

目次

0. 概要	1
0.1 研究目的	1
0.2 症例対照研究	2
0.2.1 研究目的	2
0.2.2 シェーマ	2
0.2.3 対象者	2
0.2.4 調査方法	2
0.2.5 調査項目	2
0.2.5.1 言語聴覚医学的検査（医療機関等での既存検査結果を含む）	2
0.2.5.2 アンケート・調査票（保護者、各施設）	3
0.2.6 統計解析	3
0.2.6.1 目的変数（帰結変数）	3
0.2.6.1.1 主要目的変数（主要帰結変数）	3
0.2.6.1.2 副次的目的変数（副次的帰結変数）	3
0.2.6.2 説明変数（曝露変数）	3
0.2.6.2.1 主要説明変数（主要曝露変数）	3
0.2.6.2.2 副次的説明変数（副次的曝露変数）	3
0.2.6.3 交絡変数（調整変数）	4
0.2.6.4 副次的な分析	4
0.2.6.4.1 領域別言語発達機序に関する分析	4
0.2.6.4.2 費用効果分析	4
0.2.7 目標症例数	4
0.2.8 研究期間	4
0.3 介入研究	5
0.3.1 研究目的	5
0.3.2 デザイン	5
0.3.3 対象者	5
0.3.4 介入方法	5
0.4 問い合わせ先	6
1 背景と根拠	10
2. 研究目的	11
3. 症例対照研究	12
3.1 研究目的	12
3.2 研究デザイン	12
3.3 研究協力者及び対象者のリクルート	12
3.3.1 研究協力者の公募	12
3.3.2 研究参加施設の登録	12
3.3.3 対象者	13
3.3.4 対象者のリクルート	13
3.4 対象者の登録、説明と同意、情報の収集、データの流れ	13
3.5 調査方法	13

3.6 統計解析.....	14
3.6.1 目的変数（帰結変数）.....	14
3.6.1.1 主要目的変数（主要帰結変数）.....	14
3.6.1.2 副次的目的変数（副次的帰結変数）.....	14
3.6.2 説明変数（曝露変数）.....	14
3.6.2.1 主要説明変数（主要曝露変数）.....	14
3.6.2.2 副次的説明変数（副次的曝露変数）.....	14
3.6.3 交絡変数（調整変数）.....	14
3.6.4 副次的な分析.....	15
3.6.4.1 領域別言語発達機序に関する分析.....	15
3.6.2.2 費用効果分析.....	15
3.7 目標症例数とその設定根拠.....	15
3.7.1 目標症例数.....	15
3.7.2 目標症例数の設定根拠.....	15
3.8 研究期間.....	16
3.9 期待される効果.....	16
3.10 限界.....	16
4. 介入研究.....	17
4.1 研究の概要.....	17
4.2 対象者.....	17
4.3 介入方法.....	17
5. 言語発達評価法の確立.....	18
5.1 研究目的.....	18
5.2 説明と同意、匿名化.....	18
5.3 標準化の内容.....	18
5.4 対象者.....	18
5.5 研究期間.....	18
6. 共通事項.....	19
6.1 説明と同意.....	19
6.1.1 説明と同意の方法.....	19
6.1.2 説明と同意の内容.....	19
6.1.3 同意書兼登録書の記載.....	20
6.1.4 同意の撤回.....	20
6.2 対象者の登録手順.....	20
6.2.1 同意書兼登録書の管理と保管.....	20
6.2.2 保護者アンケート調査票の記入.....	20
6.2.3 同意書兼登録書・保護者アンケート調査票の送付.....	21
6.2.4 匿名化と登録通知書の送付.....	21
6.3 データの収集と入力・記入.....	21
6.3.1 施設の区分.....	21
6.3.2 ブロックリーダーによるマネジメント.....	21
6.3.3 施設用調査票への記載（施設Aおよび施設B）.....	21

6.3.4	検査の施行と検査結果シートへの記載	22
6.3.5	データの入力・記入と管理	22
6.4	施設用調査票の内容	23
6.4.1	施設用調査票（聴覚特別支援学校（小学部）用）	23
6.4.2	施設用調査票（聴覚特別支援学校（幼稚部）用）	23
6.4.3	施設用調査票（難聴幼児通園施設用）	24
6.4.4	施設用調査票（メインストリーム用）	24
6.4.5	施設用調査票（医療機関用）	24
6.4.6	研究参加施設の状況に関するアンケート	24
7.	研究運営に関する次項	25
7.1	研究計画の承認及び変更	25
7.1.1	研究計画の承認	25
7.1.2	研究計画の見直し、変更手続き	25
7.1.3	追加複合研究	25
7.2	研究結果の発表	25
7.3	倫理的事項	25
7.3.1	個人情報保護	25
7.3.2	安全管理	25
7.4	社会的な問題	26
7.5	モニタリングと監査	26
7.5.1	記録の保存	26
7.5.2	定期モニタリング	26
7.5.3	施設監査の実施	26
8.	研究協力者・研究組織の役割と連携	27
8.1	研究責任者及び研究協力者とその役割	27
8.1.1	戦略研究リーダーの責務	27
8.1.2	戦略研究統括責任者の責務	27
8.1.3	地域及び研究参加施設における研究協力者・担当者とその役割	27
8.1.4	職種別の研究協力者とその役割	27
8.2	研究組織の構成	28
8.2.1	戦略研究リーダー及び事務局	28
8.2.2	アドバイザー委員および連絡先	28
8.2.3	統計解析責任者および連絡先	29
9.	参考文献	30
10.	補遺	32
10.1	施設連携と情報の流れ	32
10.2	用語の定義および解説（50音順）	33
10.3	付帯文書	36
10.3.1	説明と同意取得、対象者登録に関するもの	36
10.3.2	保護者にて記載されるもの	36
10.3.3	研究参加施設にて記載されるもの	36

