

200929013A

厚生労働科学研究費補助金
障害保健福祉総合研究事業

トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と
普及啓発に関する研究

平成21年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 金生由紀子

平成22(2010)年 3月

厚生労働科学研究費補助金
障害保健福祉総合研究事業

トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と
普及啓発に関する研究

平成21年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 金生由紀子

平成22(2010)年 3月

目 次

I. 総括研究報告

- トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と普及啓発に関する研究 ----- 3
金生 由紀子 東京大学医学部附属病院こころの発達診療部

II. 分担研究報告

1. 小児科におけるトゥレット障害の診療事例
—服薬の必要性と重症度の関連— ----- 13
星加 明德 東京医科大学小児科
2. トウレット症候群の薬物療法ガイドライン作成にむけての課題
—医師調査の結果をもとに— ----- 21
岡田 俊 京都大学大学院医学研究科精神医学分野
3. (1) トウレット症候群に関する教員の認識及び経験
—担当級の相違による比較検討— ----- 25
(資料)「チック・トゥレット症候群に関するアンケート」用紙
- (2) トウレット症候群の当事者・家族のアンケート調査結果 (最終結果) ----- 49
金生 由紀子 東京大学医学部附属病院こころの発達診療部
4. 発達障害者支援センターにおけるトゥレット症候群の実態と普及啓発活動 ----- 69
(資料)「トゥレット症候群の実態と普及啓発に関するアンケート」用紙
太田 昌孝 NPO 法人心の発達研究所
5. 奈良県における発達障害者とその家族へのトゥレット症候群についての
アンケート調査 (2年間のまとめ) ----- 79
(資料)「チック・トゥレット症候群に関するアンケート」用紙
飯田 順三 奈良県立医科大学医学部看護学科

III. トウレット症候群の治療や支援、及び普及啓発に関する冊子 (案) ----- 83

IV. 研究成果の刊行に関する一覧表 ----- 135

V. 研究成果の刊行物・別刷 ----- 139

Ⅰ. 総括研究報告

トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と普及啓発に関する研究

研究代表者 金生由紀子 東京大学医学部附属病院こころの発達診療部 特任准教授

研究要旨：

【目的】トゥレット症候群は運動チック及び音声チックが慢性的に持続する重症チック障害であり、発達障害に含まれる。本研究では、チックや併発症によって生活上に困難をきたすトゥレット症候群患者について、適応を妨げる症状、治療や支援の実態及びニーズを多様な場面で調査して、その概略を明らかにすること、調査結果も参考にしてトゥレット症候群の治療や支援のための冊子を作成することを目指した。

【方法】

1. 医療機関に対する調査：診療担当患者については、チックの重症度の評価、機能の全体的評価などを行って、薬物療法の有無との関連で検討した。また、精神科医、小児科医を対象として全国規模でトゥレット症候群に関する診療経験の調査を行った。
2. 教育機関に対する調査：特別支援学級、通常学級の担当教諭を対象にして、チックやトゥレット症候群に関する認識や体験に関する質問紙調査を行った。
3. 相談機関に対する調査：全国の発達障害者支援センターを対象としてトゥレット症候群の理解、相談・支援、啓発・研修に関するアンケート調査を行った。また、奈良県発達障害支援センターの利用者を対象として、チック・トゥレット症候群に関するアンケート調査を行った。
4. トウレット協会会員に対する調査：トゥレット協会が主体となり会員を対象としてトゥレット症候群の多様な側面に関する調査を行ったデータを解析した。
5. 治療や支援のための冊子の第一次案の作成：多様な場面でトゥレット症候群患者のプライマリケアにあたる専門職に向けた冊子の構成を検討して、分担執筆した。

【結果と考察】

1. 医療機関に対する調査：薬物療法の有無には、チックの重症度及び全体的な機能が影響しており、特に、音声チックの重症度、チックが活動を妨げる程度が重要と示唆された。全国規模の調査から、プライマリケア医の役割が大きいこと、併発症を有する患者が少なくないこと、治療の内容は抗精神病薬による薬物療法が主体であるものの精神科医と小児科医で開きがあることが明らかとなり、治療の標準化の必要性が強く示唆された。
2. 教育機関に対する調査：「トゥレット症候群」という言葉を知っている割合は、特別支援学級担当教諭で 35%、通常学級担当教諭 18%であった。一方、チックを有する児童・生徒の経験はいずれの教師も 7 割以上であった。チックについて知りたいこととしては、「対応方法全般」に該当する回答が最も多かった。研修を行う際には

具体的なイメージが湧くような情報提供の工夫が必要と思われた。

3. 相談機関に対する調査：全国の発達障害者支援センターの6割以上がトゥレット症候群の具体的な対応方法が分からないと回答していた。同時に、センターの約7割がトゥレット症候群またはチック障害の相談を受け付けていた。センターは、トゥレット症候群への支援の重要性を認めて、今後は、センター内の啓発と医療機関での受け入れ体制の広がりが重要であると考えていた。また、発達障害者支援センターの利用者におけるトゥレット症候群という言葉の認識が1年間で大きく変化しており、センター職員に対して啓発活動を行ったこと、発達障害に関する研修会でトゥレット症候群が取り上げられたことが関連していると思われた。

4. トウレット協会会員に対する調査：発症に気づいてから正式にトゥレット症候群と診断されるまでの期間は近年になるに従って短縮していた。最初に気づかれた症状としては、運動チックが最多であったが、当事者が現在困っている症状は、音声チックが最多であった。また、睡眠の乱れ、突然の感情の爆発などの併存症状もしばしば当事者を悩ませていた。最初にかかった病院を替わった者が過半数であり、適切な診断や治療に至るのは容易ではない状況が示唆された。通学状況や就労状況に関する回答から教育や労働の場でも十分な理解・支援が得られていない可能性が示唆された。

