

ースの同定方法は、2つの系統的レビューでまとめられている(Fombonne, 1999; Williams, Higgins, & Brayne, 2006)。また、Honda et al.(2005)は、自身の研究と関連して先行研究のスクリーニングの方法と特徴についてまとめている。

#### 1) Fombonne (1999)のレビュー

Fombonne は、1966年から1998年までの自閉症を対象にした研究について23の研究を抽出し、スクリーニング、およびその後の詳しいアセスメントの方法を表にまとめている。分類項目として、スクリーニングについては用いたスクリーニング方法、情報提供元を、また、アセスメントについては対象人数、情報提供元、アセスメント方法、診断基準があげられている。それぞれについて見ていくと、まず用いたスクリーニング方法については様々であり、専門家への手紙についても単に自閉症に関する症状をいくつか記載したもの、診断チェックリストを非専門用語に直したものなど、研究により違いが見られた。他には、信頼性や妥当性が確認された質問紙や評価尺度による系統的なスクリーニングを行った場合もあった。情報提供元については、教師、言語療法士、親、カウンセラー、小児科医、精神科医、医師、母子保健クリニック、看護師、精神保健の専門家、管理データなどがあげられていた。アセスメントの対象人数の研究による幅は28人から423人であった(平均:133.7, 標準偏差:109.3)。アセスメントの情報提供元については、専門家、親、子ども、記録の4種類の組み合わせであり、全てを用いている研究は6研究のみで、後はいずれかの組み合わせまたは単独であった。アセスメント方法については、様々であり、管理データや診断記録のレビュー、質問紙や心理

検査、精神科面接などがあげられていた。診断基準は研究が行われた年によって変化があるが、Kannerの基準、Rutterの基準、DSM-III, Research Diagnostic Criteria, DSM-III-R, Childhood Autism Rating Scale, ICD-10があげられていた。

#### 2) Williams et al. (2006)のレビュー

Williams et al.は1966年から2004年までの自閉症、および自閉症スペクトラム障害を対象にした40の研究の研究について、有病率、また有病率に影響を及ぼす調査の方法、人口特性のメタ分析を行っている。その中でスクリーニングが行われた集団の種類と、スクリーニングの方法が分類されている。分類項目としては、スクリーニングの対象となった集団("すべての集団", "一般的な臨床現場", "特別な臨床/教育現場"), スクリーニングの方法("通常健康診断", "ケース疑いの者の紹介を依頼", "質問紙/面接", "記録")がある。それぞれの方法をとった研究数を数えると、スクリーニングの対象となった集団で多かった順に、"すべての集団"で23研究が、次に"一般的な臨床現場"で10研究、残りの7研究は"特別な臨床/教育現場"が該当した。また、スクリーニングの方法では、"記録", "ケース疑いの者の紹介を依頼"が14研究で同数、"通常健康診断"が6研究、"質問紙/面接"が4研究で最も少なかった。しかし、"ケース疑いの者の紹介を依頼"に関しては、ほとんどが2000年以前の研究であり、2000年以降では1研究でしか用いられていなかった。メタ回帰分析の結果、単変量モデルにおいてはスクリーニング方法の"ケース疑いの者の紹介を依頼"が"通常健康診断"に比べて低い有病率の推定(Odds Ratio[OR]=0.28 95% Confidence Interval[CI] 0.12 to 0.68)であったが、他の

予測因子を調整した多変量モデルでは、有意な予測因子として残らなかった。スクリーニングが行われた集団の種類はどちらのモデルにおいても有意な予測因子ではなかった。

### 3) Honda et al. (2005)のレビュー

Honda et al., (2005) は、1996年から2005年までに行われた自閉症の頻度に関する研究をレビューし、スクリーニングの方法と、発見されないケースを減らす方法の有無、発症 (incidence) の指標の有無、真度 (accuracy) と定度 (precision) の有無についてまとめている。研究対象が PDD または ASD だけのものを外して自閉症に特化しているためか、特に 2000 年以降の研究においては、スクリーニングの方法はコンピュータに登録されているケースから抽出している研究がほとんどであった。発症の指標の有無については、近年の研究においても、正確に発症指標を計算している研究はわずかであった。発見されないケースを減らす方法を取っている研究については 4 つのみであり、これは真度が確認されたということと同義である。こうしたレビューを踏まえた上で、著者らは、今後の研究では真度と定度がすぐれたスクリーニング方法を用い、有病率だけでなく累積罹患などの指標を用いていく重要性を指摘している。

## 2. 個別の主要な研究の紹介

### 1. 各調査におけるケース同定手法の概要 (Table)

#### 1) 臨床家への手紙による紹介とサンプリングを組み合わせた調査

Kadesjö(1999) は 1992 年の秋学期に Sweden 中心部の Karlstad に住んでいる 1985 年生まれで 6.7 から 7.7 歳の子ども (n=826) を対象に調査を行った。まず、

自閉症チームのコンサルタントである第一著者が、すべての育児相談所と Karlstad autism diagnostic and habilitation team に対し、対象集団の子どもについて、自閉症に関連した症状を持つ子どもの有無についてたずねる手紙を送った。同じ集団を対象にして、4 年後に自閉症ユニットに対し再度手紙が送られた。また、50%のサンプルである 409 名の子どもに対し、個別に小児科医である第一著者が診察した。各子どもについて少なくとも 1 名の親と教師に対しても第一著者が面接を行った。このうち、48 ヶ月経過後も学校に通っており、調査に同意した 365 名の子どもの教師を対象に Asperger syndrome and high-function autism screening questionnaire を用いてスクリーニングを行った。ASD の診断が疑われる全ての子どもの親に対し、一名の臨床心理学者により第一著者とは独立に ADI-R が行われた。自閉症スペクトラム、精神遅滞、境界知能の問題がある子どもについては知能テストが行われた。得られた情報を総合して、第一著者により診断がつけられた。

