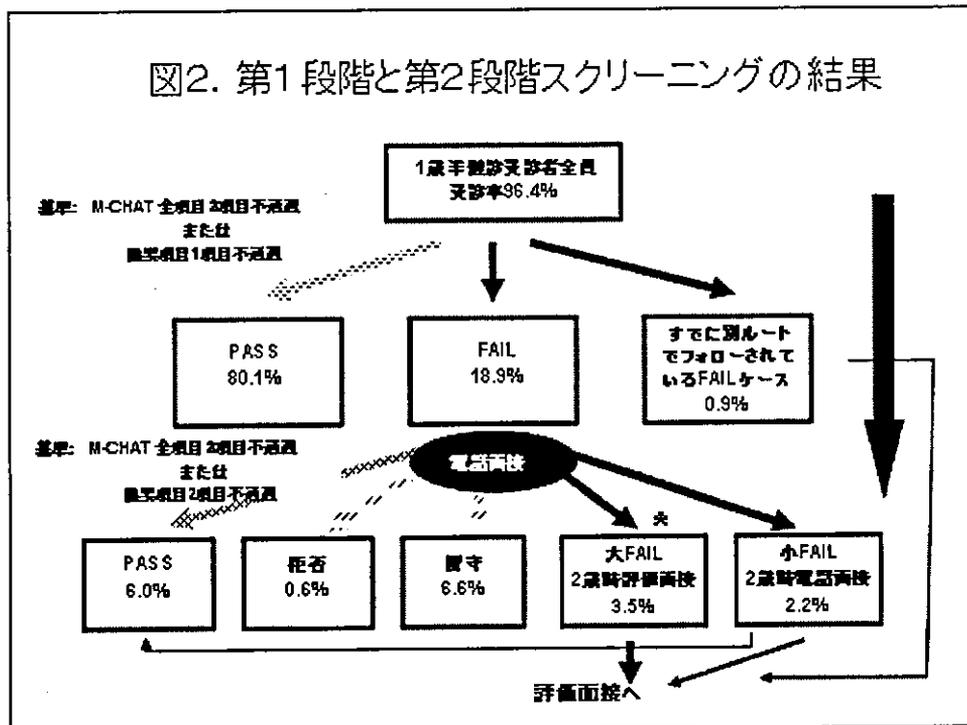
1歳6か月健診受診児(n=317)を対象に、親記入の M-CHAT の全項目と重要10項目について Cronbach の α 係数を算出した。全項目では $\alpha = .444$ となり、尺度の信頼性の基準である 0.6 と照らし合わせると、1歳6ヶ月児では、M-CHAT 全項目の信頼性係数は低いことがわかった。23項目の内容を考えると、PDD 早期徴候と関連がありそうな、人への関心、象徴機能、対人注意、感覚過敏、多動、全般的注意、モノの操作など幅広い領域を尋ねていると同時に、自閉症的行動とは無関係な運動発達に関連するダミー項目が含まれている。したがって、一つの因子で括られる行動を測定しているわけではないので、信頼性係数が低いのは当然とも言える。重要10項目の α 係数は 0.654 であった。重要10項目には、対人反応、模倣、共同注意、指さし、言語理解などのコミュニケーションと密接に関連する行動が含まれており、これについては十分な内部

一貫性が示されたと解釈できる。重要 10 項目の各項目を削除した場合の α 係数を算出したが、削除することにより α 係数が増加した項目は見出されなかった。M-CHAT 米国版の重要 6 項目、CHAT 英国原版の 9 項目で算出した α 係数は、それぞれ 0.585, 0.304 であった。以上より、1 歳 6 ヶ月時に親が記入した M-CHAT のうち重要 10 項目は、PDD の有無にかかわらず、主に対人的発達をみる尺度として十分な内的整合性を持つと考えられる。

電話面接時の聴取による 2 回目 M-CHAT の信頼性

健診から 1~2 ヶ月後の電話面接時には第 1 段階でスクリーニングされた児の 31.7% がキャッチアップしていた。第 2 段階のスクリーニングの対象となった 1 歳 7 ヶ月から 1 歳 9 ヶ月の児 (n=37) について、M-CHAT の全項目と重要 10 項目スコアについての Cronbach の α 係数を算出したところ、それぞれ $\alpha = .799$ 、 $\alpha = .761$ と、ともに十分な内部一貫性を示し、M-CHAT が自閉症スクリーニング尺度として十分な信頼性をもちうることを示された。M-CHAT 米国版の重要 6 項目、CHAT 英国版 9 項目で算出した α 係数は、それぞれ 0.687, 0.710 であった。いずれにおいても各項目を削除した場合の α 係数を算出したが、削除することにより α 係数が増加した項目は見出されなかった。

