

図2 話し合いボード

話し合いの進行に沿って希望者の名前チップを選択肢の下に貼っていく。右端の枠には話し合いで決定したジュースの写真を貼る。意見が対立した場合の対処法を書いたメモは、予め矢印の下に掲示しておく。

通らなかったときの気持ちの切り替えや、意見が通らなかった他者への向社会的行動⁹⁾をとることは、ASの人たちにとっては非常に難しい。この問題に対してわれわれは、療育者によるロール・モデル⁹⁾による対処を行った。話し合いの最中に、こどもたちの行動と感情に沿ったタイミングを逸さない介入を行うことが、実は療育者にとって最も重要な役割である。例えば、意見が通らなかったこどもに対して「残念だったね」、「こっちのジュースも美味しいよ」など、こどもが模倣しやすいシンプルなフレーズを用いた声のかけ方を実演してみせる。あるいは、こども同士の意見が対立しなかった場合であっても、療育者がピア役となって意図的にこどもたちと異なる意見を述べて意見の対立を生起させ、「意見が通らなかった人の感情」を具体的な態度で実演してみせる。これらの介入では、ASのこどもたちが相手の感情を理解できるかどうかや、思いやりの声かけを自発的に行うかどうかは問題としない。こどもたちが、話し合いでは自分の意見が通らない場合もあることを知り、意見が通らなかった他の人の存在に注目し、そういった人にひと声かける態度の大切さを知ることが重要なのである。

修正された仮説を検証するために、グループ2のこどもたちが4名揃って話し合いを行う初回の『4つのジュース』について、VTR記録をもとに

以下に示す。

4. 結果

こども同士でのテーブルの設定が済み、療育者が紙芝居の読み聞かせを終え、司会役としてEを指名すると、話し合いが始まった。Eは「4つのジュースから、多数決でひとつに決めます」と宣言した。全員が「いいです」と言うと、Eはひとりずつ順番に希望を訊き、「話し合いボード」に名前チップを貼り付けていった。GとHは「レモンジュース」を選んだ。Fは希望を聞かれると、「レモンジュースって、どういう味がするんだろう」と呟き、黙ってしまった。Gが「すっきりしていておいしい。あまりすっぱくない」と説明すると、Fは「じゃあ僕もレモンジュース」と決めた。療育者は希望を聞かれると「スポーツドリンク」と答えた。最後にEは、「僕は、レモンジュース」と言って名前チップを貼った。

Eは「一番多かったのは、レモンジュースです。レモンジュースに決めます。これでいいですか?」と皆に合意を求めた。療育者は「うーん…」と言って、肩を落とし、頭を抱えてみせた。こどもたちは「また飲めるよ」、「スポーツドリンクは飲んだらちょっとなあって味がするよ」と声をかけた。しかし、すぐに互いの発言の細部に反応し、スポーツドリンクを飲んだことがあるかど

うかに話題が逸れてしまった。療育者が「レモンジュースを飲んでみようかな」と言って会話を修正すると、Fが「僕も飲んでみよう」と言い、笑顔で手を挙げた。Eが「では、レモンジュースに決めます。これでいいですか?」と改めて全員に合意を求めた。全員が「いいです」と答えると、Eは「これで話し合いを終わります」と述べ、「話し合いボード」の中の決定したジュースを貼る欄にレモンジュースの写真を移動させた。こどもたちは全員で「やったー。決まり」と声をそろえ、拍手をした。

グループ2に対するCOSSTの基本コースが終了して4年が経過した。こどもたちは時に親の助けを受けながらも、この4年間に何度も自主的に集まっているとのことである。集まった際には、ファーストフード店などで「今度は皆でどこに行こうか」などと話し合っていることが、本人からも親からも報告されている。

5. 考察

研究2では、AS特有の心理特性に基づくメカニズムを想定し、それに配慮することによって集団で「合意する」ことを教えるプログラムの開発を行った。このプログラムのもと、グループ2のこどもたちは4名揃って話し合いを行った初回から、全員の合意に至ることができた。その経緯は、以下のように分析される。まず、話し合いの題材は、こども全員が共通して関心を持つことをねらって「休み時間に皆で飲むジュースを4種類からひとつに決める」とした。このねらいがこどもたちに浸透するのは容易であった。また、話し合いの手順とルールは最初に紙芝居を通じて全員で共有されており、司会役のこどもは予め多数決で決める方法について全員の合意を得てから話し合いを始めていた。さらに、話し合いのプロセスは図式化され、合意に至るまでリアルタイムで呈示されており、こどもたちが把握しやすかった。最後に、対立・葛藤状況が生じた際の具体的な対処法を療育者のロール・モデルを通じて予め学んでいたことにより、実際にそのような状況が生じたときにこどもたちは学んだ対処法を実行できていた。

この『4つのジュース』プログラムの開発にあたり、AS特有の精神病理の軽減あるいは解消という目標は棚上げにされた。むしろ特有の精神病理と心理特性の存在を前提として、それを利用した指導プロセスの工夫が施されている。視覚的構造化の手法が取り入れられているが、それがたんなる時間や物理空間といった環境の調整にとどまらず、話し合いの対人スキルという心理空間に向けた指導プロセスにまで及んでいることが特記される。ASの特性を利用することで、AS特有の習得プロセスを想定したソーシャルスキル獲得のプログラム開発が可能となる。

これまでASの人たちに対するソーシャルスキル訓練では、訓練場面で学んだスキルを日常場面に般化させることの困難が指摘されている⁸⁾。本プログラムでは、「話し合って合意に達する」という適応スキルが通常の人たちと同等の水準にまで高められるかどうか、あるいは日常生活のさまざまな状況に般化できるかどうかは一旦保留にしている。グループ2のこどもたちは、本プログラムの施行時にはASの精神病理と心理特性に配慮した条件下でようやく合意に達することができただけである。しかし4年経過した現在、ASのこどもたちが獲得した「合意する」スキルは、少なくとも限定されたメンバー同士であれば、療育者の関与なしでも、また時間と場所が変わっても、ある程度の般化が見られている。このような般化が可能となったのは、プログラム終了後もこどもたちが高い内発的動機づけ²⁾のもとに定期的集まり、話し合いで合意する習慣が定着したからである。『4つのジュース』プログラムによってある程度の般化が可能となる最大の要因は、話し合いの成功体験を通じて、話し合うことへの意欲や合意を尊重する態度を形成できることにある。

最後に、『4つのジュース』プログラムはいくつかの点で課題の難易度を調節することが可能である。今回は小学校高学年の学齢児に対して、選択肢のジュースを全員が好きな物ばかりにし、話し合いで意見が対立した場合であっても個々の不安や不満をある程度緩和できるような環境を設定したうえで「合意する」ことへの意欲や態度の形成を図った実践例を報告した。一方われわれは、

成人例に対しては選択肢をジュースに限定せず、また特定の者が苦手とする物や固執している物を事前に選択肢から除外しないことで、メンバー同士の対立・葛藤状況への具体的対処方法を学ばせるための実践も行っている。『4つのジュース』を基本形としたプログラムの適用年齢の範囲やバリエーションの検討、事前の評価方法や対立・葛藤状況への対処方法に特化した指導技術の開発については、今後の課題としたい。

IV. 結 論

2000年に開始されたCOSSTでは、2007年までの7年間に実施した基本コース26グループすべてにおいて『4つのジュース』を実施し、全グループで話し合いに成功しており、グループ1のように話し合いが破綻した例は一度も経験していない。参加した子どもたちは療育場面を通じて合意することの成功体験を重ね、療育終了後には地域の中でメンバー同士が自主的に集い、そこで様々なやり方で『4つのジュース』を応用した話し合いを続けているグループもある¹³⁾。ASの子どもたちにとって仲間と話し合っ合意に至る経験は、仲間づくりに対する肯定的な感情や動機を持たせる機会になっているかもしれない。そして、地域の中で社会参加や仲間づくりを促すことに対して、何らかの効果を発揮しているように思われる。

文 献

- 1) Baron-Cohen, S., Leslie, A.M. and Frith, U.: Does the autistic child have a "theory of mind"? *Cognition*, 21; 37-46, 1985.
- 2) Deci, E.L.: *Intrinsic Motivation*. Plenum, New York, 1975. (安藤延男, 石田梅男訳: 内発的動機づけ—実験社会心理学的アプローチ. 誠信書房, 東京, 1980.)
- 3) Eisenberg, N.: *The Caring Child*. Harvard University Press, London, 1992. (二宮克美, 首藤敏元, 宗方比佐子共訳: 思いやりのある子どもたち—向社会的行動の発達心理. 北大路書房, 京都, 1995.)
- 4) Frith, U.: *AUTISM: Explaining the Enigma*.

- Basil Blackwell, Ltd., Oxford, 1989. (富田真紀, 清水康夫訳: 自閉症の謎を解き明かす. 東京書籍, 東京, 1991.)
- 5) Honda, H. and Shimizu, Y.: Early intervention system for preschool children with autism in the community: the DISCOVERY approach in Yokohama, Japan. *Autism*, 6; 239-257, 2002.
- 6) Howlin, P.: *Autism: Preparing for Adulthood*. Routledge, London, 1997. (久保絃章, 谷口政隆, 鈴木正子監訳: 自閉症 成人期にむけての準備 能力の高い自閉症の人を中心に. ぶどう社, 東京, 2000.)
- 7) Howlin, P. and Yates, P.: The potential effectiveness of social skills groups for adults with autism. *Autism*, 3; 299-307, 1999.
- 8) Krasny, L., Williams, B.J., Provencal, S. et al.: Social skills interventions for the autism spectrum: essential ingredients and a model curriculum. *Child Adolesc. Psychiatr. Clin. N Am.*, 12; 107-122, 2003.
- 9) Liberman, R.P., DeRisi, W.J. and Musser, K.T.: *Social Skills Training for Psychiatric Patients*. Pergamon Press, Inc., New York, 1989. (池淵恵美監訳: 精神障害者の生活技能訓練ガイドブック. 医学書院, 東京, 1992.)
- 10) Mesibov, G.: Social skills training with verbal autistic adolescents and adults: a program model. *J. Autism Dev. Disord.*, 14; 395-404, 1984.
- 11) 宮下陸夫: 話し合い活動の学年目標. *児童心理*, 18; 1192-1198, 1964.
- 12) 文部科学省: 小学校学習指導要領解説 国語編. 東洋館出版社, 東京, 2008.
- 13) 日戸由刈, 清水康夫, 本田秀夫ほか: アスペルガー症候群のCOSSTプログラム—破綻予防と適応促進のコミュニティ・ケア—. *臨床精神医学*, 34; 1207-1216, 2005.
- 14) Ozonoff, S. and Miller, J.N.: Teaching theory of mind: a new approach to social skills training for individuals with autism. *J. Autism Dev. Disord.*, 25; 415-433, 1995.
- 15) Wimmer, H. and Perner, J.: Beliefs about beliefs: representation and constraining function of wrong beliefs in young children's understanding of deception. *Cognition*, 13; 103-128, 1983.
- 16) Wing, L.: Asperger's syndrome: a clinical account. *Psychol. Med.*, 11; 115-112, 1981.