#### 2) 国の代表データによる調査

Fombonne et al.,(2001)の研究は、層化無作為抽出を用いた国の代表データによる自閉症に関する初めての調査である。この調査は英国で行われ、England, Wales, and Scotland において Child Benefit Register (CBR) に登録している 5-15 歳の子ども (n=6,422,202) をサンプリング対象とした (サンプリング率は約 90%をカバー)。このサンプリング枠をさらに、保健区域で層化し、さらにこれを社会人口統計学的変数で層化した。郵便番号による地域を、枠内の地域のサイズに比例する確率で無作為に抽出した。不平等なサンプリング確率を調整するために、分析

において重み付けを用いた。最終的に、8,265 の郵便地域から 475 地域が選ばれ、CBRにより各地域ごと 30 人の子どもを抽出し、参加依頼の手紙を送付した。14,250 家族に手紙が送付され、最終的に 12,529 家族がインタビュー対象となり、10,438 家族に面接が行われた。訓練された約 300 名の非臨床家の面接員が、構造化および半構造化面接を組み合わせた Development and Well-Being Assessment を用いて親に面接を行った。同意が取れた場合、11 歳から 15 歳の子どもに対しての面接も行った。面接終了時に、それぞれの子どもをよく知る教師を教えもらい、教師に手紙を送り Strengths and Difficulties Questionnaire(SDQ)の回答を求めた。SDQ は、親と子どもにも回答を求めた。診断はコンピューターアルゴリズムに基づいて決定されたが、後に経験のある臨床家による面接データの検討も行った。

3) 重みづけを用いて、調査の不参加のバイアスを考慮した調査

Baird et al., (2006)は、英国の South Thames の 12 地域で生まれた 9-10 歳の子ども 56,946 名を対象集団として設定し調査を行った。この研究ではケースの同定方法として、まず特別教育のニーズ登録簿を用いた。特別教育ニーズの statement がある者は、全てスクリーニングの対象とした。次に、地域の臨床家の協力を得て、対人・コミュニケーションの障害および ASD の診断があり、小児保健、および言語療法サービスを受けている子どもを探した。これらにより同定された子ども全員の親に Social communication questionnaire (SCQ)を用いてスクリーニングを行った。SCQ を返却した家庭の子どもに対し、2 要因(地域で把握されていた ASD 診断の有無×SCQ 得点の 4 水準)層化

無作為抽出を行い、抽出されたサンプルに対しさらなる臨床アセスメントを行った。またデータ解析においては、サンプリング割合の違いと、地域での ASD の診断の有無、子どもの性別による SCQ 返却割合の違いを考慮した重みを計算し、重み付けを考慮した解析を行った。

4) 地域で取り組まれている通常のスクリーニングによりケースを同定した調査

Chakrabarti & Fombonne(2001, 2005)は、2 つの研究報告において、英国の South Thames におけるそれぞれ異なった期間に生まれた子どもを対象に、同じケース同定手法を用いた広汎性発達障害の有病率を報告している。それぞれ、1992 年 1 月 1 日から 1995 年 12 月 31 日までに生まれ、1998 年 6 月 6 日に対象地域に居住している子ども 15,500 人、また 1996 年 1 月 1 日から 1998 年 12 月 31 日までに生まれ、2002 年 4 月 1 日に対象地域に居住している子ども 10,903 人を対象集団としている。サンプリング過程は 3 つのステージがあり、地域の子どもの発達センターを中心に行われた。なお、各ステージは地域のサービスで行われる通常のスクリーニング内容である。ステージ 1 では、定期健診や様々な保健医療サービスの場面で、小児科医、一般開業医、保健師、内科医、プライマリケアのスタッフ、言語療法士、その他の専門家らが、詳細なアセスメントの必要がある子どもを適宜子ども発達センターへ紹介した。ステージ 2 では、子ども発達センターへ紹介されてきた子どもに対し、発達小児科医、または子ども発達チームによって二次スクリーニングが行われた。一方で、二次スクリーニングを受けなかった子どもには多職種チームによる 2 週間アセスメントが行われた(ステージ 3)。これら 3 段階のスクリーニン

グにより、PDD が強く疑われた子どもに対し、The Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R)による面接が行われ、またPDDの診断がついた子どもは、心理検査が行われた。最終的な診断は、全てのデータを踏まえて、その子どもをよく知る小児科医により決定された。

5) 地域から多側面の情報源を用いてできるかぎりケースを集めた調査

Bertrand et al., (2001)は、1998年にBric Townshipに親が居住していた3歳から10歳の子ども(inflation factorを加えた推定で8896人)を対象に次の4つの方法を用いてASDに該当すると思われるケースを同定した。それぞれ1)学校の記録、2)個人クリニック(小児神経科、発達小児科など)の記録、3)地域の自閉症児の親グループによるリスト、4)メディアで宣伝した後、研究者のところへ親が自ら連れてきたケースを抽出した。このうち学校の記録、親グループ、自ら訪れた親、の経路により同定されたケースに対してさらに臨床的アセスメントを行った。臨床的アセスメントについては、2名の著者らにより2パートに分かれて以下の内容をアセスメントした。医学的アセスメント: Anthropomorphic measurements, 神経学的検査、病歴・発達歴の親からの聴取、心理学的アセスメント: Differential Abilities Scale, Vineland Adaptive Behavior Scales, 自閉症に特有のアセスメント: ADOS-G, Childhood Autism Rating Scale。最終的な診断は、すべての利用できるデータを踏まえたうえで、2名の臨床家の意見の一致をもとに決定した。

Baird et al.(2000)は英国 South East Thamesの10の保健区域における、12ヶ月出生コホートの子ども(n=40,818)を対象に調査を行った。(1)CHAT:年齢18ヶ