5. トウレット症候群に関する基本的な事項の説明、調査結果を踏まえた「コラム」、具体的な治療や支援の内容を含めた「症例」によって冊子を構成した。治療ガイドライン、関連機関別の治療や支援などについてさらなる充実が必要と思われた。

【結論】多様な場の調査から、トゥレット症候群ではチック、特に音声チックとしばしば認められる併発症が生活に影響を与えていることが確認された。プライマリケアの担当者が実践できるようにチックと併発症の両方を十分に考慮した対応を整備して普及啓発を進める必要性が確認された。

研究分担者：

飯田順三（奈良県立医科大学医学部看護学科 教授）

太田昌孝（NPO 法人心の発達研究所 理事長）

岡田俊（京都大学大学院医学研究科精神医学分野 講師）

金生由紀子（東京大学医学部附属病院こころの発達診療部 特任准教授）

星加明德（東京医科大学小児科 教授）

A. 研究目的

トゥレット症候群は運動チック及び音声チックが慢性的に持続する重症チック障害であり、発達障害に含まれる。チックの衝撃力に加えて、強迫性障害(OCD)、注意欠陥/多動性障害(ADHD)、学習障害(LD)などを高率に併発し、しばしば適応を妨げる。ADHD、LD、広汎性発達障害(PDD)などの発達障害からみると、トゥレット症候群の併発は稀ならずあり、併発すると強迫性や衝動性及びそれに伴う行動上の問題が増す恐れがある。

トゥレット症候群は、家族や教師などの理解を促し、薬物療法、認知行動療法などの多面的な治療や支援を行うことによって改善が期待できる。しかし、我が国では適切な診断がされていないことが多い。併発症を伴うと病像が複雑になるため、より診断が困難となる。加えて、トゥレット症候群と分かっても治療や支援の体制が整備されておらず、最近では断片的な情報に接した患者や家族の不安がかえって高まることすらある。

我が国における治療や支援の実態を把握し、その望ましいあり方を提示することは緊急の課題である。その際に、どうしたらトゥレット症候群に悩む人々に情報が効率的に届くか、地域の資源をどう利用するかも含めての検討が望まれる。

本研究では、チックや併発症によって生活上に困難をきたすトゥレット症候群患者について、適応を妨げる症状、治療や支援の実態及びニーズを多様な場面で調査して、それに検討を加えてトゥレット症候群の治療や支援のための冊子を作成して普及啓発を推進する。今年度は、トゥレット症候群患者の実態及びニーズの把握と検討を深めると同時に、治療や支援のための冊子の第一次案を作成することを目指した。

B. 研究方法

1. 医療機関に対する調査

1) 診療担当患者に関する調査

トゥレット症候群小児患者 59 名を対象に、チックの重症度の評価に、Shapiro の Tourette 症候群重症度尺度(STSSS)を、機能の全体的評価に、機能の全体的評定(GAF)尺度を用いて、診療録の記載から後

方視的に調査を行い、服薬の有無との関連を検討した。

2) 医師を対象とする調査

日本児童青年精神医学会、日本小児心身医学会及び日本小児精神神経学会の医師会員、さらに、日本小児科学会の小児科専門医研修施設、日本精神神経学会の専門医研修施設、計 4504 件を対象として郵送法にてトゥレット症候群に関する診療経験の調査を実施した。

2. 教育機関に対する調査

特別支援学級 441 校、通常学級 299 校の校長宛に、昨年度に準じたチックやトゥレット症候群に関する認識や体験に関する質問紙を送付して学級担当教諭の回答を依頼した。

3. 相談機関に対する調査

(1) 全国全ての発達障害者支援センター 65ヶ所を対象として「トゥレット症候群の実態と普及啓発に関するアンケート」への回答を平成 21 年 7 月に依頼して、回収期限を 8 月末とした。

(2) 奈良県発達障害支援センター「でいあー」に相談に来所される発達障害者またはその家族を対象に、チック・トゥレット症候群に関するアンケート調査を行った。

4. トウレット協会会員に対する調査

トゥレット協会が主体となり会員を対象として郵送法で行った調査のデータを解析した。調査票には、主な症状や治療法に加えて、医療、教育、就労、家族などトゥレット症候群患者の多様な側面に関する内容が含まれていた。

5. 治療や支援のための冊子の第一次案の作成

多様な場面でトゥレット症候群患者のプ

ライマリケアにあたる専門職に向けた冊子の構成を検討して、分担研究者、研究協力者で分担執筆した。

なお、診療担当患者について前方視的に情報を収集する場合には、文書と口頭で説明を行い、書面で同意が得られた場合に対象とした。後方視的調査では、研究への活用 of 同意を得て診療上で収集されたデータを解析した。

関連機関を対象としたアンケート調査にあたっては、調査に協力しなくても何ら不利益にならないことを含めた研究に関する十分な説明の文書を添えて無記名で実施し、回答が得られた場合に同意有りとした。

いずれの場合にも、データは匿名化して使用して、個人情報の保護を厳重に行った。

C. 研究結果

1. 医療機関に対する調査

1) 診療担当患者に関する調査

服薬群 23 名と非服薬群 36 名を比較すると、服薬群の方がチックの重症度が高く、全体的な機能が低かった。STSSS の評点の合計が 0.5 から 2.5 点と比較的軽症な 44 名について再検討したところ、服薬群 8 名の方が STSSS の 5 項目中④チックは活動を妨げるかの項目のみ高得点であった。服薬開始の誘因の 65%は音声チックであった。