Extraction and Refinement Strategy for detection of autism in 18-month-olds: a guarantee of higher sensitivity and specificity in the process of mass screening

Hideo Honda,¹ Yasuo Shimizu,¹ Yukari Nitto,¹ Miho Imai,¹ Takeshi Ozawa,² Mitsuaki Iwasa,¹ Keiko Shiga,³ and Tomoko Hira⁴

¹Yokohama Rehabilitation Center, Yokohama, Japan; ²Higashi-totsuka Child Developmental Clinic, Yokohama, Japan; ³Tsuzuki Public Health and Welfare Center, Yokohama, Japan; ⁴Midori Public Health and Welfare Center, Yokohama, Japan

Background: For early detection of autism, it is difficult to maintain an efficient level of sensitivity and specificity based on observational data from a single screening. The Extraction and Refinement (E&R) Strategy utilizes a public children's health surveillance program to produce maximum efficacy in early detection of autism. In the extraction stage, all cases at risk of childhood problems, including developmental abnormality, are identified; in the refinement stage, cases without problems are excluded, leaving only cases with conclusive diagnoses. **Methods:** The city of Yokohama, Japan, conducts a routine child health surveillance program for children at 18 months in which specialized public health nurses administer YACHT-18 (Young Autism and other developmental disorders CHeckup Tool), a screening instrument to identify children at risk for developmental disorders. Children who screen positive undergo further observation, and those without disorders are subsequently excluded. To study the efficacy of early detection procedures for developmental disorders, including autism, 2,814 children born in 1988, examined at 18 months of age, and not already receiving treatment for diseases or disorders were selected. **Results:** In the extraction stage, 402 (14.3%) children were identified for follow-up. In the refinement stage, 19 (.7%) of these were referred to the Yokohama Rehabilitation Center and diagnosed with developmental disorders. The extraction stage produced four false negatives, bringing total diagnoses of developmental disorders to 23 (.8%) – including 5 with autistic disorder and 9 with pervasive developmental disorder – not otherwise specified (PDDNOS). Sensitivity was 60% for autistic disorder and 82.6% for developmental disorders. Specificity for developmental disorders rose to 100% with the E&R Strategy. Picture cards used in YACHT-18 provided a finer screen that excluded some false positive cases. **Conclusions:** An extraction and refinement methodology utilizing child health surveillance programs achieve high efficacy for early detection of autism. **Keywords:** Autism, early detection, screening, sensitivity, specificity, pervasive developmental disorder.

It has been suggested that early intervention at preschool age contributes greatly to improved outcomes of autism, and accordingly, early detection is a major need in clinical practice. Sentiment has been favorable for early detection screenings for autism in routine health examinations for children (Tebruegge, Nandini, & Ritchie, 2004).

Much effort has been devoted recently to developing screening scales for early detection of autism spectrum disorders (ASDs). Baron-Cohen, Allen, and Gillberg (1992) developed the Checklist for Autism in Toddlers (CHAT), a screening tool for autism among 18-month-old children, in which lack of joint attention and pretend play are considered to be early behavioral markers specific to autism. Subsequently, several early screening instruments for autism, including variations of CHAT – such as M-CHAT (Robins, Fein, Barton, & Green, 2001) and Q-CHAT (Allison et al., 2008) were developed (Stone, Coonrod, & Ousley, 2000; Siegel, 2004; Wetherby &

Prizant, 2002; Gray & Tonge, 2005; Dietz, Swinkels, van Daalen, van Engeland, & Buitelaar, 2006; Swinkels et al., 2006; Reznick, Baranek, Reavis, Watson, & Crais, 2007; Bryson, Zwaigenbaum, McDermott, Rombough, & Brian, 2008).

Some of these screening instruments focus on efficacy using indices such as sensitivity and specificity. Sensitivity is the proportion of persons with a given disease that screen positive on the test: the lower the number of false negative individuals, the higher the sensitivity. Specificity is the proportion of persons without a given disease that screen negative: the lower the number of false positives, the higher the specificity. In a UK survey of 16,000 children at the age of 18 months, CHAT specificity for autism was 98%, and sensitivity was 38% which was not as high as expected (Baird et al., 2000).

Reports using other screening tools show a higher sensitivity than CHAT. Of these studies, however, one used a clinical sample of already-diagnosed individuals (Stone et al., 2000; Wong et al., 2004; Gray & Tonge, 2005) and another included high-risk

Conflict of interest statement: No conflicts declared.

© 2009 The Authors

Journal compilation © 2009 Association for Child and Adolescent Mental Health.

Published by Blackwell Publishing, 9600 Garsington Road, Oxford OX4 2DQ, UK and 350 Main Street, Malden, MA 02148, USA

children as subjects in the sample, thereby increasing prevalence (Robins et al., 2001; Wetherby & Prizant, 2002). Consequently, there are few studies that have conducted total population surveys without investigator manipulation of subject selection (Dietz et al., 2006). Some recent studies included children older than 18 months, which may artificially elevate sensitivity and specificity (Stone et al., 2000; Wetherby & Prizant, 2002; Gray & Tonge, 2005), or targeted children younger than 18 months, thereby possibly overlooking autistic children with regression (Dietz et al., 2006; Reznick et al., 2007). Thus, simple comparisons with CHAT are not possible. Furthermore, there are no fail-safe mechanisms to ensure that children identified as false negatives in the first screening are subsequently correctly diagnosed, and so sensitivity may be skewed higher.

Since only behavioral markers can be used in autism screening, it is difficult to ensure sufficiently high sensitivity and specificity using a single screening. Accordingly, the screening process must be strategically structured and the screening tool used effectively. Prior research has focused on early detection screening tools but has not considered strategy for screening implementation.

In a previous study, our screening for childhood autism in the routine health checkup for 18-month-old children conducted in Yokohama, Japan, yielded a sensitivity of 81% (Honda, Shimizu, Imai, & Nitto, 2005a). This figure is derived from a total population study conducted without manipulation of subject selection. Our screening was designed for early detection of developmental disorders including autism, but we cannot say that it is autism-specific compared to other scales. Even so, it is intriguing that it has such high sensitivity for autism.

This high sensitivity can be attributed to the strategic design of the process, from health examination for early detection to diagnosis of developmental disorders. There is no practical need to confine parameters solely to early detection of autism. In fact, the objective of the child health examination is to detect autism as well as other developmental disorders and childhood diseases and to identify as clearly as possible a broad range of child support needs, including parental child-raising concerns or practices, and link parents with the appropriate assistance.

We designed a practical new strategy, the Extraction and Refinement (E&R) Strategy, to enable early intervention in developmental disorders. The E&R Strategy is designed to, first, in the extraction stage, flag all children with even the slightest problem in order to reduce false negatives to a minimum; and second, to reduce false positives as much as possible in the refinement stage. Thus, the extraction stage is meant to yield high sensitivity without concern for specificity, and the refinement stage is designed to yield high specificity. The YACHT-18 (Young Autism

and other developmental disorders Checkup Tool: 18-month-olds' version) is a screening instrument used at the extraction stage.

Two conditions must be met for the E&R Strategy to be used successfully in the community care context. First, there must be not only early detection of developmental disorders, but also public childcare support services for the parents. The extraction stage initiates a variety of continuing childcare consultation services, and the refinement stage enables continuing observation of child health and development while also advising parents on child-raising issues. Because children with developmental disorders including autism are considered a high-risk group, parents may need child-raising guidance on issues such as avoiding child maltreatment. Accordingly, a clear, public framework for a childcare support system helps achieve high sensitivity and specificity in early screening for developmental disorders. This strategy is made possible by Yokohama's network of 18 public health and welfare centers (PHWC), established to conduct child health examinations and deliver additional child support services for a population of 3.6 million people.

The second requirement for successful implementation of the E&R Strategy is screener expertise. In Japan, the Maternal and Child Health Law stipulates that local governments conduct health examinations for infants and children. Accordingly, the city of Yokohama conducts free health checkups for 4-month-olds, 18-month-olds, and 3-year-olds at PHWCs in each of 18 wards and achieves an examination rate of over 90%. Public health nurses (PHNs) who administer health examinations are part of the centers' Children & Family Affairs Assistance Section and are highly specialized in providing child support services including early detection of developmental disorders. Their expertise guarantees quality data for research, and we believe that this accounts for the high sensitivity of the autism screening.

The objective of this research was to conduct a total population study to determine if the efficacy of early detection of autism improves by implementing the E&R Strategy at the health examination for 18-month-olds.

Methods

YACHT-18

YACHT-18, the screening tool used in the health checkup for 18-month-olds (HC-18m), consists of a questionnaire covering development of motor function, communication and social interaction, interviews with caregivers on pointing and language comprehension, and a specific examination of children using the picture card test by PHNs (Appendix). The criteria for evaluation of each item are established, but no clearly defined comprehensive process exists for evaluating the entire health

examination. Consequently, the process depends on the experience and keen perception of the PHNs.

E&R Strategy

We devised an original system model for early detection of, and intervention in, developmental disorders (Honda & Shimizu, 2002). In the model, the E&R Strategy is implemented by establishing the extraction stage, in which detection occurs using YACHT-18, and the refinement stage, as an interface linking the detection and diagnosis subsystems; cases subsequently determined to not have developmental disorders are excluded.