月時点でスクリーニングができた子ども16,235名(39.8%)にThe Checklist for Autism in Toddlers (CHAT)によるスクリーニングを実行した。ほとんどのケース(n=13,694: 84.3%)は18ヶ月の発達チェックの際に、プライマリケアの医療関係者により行われた。残りのケース(n=2,541: 15.7%)はCHATのセクションAと項目Bi, Bii, Bvについて、両親に直接郵送して返送してもらった。最初のスクリーニングで陽性であった子どもは、1ヵ月後に研究チームにより2回目のスクリーニングを行った。(2)Checklist for Referral:紹介へのチェックリスト:16,235名の子ども全員は、3歳半の時にChecklist for Referralによるスクリーニングを受け、12,770のチェックリストが返却された。内訳は、医療関係者によるスクリーニングが8,508名(66.6%)、親への質問紙の郵送が4,262名(33.4%)。すでに同定されていたケースをのぞき、22名が自閉スペクトラム障害により医療にかかっていた。自閉スペクトラム障害の疑いのある子どもは、研究チームによりアセスメントが行われた。(3)PDDQ:16,235名の子ども全員は、5歳半の時にthe Pervasive Developmental Disorders Questionnaire (PDD-Q)によるスクリーニングを受け、7,766(47.8%)のチェックリストが返却された。PDD-Qは直接親に郵送された。(4)臨床センターへの外部からの紹介:研究プロジェクトの期間に、スクリーニングを受けた集団の中から、多くの子どもが診断アセスメントのために地域のセンターへ紹介されてきた。(5)医療、教育、社会サービス、その他の記録:7-8歳時点で、研究チームにより知られていないが、地域の専門家より自閉スペクトラム障害の診断を受けた子どもについて、その地域

のチームにより討議された。特別教育ニーズの登録簿を精査し、特別学校のスタッフから情報を得て、ASDの可能性のある子どもを同定した。IQと言語のアセスメントは記録から得られた。それぞれの子どもの4-5歳時の記録は著者らの協議により分類された。このチェックで同定されたケースは、調査チームによる直接的なアセスメントは行われなかった。(1)-(4)の方法のスクリーニングで同定されたケースについて、調査チームが直接的にアセスメントを行った。臨床的、歴史的、心理測定学的証拠、ADI-Rの全ての利用できる情報を用いて、ICD-10による診断を行った。

#### D. 考察

##### 1. ケース同定方法についてのレビューからのまとめ

先行研究の多くは、2段階以上の手続きにより対象集団の中からケースを同定する方法をとり、主にスクリーニングの段階と、詳細なアセスメントによる診断の段階というように分かれている(Fombonne, 2005)。Fombonne(1999, 2003, 2005)のレビューによれば、これまでの研究で用いられてきたケースの同定法は、1)すでにあるデータベースを使う(Croen, Grether, Hoogstrate, & Selvin, 2002; Gurney et al., 2003), 2)教育・医療現場ですでに知られているケースのみ(Croen et al., 2002; Fombonne & du Mazaubrun, 1992; Fombonne, Du Mazaubrun, Cans, & Grandjean, 1997; Taylor et al., 1999; Treffert, 1970)か、3)ある特定の地域において広範囲に全人口を対象とし、通常の学級に通う子ども(Kadesjö, Gillberg, & Hagberg, 1999; Lotter, 1966), または発達健診を受けた子ども (Arvidsson et al., 1997;

Chakrabarti & Fombonne, 2001, 2005; Davidovitch, Holtzman, & Tirosh, 2001; Honda, Shimizu, Misumi, Niimi, & Ohashi, 1996; Sugiyama & Abe, 1989)からスクリーニングにより詳細なアセスメントを行う者を抽出するのかに分類ができる。これら3つの自閉症または自閉スペクトラム障害のケース同定方法は、研究が行われた年代によって用いられる方法が変化し、より大規模で、かつ効率よく正確なケース同定方法が取られるようになってきている。近年の特徴として、多段階でスクリーニングと詳しいアセスメントを行う研究では、調査の効率を高めるために、スクリーニングで陽性だった者全員に詳しいアセスメントをするのでなく、ここからさらに無作為抽出を行ってアセスメント対象者を絞ることが行われている。このような場合、解析に抽出デザイン、抽出比率を考慮した重み付け解析が必要となる。

##### 2. 主要研究ごとの特徴についての考察

1)のKadesjö(1999)の調査では、従来から用いられていたケース同定手法である、専門家へケースを紹介するよう手紙を送るという方法に加え、対象集団から50%の子どもを抽出し、全員に対して面接を行っている。その上、一定期間をあげ、教師に対してスクリーニング尺度を評定させるといったように、何段階ものスクリーニングを行っていることが特徴的である。2)のFombonneら(2001)の国を代表するサンプルの調査は、その規模の大きさから重要な調査であると考えられる。ケースと疑われる子どもを選び、詳しい臨床アセスメントをするといった他の調査と異なり、この研究は一般の子ども集団から無作為抽出したサンプル全員に診断面接を行っている。そのため、ケース

を見逃す可能性が少ない。また従来の調査は特定の地域で行われてきたため一般化に困難があったが、この調査では地域の違いの問題が解消されている。解析の際に重みを作成し、重みづけを考慮した解析を行っている点も推定を正確に行う上で重要な配慮である。3)の Baird ら(2006)の調査は、サンプリング対象集団として、特別教育のニーズ登録簿と、地域の臨床家からの紹介を組み合わせしており、その上でスクリーニング質問票を用いている。このように、複数の情報源を組み合わせることで、ケースの同定を十分に行うことが可能になると考えられる。さらにこの研究では地域で把握されていた ASD 診断の有無およびスクリーニング尺度得点を用いて 2 要因層化無作為抽出を行い、抽出されたサンプルについて臨床アセスメントを行っている。これは、全員に詳しいアセスメントをする労力をさげ、効率的な調査ができる工夫であると考えられる。4)の Chakrabarti & Fombonne(2001)の 2 つの方法論が同一だが出生年代が異なるサンプルを用いたそれぞれの調査は、地域で取り組まれている通常のスクリーニングを元にケースを同定している。こうした通常のスクリーニングシステムにより、ほとんどのケースが同定できる場合には、この方法は新しく調査を行うよりもコストがかからず、効率的な方法だと考えられる。5)の Bertrand ら(2001)の調査では、複数の異なる情報源を用いて、ケースの同定を試みている。また、クリニックでの診断がっていない子どもについては、研究チームにより詳しいアセスメントが行われている。こうした方法は、地域での自閉症スペクトラム障害のスクリーニングシステムが確立していない場合に特に有効な