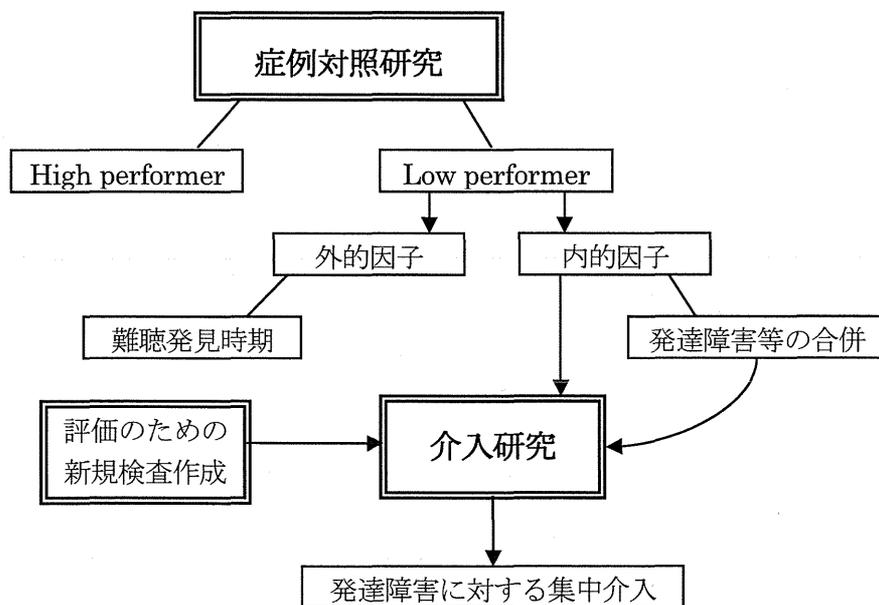
1 背景と根拠

聴覚障害児は、二次的に言語発達に影響が及ぶ(1-6)。その影響は聴覚障害の発見が遅れるほど顕著になるとされ、新生児期に聴覚障害を早期発見する手法（新生児聴覚スクリーニング）が開発、本邦では平成13年度から各自治体でのモデル事業が開始された。

しかし、この聴覚障害児の早期発見の効果は、明確に結論づけられていない。2008年のUS Task forceによるsystematic review(7)では、英国での症例対照研究をもとに言語発達に関わる有効性が報告されている。本邦では現在、産科医院の約60%で新生児聴覚スクリーニングが実施されているが(8)、その実態と本邦における有用性は未だ確立されていない。平成18年度で国のモデル事業としての新生児聴覚スクリーニングは終了したが、聴覚障害児の言語発達を大きくサポートする可能性のある方策であるだけに、その医学的エビデンスを確立することの意義は大きい。

聴覚障害児の言語発達は、教育に用いるコミュニケーション手段によって大きな影響を受けるとされる。コミュニケーション手段には大別して、①音声言語を主たるメディアとして用いる方法（口話教育ないしは聴覚口話教育）と、②手指メディアを用いる方法（手話教育）とに分けられる。しかし両者の言語発達の違いを直接比較した検討では、質的な違いはあるものの発達の程度には大きな違いはないと報告されている(24-27)。このため、コミュニケーション手段の観点から大規模疫学調査を実施するためのエビデンスは、未だ集積されていない。

一方、教育や補聴方法・コミュニケーション手段などの因子が同一の聴覚障害児でも、言語発達の程度が異なることは以前から指摘されている。Gilbertsonら(16)、Geersら(21)などの検討から、聴覚障害児は低い言語パフォーマンスを示す群（low performer）と、聴力正常児と同等の言語パフォーマンスを示す群（high performer）に分かれることが報告されている。聴覚障害児の約30%には学習障害が合併するとされ(18)、言語学習に関わる様々な認知機能の偏りが、聴覚障害児の言語発達に大きな影響を与えている可能性は以前から指摘されている。しかし本邦では、発生頻度などの記述疫学についてもほとんど報告がない。こうしたlow performerの背景因子を症例対照研究の中で明らかにし、また介入研究によってその対処法を確立することは聴覚障害児の日本語言語発達を保障するために極めて重要である。



2 研究目的

聴覚障害児の日本語言語発達に影響を与える因子を明らかにし、発達を保障する手法を確立する。難聴の早期発見や、児の持つ認知的な偏り（発達障害等）が与える影響について、国際的なレベルのエビデンスを確立し、聴覚障害児に対しより良好な言語発達をもたらす方策の普及を目指す。

(1) 症例対照研究、(2) 介入研究、の2つのサブ研究から構成されるが、介入研究は症例対照研究の結果に基づき、別に策定する。研究早期から成果を出しながら、最終的に高水準な研究デザインによる結果に到達することを基本方針とする。

3 症例対照研究

3.1 研究目的

第一に、新生児聴覚スクリーニング実施による難聴早期発見の日本語言語発達への寄与について検証する。第二に、発達障害を合併する聴覚障害児の出現頻度を観察する。また同時に、日本語話者・小児に実施する既存の検査について、聴覚障害児に対応させるための評価を行う。これらの検討を通して、言語発達に関わる因子を探索的に明らかにし、介入研究の設計に反映させる。

3.2 研究デザイン

本研究は多施設共同症例対照研究である。

聴覚障害児特別支援教育施設、メインストリーム、難聴幼児通園施設、耳鼻咽喉科医療機関等においてリクルートした対象者について、言語発達検査により症例（言語発達不良群）と対照（言語発達良好群）に分け、難聴の早期発見（新生児聴覚スクリーニングによる発見）の状況を比較する。また、得られたデータについて探索的に検討を行い、聴覚障害児の日本語言語発達に関わる因子の意義付け、ことに発達障害の合併と言語発達との関連について検討する。

研究デザインの名称については、症例と対照を一括してリクルートすることから、断面研究とすべきであるという考え方もありうる。その一方で、曝露について母子健康手帳や診療記録等により過去の情報を収集することから、本研究では症例対照研究の名称を用いることとする。

一部の地域については、満4歳未満の時点で耳鼻科医療機関において難聴が確認された時点をベースラインとした、回顧的コホート研究（retrospective cohort study）としての分析も行う。

3.3 研究協力者及び対象者のリクルート

3.3.1 研究協力者の公募

公募によって研究協力者を全国より募集する。主として聴覚障害児特別支援教育施設の職員を対象とし、その他にいわゆるメインストリーム、難聴幼児通園施設、耳鼻咽喉科医療機関などの職員も含める。応募可能な職種は以下の通りとする。

- ・医師
- ・言語聴覚士
- ・教員等

応募者は、症例対照研究推進委員会によって本研究への参加および適切な遂行が可能であるかどうか選考され、適格と認定された場合に研究協力者として登録される。なお、研究の効率的及び円滑な実施のため以下の条件を満たす者を優先して登録するが、一部のみ可能な場合についても症例対照研究推進委員会にて協議の上で登録可能とする。

- ・本戦略研究の意義に賛同し、本研究計画書に従って研究を実施することが可能なこと。
 - ・本研究の対象者を基準（「3.3.3 対象者」を参照）から判定し、対象者およびその保護者へ研究説明書を配布し説明を行い、研究参加同意書を回収することが可能なこと（説明は非対面でも可）。
 - ・対象者の研究参加同意書および必要な個人情報・臨床データ等を、遅滞なくすべてデータマネージメントセンター・研究事務局あるいは研究協力者等に提供できること。
 - ・データマネージメントセンター・研究事務局あるいはブロックリーダー等からの求めにより、対象者の療育経過などのデータを定期的に、また必要時に随時提供できること。
 - ・医療機関と教育施設との連携基盤がすでにあり、情報の共有が可能な施設に所属していること。
- 研究協力者は、施設内及びブロックリーダーまたは地域担当者との間で十分な協議を行い、研究遂行に必要な体制を構築する。また症例対照研究推進委員会は、必要に応じてサポートを行う。