Within the area under Yokohama Rehabilitation Center (YRC) jurisdiction, early detection for autism takes place primarily in the PHWCs. Children with suspected disorders are then referred to the YRC outpatient clinic for diagnosis. Next, an early intervention program is provided in which children may participate throughout their preschool years.

The interface established between the detection and diagnosis subsystems in the YRC service area includes the follow-up after the HC-18m, the 'joint-clinic,' and the 'fail-safe' mechanism of the HC-18m to catch false negative cases (Figure 1).

The items covered in the follow-up at PHWCs after the HC-18m are as follows. PHNs initiate the follow-up with a telephone call or a home visit. Then, individual psychological consultations and a weekly group program for mothers and children are

introduced. Notably, in addition to supplementing the mass-screening program for children, the follow-up plays an important role in educating and assisting parents. Throughout the follow-up, PHNs and clinical psychologists in the PHWCs make a concerted effort to sensitize parents to their child's developmental abnormality, while at the same time providing psychological support. If necessary, mentoring relationships are encouraged by introducing parents to community groups supported by the Social Services Bureau of Yokohama and managed by parents whose children, ranging in age from infancy to adulthood, have developmental disorders.

Cases which require more specialized assessment than is offered at the PHWCs are considered at a 'joint-clinic,' held once a month at each PHWC. Participating in the joint-clinic are YRC staff consisting of a developmental psychiatrist, a clinical psychologist, and a social worker who team up with the PHNs. The team observes and assesses the child, interviews the parents, and formulates a plan. If it is strongly suspected that a child has a developmental disorder, the child is referred to the YRC.

The 'fail-safe' mechanism of the HC-18m is designed to catch false negative cases and refer them to YRC. This aspect of the system, consisting of a network of related facilities, has already been described (Honda & Shimizu, 2002). Some children with autism are false negatives or have not participated in the HC-18m. These children may be

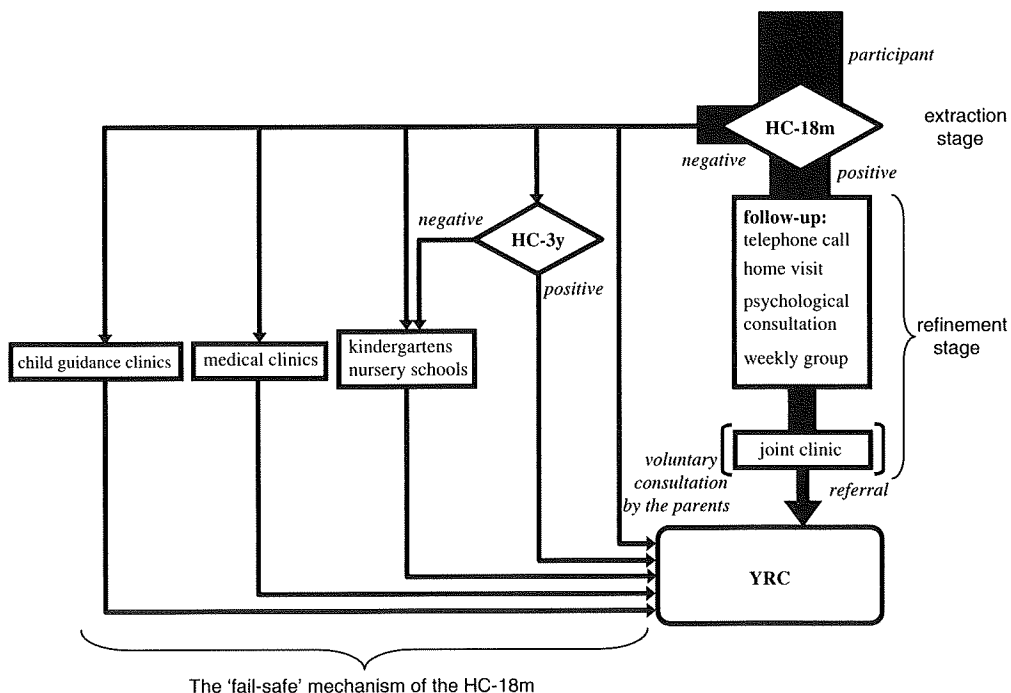


Figure 1 The E&R Strategy from early detection initiated in the HC-18m leading to referral to YRC, and Algorithm for fail-safe plan for false negative cases
 HC-3y: health checkup for 3-year-old children.

identified at the health checkup for 3-year-olds, which functions as another mass screening. Children may also be referred to YRC from kindergartens and nursery schools, other medical clinics, and child guidance clinics. The YRC offers programs to support these related facilities, including periodic supervision programs for kindergarten teachers to increase knowledge of developmental disorders. This 'fail-safe' mechanism ensures that this research obtains accurate sensitivity from YACHT-18 screenings.

Study subjects

The subjects for this study were 3,036 children who were born in 1988 and received the YACHT-18 screening during routine health checkups at the age of 18 months at the Yokohama Aoba PHWC. These subjects were taken from a previous survey conducted on incidence of autism (Honda, Shimizu, Misumi, Niimi, & Ohashi, 1996; Honda et al., 2005a). Of these, 222 children had already been diagnosed with some kind of disease or disorder for which they were being treated, and of this group, a pediatric neurologist or rehabilitation physician at the YRC was seeing five. The diagnoses of these five were Fukuyama-type congenital muscular dystrophy and mild mental retardation, mild mental retardation, cerebral palsy, Erb palsy, and pervasive developmental disorder – not otherwise specified (PDDNOS). The child with PDDNOS was examined for signs of delayed motor development at the age of 13 months by a pediatric neurologist, and after periodic monitoring was referred to a developmental psychiatrist for possible ASD at the age of 3 years and 1 month. Of the 3,036 18-month-old target subjects, 2,814 were determined to have no discernible disease or disorder. The study proceeded as follows with this group of 2,814 children.

Research procedures

We investigated how the E&R Strategy was implemented in the HC-18m by examining: 1) the numbers of children of the initial 2,814 who were identified for follow-up after the first YACHT-18 screening, 2) those referred to YRC after the follow-up period, 3) children who were identified as negative (for any disease or disorder), and 4) those later reclassified as false negatives. We calculated sensitivity to autistic disorder, sensitivity to developmental disorders, and specificity for developmental disorders as efficacy indicators. Practically speaking, because specificity for autistic disorder was not significant, we left it out. We also investigated how the study subjects' results on YACHT-18 items were related to the HC-18m overall examination results and diagnoses of developmental disorders. In actual examinations, the PHNs make a determination of pass or fail in a short period of time (seven or eight minutes) based on data from the screening

items. By articulating this as an information-processing model, we set up information-processing-based hypotheses for making highly accurate pass/fail determinations and studied the validity of the process.

Ethical approval for the study was given by the National Center of Neurology and Psychiatry, Japan.

Results

Efficacy of the E&R Strategy based on YACHT-18

From the target group of 2,814 children, 402 (14.3%) were identified in the extraction stage using YACHT-18. In the refinement stage, 19 (.7%) were referred to the YRC for examination with an average age of referral being 2 years and 11 months (SD = 11 months). All were diagnosed with developmental disorders, and none were found to be false positives.

There were 4 false negative cases of developmental disorders in the extraction stage; two were brought in by concerned parents and two were identified in the health examination for 3-year-olds. They were an average age of 4 years and 4 months (SD = 9 months) when referred to YRC, which is significantly older than the 19 cases that tested positive ($t = 2.85$, $df = 21$, $p = .01$).

Of the 2,791 children without developmental disorders, the extraction stage yielded a specificity of 86.3%, but after the refinement stage, specificity increased to 100%.

Breakdown of diagnosed cases of developmental disorders

Of the 3,036 total children screened for developmental disorders, five cases were recognized and diagnosed before the health examination at 18 months of age. Thus, a total of 28 cases out of 3,036 children initially screened were referred to YRC and diagnosed with various developmental disorders (Table 1).

Table 1 Diagnoses of developmental disorders and YACHT-18 results

Diagnosis	Referred	Positive	Negative	Total
	before YACHT-18	at YACHT-18	at YACHT-18	
Autistic disorder	0	3	2	5
PDDNOS	1	8	1	10
Learning disorders	0	1	0	1
AD/HD*	0	5	1	6
Mental retardation	2	2	0	4
Cerebral palsy	1	0	0	1
Erb's palsy	1	0	0	1
Total	5	19	4	28

*Including 1 transfer and 2 dropped from program before conclusive diagnoses.

Of the 23 cases definitively diagnosed with developmental disorders within the specified target group of 2,814, 17 cases were followed until age 6. These included: autistic disorder (5 cases), PDDNOS (9 cases), attention deficit/hyperactivity disorder (AD/HD) with borderline intelligence (2 cases), and learning disorders (1 case) (DSM-IV; APA, 1994). One case of AD/HD and two cases of mental retardation transferred out of the district before age 6, and three AD/HD cases dropped out while diagnosis was still inconclusive.

The incidence of autistic disorder of the target group of 2,814 children in this study was .18%, while the incidence of autistic disorder in the entire population of 3,036 children who underwent the HC-18m was .17%. This is consistent with incidence of autistic disorder reported in recent research, and leads to the assumption that all cases of autistic disorder in the cohort examined in this study were positively identified. However, when including all developmental disorders other than autism, there are 23 (.82%) of 2,814 cases, and 28 cases (.92%) of the total of 3,036, and thus it is conceivable that not all cases of developmental disorders were identified.

Sensitivity of YACHT-18

The sensitivity of YACHT-18 for the 5 cases of autistic disorder was 60%. Based on the Tanaka-Binet IQ test at age 5, sensitivity was 66.7% for 3 high-functioning cases with IQs of 70 or more and 50% for 2 low-functioning cases with IQs of 69 or less. The sensitivity was 82.6% for all 23 cases of developmental disorders. In terms of IQ, sensitivity was 86.7% for 13 of 15 cases with IQs of 70 or more and 75% for 6 of 8 cases with IQs of 69 or less.