2. 記述統計

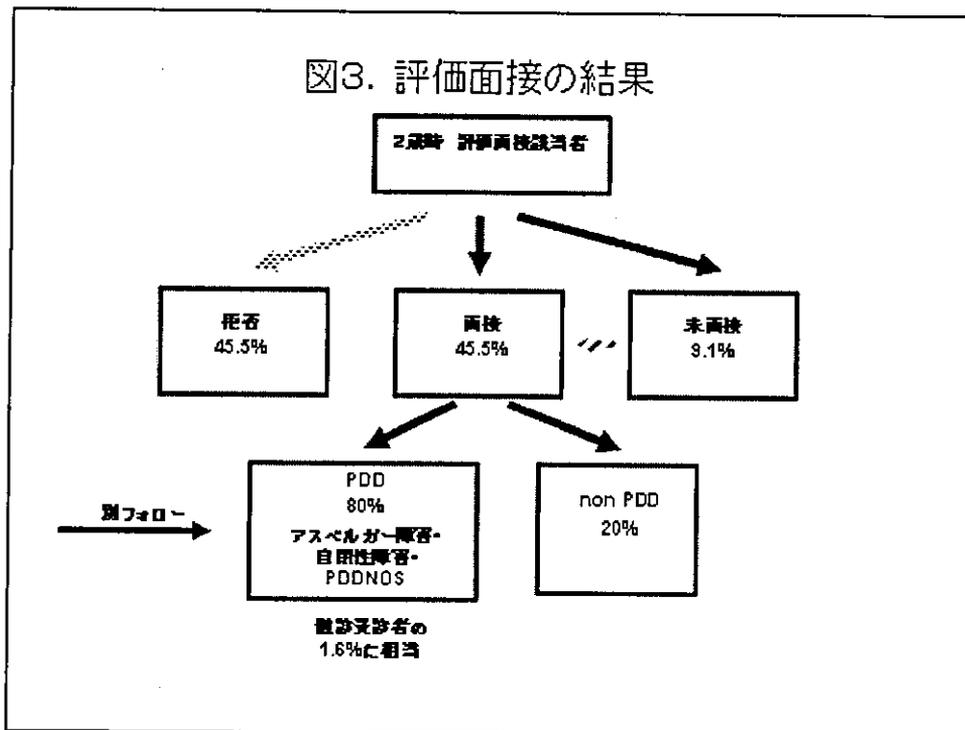


F 自治体における 1 歳 6 か月健診の受診率は約 97% であった。対象児は第 1 段階スクリーニン

グにより、3群に分けられた。①全23項目中不通過が2項目以下かつ重要10項目はすべて通過した「PASS群(n=254)」、②全23項目中3項目で不通過または重要10項目中1項目で不通過であった「FAIL群(n=60)」、③不通過項目が基準を超えるが、既に別の主訴により地域内でフォローされている「別フォロー群(n=3)」の各群はそれぞれ全対象の80.1%、18.9%、0.9%であった。

第2段階スクリーニングに相当する電話面接は、上の②のFAIL群を対象とし、1歳6か月健診から約1~2ヶ月後に個別に実施された。連絡がつきにくかったため2歳と1歳11ヶ月時に電話面接した各1名の他は、すべて1歳7ヶ月から1歳9ヶ月であった。第2段階での面接用のカットオフは、米国原版と同様、全23項目中3項目で不通過または重要10項目中2項目で不通過とした。ただし、電話フォローのために第1段階と同様の低いカットオフも用いた。その結果、5群に分けられた。①全23項目中不通過は2項目以下、かつ重要10項目はすべて通過した「PASS群」(n=19, 全対象の6.0%)、②全23項目中3項目で不通過または重要10項目中2項目で不通過であった「大FAIL群」(n=11, 3.5%)、③重要10項目中1項目で不通過であった「小FAIL群」(n=7, 2.2%)、④電話連絡がつかない「留守群」(n=21, 6.6%)、⑤「拒否群」(n=2, 0.6%)の5群はそれぞれ31.7%、18.3%、11.7%、35.0%、3.3%であった。すなわち、1歳6か月健診後、要フォローとなったケースのうち約1/3が、なんらかの理由で本研究の手続きではフォローが困難であったが、フォロー可能だった残り約2/3のうち半分はキャッチアップし、残り半分がさらに要フォロー(大FAIL群と小FAIL群)となった。

フォローが困難な群のうち、明確に拒否をされたのはわずか2名(3.3%)で、残りの21名(35.0%)は、昼間留守がちというのが主な理由であった。児が昼間通っている保育所からの相談で、保護者と連絡が付き、結局、本研究の評価面接に繋がったケースもあり、長時間、児と接して行動観察が可能な保育所と連携して、子育て支援を行っていくことの重要さが示唆された。母親が仕事をもち、乳児期から保育所に預けるケースが増えている今日、仕事と乳幼児の食事など身体面の世話で多忙な母親に、遊びを通した対人的行動の細やかな観察を行うことを期待するのは難しいかもしれない。子どもが成長後PDDと診断される場合、育て方について後に長く自責的感情を持ち続ける母親を多く経験する。今後は、留守群にも負担をかけずにフォローが可能な方法を工夫する必要があると思われた。同時に、保育師たちが軽度発達障害児の対応に苦慮している実態が知られており、潜在的な保育所のニーズはさらに高いと推察される。地域保健行政と保育所との連携は今後の課題として残る。