3.3.2 研究参加施設の登録

研究協力者が所属する施設は、研究参加施設として登録される。研究参加施設内の職員は、評価担

当事者あるいは協力職員として研究協力者を中心に十分な協議を行い、研究遂行に必要な体制を構築するとともに、協力して研究にあたる。

また症例対照研究推進委員会は必要に応じてサポートを行う。

3.3.3 対象者

生下時から聴覚障害をもつ児で、以下の基準を満たす者。

(1) 4歳～12歳（小学校6年生）

(2) 満4歳未満の時点で聴力レベル70dBHL以上の難聴

・満4歳以降に70dBHL以上の難聴となった者は含まない

(3) 発達検査などが施行可能な者

・質問応答関係検査が実施できない重度の知的または身体障害などを有する者は、対象者に含まない。

対象者全員に言語等の発達検査を行い、学年別中央値より低値の者を症例、高値の者を対照とする。

3.3.4 対象者のリクルート

個々の対象者への協力依頼は原則として研究参加施設において行う。

3.4 対象者の登録、説明と同意、情報の収集、データの流れ

「6 共通事項」に記載する。

3.5 調査方法

保護者に対する説明と同意を受け、対象者の言語聴覚医学的検査、保護者への自記式質問票、また医療機関及び教育機関（特別支援学校、難聴幼児通園施設、メインストリーム）への質問票による情報収集を行う。

言語聴覚医学的検査は、別に定める検査マニュアルに従って評価担当者あるいは協力職員等が検査・評価を行い、データを登録する。対象者の最も好むコミュニケーションモードで検査を実施し、情報を収集する。検査・評価を行う施設は、原則として対象者が通院する医療施設あるいは通学・通園している教育施設などとするが、施設の状況により複数の施設で検査を分担することも可とする。検査は1回を40分間程度とし、合計2回程度で終了を目安とする（教研式学力検査 CRT-II と質問応答関係検査は除く）。ただし児の状態などにより、さらに複数回に分けて実施することも可能とするが、検査期間は3ヶ月以内を目安とする。

対象者が通う施設において、直近（原則として過去6ヶ月以内）に実施された検査がある場合には、その内容を確認したうえで可能な限り診療録等からの転記を行い、新たな検査は求めないこととする。

検査と評価を行う内容は以下の通りである。

・聴力レベル

固定時の裸耳聴力、装用時聴力

・単音節受聴明瞭度：67式語音聴力検査による最高語音明瞭度

・全般的知能：

非言語性知能：レーヴン色彩マトリックス検査 RCPM

言語性課題を伴う知能：ウェクスラー系およびビネー系の知能検査・発達検査

・広汎性発達障害スクリーニング：広汎性発達障害日本自閉症協会評定尺度 PARS

・各モダリティーの言語発達度：

・コミュニケーションのための言語力：質問応答関係検査

・学習のための言語力：教研式標準学力検査 CRT-II

・理解・産生構文能力：失語症構文検査 STA

- ・語彙の理解力：改訂版絵画語彙発達検査 PVT-R、標準抽象語理解力検査 SCTAW
- ・語彙の産生力：語流暢性検査 WFT
- ・書字読字能力：読み書きスクリーニング検査 STRAW
- ・談話能力：標準失語症検査補助テスト「漫画の説明」の一部 SLTA-ST(R)
- ・発話明瞭度：発話明瞭度評価 SIR、構音検査
- ・社会的認知の発達：心の理論課題
- ・コミュニケーションモード（音声／混合／手話）：保護者及び施設担当者による自記式調査票
- ・補聴方法：補聴器、人工内耳、補聴なし
- ・家族・家庭の教育への関与：保護者及び評価担当者・協力職員等による自記式調査票

3.6 統計解析

多重ロジスティック回帰分析を行う。交絡変数を調整しつつ、説明変数（曝露変数）と目的変数（帰結変数）のオッズ比を算定する。また、目的変数を連続数で扱う重回帰分析等を行う。

3.6.1 目的変数（帰結変数）

下記の主要目的変数により分類し、次いで副次的目的変数による分類を行う。

3.6.1.1 主要目的変数（主要帰結変数）

- ・コミュニケーションのための言語力：質問応答関係検査
- ・学習のための言語力：教研式標準学力検査 CRT-II

就学前から低学年の言語力はコミュニケーションのための言語が言語機能の中心であるが、就学後、高学年になるにつれて学習の手段としての言語の重要性が増してくる。このため、1) 就学前から小学校低学年の間には質問応答関係検査を主要帰結変数として用い、2) 小学校3年生以上の学年では、CRT-IIの結果を主要帰結変数として用いる。なお、就学後～小学校3年生までは質問応答検査の結果と CRT-II の結果を合わせて検討し、その間の発達の連続性についても考察する。

3.6.1.2 副次的目的変数（副次的帰結変数）

- ・理解・産生構文能力：失語症構文検査 STA
- ・語彙の理解力：改訂版絵画語彙発達検査 PVT-R、標準抽象語理解力検査 SCTAW
- ・語彙の産生力：語流暢性検査 WFT
- ・書字読字能力：読み書きスクリーニング検査 STRAW
- ・談話能力：標準失語症検査補助テスト「漫画の説明」の一部 SLTA-ST(R)

聴覚障害児においては、1) 実際のコミュニケーション場面での言葉の使い方に問題があるケースが多いこと、また2) 小学校入学後に学力的に伸び悩むケースがあることが知られている（9歳の壁）こと、等よりこれらの項目を選択した。

3.6.2 説明変数（曝露変数）

3.6.2.1 主要説明変数（主要曝露変数）

- ・難聴が発見された時期（新生児聴覚スクリーニングによるか、その後発見されたか）

3.6.2.2 副次的説明変数（副次的曝露変数）

- ・難聴に対する療育が開始された年齢
- ・家族・家庭の教育への関与：保護者及び研究参加施設担当者による自記式調査票

3.6.3 交絡変数（調整変数）

- ・妊娠中の合併症
- ・聴力レベル：満4歳時点の平均聴力および固定時の平均聴力

- ・単音節受聴明瞭度：67式語音聴力検査における最高語音明瞭度
- ・コミュニケーションモード（音声／混合／手話）：保護者及び施設担当者による自記式調査票
- ・補聴方法
- ・全般的知能
 - 非言語性知能：レーヴン色彩マトリックス検査 RCPM
 - 言語性課題を伴う知能：ウェクスラー系およびビネー系の知能検査・発達検査
- ・広汎性発達障害スクリーニング：広汎性発達障害日本自閉症協会評定尺度 PARS
- ・書字読字能力：読み書きスクリーニング検査 STRAW
- ・発話明瞭度：発話明瞭度評価 SIR、構音検査
- ・社会認知の発達：心の理論課題