One-fourth of children with ASDs are known to exhibit developmental regression, including that of

speech. This is consistent with survey results in Yokohama that are reported previously (Honda et al., 2005b). Among the target group, two cases of PDDNOS experienced regression in which initial speech development was completely lost. In both cases the regressive episode occurred between the age of 12 and 18 months, so they tested positive in the YACHT-18. No developmental regression was recognized in the five cases of autistic disorder. However, among the low-functioning group, one false negative child had begun speaking just before the HC-18m, and tested negative. However, at age 2½ years, the parents became concerned about developmental delay and took the child to see a specialist.

Microscopic E&R in the YACHT-18 process

To focus on the details of the data, first, we identified failures for each item on the YACHT-18 screening (Table 2). Of 14 total items, comprised of 11 questionnaire items, 2 interview items, and the picture card test, 11 items had a less than 5% failure rate. Items with a 5% or higher failure rate were the interview items on 'language' (8.4%), the questionnaire's 'pointing' items (11.1%), and the picture card test (38.5%). Next, we conducted simulation analyses to identify processes for using the YACHT-18 data to increase the efficacy of the developmental disorder screening. At this point, we focused on the picture card test because the failure rate was notably higher than other items.

We hypothesized that other items in the screening were useful in the extraction stage, while the picture card test was useful in the refinement stage. Therefore, for the purpose of the simulations, the 2,599 children who took the picture card test were divided into two groups. One group was composed of 22 children who were diagnosed with developmental disorders, including 5 with autistic

Table 2 Failure rate for each item

Item	A(n = 5)	P(n = 9)	O(n = 9)	T(n = 2791)	Total(n = 2814)
Questionnaire					
1 (walk)	1 (20%)	0 (0%)	1 (11.1%)	10 (.4%)	12 (.4%)
2 (climb stairs)	1 (20%)	2 (22.2%)	1 (11.1%)	58 (2.1%)	62 (2.2%)
3 (pencil)	1 (20%)	2 (22.2%)	1 (11.1%)	27 (1.0%)	31 (1.1%)
4 (spoon)	2 (40%)	0 (0%)	1 (11.1%)	47 (1.7%)	50 (1.8%)
5 (hold things)	0 (0%)	0 (0%)	1 (11.1%)	2 (.1%)	3 (.1%)
6 (point)	4 (80%)	6 (66.7%)	5 (55.6%)	296 (10.6%)	311 (11.1%)
7 (say words)	1 (20%)	6 (66.7%)	4 (44.4%)	99 (3.5%)	110 (3.9%)
8 (commands)	1 (20%)	1 (11.1%)	0 (0%)	8 (.3%)	10 (.4%)
9 (imitate)	0 (0%)	1 (11.1%)	1 (11.1%)	12 (.4%)	14 (.5%)
10 (interest)	2 (40%)	0 (0%)	0 (0%)	19 (.7%)	21 (.7%)
11 (look)	1 (20%)	1 (0%)	0 (0%)	10 (.4%)	12 (.4%)
Interview					
Pointing	2 (40%)	3 (33.3%)	6 (66.7%)	114 (4.1%)	125 (4.4%)
Language	3 (60%)	3 (33.3%)	6 (66.7%)	223 (8.0%)	235 (8.4%)
Test					
Picture Card	5 (100%)	8 (88.9%)	7 (77.8%)	1064 (38.1%)	1084 (38.5%)

A: autistic disorder; P: PDDNOS; O: other developmental disorders; T: typical development.

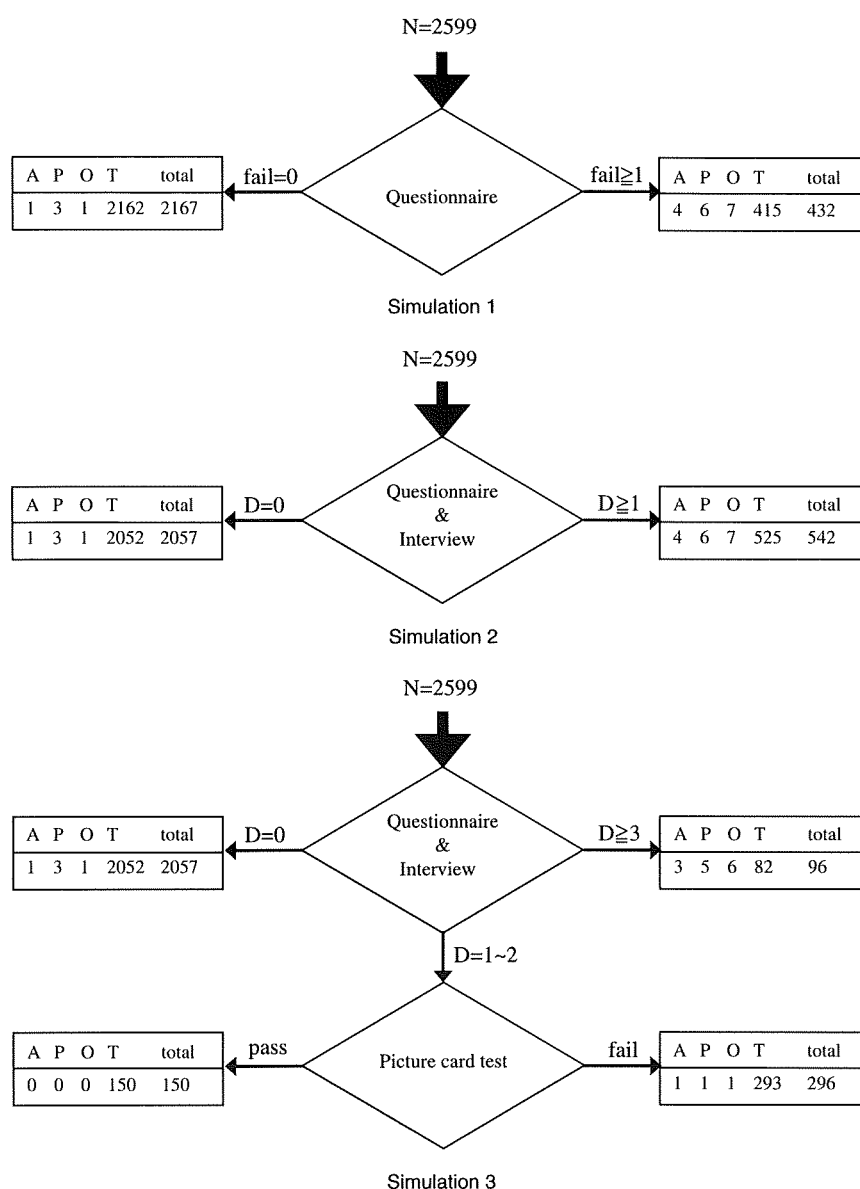


Figure 2 The results of the three simulations
 D: Numerical value obtained by combining (A) the number of failed items on the questionnaire, (B) results of 'pointing' items in the interview, and (C) the results of the language comprehension items.

disorder, and the other was composed of the 2,577 children who were not diagnosed with developmental disorders. We believe that all cases of autistic disorder were identified, but we have to recognize the possibility that some cases of other developmental disorders may have slipped through the screen. However, for the purpose of the simulations (based on the YACHT-18 items), we consider the 22 cases of developmental disorders as being the total number, and so are designating the percentage of these cases recognized as positive in the simulations as 'sensitivity to developmental disorders.' We refer to the percentage of the remaining 2,577 children who were recognized as negative in the simulations as 'specificity for developmental disorders.'

Figure 2 shows the algorithms and results of the three simulations conducted in this research.

The evaluation criteria for Simulation 1 included the responses to 11 items in the YACHT-18 questionnaire related to motor development, language, and social interaction where one or more failed items indicated a positive case. Sensitivity for autistic disorder was 80%, sensitivity for developmental disorders was 77.3% and specificity for developmental disorders was 83.9%.

The evaluation criteria used in Simulation 2 were the results of both the questionnaire and the interview. The letter 'A' represents the number of failed questionnaire items out of 11 total. Next, for the four interview items related to 'pointing,' 'B = 1' represents cases yielding two or more failed items, and

Table 3 Simulation analyses

Simulations	Sensitivity for autism	Sensitivity for developmental disorders	Specificity for developmental disorders
(1)	80%	77.3%	83.9%
(2)	80%	77.3%	79.6%
(3)	80%	77.3%	85.4%
PHN	60%	82.6%	86.3%

'B = 0' represents one or fewer failed items. On the two language comprehension interview items, 'C = 1' represents cases with one or more failed items and 'C = 0' represents zero failed items. With 'D' being the sum of A, B, and C ($D = A + B + C$), we tried setting a cutoff score for $D = 1$. Sensitivity for autistic disorder was 80%, sensitivity for developmental disorders was 77.3%, and specificity for developmental disorders was 79.6%.

In Simulation 3, the refinement process was implemented using the results of the picture card test added to Simulation 2. If $D = 0$, the comprehensive determination on YACHT-18 is 'pass.' If $D = 3$ or more, the case is flagged, and if $D = 1$ or 2, the case passes if the child successfully passes the picture card test, but is flagged if the picture card test is failed. Sensitivity for autistic disorder was 80%, sensitivity for developmental disorders was 77.3%, and specificity for developmental disorders was 85.4%.

Simulation analyses 1, 2, and 3 were compared with actual screening results produced by PHNs (Table 3). Compared to Simulation 1, the number of children identified increased in Simulation 2, thus specificity for developmental disorders declined. Of the three, Simulation 3 increased specificity for developmental disorders the most by excluding children who passed the picture card test, in that only the 150 children who did not have developmental disorders passed through the screen.

In screenings conducted by PHNs, sensitivity for autistic disorder was lower, but sensitivity for all developmental disorders, including autism, and specificity for definitively excluding all children with no possibility of developmental disorders were higher than in the three simulations.

Discussion

A macroscopic E&R process, beginning with the extraction stage at the HC-18m that continues over a span of several months, is implemented together with a microscopic E&R process initiated at the time of the HC-18m checkup, using the YACHT-18 examination items.

