

特集1 PETによる神経・精神疾患の分子イメージング



2. てんかんの分子イメージング

福井大学 子どものこころの発達研究センター 特命准教授 中井昭夫

てんかんとは、世界保健機構（WHO）の定義によれば、「種々の成因によってもたらされる慢性的脳疾患」であり、「大脳ニューロンの過剰な発射に由来する反復性の発作（てんかん発作）」を特徴とし、それにさまざまな臨床症状及び検査所見が「もんもなう」とされている。てんかんの原因は未だ十分に解明されてはいないが、近年、イオンチャネルや受容体を中心とする様々な原因遺伝子が発見され、また、脳炎や自己免疫を含めた様々な炎症もその原因として注目されている。病態として、脳神経細胞の興奮と抑制のバランスの変化によるものと推測されており、興奮系のグルタミン酸、抑制系のGABA（ γ -アミノ酪酸）などいくつかの神経伝達物質、イオンチャネル異常や様々な炎症などにより、神経細胞の過剰興奮、マイクログリアやアストロサイトの活性化によるサイトカイン等の放出、二次的な血流・エネルギー代謝の変化が起こる。

てんかんの治療において我が国では欧米とのDrug lagが10年以上存在するとされていたが、この数年でガバエンチン、トビラマート、ラモトリギン、レベチラセタムなどいわゆる新規抗てんかん薬が相次いで発売、また、いくつかの薬剤の治験が進行中、あるいは承認申請中であり、これらのDrug lagも徐々に解消つつある。

てんかんのが我が国の有病率は約1%とされているため、推定でも約100万人以上の患者が存在することになる¹⁾。このうち、てんかん症候群または発作型に適切な抗てんかん薬を、これ新規抗てんかん薬を含め、単剤あるいは2~3種類以上、かつ十分な血中濃度で2年以上治療しても、発作が1年以上抑制されず、日常生活に支障をきたす、いわゆる「難治性てんかん」と呼ばれる状態が約10~15%、すなわち10万人以上存在する。しかし、このような薬剤抵抗性のてんかんについても、我が国でも積極的に外科治療が考慮されるようになった（エビデンスレベルⅢ）。特に小児では、生命予後のみならず、精神運動発達やQOLの改善も期待できることから、国際抗てんかん連盟（ILAE）の脳外科委員会では罹患2年以内の手術を推奨している（エビデンスレベルⅣ）。この背景には、SPECT、PET、MRI/MRSなどの分子イメージング、近赤外分光法（NIRS）、脳磁図などの画像診断の進歩と軟膜下皮質多切術（multiple subpial transaction: MST）など手術技術の発展によるものが多い。

以上より、てんかん治療における分子イメージングの役割には大きく2つあると言える。ひとつは合併症・後遺症のない安全で効果的な外科のための、てんかん焦点の決定とその範囲の正確な選定であり、もうひとつは神経・精神病態生理の理解や、抗てんかん薬の選択・開発などに関連するものである。そして、その手法とし

ては、神経伝達物質や受容体、炎症マーカーなど生化学的分子イメージングと、二次的に起こる血流やブドウ糖代謝の変化をみるイメージングに分けることができる。

1. 生化学的分子イメージング

1. 1 GABA受容体

GABAはてんかんにおいて抑制系の神経伝達物質として非常に重要であり、実際、いくつかの抗てんかん薬はGABA作動性の機序により、抗てんかん作用を発揮している。例えば、バルプロ酸はGABA分解酵素を阻害、GABA誘導体であるガバエンチンはGABAトランスポーターを活性化することでGABAを増加させる。また、ベンゾジアゼピン系、フェノバルビタール、トビラマートはGABA_A受容体のクロールチャネルでのクロール流入を促進しその機能を増強する。GABA_A受容体にはベンゾジアゼピン（BZP）結合部が存在し、イミダゾベンゾジアゼピン系物質であるflumazenilはBZP受容体に高い親和性及び特異性を有するが、BZP様作用をほとんど示さないことから^[¹³C]あるいは^[¹⁸F]flumazenil-PETがてんかん焦点の検出に用いられてきた²⁾。てんかん焦点では集積低下を認めるが、FDG-PETでの集積低下部位よりも限局されており、また発作頻度や脳波所見ともよく相關するため、FDG-PETにより有用とする報告もある。また、平成16年に^[¹⁸F]Homazenil（ベンゾドiazepine）がSPECT製剤として「外科的治療が考慮される部分でてんかん患者におけるてんかん焦点の診断」に保険適応となった。脳血流SPECTで検出できない焦点の描出が可能であるケースも少なくない（エビデンスレベルⅢ）³⁾。