3.6.4 副次的な分析

主たる解析結果を補足する考察を行う目的で、副次的評価項目の分析を行う。

3.6.4.1 領域別言語発達機序に関する分析

以下の検査結果を目的変数として用いた解析、また交絡変数に加えた解析を行う。さらに、これらの解析結果から探索的な検討を行う。

- ・理解・産生構文能力：失語症構文検査 STA
- ・語彙の理解力：改訂版絵画語彙発達検査 PVT-R、標準抽象語理解力検査 SCTAW
 - ・語彙の産生力：語流暢性検査 WFT
- ・談話能力：標準失語症検査補助テスト「漫画の説明」の一部 SLTA-ST(R)

また言語発達良好・不良の各群において、1) 主要目的変数と、副次的目的変数の間の関連について検討し、どのモダリティーが、コミュニケーションや学習のための言語力とそれぞれ関わっているかについて検討する。また、各調整因子についても主要目的変数との関係をそれぞれ探索的に検討する。これらの主要目的変数と副次的目的変数および調整変数の関連についてパス解析を行う。この過程で、外的因子（難聴の発見時期や教育方法など）、内的因子（聴力レベルや発達障害の合併など）がそれぞれ言語発達のどの部分に寄与するのかということをはっきりさせる。

さらに、選択バイアスの影響を評価するために、研究参加割合が90%以上の地域のみでのサブ解析を行う。

3.6.4.2 費用効果分析

新生児聴覚スクリーニングの費用及び聴覚障害児の言語発達の遅れによる損失金額について情報収集を行い、費用効果分析を試みる。

3.7 目標症例数とその設定根拠

3.7.1 目標症例数

4歳～12歳（小学校6年生）の8学年について各学年100人、合計800人

3.7.2 目標症例数の設定根拠

全国の高度聴覚障害児の総数は各学年700人程度であると推定されており、本研究ではその1割強のエントリーを目指す。

福島は、少数例による試行研究（未発表）において、難聴の早期発見群（E群）と晚期発見群（L群）との間で、7歳における種々の日本語言語発達等の比較を行った。その結果、発話明瞭度が80%以上の児の割合は、E群で約40%、L群で約10%であった。この場合、有意水準5%、検出力90%で、必要総症例数は84例以上と計算される。同様に、語彙数が2000語以上の割合は、E群で約60%、L群で約20%であり、必要症例数は60例以上となる。一方で、絵画語彙発達検査で概ね健聴児並の

6歳相当以上の割合は、E群で約4%、L群で約1%であり、必要総症例数は1134例以上となる。

この結果から、主要な日本語言語発達検査項目について、ほぼ中央値で発達の良好及び不良を分類した場合、各学年100例のエントリーにより学年毎に検討が可能であると考えられた。また、全学年を一括して分析した場合でも、一定の範囲で健聴児並のカットオフポイントによる検討が可能であると考えられた。

3.8 研究期間

2009年1月～2010年1月

3.9 期待される効果

比較的短期間に新生児聴覚スクリーニングの有用性を明らかにすることができ、政策的に全国一律の新生児聴覚スクリーニングを導入すべきか否かの判断材料を提供することができる。さらに特に配慮の必要な訓練介入が必要な対象者の検出を行い、介入研究の設計を行うことができる。

3.10 限界

症例対照研究の宿命として、Berksonのバイアスと呼ばれる選択バイアスの一種が生じるおそれがある。すなわち、ある地域の聴覚障害児での研究参加割合が、言語発達の低い群において、他の群より低いなどの状況が見られた場合には、選択バイアスにより結果が偏るおそれがある。この問題に対処するために、研究参加割合が90%以上の地域のみでのサブ解析を行う。

4 介入研究

4.1 研究の概要

聴覚障害児には、言語の発達に影響する様々な発達障害が合併することがある。個人の認知障害など、合併する発達障害に配慮した訓練介入の有用性を明らかにすることによって、より良好な言語発達が期待されると同時に、教育と医療の連携システムを作るための政策的な提言が可能となると期待される。

クラスター無作為比較対照試験(cluster randomized controlled trial)により、施設単位で介入群(集中訓練を行う群)と対照群(通常訓練を行う群)を無作為に割り付けて訓練を行い、その効果を評価する。

4.2 対象者

満7歳以上の聴力レベル70dBHL以上の聴覚障害児であり、かつ症例対照研究により以下のリスクを有する者とする。

4) 読み書き障害 (DD) 合併ハイリスク群

(読み書きスクリーニング検査 STRAW により検出)

5) 広汎性発達障害 (PDD) 合併ハイリスク群

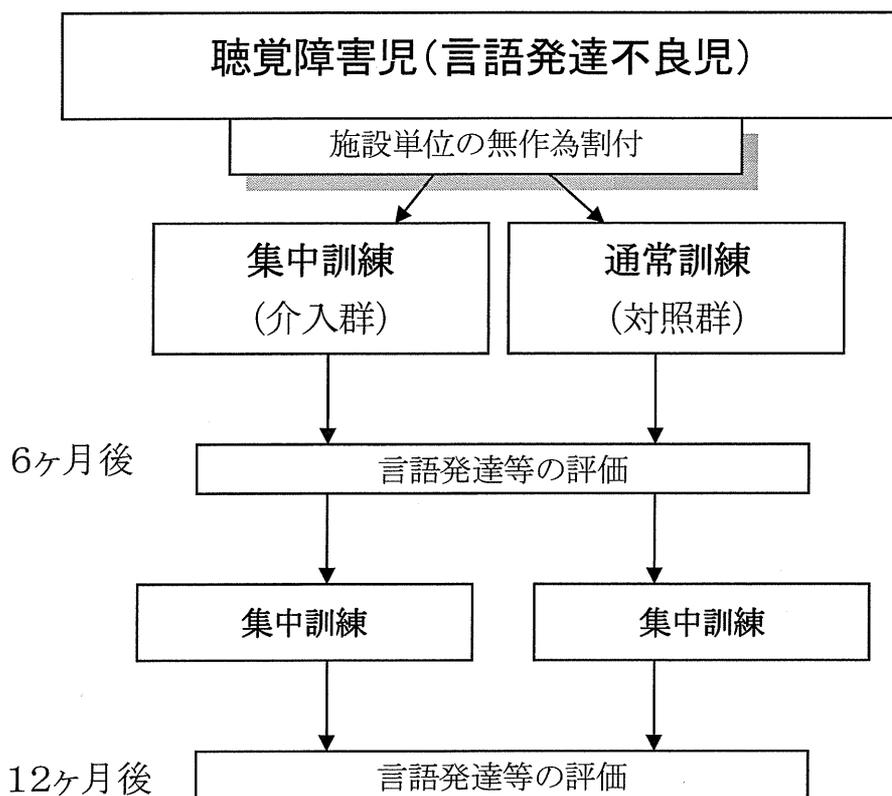
(広汎性発達障害日本自閉症協会評定尺度 PARS により検出)