First, we will consider the macroscopic E&R process. The screen sensitivity for autistic disorder was

60%. The figures for the present study may seem low. However, sensitivity was 81% for children with autism identified in an epidemiological survey of autism whose target population was 35,716 children (Honda et al., 2005a). The subjects of the present study are taken from that population. This was a total population study conducted with no manipulation of subject selection to include high-risk subjects, and so the precision may be low. In the extraction stage, specificity for developmental disorders was 86.3%, and in the refinement stage, it rose to 100%. This demonstrates the exceptional utility of the E&R Strategy. The fact that the age of referral to YRC of true positive cases recognized at the HC-18m was significantly younger than false negative cases confirms that the system of early detection of developmental disorders through the HC-18m makes a major contribution to implementing early interventions.

The only prior research on the efficacy of early detection of autism among 18-month-olds was a total population study using CHAT conducted without subject selection manipulation; however, the sensitivity was unexpectedly low (Baird et al., 2000). This is not because CHAT has low utility as a research tool, but may be due to relying on only one screening. The reason that other screening instruments cannot be compared with ours is that the age of the subjects differs or the studies were not conducted on total populations free of manipulation of subject selection.

Developed for research purposes, other screening instruments are narrowly focused on early detection of autism. Even if their specificity to childhood autism was high, simply excluding with certainty all cases other than childhood autism shifts the focus away from useful clinical purposes. Because the goal is to pass all cases of developmental disorders except autism, the opportunity to identify these cases is lost. From a clinical perspective, it is extremely important to conclusively exclude cases with no developmental disorders. Accordingly, practical indices for studying screening efficacy are sensitivity for autistic disorder, sensitivity for developmental disorders, and specificity for developmental disorders.

Next, we will evaluate the microscopic E&R process. When we look specifically at the failure rate on YACHT-18 items, the high failure rate (38.5%) on the picture card test is noteworthy. When abnormality is suspected due to failure on this item, nearly 40% of the children are flagged. We hypothesized that this item can be utilized as a microscopic refinement tool. This hypothesis was consistent with the perceptions of the administering PHNs. In a simulation using actual examination data of children whose inconclusive questionnaire and interview results placed them in the gray zone, it was discovered that those who tested negative after the picture card test did not

include any cases of developmental disorders. By excluding these children, specificity for developmental disorders increased approximately 6%.

The problem with considering only questionnaire data is the issue of caregiver error due to superficial or mistaken understanding of the questions or inability to accurately discern the child's developmental characteristics. This is addressed in the interview by the PHN who monitors and records the caregiver's answers while confirming comprehension of and correct answers to the questions. This research did not find any difference in sensitivity to developmental disorders between the questionnaire data and the combined questionnaire and interview data. This is because children who failed none of the items on the questionnaire did not have additional failures from the interview. However, perhaps this result is related to the small size of the target population. Fifteen years of screening experience demonstrate that the interview items often increase total failed items. It is therefore presumed that this is a highly effective process in which the failures from the interview questions are added to those of the questionnaire in order to detect even the slightest abnormality; then in the refinement stage, the picture card test excludes cases in the gray zone.

Moreover, results of the PHN screenings for sensitivity and specificity for developmental disorders were better than in our simulations. This is undoubtedly related to the highly skilled screening staff. Many current diagnostic tools for autism (e.g., ADI-R; Lord, Rutter, & Le Couteur, 1994) designed for clinical and research purposes are investigator-based. The average person will have difficulty distinguishing between abnormal and normal behavior in areas of social interaction and communication that are affected by ASD, and it is extremely difficult to create questionnaires such as those used in the fields of psychiatry and psychology that elicit a simple 'yes' or 'no' answer from the respondent. Accordingly, professionals must be equipped with knowledge of autism and skills to implement a tool effectively (Rutter et al., 1988). The same can be said for early detection screening tools. There is a limit to how well a screening tool can be constructed to detect subtle abnormalities in the social interaction and communication of infants and children. When highly specialized professionals use a tool in a clinical situation, it is the skill with which they use the tool that enables them to identify children with suspected developmental disorders. Even when a screening tool includes behavioral markers characteristic of autism, if users do not have training or knowledge of autism, they may not be able to apply the tool effectively. This research is strongly dependent on a care

system and on highly skilled screening teams available in the city of Yokohama.

YACHT-18, even with the microscopic E&R Strategy, produces false negatives, and we may assume two reasons for this technical limitation. First, during the extraction stage, specialists do not observe the children. Both the questionnaire and the medical interview items require parental responses, so cases with $D = 0$ at this stage unequivocally test negative. Second, YACHT-18 focuses more on developmental delay than developmental deviance, and so at 18 months of age, children with developmental disorders who do not exhibit developmental delay may pass the screen. This group of children is composed of those with ASDs who regress after 18 months of age and those high-functioning children who have PDDNOS.

Going forward, two steps must be taken. First, comprehensive, prospective research must be conducted in specific communities using our macroscopic and microscopic E&R Strategy to determine its validity. Second, educational programs on developmental disorders including ASD must be developed for health professionals who conduct community public service programs for early detection of developmental disorders.

Conclusion

We recommend that a community care system using screening tools targeting all developmental disorders at the health examination for 18-month-olds, followed by further testing and follow-up during the refinement stage, be implemented at the local governmental level in other communities. Most importantly, local government must ensure that education about developmental disorders and training in the use of screening tools is provided. If this occurs, it will be possible for even more children with developmental disorders and their families to benefit from early intervention measures. This will also certainly facilitate the advancement of research on autism.

Acknowledgement

This study was funded by the Japanese Ministry of Health, Labor, and Welfare.

Correspondence to

Hideo Honda, Yokohama Rehabilitation Center, 1770 Toriyama-cho, Kohoku-ku, Yokohama 222-0035, Japan; Tel: +81-45-473-0666; Fax: +81-45-473-0956; Email: honda@yokohama.email.ne.jp

Key points

- For early detection of autism, it is difficult to maintain an efficient level of sensitivity and specificity based on observational data from a single screening.
- An innovative approach called the Extraction and Refinement (E&R) Strategy is proposed.
- The Extraction Stage is designed to increase sensitivity. In the Refinement Stage, a follow-up program implemented by the public childcare system raises specificity.
- Microscopic E&R Strategy: By including 'pointing' items (which have low pass rates) in the screening tool, false positives from the first screening are reduced.

References

- Allison, C., Baron-Cohen, S., Wheelwright, S., Charman, T., Richler, J., Pasco, G., & Brayne, C. (2008). The Q-CHAT (Quantitative CHECKlist for Autism in Toddlers): A normally distributed quantitative measure of autistic traits at 18–24 months of age: Preliminary report. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *38*, 1414–1425.
- American Psychiatric Association. (1994). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders (DSM-IV)* (4th edn). Washington, DC: Author.
- Baird, G., Charman, T., Baron-Cohen, S., Cox, A., Swettenham, J., Wheelwright, S., & Drew, A. (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*, 694–702.
- Baron-Cohen, S., Allen, J., & Gillberg, C. (1992). Can autism be detected at 18 months? The needle, the haystack, and the CHAT. *British Journal of Psychiatry*, *161*, 839–843.
- Bryson, S.E., Zwaigenbaum, L., McDermott, C., Rombough, V., & Brian, J. (2008). The Autism Observation Scale for Infants: Scale development and reliability data. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *38*, 731–738.
- Dietz, C., Swinkels, S., van Daalen, E., van Engeland, H., & Buitelaar, J.K. (2006). Screening for autistic spectrum disorder in children aged 14–15 months. II: Population screening with the early screening of autistic traits questionnaire (ESAT). Design and general findings. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *36*, 713–722.
- Gray, K.M., & Tonge, B.J. (2005). Screening for autism in infants and preschool children with developmental delay. *Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, *39*, 378–386.
- Honda, H., & Shimizu, Y. (2002). Early intervention system for preschool children with autism in the community: The DISCOVERY approach in Yokohama, Japan. *Autism*, *6*, 239–257.
- Honda, H., Shimizu, Y., Imai, M., & Nitto, Y. (2005a). Cumulative incidence of childhood autism: A total population study of better accuracy and precision. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *47*, 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*, 228–235.
- Honda, H., Shimizu, Y., & Rutter, M. (2005b). No effect of MMR withdrawal on the incidence of autism: A total population study. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, *46*, 572–579.
- Kleinman, J.M., Robins, D.L., Ventola, P.E., Pandey, J., Boorstein, H.C., Esser, E.L., Wilson, L.B., Rosenthal, M.A., Sutura, S., Verbalis, A.D., Barton, M., Hodgson, S., Green, J., Dumont-Mathieu, T., Volkmar, F., Chawarska, K., Klin, A., & Fein, D. (2008). The Modified Checklist for Autism in Toddlers: A follow-up study investigating the early detection of autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *38*, 827–839.
- Lord, C., Rutter, M., & Le Couteur, A. (1994). Autism Diagnostic Interview–Revised: A revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *24*, 659–685.
- Reznick, J.S., Baranek, G.T., Reavis, S., Watson, L.R., & Crais, E.R. (2007). A parent-report instrument for identifying one-year-olds at risk for an eventual diagnosis of autism: The First Year Inventory. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *37*, 1691–1710.
- 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. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *31*, 131–144.
- Rutter, M., Le Couteur, A., Lord, C., MacDonald, H., Rios, P., & Folstein, S. (1988). Diagnosis and subclassification of autism: Concepts and instrument development. In E. Schopler, & G. Mesibov (Eds.), *Diagnosis and assessment in autism* (pp. 239–259). New York: Plenum Press.
- Siegel, B. (2004). *Pervasive Developmental Disorders Screening Test – II (PDDST-II)*. San Antonio: Harcourt.
- Stone, W.L., Coonrod, E.E., & Ousley, O.Y. (2000). Brief report: Screening tool for autism in two-year-olds (STAT): Development and preliminary data. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *30*, 607–612.
- Swinkels, S.H.N., Dietz, C., van Daalen, E., Kerkhof, I.H.G.M., van Engeland, H., & Buitelaar, J.K. (2006). Screening for autistic spectrum in children aged 14 to 15 months. I: The development of the Early Screening of Autistic Traits Questionnaire (ESAT). *Journal of Autism and Developmental Disorders*, *36*, 723–732.
- Tebbrugge, M., Nandini, V., & Ritchie, J. (2004). Does routine child health surveillance contribute to the early detection of children with pervasive developmental disorders? An epidemiological study in Kent, UK. *BMC Pediatrics*, *4*, 4.