2) 医師を対象とする調査

平成 20 年 12 月に調査用紙を発送して、最終的に 613 件が返送され、回収率は 13.6%であった。回答した医師の内訳は、精神科医 307 名（うち、一般精神科医 195 名、児童精神科医 112 名）、小児科医 271 名（うち、一般小児科医 189 名、小児神経

科医 84 名）であった。小児科医で児童例が多く、精神科医で青年期・成人例が多かった。重症例をむしろ一般精神科医が診る傾向にあった。併発症は精神科医でも小児科医でも多かった。OCD や PDD はすべての医師で多かったが、それ以外の併発は診療科によって異なっていた。受診後に自身で治療するとの回答は、児童精神科医で 95.8%で最も高く、一般小児科医で 65.0%と最も低かった。治療内容は精神科医、小児科医共に抗精神病薬による薬物療法が主体であったが、精神科医の方が新規抗精神病薬を積極的に使用していた。

2. 教育機関に対する調査

平成 21 年 7 月に質問紙を送付して、特別支援学級 168 通（うち通級 13 通、固定級 151 通、不明 4 通）、通常学級 109 通の回答を得た（回収率はそれぞれ 38.1%、36.5%）。

「トゥレット症候群」という言葉を知っている者はそれぞれ 35%、18%にとどまっていた。一方、チックを有する児童・生徒の経験はいずれの教師も 7 割以上であった。チックを有する児童・生徒への特別な配慮としては、特別支援学級では本人への接し方が最も多く、通常学級では周囲への働きかけが最も多かった。チックについて知りたいこととしては、「対応方法全般」に該当する回答が最も多かった。研修によりトゥレット症候群を知った人は、具体的なイメージが思いうかばないと回答していたのに対して、実例の経験により知った人は症状の性質に言及していた。

3. 相談機関に対する調査

(1) 発達障害者支援センター65ヶ所中の 61ヶ所（93.9%）から回答を得た。トゥレット症候群の理解度の問いに対して、39ヶ

所（63.9%）が具体的な対応方法が分からないと回答した。センターの支援の状況の問いに対しては、「トゥレット症候群の相談者が存在している」（27 ケ所）と「トゥレット症候群についてはないが、チック障害については受け付けている」（16 ケ所）の回答を合わせると 43 ケ所（70.5%）となっていた。トゥレット症候群の相談があった 27 ケ所中で有効回答があった 26 ケ所で見ると、相談者の属性は両親が一番多かった。年代別では成人期の相談が 39.3%と高率であった。トゥレット症候群支援のためにセンターが行うべきこととしての活動についての優先順位は、高い方から、①発達障害者支援センター職員の理解（研鑽）、②治療できる医療機関の確保、の順であった。

(2) 平成 20 年 10 月～11 月に 72 通、平成 21 年 5 月～6 月に 77 通の調査用紙が配布され、それぞれ 26 通、30 通の回答があった（全体の回答率 37.6%）。回答者は発達障害者本人が 12.5%、家族が 87.5%であった。チックという言葉を知っている者は 89.3%であったのに対して、トゥレット症候群という言葉を知っている者は 34.0%であった。トゥレット症候群という言葉を知っている者は、平成 20 年には 15.4%であったが、平成 21 年には 50.0%に増加していた。チックの原因について複数回答可で尋ねると、心理的要因が 46 名で最多であり、脳の機能障害が 31 名で次いでいた。

4. トウレット協会会員に対する調査

平成 21 年 1 月に調査票を 183 通発送し、平成 21 年 2 月 28 日にまでに 106 通が返送され、集計可能な 105 通について解析した。トゥレット症候群を有する当事者の性別は男性 53 名、女性 20 名、不明 32 名であり、

年齢は 9～61 歳（中央値 19 歳）に分布していた。症状に最初に気づかれた年齢は 2～30 歳（中央値 7 歳）であり、正式にトゥレット症候群と診断された年齢は 5～41 歳（中央値 11 歳）であった。発症に気づいてから正式にトゥレット症候群と診断されるまでの期間は近年になるに従って短縮していた。最初に気づかれた症状は、運動チック 48 名、音声チック 20 名の順であったが、当事者が現在困っている症状は、音声チック 65 名、運動チック 52 名、睡眠の乱れ 32 名、突然の感情の爆発 25 名、汚言 22 名の順であった。最初にかかった病院を替わった者は 55 名であった。登校が不安定になった者が 27 名であり、就労状況に回答した 43 名中 22 名が無職または不定であった。

5. トウレット症候群に関する基本的な事項の説明、調査結果を踏まえた「コラム」、具体的な治療や支援の内容を含めた「症例」によって冊子を構成した。「症例」については、年少でありチックが比較的軽症な場合、チックが重症な場合、併発症の問題が大きい場合、代表的な発達障害を併発している場合を網羅し、具体的な治療・支援に重点を置いた。

D. 考察

1. 医療機関に対する調査

チックに重点を置いた小児科外来で十分な症例を詳細に検討したところ、チックの重症度及び全体的な機能によって薬物療法の有無に相違があると確認された。同時に、音声チックの重症度、チックが活動を妨げる程度が特に重要と示唆され、対象を広げて検討を深めることが必要と思われた。

全国の医師の中ではトゥレット症候群の

治療経験は偏在しているが、患者ベースではプライマリケア医の役割が大きいことが示唆された。診療科によって患者の臨床特徴に相違があったが、併発症を有する患者を少なからず診ていた。治療の内容は抗精神病薬による薬物療法が主体であったが、精神科医と小児科医で開きがあり、標準化の必要性が強く示唆された。