評価面接が必要と判断された「大 FAIL 群(n=11)」のうち、現時点において評価面接を終了したのは6名である。面接が予定されていながらまだ完了していないケースが1名、まだ面接の必要性を感じないという理由で拒否となったケースは5名であった。評価面接に参加した5名のうち、PDDと暫定的に診断されたのは(PDD群と称する)4名で、対象全体の1.3%を占めた。その後、別ルートでフォローされているため、スクリーニングからはずれていた1名がすでに自閉症と診断を受け、あらたに評価面接を待機中となっている。このため、現時点でPDDが疑われるのは5名となり、全対象の1.6%に相当する。面接で非PDDと評価されたのは、1名であった。この1名は多動で、今後のフォローが必要と思われた。

1歳6か月健診時の各項目の不通過率と平均合計 FAIL 数の分析

表2. 1歳6か月健診時M-CHAT不通過率(%)

M-CHAT項目	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16	17	18	19	20	21	22	23		
1:6健診時 PASS群 (n=254)	0.4	0.0	1.2	0.4	2.4	0.0	0.0	68.5	0.0	1.6	14.6	0.0	0.0	0.0	0.0	0.4	2.4	2.4	0.0	0.0	15.4	0.0			
電話面接時 PASS群 (n=19)	0.0	5.3	0.0	0.0	21.1	0.0	5.3	73.7	10.5	0.0	21.1	0.0	5.3	0.0	15.8	0.0	26.3	5.3	26.3	0.0	0.0	26.3	68.4		
小FAIL群 (n=7)	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	42.9	42.9	0.0	0.0	0.0	0.0	14.3	0.0	0.0	0.0	0.0	28.6	14.3	0.0	14.3	71.4		
大FAIL群 (n=11)	0.0	18.2	9.1	0.0	27.3	36.4	36.4	54.5	45.5	9.1	18.2	0.0	18.2	0.0	0.0	0.0	0.0	18.2	18.2	0.0	18.2	9.1	36.4		
留守群+拒 否群 (n=23)	0.0	13.0	0.0	0.0	8.7	8.7	8.7	73.9	17.4	0.0	17.4	0.0	17.4	0.0	8.7	0.0	4.3	4.3	21.7	4.3	0.0	0.4	0.6		

表3. 1歳6か月健診時M-CHAT平均合計FAIL項目数

	全23項目	重要10項目	米国原版重要6項目	CHAT 9項目
1:6健診時PASS群 (n=254)	1.1	0.0	0.0	0.7
電話面接時PASS群 (n=19)	3.1	1.1	0.4	1.2
小FAIL群 (n=7)	2.3	1.4	0.6	0.9
大FAIL群 (n=11)	3.8	2.1	1.2	2.3
留守群+拒否群 (n=23)	3.1	1.3	0.7	1.3

表2に、第1段階 PASS 群、第2段階 PASS 群、大 FAIL 群、小 FAIL 群、留守群+拒否群の全5群について、1歳6か月健診時の M-CHAT 不通過率(%)を示した。表3には、全 23 項目、重要 10 項目、米国原版重要 6 項目、CHAT 原版的 9 項目、それぞれの平均合計 FAIL 項目数を示した。各群が 1 歳6ヶ月時点ですでに合計 FAIL 数の違いを示していたかどうかを調べるために、1 元配置の分散分析を行った。全 23 項目、重要 10 項目、米国原版重要 6 項目、CHAT 9 項目のそれぞれの合計 FAIL 数において、群による違いは統計的に有意であった(それぞれ $F = 122.8, p < .0001$; $F = 43.9, p < .0001$; $F = 32.1, p < .0001$; $F = 61.5, p < .0001$)。大 FAIL 群は、その他の 4 群と比べて、全 23 項目における合計 FAIL 数で有意に多かった。重要 10 項目においてもその他の 4 群より有意に多かった。ところが、米国原版重要 6 項目では拒否群と留守群を合わせた群より合計 FAIL 数は少なく、その他の 3 群とは有意な違いがみられなかった。また CHAT9 項目では、1歳6か月健診時 PASS 群と小 FAIL 群より合計 FAIL 数は有意に多かったが、他の 2 群とは有意差がなかった。

このことより、健診から1~2ヶ月後にPDDのハイリスク群と考えられる児では、M-CHAT全項目中そして重要10項目中の合計FAIL数が、1歳6ヶ月の時点ですでに他の群よりも有意に多いことが示された。1歳6ヶ月という早い時期に、親記入の M-CHAT を実施することの有効性を支持すると解釈される。