Wetherby, A., & Prizant, B. (2002). *Communication and symbolic behavior scales developmental profile – first normed edition*. Baltimore, MD: Paul H. Brookes.
 World Health Organization. (1993). *The ICD-10 classification of mental and behavioural disorders: Diagnostic criteria for research*. Geneva: Author.

Wong, V., Hui, L.H., Lee, W.C., Leung, L.S., Ho, P.K., Lau, W.L., Fung, C.W., & Chung, B. (2004). A modified screening tool for autism (Checklist for Autism in Toddlers [CHAT-23]) for Chinese children. *Pediatrics*, 114, e166–e176.

Manuscript accepted 21 October 2008

Appendix

YACHT-18 (Young Autism and other developmental disorders CHeckup Tool: For 18-month-olds) questionnaire, interview questions and picture card test

Questionnaire

1. Can your child walk?	Well / Not well (less than 5–6 steps)
2. Can your child climb stairs holding your hand?	Yes / No
3. Can your child scribble with a pencil?	Yes / No
4. Can your child eat with a spoon or fork by him/herself?	Yes / No
5. Can your child hold things between thumb and forefinger?	Yes / No
6. Does your child point to pictures in a familiar picture book, when asked?	Yes / No
7. Can your child say words with meaning? (List about 4 examples:)	Yes / No
8. Does your child follow simple commands?	Yes / No
9. Does your child imitate people?	Yes / No
10. Is your child interested in other children?	Yes / No
11. When you call your child, does he/she look at you?	Yes / No
12. Do you have any worries concerning your child's vision? ()	Yes / No
13. Do you have any worries concerning your child's hearing? ()	Yes / No
14. Do you have any other worries or questions? ()	Yes / No

Interview questions

Pointing

1. Does your child point to indicate objects, etc.?
2. Does your child point and say the name of objects, etc.?
3. Does your child point at objects (other than pictures), when asked, 'Which one is the ~?'
4. When asked to identify body parts, does your child indicate by pointing?

Language comprehension

1. When asked to throw something away, can your child go to the wastebasket and throw it away?
2. When asked to throw something away, can your child throw it away and return afterwards?

Picture Card Test

Pass – if the child points to two or more (of six) pictures correctly; fail – if one or zero are pointed to correctly.

広汎性発達障害の早期介入

—コミュニティケアの汎用システム・モデル—

本田 秀夫^{*,**}

抄録：わが国各地で広汎性発達障害の早期介入を促進するために必要なコミュニティケアの汎用システム・モデルを示すとともに、最近の筆者らの研究から得られた新しい実践の方法論を紹介した。発見から診断までを担う DISCOVERY モデルでは、早期であるがゆえに避けられない不確実さに対応するためのインターフェイスの設置がシステムづくりのポイントとなる。早期発見の方法論として、乳幼児健診を活用して最大限の精度を保証する「抽出・絞り込み法」を紹介した。治療を担う CHOICE は多軸モデルを特徴とし、治療論においては幼児期からの計画的な集団化の意義が強調される。最後に、良質な早期介入を今後推進する上で、発達精神医学を基盤とした地域活動拠点を整備することの必要性について述べた。

精神科治療学 24(10) ; 1203-1210, 2009

Key words : *pervasive developmental disorders, autism, early detection, early intervention, generalized system model*

はじめに

広汎性発達障害 (pervasive developmental disorders : 以下, 「PDD」) の支援において, 早期介入がきわめて重要な意義をもつことが近年とくに強調されている。「介入」を「置かれている状況

になんらかの影響を与えるような専門家による関与」という意味で用いるならば, 広義の早期介入とは「早期発見, 早期診断, 早期治療にいたるまでの専門家による関与全般」を指すことになる²⁾。

本稿では, 今後全国各地において PDD の早期介入を促進していくために必要なコミュニティケアの汎用システム・モデルについて述べる。筆者らは, 横浜市において発達障害に対する早期介入のコミュニティケア・システムを構築, 運営してきた¹⁾。筆者らが担当する地域では, 乳幼児健診を活用して高い精度で発達障害のスクリーニングが行われている。子どもたちの実に4.6%が就学前に横浜市総合リハビリテーションセンター (以下, 「YRC」) の発達精神科でなんらかの発達障害と診断され, 早期療育を受けるだけでなく, 学齢期以降も定期的なフォローアップを受けている。1989年以降は高機能広汎性発達障害の早期療育プログラムの開発も行っており, 当時早期療育

Early intervention for preschool children with pervasive developmental disorders : a generalized system model in community-care.

*横浜市総合リハビリテーションセンター / **横浜市西部地域療育センター

[*〒222-0035 神奈川県横浜市港北区鳥山町1770 / **〒240-0035 神奈川県横浜市保土ヶ谷区今井町743-2] Hideo Honda, M.D., Ph.D. : *Yokohama Rehabilitation Center, 1770, Toriyama-cho, Kohoku-ku, Yokohama-shi, Kanagawa, 222-0035 Japan. / **West Yokohama Habilitation Center for Children, 743-2, Imai-cho, Hodogaya-ku, Yokohama-shi, Kanagawa, 240-0035 Japan.

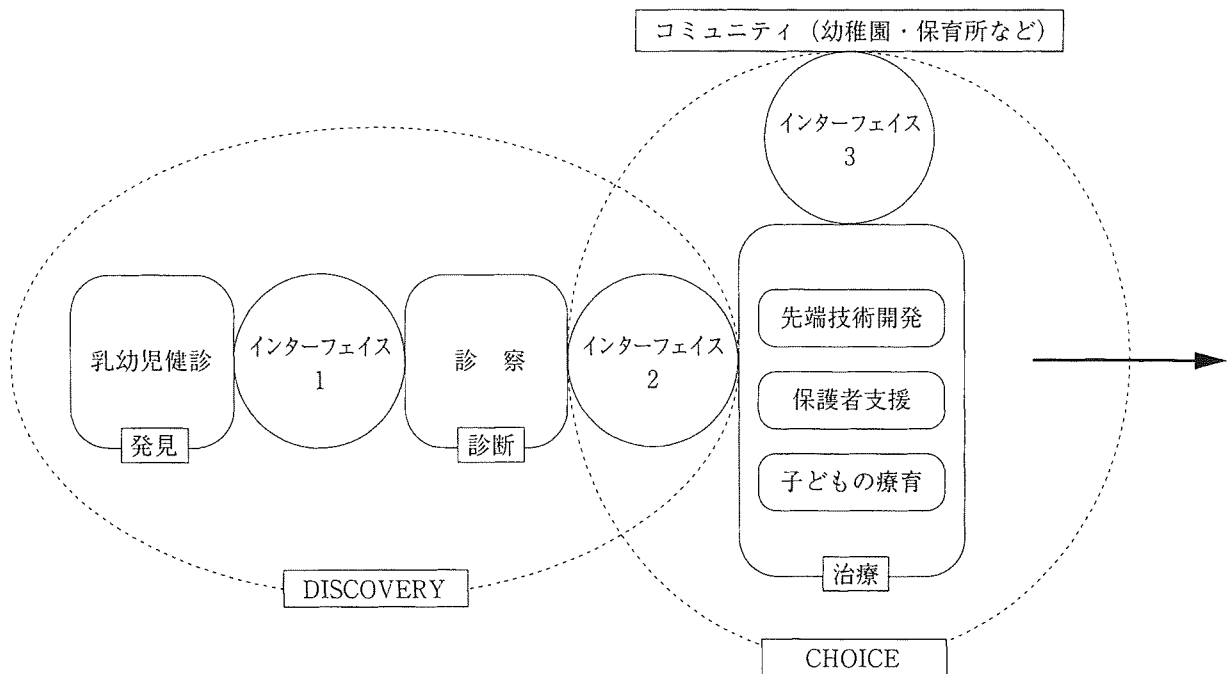


図1 早期介入の汎用システム・モデル

導入部分に相当する「DISCOVERY」と本格的な介入を担う「CHOICE」からなる。

を受けた子どもたちはすでに成人期までフォローアップされている。こうした経験を国内のさまざまな地域に汎化させていくためには、地域特性によらない汎用システム・モデルが必要となる。本稿では、早期発見から早期診断を経て本格的な早期介入にいたるまでの汎用システム・モデルを紹介する(図1)。また、それぞれのモデルのなかで行われる実践について、最近の筆者らの研究から得られた新しい方法論を紹介する。

I. 早期発見に始まる早期介入への導入

1. DISCOVERY モデル

早期発見は、早期であるがゆえに避けられない不確実さをともなう。まず診断の「早さ」と「正確さ」との間に存在する二律背反の関係であり、次に介入に対する当事者の動機づけの難しさである。さらに、「発見」、「診断」、「治療」のサブシステムを担う機関が互いにどのような形で連携をとるのかが具体的に明示されることがほとんどないことも、不確実さのひとつといえる。

これに対して、不確実さそのものに特異的に対

応する固有の装置を設けるという解決法がある。不確実さを無視したり排除したりするのではなく、それ自体を真正面から対象として扱う独立したステップを設定するのである。これはシステムの視点からみると、主要なサブシステムの間をつなぐ継時的インターフェイスである。筆者らが考案したDISCOVERY¹⁾は早期介入への導入に関するシステム・モデルであり、上記の不確実さに対処するためのインターフェイスを設定していることが特徴である(図1)。

「発見」と「診断」をつなぐ「インターフェイス1」では、スクリーニングで避けることのできない偽陽性例や偽陰性例への対応を行う²⁾。また、子どもの発達の問題に対する保護者の気づきと介入を受けることに対する動機づけを行い、診断の場へのスムーズな移行を促す機能を持たせる。「診断」と「治療」をつなぐ「インターフェイス2」では、診断・評価を精緻化すると同時に、治療への導入をはかる。