2. 教育機関に対する調査

昨年度の調査ではトゥレット症候群という言葉は高率に知られていたが、今年度のより幅広い対象の調査では、特別支援学級担当教諭でも認知度が低かった。チック・トゥレット症候群について知りたいことについても昨年度は多様であったが、今年度はとりあえずどう対応すればよいかという情報を求める傾向が強かった。日本全体の実情は今年度の調査により反映されていると思われ、具体的なイメージが湧くような情報提供の仕方を工夫することが必要と思われた。

3. 相談機関に対する調査

全国調査から、発達障害者支援センターの活動によって支援が必要なトゥレット症候群の事例が掘り起こされていることがうかがわれた。成人期の相談が多いことは注目され、他機関で支援を受けにくいためかもしれない。発達障害者支援センターは、トゥレット症候群への支援の重要性を認めていると同時に、現時点では不十分であり、センター内の啓発と医療機関での受け入れ体制の広がりが必要であると考えていた。

また、発達障害者支援センターの利用者におけるトゥレット症候群という言葉の認識が1年間で大きく変化していた。それには、センター職員に対して啓発活動を行っ

たこと、発達障害に関する研修会でトゥレット症候群が取り上げられたことが関連していると思われ、啓発活動の重要性が再確認された。

4. トウレット協会会員に対する調査

2000年以降、トゥレット症候群の徴候が発現してから専門医による診断・治療が行われるまでの期間に短縮傾向が認められた。トゥレット症候群に関する専門知識を持つトゥレット協会会員が対象という偏りはあるとしても、医療サービスが向上する方向にあると思われた。最初に気づかれた症状は当然ながら運動チックと音声チックであったが、現在最も困っている症状としては多様な併存症状が認められた。併存症状は早くから出現していても比較的軽度なために見逃されている可能性もあり、縦断的な研究を進めると同時に、家族や社会一般への啓発活動を通じてこの疾患の進行や病態を明らかにして治療や支援の質を向上させることが期待される。通学状況や就労状況に関する回答から教育や労働の場でも十分な理解・支援が得られていない可能性が示唆され、その分野の啓発活動も必要と思われた。

5. 治療や支援のための冊子の第一次案は全体の構成は適切だが、治療ガイドライン、関連機関別の治療や支援などについてさらなる充実が必要と思われた。それらを中心に検討・改訂して第二次案を作成してから冊子に関する意見を広く求める予定である。

E. 結論

トゥレット症候群の実態及びニーズについて、医療機関、教育機関、相談機関、トゥレット協会会員を対象として調査した。

医療機関の調査からは、チックの重症度や全体的な機能が薬物療法の有無で異なっており、特に音声チック、チックが活動を妨げる程度が重要であると示唆された。全国的に見ると、プライマリケア医の役割が大きいこと、併発症を有する患者が少なくないこと、治療の内容が診療科によって開きがあることが明らかとなり、プライマリケアでも可能な治療の標準化の必要性が強く示唆された。

全国的に見ると教育機関においても発達障害者支援センターにおいてもトゥレット症候群の認識は不十分であったが、同時に、啓発活動による変化が大きいと期待された。トゥレット症候群の実態や対応について具体的なイメージの湧くような研修の工夫が必要と思われた。

多様な場の調査から、トゥレット症候群ではチック、特に音声チックが生活に影響すると同時に、しばしば認められる併発症も問題になることが確認された。

チックと併発症の両方を十分に考慮した対応を整備して普及啓発を進める必要性が確認された。今後は、調査の継続とデータの解析を進めると共に、治療や支援のための冊子の第一次案の検討を進めて、より効果的な普及啓発のための冊子の完成を目指したい。

F. 健康危険情報

なし

G. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Kano Y, Kono T, Shishikura K, Konno C, Kuwabara H, Ohta M, do Rosario

MC: Obsessive Compulsive Symptom Dimensions in Japanese Tourette Syndrome subjects. CNS Spectr, (in press)

- 2) 金生由紀子: チック障害との関連による OCD の検討. 精神神経学雑誌, 111(7): 810-815, 2009
- 3) 金生由紀子: 発達障害. 児童青年精神医学とその近接領域, 50 周年記念特集号: 130-136, 2009
- 4) 金生由紀子: トウレット障害、ADHD、そして強迫性障害. 発達障害白書 2010 年版, 45-46, 2009
- 5) 金生由紀子: 激しいチック症状が出現した広汎性発達障害. 発達障害ケースブック. 診断と治療社, 101-109, 2009
- 6) 金生由紀子: チック障害. 日本臨牀, 68(1): 114-118, 2010
- 7) 金生由紀子: チック・Tourette 障害. 小児科診療「小児の治療指針」, 73 巻増刊号. 2010 (印刷中)
- 8) 金生由紀子: チック・Tourette 障害. 今日の診断指針 6 版. 医学書院. 2010 (印刷中)
- 9) 菊池なつみ、野中舞子、河野稔明、桑原斉、島田隆史、金生由紀子: トウレット症候群に関する情緒障害通級指導学級担当教諭の認識及び経験. 児童青年精神医学とその近接領域, (印刷中)
- 10) 武藤直子、太田昌孝: 発達障害に応じた介護. 新・介護福祉士養成講座 8 生活支援技術Ⅲ, 184-201, 2009
- 11) 太田昌孝: 高機能自閉症. 小児内科, 41(増刊): 782-787, 2009
- 12) 太田昌孝: 自閉症と緊張病(カタトニア). 臨床精神医学, 38(6): 805-811, 2009