電話面接時の各項目の不通過率と平均合計 FAIL 数の分析

表4. 電話面接時M-CHAT不通過率(%)

M-CHAT項目	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16	17	18	19	20	21	22	23
PASS群 (n=19)	0.0	0.0	0.0	0.0	5.3	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	5.3	0.0
小FAIL群 (n=7)	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	14.3	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	14.3	0.0	0.0	0.0	0.0	0.0	85.7
大FAIL群 (n=11)	0.0	18.2	0.0	0.0	45.5	36.4	54.5	45.5	81.8	9.1	9.1	0.0	18.2	9.1	27.3	0.0	54.5	9.1	18.2	0.0	9.1	9.1	72.7

表5. 電話面接時M-CHAT平均合計FAIL項目数

	全23項目	重要10項目	米国原版6項目	CHAT 9項目
PASS群 (n=19)	0.2	0.0	0.0	0.1
小FAIL群 (n=7)	1.1	1.0	0.1	0.1
大FAIL群 (n=11)	5.4	3.3	2.1	2.8

表4には、電話面接時2回目 M-CHAT の不通過率(%)を第2段階スクリーニング結果の PASS 群、大 FAIL 群、小 FAIL 群について示した。表5には、全 23 項目、重要 10 項目、米国原版的な重要 6 項目、そして CHAT 9 項目中の平均合計 FAIL 項目数を群別に示した。これら 3 群は、電話面接時の M-CHAT 不通過項目数で群分けされているので、それらの平均が群で有意に異なるのは予想通りである(one-way ANOVA, それぞれ $F = 64.0, p < .0001$; $F = 52.6, p < .0001$; $F = 40.3, p < .0001$; $F = 64.0, p < .0001$)。多重比較の結果、重要 10 項目では大 FAIL 群は小 FAIL 群よりも($p < .0001$)、小 FAIL 群は PASS 群よりも有意に多い項目で($p < .05$) FAIL となっていた。全 23 項目、米国原版重要 6 項目、そして CHAT 9 項目においては、大 FAIL 群が小 FAIL 群や PASS 群よりも有意に FAIL 項目数が多かったために、群の主効果が生じた。小 FAIL 群と PASS 群の FAIL 項目数には差がなかった。

3. 項目分析

表6. 定型発達群とPDD群における各項目の通過/不通過人数比の比較

M-CHAT項目	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15	16	17	18	19	20	21	22	23
定型発達群	1	1	3	1	10	0	1	188	2	4	41	0	1	0	3	0	6	7	11	0	0	44	13
PDD群	0	0	0	0	1	2	3	3	3	0	1	0	1	0	1	0	0	1	1	0	1	0	0
人数比の群間比較						**	**		**				*								*		

* PDD群で定型発達群よりも不通過者の割合が有意に大きかった。(p < .05)
 ** PDD群で定型発達群よりも不通過者の割合が有意に大きかった。(p < .0001)

第1段階と第2段階でそれぞれ PASS となった群 (n=273)は、現時点では定型発達と考えられるので「定型発達群」とし、定型発達群と PDD 群とで、各項目における通過/不通過の比率が異なるかどうかについてカイニ乗検定を用いて調べた。その結果、表6に示したように、項目 6「要求の指さし」、項目 7「興味の指さし」、項目 9「共同注意、モノを見せる」、項目 13「模倣」、項目 21「言語理解」の 5 つにおいて、不通過者の人数比が異なり、PDD 群では定型発達群よりも有意に通過者に対する不通過者の割合が高いことが示された。 χ^2 値は、それぞれ 110.0, 123.1, 97.7, 26.5, 54.8 であった。項目 6、項目 7、項目 9 においては $p = .0001$ 水準で有意であり、項目 13、項目 21 においては、 $p = .05$ 水準で有意であった。これらの 5 項目は、すべて重要 10 項目と重複し、同様の結果が得られた。項目6の要求の指さしは前言語段階における象徴

機能を反映するとされ、項目21の言語理解と関連が深いと考えられる。項目7の興味の指さしは項目9のモノを見せると同様に、共同注意を反映するとされている。したがって、象徴機能、共同注意、模倣の諸要素における発達が PDD 早期徴候の候補として有望である可能性がある。今後、サンプル数を増やして確認する必要がある。

4. 判別分析

表7. 定型発達群とPDD群についての判別関数係数

	正準判別関数係数	PDD群 FAIL人数	定型発達群 FAIL人数
項目9	0.739	3	2
項目6	0.716	2	0
項目7	0.436	3	1
項目21	-0.370	1	0
項目18	0.324	1	7
項目23	-0.197	0	13