2. スクリーニングの新しい方法論

1) 抽出・絞り込み法

PDDのスクリーニングでは、特異的な早期の生物学的マーカーが同定されておらず、仮説的な行動学的マーカーを用いざるを得ない。また、実用的には標的をPDDに狭く設定する必要はない。乳幼児健診で支援の対象となるのは、発達障害、小児期の身体疾患、保護者の育児不安、不適切な養育などさまざまなものがある。乳幼児健診の目的は、これらの育児支援ニーズをできるだけ広く明らかにしてその後の適切な支援につなげることであり、特定の障害だけに標的を絞って診断をすることにとどまるべきではない。

筆者らはこれらの点をふまえ、実用的な発達障害のスクリーニングを可能とするための新しい戦略を考案した。「抽出段階」と「絞り込み段階」の2つの段階からなる「抽出・絞り込み法 (Extraction & Refinement Strategy: 以下, 「E&R法」)」である^{6,7)}。最初の抽出段階では、わずかにでも問題が疑われるケースをすべて把握して偽陰性例を最小限にするようにし、その後の絞り込み段階では、偽陽性例をできる限り減らしていく。これは、DISCOVERYモデルにおける「インターフェイス1」の一部をなす。

E&R法では、乳幼児健診を起点として数カ月の期間をかけて行われるマクロなレベルの抽出・絞り込みと、1回の健診のなかで問診、質問紙、検査の項目を組み合わせで行われるミクロなレベルの抽出・絞り込みがある。

2) マクロなレベルの抽出・絞り込み

マクロなレベルの抽出・絞り込みでは、育児に関するさまざまな相談を継続的に行っていくための端緒に乳幼児健診を位置づけ、これを抽出段階とする。そして、子どもの健康状態や発達にかんして継続的に観察しながら保護者の相談にのっていくために、地域の保健所による育児支援事業等を利用して一定期間のフォローアップ活動を行い、これを絞り込み段階とする。発達障害の子どもたちは、幼児虐待を含むさまざまな育児上の相談ニーズが生じやすいハイリスク群である。したがって、「育児支援」という枠組みを公的サービスが明確にもつことにより、保護者の精神保健へ

の配慮が可能となり、高い倫理性のもとで発達障害のスクリーニングに関する高い精度を得ることができる。

PDDの場合、知的障害を伴う症例や自閉症の中核群に対しては、マクロなレベルの抽出の主たる場合は1歳半健診となる。アスペルガー症候群を含む高機能かつ非定型な群では、1歳半だけでなく3歳児健診も抽出段階として活用する必要がある。筆者らのデータでは、1歳半健診を起点とするE&R法は自閉性障害¹⁾に対して81%という高い感度を示している⁵⁾。一方、最終的にいかなる発達障害でもなかった子どもたちのうち1歳半健診で通過した子どもの割合(すなわち発達障害に関する特異度)は86.3%であり、その後の絞り込みの結果、YRC受診の段階では100%にまで上昇している⁷⁾。ルーチンのコミュニティケアのなかで行われる発達障害の早期発見活動として、この精度の高さは国際的にみても他に類をみない。

3) ミクロなレベルの抽出・絞り込み

乳幼児健診では、受診児の保護者にあらかじめ質問紙に記入してもらい、それをもとに保護者に対して問診が行われ、さらに子どもの行動観察が行われるのが一般的である。筆者らは、1歳半健診で用いられている項目を分析し、これらの組み合わせをうまく活用することによってミクロなレベルの抽出・絞り込みが行われることを見出した^{6,7)}。

横浜市の1歳半健診で発達障害のスクリーニングに用いられるツールを例にとる。一般的な発達里程碑をもとに項目が構成されており、多くの地域で用いられているツールと大差ないものである。運動(5項目)、コミュニケーション(3項目)、対人・社会性(3項目)、その他(3項目)の領域に関する計14の設問からなる「質問紙」、質問紙に対する保護者の回答を確認する「問診」、子どもに対する簡単な「検査」の順に行われる。ひとりの子どもに要する時間は7~8分である。

項目ごとの不合格率を筆者らが調査したところ、言語理解に関する項目の不合格率が質問紙では0.4%であったのに対して問診では8.4%であり、両者に乖離がみられた。質問紙のみのデータでは、保護者が質問を表面的にしか理解しない、質問の意味を誤解してしまう、子どもの発達の特

徴をよく観察できないなどの理由で誤答する場合がある。これに対して問診では保護者が誤解なく設問の意味を理解して子どもの特徴を的確に答えられているかどうかを保健師がモニターしながら記録できるという利点がある。問診の「言語」が質問紙の同項目よりも不合格率が高かったことは、このような理由によると思われる。また、絵カード検査の不合格率は38.5%であり、他の項目に比べて著しく高い数値を示した。

筆者らは、このような項目ごとの不合格率の特徴を利用して、図2のようなフローチャートを考案した。すなわち、質問紙の不合格項目数および言語と指差しに関する問診の不合格項目数の合計が0ならば総合判定は「通過」、3以上ならば総合判定は「把握」とする。不合格項目数の合計が1~2の場合、絵カード検査に合格すれば「通過」、不合格であれば「把握」とする。「質問紙」に「問診」の不合格数を上積みすることでわずかな異常も検出するように抽出し、その後、グレイゾーンの子どもたちに対して絵カード検査を用いてマイクロなレベルの絞り込みを行う、というものである。これに沿って行ったシミュレーションでは、1歳半の一時点の健診としては十分に高い感度を得ながら、絞り込みによって発達障害の特異度が79.5%から85.4%へと約6%上昇した。必ずしもPDDに特化した項目がなくても、このようなマイクロなレベルの抽出と絞り込みを行うことによって高い精度が得られることが示された。

一方この調査では、どのようなシミュレーションを行っても保健師たちが実際に行ったスクリーニングの精度に及ばないことも示された。Rutterらは、PDDの診断のためのツールの多くが検者の専門性に強く依存していることを指摘している⁹⁾。PDDで障害されている社会的相互交渉やコミュニケーションの領域の質的異常を正常から正確に分離することは専門家以外では難しいため、「yes」「no」で容易に記載できるよう質問紙を構造化することは難しい。したがって、ツールの開発では、それを用いる人が専門知識を十分にもつことがより重要である⁹⁾。早期発見のためのスクリーニング・ツールについても、同じことがいえる。乳幼児期の微細な対人社会性やコミュニケー

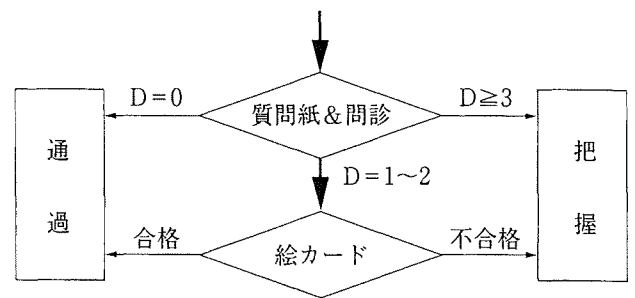


図2 1歳半健診の場合におけるマイクロなレベルのE&R法のフローチャート

質問紙および問診が抽出段階、絵カード検査が絞り込み段階に相当する。

ションの異常を検出するには、ツールの構造化だけでは限界がある。スクリーニング精度を左右するのは、それを担うスタッフの技術によるところが大きい。したがって発達障害の早期発見を担うスタッフがPDDを含む発達障害に関する正しい知識を得られるよう、研修プログラムの整備が求められる。

II. 本格的な早期介入

1. 多軸モデルによる包括的支援

近年、高機能例の受診の急増にともない、早期介入におけるニーズがきわめて多様化してきている。筆者らが開発したCHOICE²⁾は、発達障害の子どもたちが家庭を基盤としながらコミュニティに積極的に参加することを狙いとし、子ども、保護者、インクルージョン強化の軸のそれぞれに対して啓発、心理的支援、実践のためのパッケージ・プログラム群を用意する包括的なシステム・モデルである(図1)。ひとつひとつのパッケージの目的を明確に設定し、2~3名のスタッフで運営する。それぞれ単体でもある程度の支援効果が認められるが、各々の個別の支援ニーズに応じていくつかを有機的に組み合わせたセミオーダーメイドのプログラムにすることで効果の増強が期待できる。人口規模やスタッフ体制に応じてパッケージの組み合わせを選択すれば、どのような地域でも運用可能である。

2. 2ステップ方式

個別の支援ニーズを詳細に評価するとともに支援プログラムを保護者（ときに本人）が主体的に選択できるためには、評価とオリエンテーションの場が必要である。そこでCHOICEでは、早期介入プログラムを2つのステップに分けることによってそのような場を保障する^{2,10,11)}。

早期介入においては「診断」と「治療」の間のインターフェイス（「インターフェイス2」）設定がポイントになる。この部分は、システムから見るとDISCOVERYの最終段階であると同時にCHOICEの最初の段階でもある。「発見」～「診断」の側から見ると診断・評価の精緻化を担うサブシステムであり、同時に「治療」の側から見ると2ステップ方式の第1ステップに相当し、治療への導入をはかるサブシステムでもあるからである（図1）。この段階から、子どもまたは保護者に対して何らかの集団化がなされることが望ましい。週1回、数回のプログラムで介入プログラムを体験した上で、その後の第2ステップのプログラムに関するオリエンテーションを受ける。スタッフ側も、このプロセスを経ることで個別の支援ニーズを詳細に評価して適切な第2ステップの支援方針を立案することができる。

第2ステップのプログラム群には、子どもにたいする療育を行うプログラム、および保護者への支援に主眼を置いたプログラムを用意し、個別の支援ニーズに合わせてプログラムを選択できるようにする。さらに、高機能発達障害の幼児期における先端的な支援技法を開発するためのモデル・プログラムも設置する。高機能例の大半は、幼児期には通常の幼稚園や保育所に通うため、幼稚園・保育所におけるインクルージョンの強化を発達障害の専門家が支援する必要がある。これは、システムでいうと共時的インターフェイス²⁾の機能となる（図1の「インターフェイス3」）。

3. 幼児期からの計画的な集団化

インクルージョンの理念は、障害のある人たちの社会参加を促進するための大前提である。しかし、PDDの人たちの場合、何の配慮もなされずにただ多くの人たちと同じ場に存在していても、