- 13) 太田昌孝: 子どもの問題行動（小児精神疾患）－自閉症と ADHD と関連して－. 子どもと発育発達, 7(3): 154-158, 2009
 - 14) 太田昌孝: 微細脳機能障害 Minimal Brain Dysfunction(MBD)の概念の変遷とその衰退－現在と未来に問いかけるもの－. 小児の精神と神経, 49(3): 187-194, 2009
 - 15) Negoro H, Iida J et al: Prefrontal dysfunction in ADHD as measured by Near-Infrared Spectroscopy. Child Psychiatry Human Development, 2010 (in press)
 - 16) 根来秀樹、飯田順三: 一般外来における発達障害受診の動向. 日常診療で出会う発達障害のみかた, 212-216, 2009
 - 17) 飯田順三: 広汎性発達障害と児童思春期統合失調症. 児童青年精神医学セミナー（1）, 133-144, 2009
 - 18) 飯田順三: 広汎性発達障害と児童思春期統合失調症. 児童青年精神医学とその近接領域, 50巻3号: 273-278, 2009
 - 19) 根来秀樹、飯田順三: 衝動性と攻撃性の生物学. 児童青年精神医学とその近接領域, 50巻4号: 418-422, 2009
 - 20) 飯田順三: ADHD の神経生物学的病態と衝動性との関連について. 分子精神医学, 9 巻 4 号: 18-22, 2009
 - 21) 太田豊作、飯田順三 ら: 年長同胞が幼児期の年少広汎性発達障害児に及ぼす影響. 児童青年精神医学とその近接領域, 50 巻3号: 318-324, 2009
- 原齊、島田隆史、金生由紀子: トウレット症候群に関する情緒障害通級指導学級担当教諭の認識及び体験調査. 第 50 回児童青年精神医学会, 2009/9/30-10/2, 京都
- 2) 野中舞子、菊池なつみ、河野稔明、桑原齊、島田隆史、金生由紀子: トウレット症候群に関する情緒障害通級指導学級担当教諭の認識及び経験. 第 16 回トウレット研究会, 2009/11/8, 東京
- 3) 海老原亜貴子、星加明德、荒田美影: 小児期のトウレット障害－服薬の必要性和重症度の関連－. 東京医科大学医学会総会, 2009/11/7, 東京
- 4) 岡田 俊: 日本におけるトウレット症候群の治療の現状. 国際トウレット症候群シンポジウム, 2009/11/15, 京都
- 5) 岡田 俊: トウレット障害の児童青年におけるアリピプラゾールの長期有効性. 第 6 回 DPA 研究会, 2010/1/23, 東京

H. 知的財産権の出願・登録状況
(予定を含む.)
なし

2. 学会発表

- 1) 野中舞子、菊池なつみ、河野稔明、桑

II. 分担研究報告

小児科におけるトゥレット障害の診療事例

—服薬の必要性和重症度の関連—

研究分担者 星加明德 東京医科大学小児科 教授

研究要旨：

対象は小児科を受診したトゥレット障害小児59例であり、服薬群23例と非服薬群36例に分類された。服薬は患児がチックにより日常生活に困難を感じた場合に行った。チックの重症度はShapiro のトゥレット症候群重症度尺度（STSSS）を、生活全体の機能評価は機能の全体的評定尺度GAFを用いた。運動性チックの身体上の出現部位と音声チックの種類は、有意に服薬群で多かった。（ $p<0.05$ ）運動性チックの出現部位は、下肢のチックは服薬群で多かった。（ $p<0.05$ ）、音声チックの種類では、汚言は服薬群で多く認められた。（ $p<0.01$ ）STSSSにおける評価の5項目の各変数の評点は⑤拘束・入院中かを除く4項目全てで服薬群が有意に高値であった。（ $p<0.01$ ）また評点の合計においても服薬群が有意に高値であった。（ $p<0.05$ ）評点の合計が0.5から2.5の症例では、各項目の評点は④活動を妨げるかの項目のみ、服薬群が高値であった。（ $p<0.05$ ）服薬開始の誘因となったチック症状は、音声チックが65%を占めており、運動性チックは35%であった。機能の全体的評定尺度（GAF）は、服薬群が有意に低値であった。（ $p<0.05$ ）

研究協力者：

海老原亜貴子（東京医科大学小児科助教）

荒田美影（東京医科大学小児科兼任助教）

A. 研究目的

トゥレット障害小児の経過をみると、服薬の必要性を感じないままある年齢を過ぎると自然に軽快していく場合や、経過の一時期あるいは長期に服薬が必要になる場合まで、その重症度は多彩である。

この研究では、服薬が必要であった症例の服薬開始時のチックの種類や重症度と生活全体での機能について、服薬が必要でなかった症例と比較検討した。

B. 研究方法

対象は、平成 16 年 1 月から平成 18 年 12 月の 3 年間に、東京医科大学病院小児科を受診したトゥレット障害小児のうち、明らかな知的障害がなく、初診時と経過中、チックや家庭と学校での日常生活について詳細に記載されていた 59 例を対象とした。トゥレット障害の診断は、DSM-IV-TR 精神疾患の診断・統計マニュアル（1）によって行った。

対象の 59 例は、服薬群 23 例と非服薬群 36 例に分類され、服薬は患児がチックにより日常生活に困難を感じた場合に行った。

診療録には初診時に、初発から初診時までに認められたチックの種類と出現順位、保護者の記憶があればそのチックが出現した年齢が記載され、その後の受診時に新し

く加わったチック症状も含めて、そのときにあった症状を確認し記載されていた。また診療ごとに日常生活での支障や、家族、友人、担任教師、見知らぬ人の反応などについて患児や保護者に確認し、さらには保護者を介して担任教師からの情報を得るよう努め、それらも診療録に記載されていた。