定型発達群と PDD 群で判別分析を行い、1歳6ヶ月の時点で M-CHAT23 項目が、児が2歳時点で PDD か非 PDD かを正しく判別しうるかどうかについて検討した。2群の人数比の差が大きいため事前確率を設定し、Wilks の λ によるステップワイズ選択法を用いて説明変数を選んだ。その結果、項目9「共同注意、モノを見せる」、項目6「要求の指さし」、項目7「興味の指さし」、項目21「言語理解」、項目18「常同行動」、項目23「社会的参照」の6つの説明変数が選定された。表7には、正準判別関数係数の絶対値の高い順に、PDD 群と定型発達群のそれぞれにおける FAIL の人数を示した。これらの判別変数は定型発達群の 99.3%を正しく判別し、PDD 群の 80.0%を正しく PDD と判別した。

これらの6項目中、手の常同行動を尋ねる項目18を除く5項目は重要10項目に含まれる。6項目中項目7「興味の指さし」と項目9「共同注意、モノを見せる」の2項目は、米国原版重要6項目と重複し、項目6「要求の指さし」、項目7「興味の指さし」、項目9「共同注意、モノを見せる」の3項目が CHAT9 項目と重複した。

項目18の常同行動は、臨床的に3歳未満の幼児にはみられにくいと考えられているが、PDD群の1名は、この項目に1歳6ヶ月時と1歳8ヶ月時の両方で一貫して不通過であったことより、生起頻度は高くないとしても、存在する場合は PDD の判別力が高い行動である可能性が示唆された。

5. PDD 群にみられた M-CHAT 結果の経時的変化

図4. PDDケースの重要10項目中合計不通過項目数の
 継時的変化

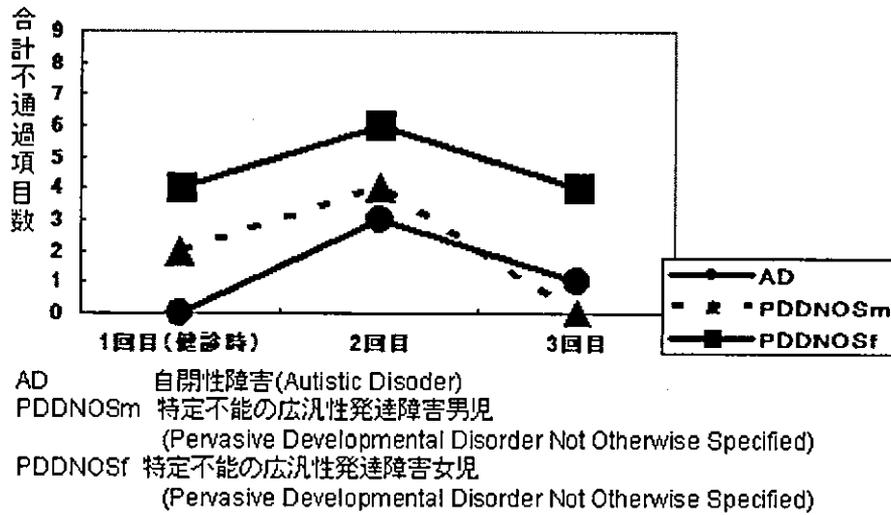


図5. PDDケースの全項目中合計不通過項目数の
 継時的変化

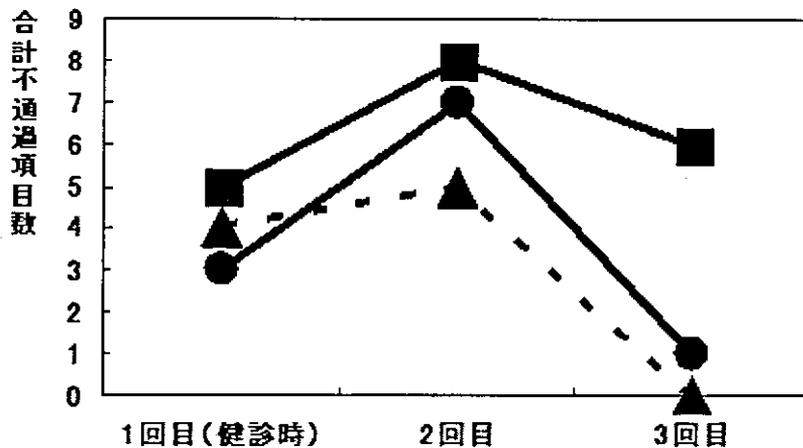


図4、図5には、PDD 群のうち、M-CHAT を異なる3時点でスコア化したケース(自閉性障害 (AD) 女児2名と男女各1名ずつの特定不能の広汎性発達障害(PDDNOS) 2名)について、不通過項目数が1歳6ヶ月から2歳までの間にどのように変化したかを示した。縦軸は不通過項目