6) 特異的言語障害 (SLI) 合併ハイリスク群

(失語症構文検査 STA 及び標準抽象語理解力検査 SCTAW により検出)

4.3 介入方法

症例対照研究の結果をふまえ、支援プログラム委員会にて集中訓練の方法およびスケジュールを決定する。



5 言語発達評価法の確立

5.1 研究目的

言語発達評価に用いる検査の中には、既存のものでは不十分なもの・日本語化されていないもの・研究目的に合致しないものなどがある。これらの項目については、新たに検査手法の確立あるいは日本語化による使用環境の整備などが必要である。

(1) 語用・談話機能評価法、(2) 日本語文法習得力検査法、(3) 学習言語評価法、について、それぞれ検査手法の確立と標準化を実施する。また、既存の検査についても標準値の追加が必要ものは検討する。

5.2 説明と同意、匿名化

別紙(「ことばの発達の調査」に関する説明書)により説明し、口頭で同意を得る。検査データはその場で匿名化したうえで、データマネージメントセンターにて管理する。

5.3 標準化の内容

既存の評価のうち、追加の標準化が必要な検査項目として以下を検討する。

- 1) 失語症構文検査 STA、質問応答関係検査、標準失語症検査補助テスト SLTA-ST「漫画の説明」
- 2) 検討項目(語彙、統語、機能語の使用、構文の使用など)が発達段階ごとにどのような標準値を示すかについての検討
- 3) 手話を第一言語とする聴覚障害児の手話発達に関する定量的研究

近年、早期からの手話導入が行われるようになった。しかし、ろう児の手話獲得状況についての客観的な評価は現状では不可能である。本研究は、武居が行ってきた手話獲得及び手話評価研究をもとに、手話評価テストを作成し、発達過程を明らかにしていく。また、この検査を手話のネイティブスピーカーに対して行い、それ以外の本研究で行われている日本語言語発達検査成績と比較して、検査結果の比較をする。

5.4 対象者

- 1) 既存検査の再評価
聴覚に特に異常の無い4歳～12歳(小学校6年生)児： 各学年あたり20人
- 2) 手話発達に関する定量的研究
聴覚障害児で、手話ネイティブに使用している者のうち、同意が得られた者： 10人

5.5 研究期間

研究期間 2009年1月～2012年3月

登録期間 2009年1月～2012年3月

6 共通事項

6.1 説明と同意

6.1.1 説明と同意の方法

研究協力者および研究参加施設の協力職員等は、研究対象候補者が研究対象基準を満たすかどうかを検討する。基準に合致している場合、研究対象候補者の保護者等に対し説明書を配布し、その内容を説明する（説明書の内容は「6.1.2 説明と同意の内容」参照）。文書の配布はその施設の状況等により、保護者等に直接渡す場合と児を通じて渡す場合とがある。口頭による説明は、個別に行う場合と集団で行う場合（保護者会など）とがある。

保護者等にとって不明な点がある場合には自由に質問できる機会を設け、また考える時間を適切においた後に、同意書（兼登録書）への署名及び押印によって同意を受ける。本研究の対象は未成年者であるため、同意者は保護者等の親権者となる。なお、印鑑を持参していない場合など押印が不可能である場合には、自筆の署名でも良いものとする。

6.1.2 説明と同意の内容

対象者・保護者等への説明と同意を受ける内容は、以下の通りである。

- (1) 本研究では、聴覚障害児の言語発達について調べることが目的であること。
- (2) 本研究が、厚生労働科学研究費によって行われること。
- (3) 本研究は、平成 24 年 3 月までの予定であること。ただし、延長される可能性もあること。
- (4) 本研究は、「疫学研究に関する倫理指針」（文部科学省・厚生労働省策定、平成 19 年 8 月 16 日改正）に沿って実行されること。
- (5) 本研究では対象者に言語等に関する検査を行い、その様子は記録（録音・録画・メモなど）されること。また検査の結果は、後日口頭あるいは書面で説明を受けられること。
- (6) 保護者にはアンケート調査が行われること。
- (7) 対象者が通院している医療機関および通学・通園している教育・療育施設に対しても調査が行われること。
- (8) 本研究への参加には同意書の提出が必要であること。本研究への参加は自由で、参加しなくても不利益を受けない（通常の診察・教育が受けられる）こと。いったん同意した後、いつでも同意の撤回および研究参加の中止ができること。
- (9) 本研究のため得られた情報は、匿名化のうえデータ登録が行われること。また、情報の受け渡しには十分な管理対策がとられており、プライバシーに関する情報は保護されること。また、対象者の人権が守られながら適正に研究が行われているかどうかを確認するために、研究関係者が対象者の記録を閲覧することがあること。
- (10) この研究により得られた成果は学会や医学雑誌等にて公表されるが、個人情報などプライバシーに関する情報は公表されないこと。
- (11) 集められた情報は個人情報保護を最優先に厳重に保管され、今後の聴覚障害児の発見や言語指導等の研究に活用されること。また希望により情報の破棄も可能であること。
- (12) 有害事象の発生や研究継続困難な場合などには、希望を問わず研究参加を中止することがあること。
- (13) 本研究について、質問などがある場合には問い合わせができること。
- (14) 本研究に参加するための費用はかからないこと。
- (15) 研究参加者全員に 1,000 円相当の謝品（図書カード）が支給されること（1 回限り）。ただし同意書に署名のうえ、必要なアンケートなどが完了しない場合には支給されないこと。
- (16) 交通費など研究参加のために生じる費用を支払うことはできないこと。
- (17) 本研究に関し、電話・封書・電子メール・FAX等を用いて連絡や問い合わせを行うことができること。また対象者の都合などにより、同意の範囲内で家族などに問い合わせをすることがあ

ること。

(18) 対象者は希望により、研究計画書などの資料を閲覧することができること。

(19) この研究の成果により特許権等が生み出された場合には、原則として研究実施団体に帰属すること。

6.1.3 同意書兼登録書の記載

研究参加施設の協力職員（言語聴覚士、教員、耳鼻咽喉科医等）は、同意書兼登録書に以下を記載する。

- ・記載年月日
- ・説明者名（押印）と資格
- ・施設名とその所在地
- ・登録施設におけるID番号（カルテ番号、出席番号など）（保護者が記載してもよい）

説明を受け研究参加の意思を示した対象者および保護者は、同意書兼登録書へ以下を記載する。

- ・同意年月日
- ・対象者の情報（保護者による記入で可とする）：氏名、生年月日、性別、現住所
- ・連絡先：電話番号（FAX含む）、電子メールアドレス
- ・登録施設におけるID番号（カルテ番号、出席番号など）（設協力職員の記載でもよい）
- ・研究終了後の情報取扱に関する希望
- ・保護者署名（自署、押印）と続柄（自署があれば、押印は必ずしも要しないこととする）