知的水準の評価は、服薬群 23 例中 14 例、61%で、非服薬群 36 例中 13 例、36%で、WISC-IIIを用いて行われていた。WISC-IIIが施行されなかった患児も、発達歴や学習についての問診で知的障害を疑われた児はいなかった。

チックの臨床像の評価には、山中ら（2）のチック症状の分類を一部改変し、運動性チックは出現部位によって、顔面、頸部、肩、上肢、躯幹、下肢、全身の 7 部位に、音声チックは鼻症状、咳払い、単音節の発声、複雑性音声チック、汚言の 5 種に分類した。

トゥレット障害としての重症度は、後方視的に評価が可能な Shapiro のトゥレット症候群重症度尺度 (STSSS) (3-6) を用い、服薬群では服薬開始時に、非服薬群では保護者がチックが最も重症であったと感じた時期に、主治医であった小児科医とトゥレット障害の診療に携わったことのある小児科医が合議して評価した。また生活全体の機能評価は機能の全体的評定尺度 GAF を用い、同時期について診療録の記載から行った。

初診時、保護者には診療記録の記載が臨床研究に使用される可能性があること、また研究ではプライバシーの保護や患児を特定できないよう配慮されることを説明し、

書面にてその同意を得た。

C. 研究結果

1. 患者背景

性別は、服薬群、非服薬群とも男児が多い傾向があったが 2 群間に有意差はなかった。発症年齢は、服薬群が高年齢で発症していた。(p<0.05) 初診時年齢は有意差はなかった。また WISC-IIIでは、2 群間に有意差はなかった。

表 1. 性別

	服薬群	非服薬群	合計
男児	18	25	43
女児	5	11	16
	23	36	59

表 2. 発症年齢、受診時年齢

	服薬群	非服薬群
発症年齢	5.6±2.2	4.5±1.7
受診時年齢	9.0±2.1	8.3±2.7

表 3. WISC-III

	服薬群	非服薬群
言語性 IQ	101.3±13.4	105.5±11.3
動作性 IQ	92.9±12.3	94.5±8.2
全検査	97.1±12.2	100.1±8.7

2. チック症状

(1) 運動性チックの出現部位数と音声チックの種類

運動性チックの出現部位数と音声チックの種類は、有意に服薬群で多かった。(p<0.05)

表 4. 運動性チックの出現部位数と

		服薬群	非服薬群
音声チックの種類			
運動性チック			
出現部位数	4.0±1.3	3.3±1.4	
音声チック種類	2.2±1.0	1.7±0.8	

(2) 運動性チックの部位別、音声チックの種類別の出現頻度

運動性チックの出現部位では、下肢のチックは服薬群で有意に多かった。(p < 0.05)

音声チックの種類では、汚言の出現は服薬群で多く 2 群間で有意差を認めた。(p < 0.01)

表 5. チックの種類と出現頻度

(A) 運動性チック

	服薬群	非服薬群	
顔面	22 (96%)	35 (97%)	p=0.75
頸部	19 (83%)	29 (81%)	p=0.84
肩	7 (30%)	13 (36%)	p=0.65
上肢	15 (65%)	17 (47%)	p=0.17
軀幹	10 (43%)	8 (22%)	p=0.08
下肢	14 (61%)	12 (33%)	* p=0.04
全身	5 (22%)	3 (8%)	p=0.14

(B) 音声チック

	服薬群	非服薬群	
鼻症状	7 (30%)	9 (25%)	p=0.65
咳払い	13 (57%)	23 (64%)	p=0.57
単音節の発声	17 (74%)	20 (56%)	p=0.16
複雑性音声チック	10 (43%)	8 (22%)	p=0.08
汚言	4 (17%)	0	* p=0.01

3. Shapiro のトゥレット症候群重症度尺度 (STSSS)

STSSS における評価のための 5 項目、① 気付かれるか、② 言われるか、③ 奇妙だと思われるか、④ 活動を妨げるか、⑤ 拘束・入院中かの各変数の評点について 2 群を比較すると、⑤を除く 4 項目全てで服薬群が有意に高値であった。(p < 0.01) また評点の合計においても服薬群が有意に高値であった。(p < 0.05)

表 6. Shapiro のトゥレット症候群重症度尺度 (STSSS)

	服薬群	非服薬群	
① 気付かれるか	1.4±0.8	0.7±0.2	p < 0.01
② 言われるか	0.5±0.3	0.1±0.2	p < 0.01
③ 奇妙だと思われるか	0.8±0.7	0.2±0.3	p < 0.01
④ 活動を妨げるか	1.0±0.7	0.1±0.3	p < 0.01
評点の合計	3.8±1.8	1.1±0.6	p < 0.01

STSSS の評点の合計をみると、非服薬群は服薬群に比べて評点の合計の分布が小さかった。

表 7. 評点の合計と最小値、最大値

	服薬群	非服薬群
評点の合計	3.8±1.8	1.1±0.6
最小値	1.5	0.5
最大値	8	2.5

これより評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例、服薬群 8 例、非服薬群 36 例について再度検討した。性別では 2 群間に有意差はなかった。発症年齢は、服薬群の方が有意に高年齢で発症していた。初診時年齢は有意差はなかった。各項目の評点は④活動を妨げるかの項目のみ有意差を認めた。(p < 0.05)

表 8. 評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例

(A) 症例数、性別、初診時、受診時年齢

	服薬群	非服薬群	
症例数	8	36	
男児	5 (63%)	25 (69%)	
女児	3 (37%)	11 (31%)	
発症年齢	6.3±2.3	4.5±1.7	p<0.05
受診時年齢	8.9±2.7	8.3±2.7	