の合計数を、横軸は時間軸を示す。ただし、児によって時間間隔は異なっており、同年齢を示すものではない。たとえば、A 児の 2 回目は 1:09 歳、3 回目は 1:11 歳であり、B 児は、2 回目が 1:08 歳、3 回目が 2:02 歳である。グラフが示すように、PDD 群の継時的変化は、初回よりも 2 回目で M-CHAT 得点が高くなり、3 回目に初回よりも M-CHAT 得点が下がるというパターンを示しており、定型発達群において 2 回目で得点が下がるのと比べて特徴的であった。

このような現象は以下のように解釈される。第 1 に、初回と 3 回目の差は、1 歳 6 ヶ月から 2 歳にかけて PDD 群がキャッチアップしたという説明が可能である。この説明は初回と 2 回目の違いを説明することはできない。第 2 に、M-CHAT の記入者は、初回は親で、2 回目は心理職もしくは保健師、3 回目は児童精神科医が担当したことの影響もあるかもしれない。すなわち、初回の親記入とそれ以降の専門家記入では、回答の精度が異なり、初回では実際には不通過である場合も、親の過小評価により通過とスコアしたために、全体に低い得点となったのかもしれない。この説明は、初回と 2 回目の違いを説明するが、初回と 3 回目の違いを説明することはできない。したがって、これらの両方の要因が関係していると考えられる。今回見られた継時的変化パターンが、より多いサンプルにおいても確認されるのであるならば、M-CHAT が最も PDD の特徴を反映するのは、1:06 歳から 2:00 歳までの間に専門職による記入という形式においてであるようだ。本研究で M-CHAT 導入時期を米国の研究よりも早い 1 歳 6 ヶ月にしたことは M-CHAT の有効性を増す可能性がある。1 歳 6 か月健診で粗くても広く拾っておき、そのうえで丁寧に電話面接を行うことにより、リスクの高い児のニーズを敏感に捉えることで、その後の援助の方向性が早い段階で明確になると思われる。

6. PDD ケース

半構造化面接での親からの聴取と、1 時間半に及ぶ自由遊びおよび半構造化遊び、発達検査などの所見を総合した結果、4 ケースが 1 歳 7 ヶ月から 2 歳 2 ヶ月の時点で PDD と暫定診断された。評価面接時にばらつきがあるのは、ケースの個人的事情によるものである。

一例を挙げる。Y 児はアスペルガー障害が疑われた。初回 M-CHAT では全項目中 2 項目で不通過、重要項目で 1 項目不通過であったが、電話面接時の 2 回目 M-CHAT では全項目での不通過は 3 項目に増えた。増えた理由は明らかではないが、児の変化というよりも質問紙では質問の意図が伝わりにくかったため、保護者が少なく評価したものと思われた。不通過であったのは項目 8 と項目 23 であった。Y 児の言語発達は早く、語のレパートリーもさほど偏りはなかった。1 対 1 の遊び場面での観察では、共同注意の一つの指標である指さし追従および視線追従は確

認された。一方で、人への反応は時折みられるが、モノの方に寄っていくことが多く、アニメは気に入ったものを繰り返しみたがったり、家にたくさんあるぬいぐるみや玩具よりも台所用品を叩いて遊ぶことが多いということであった。CARS 得点は 27.5 とカットオフの 30 点を下回っており、自閉症診断のカットオフより低い得点であったが、行動評価の結果、相互的な対人交流の希薄さや、興味や活動の反復的・限局的傾向が確認され、アスペルガー障害という暫定診断に至った。このように表面的には軽度である Y 児であるが、親に理解出来ない行動を母親が注意しても無視してわざとのように何度も繰り返すことなどから、母親は疲労困憊の状態が続いていると訴えた。母親は自発的に児の発達面の心配を訴えることはなかったものの、質問すると児の日常の行動特徴を実に的確に把握されており、全般的な行動面での不安や心配は明確に意識されてはいなくても深いものと察せられた。この児には、児の現在の関心や発達状況に見合った遊びを提案し、日常の接し方などの助言を行い、デイケア活動への参加を促した。とりわけデイケア活動は、児と母親の両者のニーズを満たし、現在継続中である。なお、確定診断には3歳での再評価が必要である。