手段であると考えられる。

自閉症または自閉スペクトラム障害の有病率に関する以上の先行研究からは、ある特定の地域を対象として広範囲に当該年齢の全人口を対象とし有病率を推定する方法論が最近の手法となっていることがわかる。特に、地域の臨床家、障害児学級、その他教育場面からの事例情報などのすでに把握されているケース情報と、一般の子供集団に対するスクリーニングによる情報の組み合わせで、より精度の高い有病率推定を行うことが主流となっている。また、スクリーニングに関しては、多段階スクリーニングと無作為抽出の組み合わせにより効率的にケースを同定する工夫が行われている。通常の学級に通う子どもと、すでに臨床的あるいは教育現場で事例として把握されている子供および一般の子供の双方を対象として、確立されたスクリーニング法を施行し、自閉症または自閉スペクトラム障害の有病率を推定することが現在の標準的な手法であると考えられる。

しかし、全ての子供からの代表サンプルの調査(Fombonne et al. 2001)以外では、これらの研究では、すでに把握されているケース以外の一般人口に対してはスクリーニングしてなかったり(Baird et al., 2006)、スクリーニング陰性者に対する診断面接は実施しなかったり(Baird et al., 2001)した研究が多く、これは通常、有病率の過小評価につながる。事例として把握されてなかったり、スクリーニング陰性であった者における自閉症または自閉スペクトラム障害の存在確率はかなり低いと考えられるため、大きな問題にならない可能性もあるが、その影響の大きさは今後検討される必要がある。なお、有病率 = [スクリーニング陽性者の割合

$-(1 - \text{特異度}) / [\text{感度} - (1 - \text{特異度})]$ と計算される。このため、スクリーニング方法の感度と特異度がすでに別の集団で検証されている場合には、それを当てはめることで当該集団における有病率を推定することができる。こうした方法で、情報を補完することで、低リスク集団に対する診断面接のコストを抑えながら、より確からしい推定を行うこともできる可能性がある。ただしこの方法では有病率の95%信頼区間を求めるためには、ブートストラップによる推定が必要になる。また求められている感度と特異度との信頼性が低い(95%信頼区間が広い)場合には推定が不正確になる可能性がある。

## E. 結論

本報告では、自閉症および自閉症スペクトラム障害の疫学研究に関するレビューおよび主要な研究論文を収集し、これまでの研究で使用されたケースの同定方法を整理し、考察を加えた。3つのレビューおよび5つの主要な研究からは、ある特定の地域を対象として、地域の臨床家、障害児学級、その他教育場面からの事例情報などのすでに把握されているケース情報と、一般の子供集団に対するスクリーニングによる情報を組み合わせ、より精度の高い有病率の推定を行うことが主流となっていた。また、スクリーニングに関しては、多段階スクリーニングと無作為抽出の組み合わせにより効率的にケースを同定する工夫が行われていた。通常の学級に通う子どもと、すでに臨床的あるいは教育現場で事例として把握されている子供および一般の子供の双方を対象として、確立されたスクリーニング法を施行し、自閉症または自閉スペクトラム障害の有病率を推定することが現在

の標準的な手法であると考えられる。しかし、一研究を除けば、すでに把握されているケース以外は調査対象としなかったり、あるいはスクリーニング陰性者に対する診断面接は実施しないことが多く、これは有病率の過小評価につながると考えられた。低リスク集団に対する診断面接のコストを抑えながら、より確からしい推定を行う方法論を検討する必要がある。

## F. 健康危険情報

該当せず。

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

該当せず。

### 2. 学会発表

該当せず。

## H. 知的財産権の出願・登録状況

該当せず。

## I. 引用文献

- Arvidsson, T., Danielsson, B., Forsberg, P., Gillberg, C., Johansson, M., & Kjellgren, G. (1997). Autism in 3-6-year-old children in a suburb of Goteborg, Sweden. *Autism, 1*(2), 163-173.
- Baird, G., Charman, T., Baron-Cohen, S., Cox, A., Swettenham, J., Wheelwright, S., et al. (2000). A screening instrument for autism at 18 months of age: a 6-year follow-up study. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry, 39*(6), 694-702.
- Baird, G., Simonoff, E., Pickles, A., Chandler, S., Loucas, T., Meldrum, D., et al. (2006). Prevalence of disorders of the autism spectrum in a population cohort of children in South Thames: the Special Needs and Autism Project (SNAP). *Lancet, 368*(9531), 210-215.

- Bertrand, J., Mars, A., Boyle, C., Bove, F., Yeargin-Allsopp, M., & Decoufle, P. (2001). Prevalence of autism in a United States population: the Brick Township, New Jersey, investigation. *Pediatrics*, *108*(5), 1155-1161.
- Chakrabarti, S., & Fombonne, E. (2001). Pervasive developmental disorders in preschool children. *JAMA*, *285*(24), 3093-3099.
- Chakrabarti, S., & Fombonne, E. (2005). Pervasive developmental disorders in preschool children: confirmation of high prevalence. *American Journal of Psychiatry*, *162*(6), 1133-1141.
- Croen, L. A., Grether, J. K., Hoogstrate, J., & Selvin, S. (2002). The changing prevalence of autism in California. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *32*(3), 207-215.
- Davidovitch, M., Holtzman, G., & Tirosh, E. (2001). Autism in the Haifa area—an epidemiological perspective. *Isr Med Assoc J*, *3*(3), 188-189.
- Fombonne, E. (1999). The epidemiology of autism: a review. *Psychological Medicine*, *29*(4), 769-786.
- Fombonne, E. (2003). Epidemiological surveys of autism and other pervasive developmental disorders: an update. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *33*(4), 365-382.
- Fombonne, E. (2005). Epidemiology of autistic disorder and other pervasive developmental disorders. *Journal of Clinical Psychiatry*, *66* Suppl 10, 3-8.
- Fombonne, E., & du Mazaubrun, C. (1992). Prevalence of infantile autism in four French regions. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, *27*(4), 203-210.
- Fombonne, E., Du Mazaubrun, C., Cans, C., & Grandjean, H. (1997). Autism and associated medical disorders in a French epidemiological survey. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, *36*(11), 1561-1569.
- Fombonne, E., Simmons, H., Ford, T., Meltzer, H., & Goodman, R. (2001). Prevalence of pervasive developmental disorders in the British nationwide survey of child mental health. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, *40*(7), 820-827.
- Gurney, J. G., Fritz, M. S., Ness, K. K., Sievers, P., Newschaffer, C. J., & Shapiro, E. G. (2003). Analysis of prevalence trends of autism spectrum disorder in Minnesota. *Archives of Pediatrics and Adolescent Medicine*, *157*(7), 622-627.
- Honda, H., Shimizu, Y., Imai, M., & Nitto, Y. (2005). Cumulative incidence of childhood autism: a total population study of better accuracy and precision. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *47*(1), 10-18.
- Honda, H., Shimizu, Y., Misumi, K., Niimi, M., & Ohashi, Y. (1996). Cumulative incidence and prevalence of childhood autism in children in Japan. *British Journal of Psychiatry*, *169*(2), 228-235.
- Kadesjö, B., Gillberg, C., & Hagberg, B. (1999). Brief report: autism and Asperger syndrome in seven-year-old children: a total population study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *29*(4), 327-331.
- Lotter, V. (1966). Epidemiology of autistic conditions in young children: I. Prevalence. *Social Psychiatry*, *1*, 124-137.
- Sugiyama, T., & Abe, T. (1989). The prevalence of autism in Nagoya, Japan: a total population study. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *19*(1), 87-96.
- Taylor, B., Miller, E., Farrington, C. P., Petropoulos, M. C., Favot-Mayaud, I., Li, J., et al. (1999). Autism and measles, mumps, and rubella