(B) STSSS の評点

	服薬群	非服薬群	
①気づかれるか	0.8±0.4	0.7±0.2	
②言われるか	0.3±0.3	0.1±0.2	
③奇妙だと思われるか	0.4±0.4	0.2±0.3	
④活動を妨げるか	0.8±0.7	0.1±0.3	P<0.05

4. 服薬開始の誘因となったチック症状

23 例の服薬開始の誘因となったチック症状では、音声チックが服薬開始の誘因になったものが 15 例 65%を占めていた。その中で単純性音声チックは 11 例中 10 例がアッ、アッという大きな単音節の発声で、1 例が大きな音の咳払いであった。複雑性音声チックの 4 例は、全例汚言が学校で友人が聞き取れるほど明瞭に出現し、友人に指摘されたためであった。

運動性チックが誘因になったものは 8 名 35%で、顔面の 3 例中 2 例は舌を咬む、1 例は頬粘膜を咬むチックのため外傷性の口内炎を発生したため服薬を開始していた。頸部の 1 例は激しい頭部の後屈のため頸部の痛みを訴えたため、上肢の 1 例は右上肢のチックのため食物をこぼしてしまうことが、全身のチックでは食事や学習などの日常生活の障害のため、服薬を開始していた。また単純性音声チックの 1 例、頸部のチッ

クの 1 例、全身性チックの 1 例では、治療開始まで強い疲労感を訴えていた。

評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例でも服薬の誘因は類似していたが、顔面で口の中を咬むチックや全身のチックは、評点が低値でも服薬を開始していた。

表 9. 服薬開始の状況

	人数	%	(評点合計 0.5-2.5 の症例)
音声チック	15	65%	(3)
単純性音声チック	11	48%	(3)
複雑性音声チック	4	17%	
運動性チック	8	35%	(5)
顔面	3	13%	(2)
頸部	1	4%	
上肢	1	4%	(1)
全身	3	13%	(2)
強い疲労感	3	13%	(1)

5. 機能の全体的評定尺度 (GAF)

GAF は、服薬群が有意に低値であった。またその分布を検討すると、服薬群は 70 以下の症例が 23 例中 17 例 73.9%を占め、非服薬群では 71 から 90 の症例が 36 例中 27 例 75.0%を占めており、服薬群では 70 以下の症例が多かった。(p<0.05)

表 10. 機能の全体的評定尺度 (GAF)

	服薬群	非服薬群
GAF	64.5±8.4	76.6±10.4

表 11. 機能の全体的評定尺度（GAF）

	服薬群	非服薬群
81-90	0	1 9
71-80	6	8
61-70	1 1	7
51-60	5	1
41-50	1	1

GAF と STSSS の評点の合計について単回帰分析を行ったところ、回帰直線は予測に役立つことが証明され、相関が見いだされた。

D. 考察

1. 患者背景

患者背景の中では、発症年齢は服薬群が非服薬群よりも高年齢であった。これは低年齢発症の症例が、服薬の必要ない、より軽症の経過を示すことを示唆している可能性がある。

金生（7）は、トゥレット障害を含む 75 例のチック障害小児の調査で服薬群と非服薬群を比較し、2 群間に年齢の有意差はなかったが、服薬群で高年齢である傾向があったという。今回、本研究の対象となった症例は学童期の受診例が大部分であるが、発症年齢が経過や服薬の必要性と関連するか否かは、思春期かそれ以降に受診することが多い精神科受診例も含めて検討する必要がある。

2. チック症状

運動性チックの出現部位数と音声チックの種類は服薬群で多く、運動性チックの出現部位については服薬群では下肢のチックの出現が多く、音声チックでは汚言の出現が多かった。下肢のチックは服薬の誘因と

しては 1 例しかないが、汚言は 4 例全例が服薬を開始していた。この結果からは、運動性チックはチックの数が多いほど、視点を変わると出現部位が多く顔面から末梢に広がるほど、音声チックは単純な音声は軽症で汚言のあるものの方が重症であるとした Fahn（8）の記載に一致するものであった。

3. Shapiro のトゥレット症候群重症度尺度（STSSS）と服薬開始の状況

STSSS における評価のための①から④の 4 項目と評点の合計は、いずれも服薬群が高値であった。ただ、評点の合計が 0.5 から 2.5 の症例、服薬群 8 例、非服薬群 36 例についての検討では、各項目の評点をみると④活動を妨げるかの項目のみ、服薬群が高値であり、その他の項目では差がなかった。つまり、チックの強さを示す①気付かれるか、②言われるか、③奇妙だと思われるか、という 3 項目より④活動を妨げるか否かが重症度の低い症例では服薬の誘因として大きいと考えられた。

服薬開始の状況をみると、音声チックが服薬開始の誘因になったものが 65% を占めており、その中でも、アッ、アッという単音節の大きな発音が大部分を占めていた。汚言が学校でも出現した 4 例は、全例汚言が学校で友人から指摘されていた。

単音節の音声は Fahn らはチックとしては軽度と考えたが、アッ、アッという発声は周囲の注目も集めやすく、患児がそれを止めようとしてさらに増強するという悪循環が推測される。大きな音声チックは、保護者にとっても重症感があるであろう。また汚言は我々の経験では学校で出て聞き取りにくいことが多いが、それが言葉とし

て大きく明瞭になると友人関係に支障をきたすため、学校生活で困難を生じるのであろう。

運動性チックが誘因になった 8 例中 3 例は、舌あるいは頬粘膜を咬むチックで服薬を開始していた。1 カ所だけの口内炎で受診した小児で、口の中を咬むことを止められない時は、トゥレット障害の経過の一部である可能性があり、それまでにチックが無かったか、問診してみる必要がある。