1. 2 セロトニン（5-hydroxytryptophan : 5-HT）

いくつかの抗てんかん薬、例えば、バルプロ酸、ラモトリギン、カルバマゼピン、フェニトイン、ソニサミドは5-HTの濃度を上昇させることが知られているが、5-HTはGABAの放出を促進することで間接的に抗てんかん作用をもつ。病理学的にも切除されたてんかん焦点である海馬や皮質形成異常の組織で5-HT神経のHyperinnervationが認められたとする報告もあり、5-HTはてんかんにおいて抑制系の神経伝達物質として重要な役割を果たしている⁴⁾。

1. 2. 1 α -[¹⁸C]-Methyl-L-tryptophan (AMT)

AMTは脳内5-HT合成能を測定することを目的に5-HTの前駆物質であるトリプトファンの α 位をメチル化することで開発されたリガンドで⁵⁾、てんかん焦点では集積上昇が認められる。我々はこれまでに、MRIで複数の病変のある結節性硬化症⁶⁾や皮質形成異常⁷⁾において、脳波やFDG-PETでは焦点の決定ができなかった症例においてもAMT-PETのみが集積を示し、焦点の決定における有用性を報告した。（図1）また、MRIでは萎縮

特集1 PETによる神経・精神疾患の分子イメージング

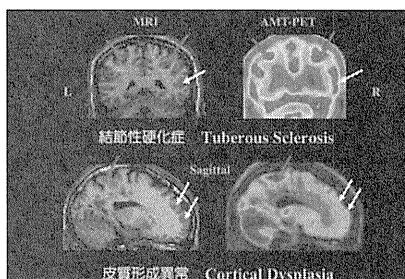


図1 AMT-PETによるてんかん焦点の検出例

上段：結節性硬化症、下段：皮質形成異常

MRIでは複数の病変があるが、AMT-PETでのみ集積増加が認められるもの（マゼンタ）と集積が認められないもの（白）が存在して、てんかん焦点の決定に有用であった。（左：MRI 右：AMT-PET）

の認められない側頭葉てんかんにおける焦点の検出においてもAMT-PETは有用であった⁸⁾。

一方、キヌレンイン経路は通常トリプトファンのマイナーナメドウ経路であるが、てんかんではこの経路が活性化されている可能性、また、この経路の代謝産物であるキノリン酸は神経細胞毒としてけいれんを誘発することから、てんかんにおけるAMTの集積増加はこの経路の活性化を見ているのではないかという議論もある。

1. 2. 2 5-HT_{1A}受容体

5-HT受容体は、ほ乳類において14種以上存在するとされているが、このうち、てんかんと5-HT_{1A}、5-HT_{2A}、5-HT₅、5-HT₇との関連が示唆されている。特に、5-HT_{1A}受容体は、そのノックアウトマウスでてんかん閾値が低下すること、5-HT_{1A}受容体作動薬が抗てんかん作用を有することが知られている。そこで、選択的5-HT_{1A}受容体拮抗薬である“C-WAY100635”、“FCWAY”、“F-MPPF”を用いた側頭葉てんかんや若年性ミオクロニーやてんかんにおけるPET研究が行われており、てんかん焦点での集積低下が報告されている⁹⁾。今後、これら各5-HT受容体の選択的イメージング研究により、てんかんの病態生理における5-HTの機能のより詳細な理解やそれらに基づいた薬剤開発に加え、キヌレンイン経路との関連も明らかになるものと思われる¹⁰⁾。

1. 3 グルタミ酸/N-methyl-D-aspartate (NMDA)

代表的な興奮性神経伝達物質であるグルタミン酸も当然てんかんにおいて重要な役割を果たしている。グルタミン酸受容体は大きくイオンチャネル共役型受容体と、Gタンパク質共役受容体である代謝型グルタミン酸受容体に分類され、さらにイオンチャネル共役型はNMDA受容体、AMPA受容体、カイニン酸受容体に分類される。フェニトイン、カルバマゼピン、ソニサミド、バルプロ酸、ラモトリギンはNa⁺チャネルを抑制、エトサクシミドはT型Ca²⁺チャネルを抑制することで抗てんかん作用をもつ。新規抗てんかん薬であるトビラマートはGABA_A受容体機能の増強、炭酸脱水酵素阻害、電位依存性Na⁺チャネル抑制、電位依存性L型Ca²⁺チャネル抑制に加え、AMPA/カイニン酸型グルタミン酸受容体機能を抑制するなど多彩な作用にて抗てんかん作用を発揮している。

てんかんにおけるグルタミン酸/NMDA系のPET研究としては、NMDA受容体拮抗作用を持つS-[N-methyl-¹⁸F]ketaminを用いた内側側頭葉てんかんでの報告がある。この検討では、焦点部位の発作開始時の取り込みは対側に比べ低下し、FDG-PETとよく相關していた。しかし、グルタミン酸/NMDAに関する分子イメージング研究はてんかんの病態における重要性にも関わらず、それほど進んでいないのが現状である¹¹⁾。