6.1.4 同意の撤回

対象者およびその保護者等が同意撤回（研究参加の中止）を希望する場合には、その連絡をもって同意撤回（研究参加の終了）とし、同意撤回書の提出は必須としない。研究参加施設の協力職員等は同意撤回に関する事柄を診療録あるいは教育記録などへ直ちに記載し、その旨をデータマネジメントセンターへ速やかに連絡する。

6.2 対象者の登録手順

6.2.1 同意書兼登録書の管理と保管

同意書兼登録書は3枚複写とする。研究参加施設の協力職員等は、署名された同意書兼登録書のうち原本をデータマネジメントセンターへ送付（「6.2.3 同意書兼登録書・保護者アンケート調査票の送付」参照）し、複写1を対象者・保護者等へ交付し、複写2を診療録（医療機関などの場合）または教育記録ファイル（特別支援学校などの場合）等に保管する。

6.2.2 保護者アンケート調査票の記入

保護者等からの情報収集には、保護者アンケート調査票を用いる。同意書兼登録書に署名された当日に書面で手渡し、可能な限り即日に記載・提出するよう依頼するが、困難な場合には後日の提出も可とする。

原則として同意書兼登録書に保護者として署名した者に記載いただくが、困難である場合についてはその他の状況がわかる者でもよいこととする。

本調査票の項目は、以下の通りである。

- ・基本情報：記載年月日、対象者の生年月日など
- ・妊娠出産に関する情報：妊娠週数、出生時体重、妊娠・出産合併症、出産施設など
- ・難聴に関する情報：難聴発見の時期と方法、補聴（補聴器、人工内耳、手話など）の有無および開始時期、言語訓練の履歴など
- ・コミュニケーションに関する情報：家庭内や友達との意思疎通状況、生活や教育に対する保護者

の考え方や状況、学習の様子、学校に対する評価など

- ・医療に関する情報：難聴に関する受診・通院医療機関名、既往歴（人工内耳使用者においては、その合併症の有無等を含む）など
- ・教育に関する情報：通学等を行っている施設名と時期、教育方法など
- ・家族に関する情報：家族構成と手話の使用状況、世帯の総年収、両親の学歴など

保護者等には母子健康手帳（親子手帳）を持参していただき、妊娠出産に関する情報に加えて新生児聴覚スクリーニングの実施の有無及びその結果、乳幼児健診における聴覚に関する所見等についても本調査票への転記を依頼する。なお、回答を希望しない項目がある場合には、調査票にその旨を記載し空白が生じないようにする。

6.2.3 同意書兼登録書・保護者アンケート調査票の送付

研究参加施設の協力職員等は、以下の2種の文書をセットでデータマネジメントセンターへ送付する。

- ・同意書兼登録書（原本）
- ・保護者アンケート調査票

これらは個人情報や意思を含む書類であるため、その保護に配慮した手法で送付する。

6.2.4 匿名化と登録通知書の送付

対象者1名につき1番号となる登録番号(ID)を割り当て、匿名化を行う。

データマネジメントセンターは、上記2書類（同意書兼登録書・保護者アンケート調査票）を受領し、匿名化が完了していること・その他不備がないことを確認のうえで、本研究への対象者登録を行う。登録完了に合わせ、データマネジメントセンターから研究参加施設に対し「登録通知書」が発行される。同時に地域を管轄するブロックリーダーに対しても、「登録通知書（ブロックリーダー用）」が発行される。以後すべての情報はこの登録番号(ID)をもとに管理される。なお、一度割り当てられた登録番号(ID)はたとえ将来的に当該症例が脱落した場合でも欠番となり、他の症例に再使用されることはないものとする。

6.3 データの収集と入力・記入

6.3.1 施設の区分

対象者が通院する医療施設、通学・通園する教育施設・療育施設などを、以下の2種に分類する。

施設A（登録施設）：対象者（および保護者）から同意書（兼登録書）を取得し、保護者アンケートとともにデータマネジメントセンターに送付した施設

施設B（連携施設）：対象者が通院または通学・通園する施設のうち、施設A以外のもの

6.3.2 ブロックリーダーによるマネジメント

ブロックリーダーは、登録通知書（ブロックリーダー用）の受領後直ちに施設AおよびBと協議し、以下の業務を行う。

- ・施設Aに対する施設用調査票への回答依頼
- ・施設Bに対する施設用調査票への回答依頼
- ・対象者への検査施行体制の整備および検査結果の入力・送信体制整備
- ・上記進行状況の管理

6.3.3 施設用調査票への記載（施設Aおよび施設B）

施設Aにおいては、同意書兼登録書の記載・保護者アンケート調査票の記載に次いで、施設用調査票による情報収集を行う（各調査票の内容は、「6.4 施設用調査票の内容」参照）。調査票のデータは、

①研究専用Webホームページ内の施設用調査票入力ページ（要ログイン）から入力、または②用紙に記入し送付、のいずれかの方法でデータマネジメントセンターに送られることとし、その業務は研究参加施設の協力職員等（教師、訓練担当者、主治医等）が行う（「6.3.3 データの入力・送信と管理」参照）。なお、調査票の必要事項に関する情報収集は登録通知書の到着を待つことなく開始することができるものとする。施設用調査票の種類は以下の通りである。

- ・聴覚特別支援学校（小学部）用
- ・聴覚特別支援学校（幼稚部）用
- ・難聴幼児通園施設用
- ・メインストリーム用
- ・医療機関用

このうち各施設に対応するもの1種を使用し、情報はカルテ・既に施行された検査結果・教育記録など原資料からの転記に限るものとする。

施設Bにおいては、ブロックリーダーからの連絡ののち、上記と同様の手順により施設用調査票のうち該当するものいずれか1種に入力または記入することとする。

6.3.4 検査の施行と検査結果シートへの記載

対象者の検査すべてを1日で行うことは困難と考えられるため、状況に応じて複数日をかけて実施する。検査場所はブロックリーダーを中心に施設Aおよび施設Bにて協議し、連携して施行することも可とする。そのスケジュールは個々の施設に委ねられるが、可能な限り速やかに完了するよう工夫する。なお直近（およそ6ヶ月以内）に各施設にて検査が行われているものについては、可能な限り記録からの転記を行うこととし、再度の検査は求めない。

検査の結果は①研究専用Webホームページ内の検査結果入力シート（要ログイン）から入力、または②用紙に記入し送付、のいずれかの方法でデータマネジメントセンターに送られることとし、その業務は研究参加施設の協力職員等（教師、訓練担当者、主治医等）が行う（「6.3.5 データの入力・記入と管理」参照）。なお、検査結果入力シートの必要事項に関する検査および記録の検索は登録通知書の到着を待つことなく開始することができるものとする。検査を複数の施設で分担して行う場合には、ブロックリーダーの管理のもとに結果をまとめ、1施設から入力または記入する。