金生（9）はトゥレット障害の重症度の評価について、(1) チック自体の重症度、(2) チックによる悪影響の重症度、(3) 併発症状の重症度、の 3 つの視点から評価する必要があると記載しているが、音声チックはチックによる悪影響の重症度と、運動性チックはチック自体の重症度と関連しているのであろう。

また新井（10）はチックの重症度は、チック自体の本人への負担とチックによる周囲への影響で評価するとしたが、音声チックはチックによる周囲への影響が大きく関連し、運動性チックは本人への負担と強く関連するのではないかと思われる。

評点の合計が 2.5 以下の症例では、④活動を妨げるかどうかは服薬の必要性と強く関連していたが、音声チックが服薬に関係したのは 3 名のみで、5 例は運動性チックが関連していた。この 5 例の服薬と関連する運動性チックでは、顔面（口の中を咬む）と全身（全身の強直や振動）が 5 例中 4 例を占めていた。つまり重症度の低い症例では運動性チックが日常生活に支障をきたす割合が多くなっていた。

この誘因となった音声チックと運動性チックの検討結果からは、音声チック自体の

重症度評価は重要であることがわかる。

金生はトゥレット障害 59 例を含む 75 例のチック障害について、向精神薬処方に影響を与える要因について調査し、YGTSS の音声チックの重症度は向精神薬の処方された群で高く、服薬の有無に影響を及ぼす要因が音声チックの重症度であると記載した。

教室での授業中に顕著な音声チックがあると、担任教師や同級生も無視しがたく、保護者の心配も大きく、患児もチックを抑制しようとして疲労し、学習に集中できず疲れてしまうであろう。また卒業式、入学式などの学校行事や試験の時など、患児が音声チックを抑制しようとして大きな努力を強いられる。そのようなことが結果として運動性チックよりも音声チックが服薬の誘因になりやすいことに関連するのであろう。

このような点では、音声チックと運動性チックを別に評価する YGTSS が、より音声チックの係わる重症度を明瞭に示すことができると思われ、今後検討する予定である。

4. 機能の全体的評定尺度（GAF）

GAF は服薬群が有意に 70 以下が多かったが、41-50 の学校機能における深刻な障害が 1 例にみられるものの、そのほかの症例は 51 以上、つまり学校機能の中等度、あるいはそれより軽度の困難という水準であった。また非服薬群の一部は 61-70 で学校機能のいくらかの困難がある症例もあるが、多くは 81-90 でほとんど生活の問題がない症例であった。つまり服薬群でも全体的機能はそれほど低くはないという結果であった。

また GAF と STSS の評点の合計とは相関があり、トゥレット障害が重症であるほど人の心理的、社会的、および職業的機能の全体的な水準、つまり家庭や学校での日常生活全体の水準も低くなっていた。

金生（7）は、チック症状による悪影響の重症度を GAF 評価点で測定し、未成年と成人を含む全体では向精神薬処方への影響は明らかではなかったが、未成年に限った解析では GAF が向精神薬の処方の有無と有意に関連していたという。

また金生（7）は未成年では薬物療法のエビデンスが乏しく、向精神薬処方の有無を合理的に決定することが困難で、結果として登校しぶりなどのチック症状による悪影響のため長期的な視点でやむをえず薬物療法を行っていたと推測されるという。

我々も、学童期、思春期の小児への処方の有無に影響を与える要因として、チック症状による悪影響の重症度は無視できない要因であると考えた。

今後は、服薬群での服薬期間や服薬量、服薬群と非服薬群の長期経過や予後などをさらに検討する必要があると考えられた。

引用文献

- 1) 高橋三郎、大野裕、染矢俊幸訳、チック障害、DSM-IV-TR 精神疾患の診断・統計マニュアル、医学書院、東京、p118-124、2004
- 2) 山中奈緒子、星加明德、トゥレット障害小児 83 例の臨床的検討、小児の精神と神経、45 (4) 331-339、2005
- 3) 太田昌孝（研究代表者）自閉症児の認知発達治療および治療効果の評価についての方法論と評価尺度の開発に関する研究、

三菱財団研究中間報告書、付録 II -2 Shapiro の Tourette 症候群重症度尺度（Shapiro Tourette syndrome Severity Scale）、1989

4) Shapiro A.K., Shapiro E.S., Young J.G. et.al: Gilles de la Tourette syndrome, Second Edition, pp176-179, Raven Press, New York, 1988

5) Shapiro A.K., Shapiro E.S., Young J.G. et.al: Gilles de la Tourette syndrome, Second Edition, pp453-451, Raven Press, New York, 1988

6) Shapiro A.K., Shapiro E.S., Young J.G. et.al: Gilles de la Tourette syndrome, Second Edition, pp508-509, Raven Press, New York, 1988

7) 金生由紀子：チック障害における向精神薬処方に影響を与える要因に関する研究、トゥレット症候群の治療や支援の実態の把握と普及啓発に関する研究、厚生労働科学研究費補助金 平成 20 年度総括・分担研究報告書、p31-35

8) Fahn S : The clinical spectrum of motor tics, Gilles de la Tourette Syndrome ,edited by Friedhoff AJ, Chase TN, Raven Press, New York, pp341-344, 1982

9) 金生由紀子、チック障害・トゥレット障害、精神科治療学、23（増）223-228、2008

10) 新井卓：トゥレット症候群の重症例への対応、こころの臨床アラカルト、27 (1)、81-86、2008

E. 結論

トゥレット障害小児で服薬が必要であっ