- vaccine: no epidemiological evidence for a causal association. *Lancet*, 353(9169), 2026-2029.
- Treffert, D. A. (1970). Epidemiology of infantile autism. *Archives of General Psychiatry*, 22(5), 431-&.
- Williams, J. G, Higgins, J. P., & Brayne, C. E. (2006). Systematic review of prevalence studies of autism spectrum disorders. *Archives of Disease in Childhood*, 91(1), 8-15.

表 各調査におけるサンプリング方法とその後の臨床アセスメントの一覧

著者	国	診断	対象	年齢	サンプリングの手順	ケースの同定方法
Kadesjö et al. (1999)	Sweden	ASD	1992年の秋学期にSweden中心部のKarlstadに住んでいる1985年生まれの子ども(n=826)	6.7-7.7 years	1) 自閉症チームのコンサルタントである第一著者が、すべての育児相談所とKarlstad autism diagnostic and habilitation team に対し、1985年に生まれKarlstadに居住している826名の子どもについて、自閉症に関連した症状を持つ子どもの有無についてたずね、手紙を送った。同じ集団を対象にして、4年後に自閉症ユニットに対し再度手紙が送られた。 2) 50%のサンプルである409名の子どもに対し、個別に小児科医である第一著者が診察した。各子どもについて少なくとも1名の親と教師に対しても第一著者が面接を行った。 3) 48ヵ月経過後も学校に通っており、調査に同意した365名を対象に、子どもの教師がスクリーニング尺度であるAsperger syndrome and high-function autism screening questionnaire に回答した。	4) ASDの診断が疑われる全ての子どもを観に、一名の臨床心理学者により第一著者とは独立にADi-Rが行われた 5) 自閉スペクトラム、精神遅滞、境界知能の問題がある子どもについて知能テストが行われた。 得られた情報を総合して、第一著者により診断がつけられた。
Fombonne et al. (2001)	UK;	PDD	England, Wales, and ScotlandにおいてChild Benefit Register (CBR)に登録している5-15歳の子ども(n=6,422,202)。このサンプリング枠は約90%をカバー	5-15 years	サンプリング枠をさらに、Regional Health Authorityで層化し、さらにこれを社会人口統計学的変数で層化した。郵便番号による地域を、枠内の地域のサイズに比例する確率で無作為に抽出した。不平等なサンプリング確率を調整するために、分析において重み付けを用いることにした。最終的に、8,265の郵便地域から475地域が選ばれ、CBRにより各地域ごと30人の子どもを抽出し、参加依頼の手紙を送付した。14,250家族に手紙が送付され、最終的に12,529家族がインタビュ対象となり、10,438家族に面接が行われた。	訓練された約300名の非臨床家の面接員が、構造化および半構造化面接を組み合わせたDevelopment and Well-Being Assessmentを用いて親に面接を行った。同意が取れた場合、11歳から15歳の子どもに対しての面接も行った。面接終了時に、それぞれの子どもをよく知る教師を教えてもらい、教師に手紙を送りStrengths and Difficulties Questionnaire(SDQ)の回答を求めた。SDQは、親と子どもにも回答を求めた。診断はコンピュータアルゴリズムに基づいて決定されたが、後に経験のある臨床家による面接データの検討も行った。