6.3.5 データの入力・記入と管理

対象者1名につき、各施設にて入力または記入を必要とするファイルは以下の通りである。

- ・施設用調査票（いずれか1種）
- ・検査結果入力シート

（注・複数の施設で検査を分担した場合には、まとめたうえで1施設から入力または記入する）

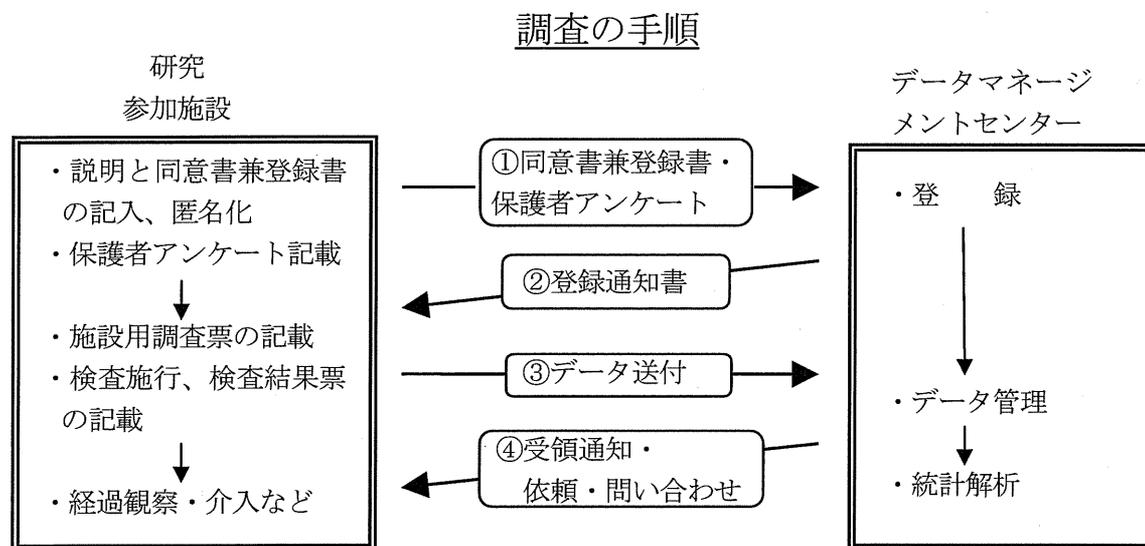
データ入力・記入に際し、不明あるいは結果が得られなかった項目はその旨を記載し、空欄が生じないようにする。なお、以下の規則を遵守しセキュリティに配慮する。

- ・すべて登録番号(ID)を用いる。
- ・Webホームページからデータ入力を行う場合には、個々に割り当てられたログイン用IDとパスワードを用いて、研究専用ホームページ内に設けられた専用エリアにログインすることにより行う。このため、研究参加施設ごとに1施設1番号となる専用ID番号とパスワードを発行する。またデータの入力送信には、通信暗号化プロトコルSSLを用いる。
- ・用紙を用いる場合は、個人情報保護に配慮した手法でデータマネジメントセンターへ送付する。データマネジメントセンターは受領データ内容に不備がないかを速やかに確認し、データ受領通知（電子メール又はFAX）を行う。なお不足がある場合には同センターより問い合わせの上、全ての項目が適切に入力または送付されたことが確認された時点でデータ受領完了とする。

データマネジメントセンターは登録完了後速やか（6ヶ月以内）に全ての検査が完了するよう、

必要に応じてブロックリーダーまたは各施設へ問い合わせや催促を行うとともに、送付されたデータに不備がないことを随時確認する。

データマネジメントセンターと研究協力者、ブロックリーダーとの間で情報のやりとりを行う場合には、登録番号(ID)を用いることにより個人情報の保護を行うが、データの混同を防ぐ場合などに限り、イニシャル、生年月日、カルテ番号その他の情報を併用し照合が行われる場合がある。



6.4 施設用調査票の内容

6.4.1 施設用調査票（聴覚特別支援学校（小学部）用）

研究参加施設の協力職員等は、聴覚特別支援学校（聾学校など）小学部で把握している状況について、施設用調査票（聴覚特別支援学校（小学部）用）への入力または記入を行う。

調査の項目は以下の通りである。

- ・基本情報：ID、記載年月日、学年、学級状況、施設名、教科書学年、担当者氏名など
- ・教育歴や通学に関する情報：通学・通級の状況、教育の変遷、通院医療機関など
- ・難聴に関する情報：難聴発見の時期と方法、聴力レベル、補聴の有無および開始時期など
- ・コミュニケーションに関する情報：友達との意思疎通状況、学校での聴覚補償の有無、発語の印象など
- ・家庭の関与に関する情報：対象者に対する家族の姿勢（学校行事への参加状況）など

6.4.2 施設用調査票（聴覚特別支援学校（幼稚部）用）

研究参加施設の協力職員等は、聴覚特別支援学校（聾学校など）幼稚部で把握している状況について、施設用調査票（聴覚特別支援学校（幼稚部）用）への入力または記入を行う。

調査の項目は以下の通りである。

- ・基本情報：ID、記載年月日、年齢、施設名、学級状況、担当者氏名など
- ・教育歴や通学に関する情報：通学・通級の状況、教育の変遷、通院医療機関など
- ・難聴に関する情報：難聴発見の時期と方法、聴力レベル、補聴の有無および開始時期など
- ・コミュニケーションに関する情報：友達や家族などとの意思疎通状況、学校での聴覚補償の有無、発語の印象など
- ・家庭の関与に関する情報：対象者に対する家族の姿勢（学校行事への参加状況）など

6.4.3 施設用調査票（難聴幼児通園施設用）

研究参加施設の協力職員等は、難聴幼児通園施設で把握している状況について、施設用調査票（難聴幼児通園施設用）への入力または記入を行う。

調査の項目は以下の通りである。

- ・基本情報：ID、記載年月日、年齢、施設名、担当者氏名など
- ・教育歴や通院歴に関する情報：通園開始時期と状況、教育の変遷、通院医療機関など
- ・難聴に関する情報：難聴発見の時期と方法、聴力レベル、補聴の有無および開始時期など
- ・コミュニケーションに関する情報：友達や家族などとの意思疎通状況、学校での聴覚補償の有無、発語の印象など
- ・家庭の関与に関する情報：対象者に対する家族の姿勢（学校行事への参加状況）など

6.4.4 施設用調査票（メインストリーム用）

研究参加施設の協力職員等は、メインストリームで把握している状況について、施設用調査票（メインストリーム用）への入力または記入を行う。

調査の項目は以下の通りである。

- ・基本情報：ID、記載年月日、学年、施設名、教科書学年など
- ・担当教員に関する情報：担当教員名、教職や聴覚障害児教育に関する経験、学級生徒数、聴覚補償のための設備と人員配置の状況など
- ・教育歴や通学に関する情報：通学・通級の状況など
- ・難聴に関する情報：補聴の有無および開始時期、配慮事項など
- ・コミュニケーションに関する情報：通学の状況、学校での意思疎通状況、学校生活状況、発語の印象など
- ・家庭の関与に関する情報：対象者に対する家族の姿勢（学校行事への参加状況）など