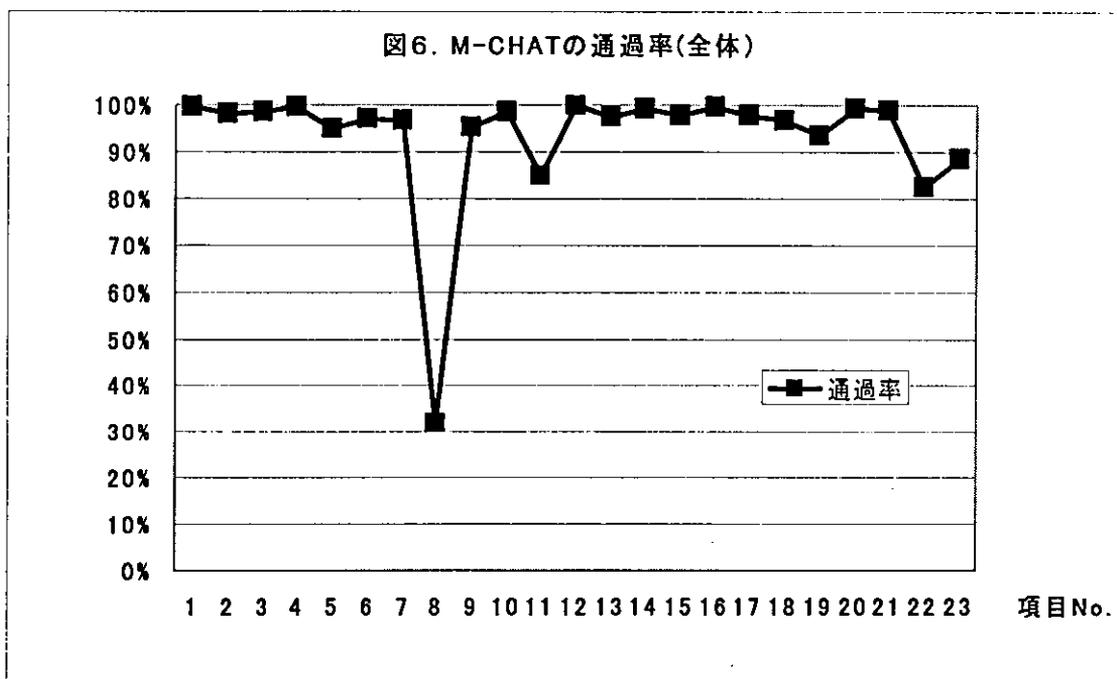
7. まとめ

学術的意義：1歳6ヶ月におけるPDDの早期兆候として、「共同注意」と「指さし」という前言語段階のコミュニケーション行動の重要性が明らかになり、CHAT を用いた研究結果と一致する。新たな知見として、「模倣」の重要性が示唆された。これらの学術的意義については今後症例数を増やして検討すべき課題である。

M-CHAT 日本語版の有効性：上記の結果により、項目内容、手続きの両者において、M-CHAT 日本語版は PDD、とりわけ HFPDD を早期に発見するツールとして有望であることがわかった。ただし、今年度で蓄積されたデータ数は少なく、一定の結論を引き出すには不十分であり、M-CHAT の有効性を実証的に検討するためには、今後のさらなる継続が必要である。また確定診断するには、3歳時において再評価する必要がある。したがって、真に M-CHAT の意義を評価するには、今後の検討を待つ必要がある。

保護者の視点：第1段階スクリーニングで拾い上げられたケースの約1/3は、現時点で定型発達と考えられた。彼らが偽陽性となった理由の一つは、図6に示すように、1歳6ヶ月時で項目8「クルマや積木などのおもちゃを、おもちゃに合った遊び方をしないで、口に入れたり、さわったり、落としたりして遊びますか？」に定型発達群の68.9%が失敗し、みせかけの不通過率を高めたと考えられる。その理由として、質問文の表現が誤解を生みやすく、当初意図した内容とは異なっ

て解釈されたためと考えられた。来年度以降は偽陽性率を低くするために、文言をわかりやすいものに改変して使用することとした。この時期の対人的行動は言語で表現するとわかりにくいものが多いので、一部に絵による説明も加えることで、回答者である保護者の負担を減らすことを試みる。一方、偽陽性のケースでも、第1段階で対人的行動に注意を促すことで、保護者の児をみる視点が変わり、ていねいに対人的行動を見守るようになったケースも経験している。このように児の社会的発達について、保護者が理解を深め、丁寧に見守り育てていく助けになる役割も果たしたのではないと思われる。また評価面接に参加した保護者に対しては、児の個別評価をフィードバックして、弱みだけでなく強みを伝えて、児に適切と思われる対応を児童精神科医が説明した。早期評価については診断名ではなく、このような具体的な説明を保護者が求めていることは後出の資料を参照されたい。



地域の保健業務との連携:異業種間で HFPDD についての認識の共有が重要であると考えられ、昨年度から継続して、基本的情報、早期発見と早期介入の意義と必要性、そしてそのために重要な専門的視点などについての研修を実施してきた。対象は、健診研究に携わる保健師、言語療法士、心理士、小児科医などである。彼らの研修へのニーズの高さは後出の資料を参照されたい。今年度は、ケースカンファレンス(児童精神科医、保健師、心理職が常時参加)を定期的に行ったり、随時連絡をとりあうことにより、情報を分散させず一つに統合し、総合的に適切と思われる処遇方針を検討した。短期的に見ると時間コストがかかったが、ケースの多面的な理解が得られ、サービスの質の向上につながると思われ、長期的視点からはむしろ効率的であろうと思