UK; South East Thames, England	ASD	South East Thamesの10 の保健区域 における、12 ヶ月出生コホ ートの子ども (n=40,818)の うち、年齢18 ヶ月時点でス クリーニング ができた子ど も(n=16,235; 39.8%)	7 years	<p>1) 16,235名(39.8%)にThe Checklist for Autism in Toddlers (CHAT)によるスクリーニングを、ほとんどのケース(n=13,694; 84.3%)は18ヶ月の発達チェックの際に、プライマリケアの医療関係者により行われた。残りのケース(n=2,541; 15.7%)はCHATのセクションAと項目Bi, Bii, Bvについて、両親に直接郵送して返送してもらった。最初のスクリーニングで陽性であった子どもは、1ヵ月後に研究チームにより2回目のスクリーニングを行った。</p> <p>2) 紹介へのチェックリスト: 16,235名の子ども全員は、3歳半の時にChecklist for Referralによるスクリーニングを受け、12,770のチェックリストが返却された。内訳は、医療関係者によるスクリーニングが8,508名(66.6%)、親への質問紙の郵送が4,262名(33.4%)。すでに特定されていたケースをのぞき、22名が自閉スペクトラム障害により医療にかかっていた。自閉スペクトラム障害の疑いのある子どもは、研究チームによりアセスメントが行われた。</p> <p>3) 16,235名の子ども全員は、5歳半の時にthe Pervasive Developmental Disorders Questionnaire (PDD-Q)によるスクリーニングを受け、7,766(47.8%)のチェックリストが返却された。PDD-Qは直接親に郵送された。</p> <p>4) 臨床センターへの外部からの紹介; 研究プロジェクトの期間に、スクリーニングを受けた集団の中から、多くの子どもが診断アセスメントのために地域のセンターへ紹介されてきた。</p> <p>5) 医療、教育、社会サービス、その他の記録: 7-8歳時点で、研究チームにより知られていないが、地域の専門家より自閉スペクトラム障害の診断を受けた子どもについて、その地域のチームにより討議された。特別教育ニーズの登録簿を精査し、特別学校のスタッフから情報を得て、ASDの可能性のある子どもを同定した。IQと言語のアセスメントは記録から得られた。それぞれの子ども4-5歳の時の記録は著者らの協議により分類された。このチェックで同定されたケースは、調査チームによる直接的なアセスメントは行われなかった。</p>	Baird et al. (2000)
UK; South Thames	PDD	July 1, 1990 から Dec 31, 1991 までに South Thames の12地域で 生まれた 56946名の子 どもで現在対 象地域に居 住している者	9-10 years	<p>1) 特別教育のニーズ登録簿から、特別教育ニーズのstatementを持つ者を全員スクリーニングの対象とした。またASDの診断がつく者を同定した。</p> <p>2) 地域の臨床家の協力を得て、対人・コミュニケーションの障害およびASDの診断があり小児保健、および言語療法サービスを受けている子どもを探索。これらにより同定された子ども全員にSocial communication questionnaire (SCQ)を用いてスクリーニングを、SCQを返却した家庭の子どもに対し、2要因(地域で把握されていたASDの有無・SCQ得点の4水準)層化無作為抽出を行い、抽出されたサンプルに対しさらなる臨床アセスメントを行った。</p>	Baird et al. (2006)
				<p>1)-4)の方法のスクリーニングで同定されたケースについて、調査チームが直接的にアセスメントを行った。臨床的、歴史的、心理測定学的証拠、ADI-Rの全ての利用できる情報を用いて、ICD-10による診断を行った。</p>	<p>ADI-R; ADOS-G; 知能検査、言語検査、適応行動アセスメント</p>

UK; Stafford shire, England  (2001) Chakrabarti and Fombonne	PDD	January 1, 1992 から December 31, 1995 に生ま れ, June 6, 1998 に対象 地域に居住し ている子ども (N=15500)	2.5-6.5 years	Stafford, Cannock, and Wightwick の子ども発達センター; stage1 から 3 まで は, 地域のサービスマンで行われる通常のスクリーニング内容; Stage1: 定期健診や様々な保健医療サービスの場面で, 小児科医, 一般開 業医, 保健師, 内科医, プライマリケアのスタッフ, 言語療法士(言語聴覚 士?), その他の専門家らが適宜子ども発達センターへ紹介 Stage2: 子ども発達センターへ紹介されてきた子どもに対し, 発達小児科 医, または子ども発達チームによる二次スクリーニングが行われた Stage3: 二次スクリーニングを受けなかった子どもには多職種チームによる 2 週間アセスメントが行われた。	Staged: PDD が強く疑われる子どもに対し, ADI-R が行われた; PDD があると診断された子どもに対し, the Wechsler Preschool and Primary Scale of Intelligence, the Merrill-Palmer tests が行われた; 最終的な診断はその子どもをよく知る小児科医 が, 全てのデータを踏まえたうえで決定した	Chakrabarti and Fombonne (2001)と同様
UK; Stafford shire, England  (2005) Chakrabarti and	PDD	Jan. 1, 1996 から Dec. 31, 1998 に生ま れ, April 1, 2002 に対象 地域に居住し ている子ども (N=10,903)	4-6 years	Stafford and Cannock の子ども発達センター; Chakrabarti and Fombonne (2001)と同じ方法		
US; Briek Townshi p, New Jersey  (2001) Bertrand et al.	ASD	1998 年のどの 時点でも関わ らず, Bric Township に 親が居住して いた 3 歳から 10 歳の子ども (inflation factor を加え た推定は N=8896)	3-10 years	ASD に該当すると思われる全てのケースを同定; 教育, サービスマン提供者の記録のレビュー: 1) 学校の記録, 2) 個人クリニック (小児神経科, 発達小児科などの記録), 3) 地域の自閉症児の親グループ によるリスト, 4) メディアで宣伝した後, 研究者のところに親が自ら連れてき たケース; このうち学校の記録, 親グループ, 自ら訪れた親, の経路により同定されたケ ースに対して臨床的アセスメントを行った。	2 名の著者らにより 2 パートに分かれて以下の内 容をアセスメント; 医学的アセスメント; Anthropomorphic measurements (擬人化測 定?), 神経学的検査, 病歴・発達歴の親からの聴取 心理学的アセスメント; Differential Abilities Scale, Vineland Adaptive Behavior Scales 自閉症に特有のアセスメント; ADOS-G, Childhood Autism Rating Scale	
最終的な診断は, すべての利用できるデータを 踏まえたうえで, 2 名の臨床家の意見の一致をも とに決定した。						

ASD, Autism Spectrum Disorder; PDD, Pervasive developmental disorder; ADI-R, the Autism Diagnostic Interview-Revised; ADOS-G, the Autism Diagnostic Observation Schedule-Generic

平成 20 年度厚生労働科学研究費補助金（こころの健康科学研究事業）

1 歳からの広汎性発達障害の出現とその発達の變化：

地域ベースの横断的および縦断的研究

#### 分担研究報告書

「不器用さ」の発達小児科学的評価方法の開発に関する検討

研究分担者 中井 昭夫(福井大学医学部病態制御医学講座 小児科学領域)  
研究協力者 川谷 正男 (福井大学医学部附属病院)  
研究協力者 吉澤 正伊 (福井大学教育地域科学部)  
研究協力者 三橋 美典 (福井大学教育地域科学部)  
研究協力者 平谷 美智夫 (平谷こども発達クリニック)