6.4.5 施設用調査票（医療機関用）

研究参加施設の協力職員または研究グループの地域担当者等は、対象者が受診している（又は受診していた）耳鼻咽喉科医療機関が把握している状況について、施設用調査票（医療機関用）への入力または記入を行う。

調査の項目は以下の通りである。

- ・基本情報：ID、記載年月日、性別、医療機関名、担当者名、通院状況など
- ・難聴に関する情報：難聴発見の時期と方法、難聴進行の有無、難聴の推定原因、難聴遺伝子診断の有無と結果、合併症、聴力検査結果（純音聴力、語音聴力など）、補聴の詳細および開始時期、発音状況など
- ・言語・発達検査に関する情報：RCPM, WISC-III, SCTAW, PVT-R, STRAW, K-ABC, ITPA, 構音検査、国リハ式<S-S法>、新版K式発達検査、発語の印象など

6.4.6 研究参加施設の状況に関するアンケート

研究参加施設に対し、アンケート調査を行う。調査の項目は以下の通りである。

- ・対応可能な聴覚障害児の年齢下限
- ・施設連携の状況など
- ・教育相談の対応状況など
- ・家族・家庭に対する情報提供や交流の状況など
- ・聴覚障害児の言語発達状況に関する評価方法
- ・施設職員や地域の教職員に対する研修の実施状況など

7 研究運営に関する事項

7.1 研究計画の承認及び変更

7.1.1 研究計画の承認

本研究計画は、研究倫理審査委員会にて審議、承認を受ける。さらに各研究参加施設の倫理委員会にて審議、承認を受けることを原則とする。

7.1.2 研究計画の見直し、変更手続き

中間解析または定期モニタリングの結果として、あるいは重篤な有害事象や研究実施継続に影響する可能性のあるような事象が発生し、本研究の安全性の問題から研究倫理委員会にて研究計画の変更が勧告された場合、戦略研究統括責任者は、研究倫理委員会の審議結果を速やかに戦略研究リーダーに連絡する。戦略研究リーダーは、速やかに運営委員会を開催し、研究倫理委員会の審議結果をもとに研究計画の変更について審議する。審議の結果、研究計画の変更が妥当と判断された場合、戦略研究リーダーは研究計画変更案を作成し、戦略研究統括責任者に提出する。戦略研究統括責任者は、研究評価委員会、研究倫理委員会において研究計画変更案を審査し、承認が得られた上で運営委員会の審議を経てこれを採用する。変更内容に関しては、研究実施団体および研究事務局が速やかに研究参加施設責任者を経て全参加施設の研究協力者に通達する。研究参加施設責任者は、それぞれの施設の倫理委員会に変更後の研究計画について申請を行い、承認を受けた時点から研究を再開、実施する。

7.1.3 追加複合研究

戦略研究統括責任者及び研究リーダーは、必要に応じて追加複合研究を企画することができる。研究の位置づけはあくまで副次的なものとし、本研究との整合性の確保に留意し、研究計画を策定する。当該追加複合研究の代表者は、研究計画書を作成したのち研究倫理委員会に提出、承認を得た上でこれを実施する。

7.2 研究結果の発表

研究結果は、報告書として公表される。また、医学専門雑誌への投稿及び学術集会における発表を適宜行う。オーサーシップについては、財団法人テクノエイド協会（以下、テクノエイド）と厚生労働省障害保健福祉部企画課が協議のうえ別に定める。

7.3 倫理的事項

本研究は、ヘルシンキ宣言に基づく倫理的原則の精神に基づき、対象者の人権及び福祉を守る。また、厚生労働省・文部科学省策定の「疫学研究に関する倫理指針」（平成19年8月16日改正）を遵守し、研究の倫理性、安全性及び研究結果の科学性、信頼性を確保する。

7.3.1 個人情報の保護

本研究において個人情報を含むすべての記録類やデータは、データマネジメントセンター内の管理責任者（データマネージャー）によって匿名化処理されたのち、施錠された部屋において施錠された保管庫に保存する。統計分析を行う際には、匿名化されたデータを使用する。これらの事項は、「データマネジメントマニュアル」によって規定される。

7.3.2 安全管理

本研究は観察研究であり、本研究により対象者への健康被害等がもたらされる危険性はほとんど無いと考えられる。ただし、言語発達等の検査やその結果の説明等において対象者に何らかの影響を与えるおそれが皆無とは言えないため、安全管理には細心の注意を払う。本研究により対象者に不利益が生じたおそれのある事象が発生した場合には、速やかに戦略研究リーダー、戦略研究統括責任者に

報告し、必要により研究倫理委員会の協議を経て適切な対応を行うものとする。

7.4 社会的な問題

聴覚障害児を取り巻く現状として、コミュニケーションモードは「音声で行われるべきである」あるいは「手話で行われるべきである」など、異なった価値観が存在する。また人工内耳についても「必要があれば実施すべきである」という考え方の人がいる一方で、「人工内耳はすべきではない」という価値観を持つものもいる。

そこで本研究の実施及び結果の公表においては、このような多様な価値観を持つ人々を傷つけることが無いように細心の配慮をしながら進める必要がある。ただし、科学的なエビデンスは明確に公表することによって、個々の価値観を踏まえた適切な選択に寄与できることを目指す。

7.5 モニタリングと監査

7.5.1 記録の保存

研究参加施設責任者は、研究のために作成されたデータセット（同意文書類、検査記録など）を、研究終了後も保管する。データマネジメントセンターも同様に、研究の実施に際して新たに作成されたデータまたは資料を、研究終了後も保管する。いずれも個人情報保護法を遵守し、データマネジメントマニュアルに定められた方法で保管する。保管期限については、同マニュアル内に規定する。

7.5.2 定期モニタリング

データマネジメントセンターは戦略研究統括推進本部に対して、6ヶ月に1度、定期モニタリングレポートとして報告する。戦略研究統括推進本部は、進捗管理委員会、研究倫理委員会、研究班事務局へ報告する。

進捗管理委員会は、定期モニタリングレポートを評価し、戦略研究統括責任者へ報告する。研究倫理委員会は、第三者の立場から定期モニタリングレポートを評価し、安全性・有効性の面から研究の継続が倫理的に問題となった場合は、研究計画の変更・中止を戦略研究統括責任者へ勧告する。

7.5.3 施設監査の実施

適宜、施設監査を実施する。監査チームは研究参加施設監査手順書に従って監査をする。担当者は監査結果を研究事務局へ送付し、戦略研究リーダー、研究事務局でこれを評価する。