独力で対人関係を形成し、維持、発展させていくことがきわめて困難である。このことに無頓着なまま「一緒に存在する場」のみを漠然と提供し続けると、かえって深刻な孤立感や自信の欠如につながる可能性がある。近年、PDDの特徴の存在に気づかれなかった人たちが思春期、成人期に深刻な社会不適応を呈することがたびたび指摘されている事実¹²⁾は、その傍証となろう。したがって、幼児期からの計画的な集団化は、PDDの人たちに対するコミュニティケアの根幹をなす重要な意義をもつ。

コミュニティケアの観点からみた集団化には、活動拠点の保証の意義が含まれる。通常の世界において、発達障害の人たちは認知、コミュニケーション、情動、興味、意欲などの側面において少数派である場面が多い。そこで、こうした心理的特徴について、ひとりひとり詳細に評価を行ったうえで、すべての参加者が活動内容に対する十分な理解と意欲をもって主体的に参加できるように慎重に集団化を計画、実行していく必要がある。

筆者らは、PDDの人たちの認知特性と興味を鍵とした集団化が本人たちの集団参加意欲を高め、社会活動における適応行動の獲得を促進することを指摘している³⁾。認知水準の共通するメンバーを集団化することは比較的広く行われているが、集団化において共通の興味を事前に考慮することは、通常の幼児向けプログラムでは意外になされていない。しかし、PDDの人たちは興味のある対象に対してはきわめて意欲的になれる反面、興味の薄いものに対しては社会的な配慮をすることなく無関心であることを露呈させてしまう。しかも、興味の対象が定型発達の人たちとは異なる場合が少なくない。

筆者らは、「コミュニティの中にサブ・コミュニティを計画的に新規作成し、入れ込む」ことを意味する「ネスティング (nesting)」という概念を提唱した³⁾。“Nest”には「居心地のよい場所」という意味と「入れ込む」という意味があり、それらをかけて作った言葉である。コミュニティは、大きなコミュニティのなかにいくつものサブ・コミュニティが含まれる重層構造を成してい

る。PDDの人たちがコミュニティで豊かな生活を送るためには、彼らの活動拠点となるサブ・コミュニティを保障する必要がある。これがネスティングである。そのようなサブ・コミュニティを幼児期から保障することは、早期介入の重要な意義のひとつであると思われる。

PDDの人たちに対するネスティングのポイントは、共通の認知発達と興味を介したサブ・コミュニティを計画的に新規作成することである。集団化に際しては事前に子どもたちの評価を済ませ、それをもとに計画的に集団化を行う。事前の評価をもとに、共通の認知発達と興味をうまく介してクラスというサブ・コミュニティを作成することにより、療育効果を高めることができる。

ネスティングは、保護者支援の観点からも重要な意義がある。保護者は、子どもを育てる立場であると同時に、障害のある子どもをもつことによる悩みを抱える立場でもある。したがって保護者支援では、教育的関与と心理的支援との両面から関わらねばならない。保護者たちを計画的に集団化することにより、障害に関する啓発を効果的に進め、さらにはピアカウンセリングやメンタリングの場を提供することができる。「障害のある子どもの育児」という共通のテーマがあり、共通の悩みや喜びを分かち合える仲間がいる場の存在は、多くの保護者にとってきわめて心強い。実際、早期介入のプログラムで知り合った保護者たちのつながりが、その後の生活において保護者たちにとっての「心の居場所」となった例を、筆者らは数多く経験している。

Ⅲ. 発達精神医学を基盤とした地域拠点づくり

1. 発達精神医学を基盤とした支援の必要性

「汎用」といっても、システム・モデルをコミュニティのなかで具体的に実行していくためには、地域資源の整備が必要となる。現在、各地で進められている発達障害の人たちへの公的支援体制は、発達障害者支援センターを拠点とする方法、特別支援教育の枠組みを拡大する方法、および障害児施設の機能を拡大する方法に代表される。前2者の中に、医療的支援は標準では組み込

まれていない。障害児施設は歴史的に肢体不自由児に対する整形外科学、小児科学、およびリハビリテーション医学を基盤としてきたため、精神医学はどちらかといえばオプションの扱いになりがちである。しかし、発達障害の子どもたちが示す社会不適応の問題には精神科医をリーダーとするチーム・アプローチが不可欠である。PDDの乳幼児期から成人期までの縦断的な発達精神病理は、まだ十分に解明されてはいない。また、発達障害の支援は家族への精神医学的支援を重要な軸のひとつに据えなければ成り立たない。これらを包括的に扱うことのできる臨床医学は、発達精神医学において他にない。

発達精神科医の役割は、診療を通じた本人および家族に対する直接の医学的支援と、母子保健、障害児福祉、特別支援教育に対する発達精神医学的知識に基づく間接的支援である。初診からしばらくの間の診察では、子どもの診断と評価に関する検索を進めると同時に保護者への啓発および心理的支援を行う。さらに、定期的な診察を通じてライフステージの節目ごとの方針立案およびモニタリングを行う。他領域との連携においては、発達精神科医はチームリーダーでありかつ脇役として振る舞うことが要求される。各領域を担うスタッフと緊密なコミュニケーションをとり、基本的知識や最新の知見に関する啓発を行い、ケースに関するフィードバックおよびスーパービジョンを行うのである。

2. 地域拠点の規模

広汎性発達障害を含む発達障害の潜在的ニーズは人口の6%以上に及ぶと考えられる⁸⁾。本稿で述べたように、早期発見のシステムと技術を整備すれば、その大半が幼児期のうちに早期介入を受けることが可能である。とすると、既存の法制度に基づく支援体制だけではあまりにも規模が小さく、発達障害の真の支援ニーズに対応しきれないことは明白であろう。今後は、全国各地に発達精神医学を基盤とした直接的支援および間接的支援を保証できるような公的な地域拠点の設置が求められる。すべてのライフステージに対応した拠点が必要であるが、早期介入の部分にかんしては上

記の DISCOVERY と CHOICE の両システム・モデルを遂行できる体制が最低限必要である。筆者の印象では、十分な質の診療（初診および定期的なフォローアップ）と関連機関への支援をチーム・アプローチによって実行できるのは、発達精神科医師1名に対して早期介入を担うスタッフ（臨床心理士、言語聴覚士、作業療法士、児童指導員、保育士、ソーシャルワーカー、保健師、看護師など）が10名程度でチームを組んだとして、初診数で年間50名程度が上限である。人口の約5%に幼児期から潜在的ニーズがあるとすれば、年間出生数1,000名程度の地域につき精神科医師1名、スタッフ10名の規模のチームが保証されれば、ある程度良質の早期介入を行うことが可能となるであろう。学齢期以降の支援も同じ拠点で行うのであれば、これに加えて学齢期以降に対応する精神科医およびスタッフが別途必要である。

ただし、将来の目標はともかくとして、多くの地域では医師の配置もスタッフの配置もままならないのが現状であろう。今後、各地でいくつかの中間目標を設定しながらシステム整備を進めていく必要がある。医療の関与が不可欠であるにもかかわらず、現行の診療報酬制度のもとではこうした整備を医療の枠組みだけで十分に行うことは不可能である。したがって、福祉の枠組みのなかに発達障害者支援の医療的拠点づくりを組み込むことが望ましい。いずれは、この規模の地域拠点設置が診療報酬制度のもとでも十分可能となるような医療の法整備が求められる。

おわりに

PDDの早期介入は、「早期のみ行う介入」ではなく「介入の早期開始」というべきものである。筆者らの経験では、幼児期に介入が開始され外来で長期的にフォローアップされた成人例は、症状は消失していないものの社会適応は必ずしも悪くない。むしろ就労して充実した生活を送っている例も珍しくない。未診断のまま思春期～成人期に達した症例に対する支援の困難さを考えると、早期介入が全国各地で一刻も早く開始されるべきであろう。また、わが国はPDDの支援チームのり

ーダーとなるべき発達精神医学の専門医を養成する仕組みがきわめて立ち遅れている。この領域における精神科医への潜在的ニーズは、まだ全く掘り起こされていないといってよい。各地に地域拠点を設置すると同時に、大学の精神科、小児科がこれと密接に連携をとりながら、発達障害の臨床研究および研修の場を開設していく必要がある。

文 献

- 1) American Psychiatric Association: Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 4th ed., Text Revision(DSM-IV-TR). American Psychiatric Association, Washington, D.C., 2000.
- 2) 本田秀夫: 早期介入システム. 精神科治療学, 23(増刊号); 333-339, 2008.
- 3) 本田秀夫, 五十嵐まゆ子, 日戸由刈ほか: 就学前幼児の支援に関する検討—その2: 広汎性発達障害の支援における「集団化」作業の理論化の試み—. 厚生労働科学研究費補助金障害保健福祉総合研究事業: ライフステージに応じた広汎性発達障害者に対する支援のあり方に関する研究—支援の有用性と適応の評価および臨床家のためのガイドライン作成—平成20年度総括・分担研究報告書, p.43-50, 2009.
- 4) Honda, H. and Shimizu, Y.: Early intervention system for preschool children with autism in the community: the DISCOVERY approach in Yokohama, Japan. Autism, 6; 239-257, 2002.
- 5) Honda, H., Shimizu, Y., Imai, M. et al.: Cumulative incidence of childhood autism: a total population study of better accuracy and precision. Dev. Med. Child Neurol., 47; 10-18, 2005.
- 6) 本田秀夫, 清水康夫, 日戸由刈ほか: 就学前幼児の支援に関する検討—その1: 1歳6か月児健康診査を起点とした「抽出・絞り込み法」の開発—. 厚生労働科学研究費補助金障害保健福祉総合研究事業: ライフステージに応じた広汎性発達障害者に対する支援のあり方に関する研究—支援の有用性と適応の評価および臨床家のためのガイドライン作成—平成19年度総括・分担研究報告書, p.19-33, 2008.
- 7) Honda, H., Shimizu, Y., Nitto, Y. et al.: Extraction and refinement strategy for detection of autism in 18-month-olds: a guarantee of higher sensitivity and specificity in the process of mass screening. J. Child Psychol. Psychiatry, 50; 972-981, 2009.
- 8) 文部科学省: 「通常の学級に在籍する特別な教育