**研究要旨** 「不器用さ (Clumsiness)」と表現される協調運動の稚拙さは、嚥下・摂食、構音・発話から排泄・着衣など日々の生活や、バランスや姿勢制御を必要とする遊びや運動などを通じて子ども達の認知、学習、社会性、情緒の発達に影響を与えるとされている。また、臨床的に、広汎性発達障害 (PDD)、注意欠陥多動性障害 (AD/HD)、学習障害 (LD) などの発達障害に、「不器用さ」を併せもつ症例はよく経験される。これら「不器用さ」、「不器用な子 (Clumsy Child)」は、DSM-IV の発達性協調運動障害 (Developmental Coordination Disorder: DCD) に相当するとされるが、その質や程度について明確な基準はない。

本研究では、本邦における「不器用さ」「発達性協調運動障害」の発達小児科学的行動評価尺度の開発と標準化を行い、他の発達障害との関連の解明、新しい障害概念の提唱につなげることを目的とする。今年度は、多数の高機能広汎性発達障害例について「上野のチェックリスト」の不器用さに関する臨床的検討を行い、その多様性について明らかにした。また、カナダ・カルガリ大学やオランダ・グローニンゲン大学との共同研究にて、各々 Developmental Coordination Disorder Questionnaire (DCDQ'07) (保護者用)、Motor Observation Questionnaire for Teachers (MOQ-T) (教師用) の日本語版の作成と異文化への適応について検討を開始した。

今後これら DCDQ'07 と MOQ-T の我が国における標準化を行うと共に、子どもの「不器用さ」に関する国際比較、また、本班研究で用いられる、他の発達障害に関する質問紙により、障害相互の関連を検討することで、発達障害をカテゴリーではなく、スペクトル/ディメンションで捉え、子ども達の真の理解や乳幼児・就学前健診、教育現場での気づきや支援などにつなげていきたいと考えている。

## A. 研究目的

「不器用さ (Clumsiness)」と表現される協調運動の稚拙さは、口唇、舌、喉頭などの巧妙な協調による嚥下・摂食、構音・発話から排泄・着衣など日々の生活に始まり、バランスや姿勢制御を必要とする子どもの遊びや運動など社会的交流を通じての認知能力、学習、社会性の発達にも影響を与え、また、子どもたちのセルフエスティームを低下させる要因となるとされている。また、臨床的に、広汎性発達障害 (PDD)、注意欠陥多動性障害 (AD/HD)、学習障害 (LD) などの発達障害に、「不器用さ」を併せもつものが多く経験される。これら「不器用さ」、「不器用な子 (Clumsy Child)」は、DSM-IV の発達性協調運動障害 (Developmental Coordination Disorder: DCD)、ICD-10 の運動機能の特異的発達障害 (Specific Developmental Disorder of Motor Function) に相当するとされるが、国際的診断基準であるこの両者においても、その障害の質や程度について明確な基準はない。

本研究では、本邦における「不器用さ」「発達性協調運動障害」の国際的比較が可能な発達小児科学的行動評価尺度の開発と標準化を行うと共に、本厚生労働科学研究・研究班で使用される予定のすでに確立された、あるいは検討中の他の発達障害の評価尺度との関連、実際の臨床例における検討を行い、これら各障害相互の関連の解明、新しい障害概念の提唱、乳幼児・

就学前健診、教育現場での気づきや支援などにつなげることを目的とする。

## B. 研究方法

### 研究1：高機能広汎性発達障害と不器用さとの関連についての臨床的検討

「不器用さ」をアスペルガー障害の診断基準に入れるべきであると主張する研究グループもあり、また、スウェーデンの Gillberg らは、注意欠陥障害 (Attention Deficit Disorder) と運動知覚障害 (Motor Perception Dysfunction) を併せ持つ DAMP 症候群 (Deficit of Attention, Motor control and Perception) を提唱している。

しかし、本邦において「不器用さ」の評価方法も確立していないことから、実際の発達障害例での詳細な検討は少ない。

そこで、我々は、まず、保護者の同意を得られた IQ>85 の高機能広汎性発達障害 157 例について、上野一彦による「学習障害児の行動チェックリスト」(1987) の中で「不器用さ」に関する項目 5 項目を用い、協調運動に関する検討を行った。上野のチェックリストは学習障害を想定して作成されたもので 8 つのカテゴリー、30 項目からなり、保護者と担当教師が各々 3 段階で評価する。この中で、1) 手先が不器用、2) つま先/片足立ちが苦手、3) 歩行/走行が不自然、4) 協応運動が苦手、5) 書字が苦手、の 5 項目が「不器用さ」に関するものである。

保護者、担当教師両者から回答が得られた72例について、3段階評価の最大（よく思い当たる）とされたものについて検討した。

#### 研究2：発達性協調運動障害に関する国際的質問紙の日本語版作成と日本文化への適応の試み

現在、我が国において、子どもの「不器用さ」「発達性協調運動障害」に関して、これらを客観的に評価する指標はほとんどない。唯一、Henderson SEとSugden DAによるMovement Assessment Battery for Children (M-ABC)とそのチェックリストについて、辻井正次ら(1998)により日本語化が試みられているが、諸事情から正式には公開されておらず、またその後2007年にM-ABCそのものが大きく改訂された(M-ABC2)。近年、Developmental Coordination Disorder Questionnaire (DCDQ'07)(カナダ・カルガリ大学 Wilson BN)やMotor Observation Questionnaire for Teachers (MOQ-T)(オランダ・グローニンゲン大学 Schoemaker MM)が新しい評価基準として開発された。特にDCDQについてはすでに世界9ヵ国で翻訳が行われている。今回、両作成者から日本語版作成の許可を得ることができたので、DCDQ'07(保護者用)、MOQ-T(教師用)について、日本語版の作成と日本文化への適応について検討を開始した。日本語版の作成と異文化への適応にあたっては、国際的なガイドライン(Beaton DE, et.al. Spine

25:3186-91, 2000)に則り行った。

#### C. 研究結果

研究1：高機能広汎性発達障害157例のうち、「不器用さ」について評価可能であった72例について検討したところ、粗大運動発達の遅れは40%、微細運動発達の遅れは33%に見られた。また、上野のチェックリストにおける不器用さに関する項目では、手先が不器用(保護者評価26% 教師評価26%)、つま先/片足立ちが苦手(保護者6%、教師10%)、歩行/走行が不自然(保護者4% 教師7%)、協応運動が苦手(保護者32% 教師29%)、書字が苦手(保護者35% 教師28%)という結果であった。