われる。実際 HFPDD が疑われるケースは、ひとりひとり発達経過や行動特徴が異なっていた。そして当然であるが、ニーズも異なった。発達早期には全般的遅れが目立っていてもその後に自閉症スペクトラム的行動特徴が目立ってくる場合もあり、処遇方針が経過に伴い方向転換する可能性も含め、最初の見立ては、常にアップデートされなくてはならない。そのためには、1 歳半健診で陽性となったケースは発達状況を評価しながらフォローを続け、常に最適な支援方法を検討し直す努力をする必要がある。そのために互いの視点の理解と共有に基づいた連携作業体制が重要となり、本研究のシステムはその連携を強化するのにも有用と思われた。

今後の 3 歳健診の活用について: 来年度は、3 歳健診において、2歳で PDD と暫定診断を受けたケースの確定診断を行い、また電話面接時に小 FAIL 群とされたケースや面接評価ができなかったケースの評価を行う予定である。小 FAIL 群の再評価を行うことで、1 歳半健診時点でのカットオフ値についての知見が得られ、また偽陽性や偽陰性ケースを発見することにより、M-CHAT のスクリーニング尺度としての感受性や特異性の検討が可能となる。偽陰性ケースが同定されれば、その要因を検討することで、本システムの限界と改良点が明らかとなるであろう。また、多様な発達経路を辿る PDD の病態についての理解を深めることにもなる。

さらに、PDD 診断が確定した児の保護者に対して、1 歳 6 か月健診以降電話面接や面接を行ってきたことへの振り返りを行う予定である。保護者の評価をフィードバックし、ニーズを反映した早期評価システムのマニュアル化と地域支援での確立に繋げていきたい。

謝辞

福岡の行政スタッフの皆様には、当初から一貫して真摯なご協力と惜みないサポートを頂いたおかげで、共同で作業を進めることができました。心より感謝いたします。また多くの出会うことのできた子どもたちとご家族の皆様にもたくさんのご教わりを頂きました。ここに深謝申し上げます。

文献

Baron-Cohen, S., Allen, J., & Gillberg, C. (1992): Can autism be detected at 18 months?

The needle, the haystack, and the CHAT. *Brit J Psychiat*, 161, 839-843.

Chakrabarti, S., & Fombonne, E. (2001): Pervasive developmental disorders in preschool children. *JAMA*, 285, 3093-3099.

Robins, D. L., Fein, D., Barton, M. L., & Green, J. A. (2001): The modified checklist for autism in toddlers: An initial study investigating the early detection of autism and

pervasive developmental disorders. *J Autism Dev Disord*, 31, 131-144.

Wong, V., Hui, L-H. S., Lee, W-C., Leung, L-S. J., Ho, P-K. P., Lau, W-L. C., et al. (2004): A modified screening tool for autism (Checklist for Autism in Toddlers [CHAT-23]) for Chinese children. *Pediatrics*, 114, 166-176.

付録. 1 M-CHAT 日本語版

お子さんの目頃のご様子について、もっとも質問にあてはまるものを○で囲んでください。すべての質問にご回答くださるようお願いいたします。もし、質問の行動をめったにしないと思われる場合は(たとえば、1、2度しか見た覚えがないなど)、お子さんはそのような行動をしない(「いいえ」を選ぶように)とご回答ください。

1. お子さんをブランコのように揺らしたり、ひざの上で揺ると喜びますか？ はい・いいえ
2. 他の子どもに興味がありますか？ はい・いいえ
3. 階段など、何かの上に登ることが好きですか？ はい・いいえ
4. イナイナイパーをすると喜びますか？ はい・いいえ
5. 電話の受話器を耳にあててしゃべるまねをしたり、人形やその他のモノを使って、ごっこ遊びをしますか？ はい・いいえ
6. 何かほしいモノがある時、指をさして要求しますか？ はい・いいえ
7. 何かに興味を持った時、指をさして伝えようとしますか？ はい・いいえ
8. クルマや積木などのオモチャを、オモチャに合った遊び方をしないで、口に入れたり、さわったり、落としたりして遊びますか？ はい・いいえ
9. おかあさんに見てほしいモノがある時、それを見せに持ってきますか？ はい・いいえ
10. 1、2秒より長く、おかあさんの目を見つめますか？ はい・いいえ
11. 音に過敏と思われる行動をしますか？(耳をふさぐなど) はい・いいえ
12. おかあさんがお子さんの顔をみたり、笑いかけると、笑顔で反応しますか？ はい・いいえ
13. おかあさんのすることをまねしますか？(たとえば、口をとがらせてみせると顔まねをしようとするか？) はい・いいえ
14. おかあさんが名前を呼ぶと、反応しますか？ はい・いいえ
15. おかあさんが部屋の中の離れたところにあるオモチャを