研究2：国際ガイドラインに沿い、DCDQ'07、MOQ-Tについて、日本語版の作成を行った。専門家委員会による検討で、日本文化に合わせて、いくつかの文言や英語でよく用いられる慣用句を変更した。これら暫定版を用いて少人数での、プリテストを文部科学省と厚生労働省の連携により行われている「発達障害等支援・特別支援教育総合推進事業」での「グランドモデル事業」などの協力も得る事ができ、その準備を開始している。

#### D. 考察

高機能広汎性発達障害の中でも「不器用さ」「発達性協調運動障害」を併せ持つ例と、ない例が存在し、その多様性が示唆され、単純に臨床的経験か

らその診断基準に「不器用さ」を加えることには疑問もある。

今後、DCDQとMOQ-Tの日本語版の作成と標準化により、我が国における子どもの「不器用さ」「発達性協調運動障害」について、国際比較可能な評価尺度の確立を行うと共に、他の発達障害の評価尺度・質問紙も同時に施行することで、障害相互の関連の解明、新しい疾患概念の提唱、乳幼児・就学前健診、保育・教育現場での気づきや支援に繋がることが期待される。

## E. 結論

高機能広汎性発達障害においても「不器用さ」「発達性協調運動障害」の併存の有無があり、その多様性が示唆される。発達障害をカテゴリーではなくスペクトル/ディメンションで捉えるという本研究の目的のためには、我が国における「不器用さ」「発達性協調運動障害」の客観的評価基準を確立し、国際比較や、障害相互の関連、新しい障害概念の提唱が必要である。そのためにも、すでに海外で広く用いられているDCDQとMOQ-Tの日本語版の作成と標準化は不可欠と思われる。

## F. 健康危険情報 特になし

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

1) 川谷正男、中井昭夫、平谷美智夫  
初期言語発達遅滞の有無による高機

能広汎性発達障害の臨床的検討  
小児の精神と神経 48:225-234.2008.

2) 川谷正男、中井昭夫、平谷美智夫  
書字を苦手とする児童の背景因子に  
関する検討。  
脳と発達 40:S314.2008.

### 2. 学会発表

1) Nakai A, Yoshizawa M, Kawatani M,  
Wilson BN.

Cross-Cultural Adaptation of the  
Developmental Coordination Disorder  
Questionnaire 2007 (DCDQ'07) for  
Japanese Children.

The 8th International Conference on  
Developmental Coordination Disorder  
(DCD VIII)

Baltimore, MD, USA. 2009.

(accepted)

2) Nakai A, Yoshizawa M, Kawatani M,  
Schoemaker MM

The Development of the Japanese version  
of the Motor Observation Questionnaire  
for Teachers (MOQ-T).

The 8th International Conference on  
Developmental Coordination Disorder  
(DCD VIII)

Baltimore, MD, USA.2009.

(accepted)

## H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得：なし
2. 実用新案登録：なし



### Ⅲ. 研究成果の刊行に関する一覧表

研究成果の刊行に関する一覧表(1/2)

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書籍名	出版社名	出版地	出版年	ページ
稲垣真澄	17 発達障害, 3 学習障害	有馬正高(監修) 加我牧子, 稲垣真澄	小児神経学	診断と治療社	東京	2008	433-439
稲垣真澄, 加我牧子	17 発達障害, 1 診断の考え方	有馬正高(監修), 加我牧子, 稲垣真澄	小児神経学	診断と治療社	東京	2008	422-424
神尾陽子	自閉症の初期症状—言葉の遅れ・こだわりが強い・パニック. こどものこころの症状に気づいたら	奥山真紀子	ケーススタディこどものこころ	日本医事新報社	東京	2008	9-12
神尾陽子	今日の診断分類とその概念の変化	「精神科治療学」編集委員会	児童・青年期の精神障害治療ガイドライン, 精神科治療学 Vol.23 増刊号.	星和書店	東京	2008	8-12
神尾陽子, 田中康雄	行動評価	齊藤万比古, 宮本信也, 田中康雄	発達障害とその周辺の問題	中山書店	東京	2008	187-196
神尾陽子	第4章 ライフサイクルと社会精神医学, 第2節 乳幼児期.	日本社会精神医学会	社会精神医学	医学書院	東京	2009	144-149

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
稲垣真澄	支援に役立つ医学診断の進歩—脳波検査で測る認知機能—	発達障害研究	30	19-29	2008
稲垣真澄, 加我牧子	知的障害の判定とスポーツの動向	臨床スポーツ医学	25	595-600	2008
稲垣真澄, 井上祐紀	目で見る神経生理検査, AD/HD における事象関連電位 (1)	臨床脳波	50	696-701	2008

研究成果の刊行に関する一覧表( 2 / 2 )

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
稲垣真澄	発達障害の最近の考え方と 課題	小児科臨床	61	2337-2341	2008
Tsuchiya KJ, Matsumoto K, Miyachi T, Tsujii M, Nakamura K, Takagai S, Kawai M, Yagi A, Iwaki K, Suda S, Sugihara G, Iwata Y, Matsuzaki H, Sekine Y, Suzuki K, Sugiyama T, Mori N, Takei N	Paternal age at birth and high-functioning autism spectrum disorder in the offspring	British Journal of Psychiatry	193	316-321	2008

---

厚生労働科学研究費補助金（こころの健康科学研究事業）

1歳からの広汎性発達障害の出現とその発達の变化：  
地域ベースの横断的および縦断的研究  
平成20年度 総括・分担研究報告書

発行日 平成21（2009）年3月

発行者 「1歳からの広汎性発達障害の出現とその発達の变化：  
地域ベースの横断的および縦断的研究」 研究代表者 神尾 陽子

発行所 国立精神・神経センター精神保健研究所  
〒187-8553 東京都小平市小川東町4-1-1  
TEL：042-341-2712（6237） FAX：042-346-1979

---