1. 4 ドバミン

ドバミンは線条体を中心に、D₁/D₂受容体を介しててんかんに関連している。海馬硬化症における^[¹⁸F]-fluoro-L-Dopaを用いた検討では、黒質・被殼・側頭海馬での集積低下が報告されている。また、D₂/D₃受容体に高い親和性を示す^[¹⁸F]-Fallyprideを用いた側頭葉てんかんでの検討では、側頭葉極を含む側頭葉で集積低下が見られたが、海馬では認められなかつた。これらの事より、ドバミンは“ictal onset zone”（発作起始領域）ではなく、いわゆる“irritative zone”において、間接的てんかんに関与していることが示唆される¹²⁾。

1. 5 その他の神経伝達物質等の分子イメージング

てんかんに関与するその他の神経伝達物質等の分子イメージングとして、ニコチン性アセチルコリン、アデノシン受容体、オピオイド、ヒスタミン、メチオニン、アクリアボリンに関するリガンドの開発とPETによる検討の報告も散見され、今後更に様々な検討が期待される¹³⁾。

1. 6 炎症の分子イメージング

近年、てんかんの病態生理におけるグリア細胞や炎症の重要性が報告され、バイオマーカーとしての炎症関連物質の分子イメージングが注目されている。マイクログリアやアストロサイトが活性化されると、ポタシウムや水分子のチャネルの変化が起き、グルタミン/グルタミン酸回路やグルタミン酸受容体の変化、神経栄養因子や様々なサイトカイン、ケモカイン、プロスタンディン、補体、接着因子などの放出により、神経細胞障害が引き起こされる。このように、てんかんにおける炎症性マーカーの測定はその病態生理の理解や新しい治療戦略のため重要である。これまで、活性化されたマイクログリアの分子イメージングとして、^[¹⁸F]-PK11195や^[¹⁸F]-PBR28などによるPETイメージングが試みられている¹⁴⁾。活性化マイクログリアでは、炎症マーカーであるTranslocator Protein (TSPO) (18kDa)が過剰に発現され、側頭葉てんかんでの海馬硬化にも関連していることが報告されている。PK11195やPBR28はTSPOのイメージング目的に開発されたリガンドであるが、PK11195よりもTSPO特異性の高いPBR28を用いた側頭葉てんかんでにおける検討では、海馬、扁桃体、紡錘回などの焦点に高い集積が認められている¹⁵⁾。また、MRSによる活性化アストロサイトのイメージングも試みられている¹⁶⁾。グリアの活性化による様々なサイトカインや補体等により代償機転として起こる脳血液閂門 (Blood-Brain Barrier: BBB) 障害のイメージングも、炎症やてんかんのバイオマーカーとして有用であろう¹⁷⁾。

2. 血流・エネルギー代謝のイメージング

2. 1 SPECTによる脳血流イメージング

^{99m}Tc-ECDや^{99m}Tc-HMPAOによる脳血流イメージ

特集1 PETによる神経・精神疾患の分子イメージング

グは、発作時にてんかん焦点部位の血流増加が認められることが多いこと、これらの核種と機器は比較的多くの施設でも施行可能であることから最も広く用いられている¹²。しばしば発作時の画像のみでは焦点がわかりにくい場合もあるが、このような場合には発作時の画像から発作間欠時の画像を差し引き、更に、MRIに重畳するSISCOM(subtraction ictal SPECT coregistered to MRI)が有用である(エビデンスレベルIII)¹³。ただし、ビデオ脳波同時記録などを利用し、発作に合わせタイミング良くトレーサを静注、撮像する事が重要である。また、発作時の血流増加が、1~2分後に血流低下に転じ、焦点周囲や焦点以外にも血流増加が見られる、いわゆる“postictal switch現象”と呼ばれる問題も存在する²。

2.2 FDG-PET

てんかんという異常神経活動の際のブドウ糖/エネルギー代謝の変化を捉えることで、てんかん原性焦点を診断するという方略からFDG-PETが用いられる。我が国でも平成14年4月に「難治性部分てんかんで外科切除が必要とされる患者」を対象に保険適応となった。てんかん発作中のFDG-PETでは、ブドウ糖代謝が亢進していることが知られているが、逆に発作間歇期に糖代謝が低下する。このブドウ糖代謝の低下は発作の焦点を含む範囲にみられる。焦点検出率は報告により異なるが、概ね80~90%程度と脳血流SPECTに比べ高いとされている(エビデンスレベルIII)¹⁴。一方、問題点として、前頭葉てんかんなどでは視覚的評価が困難でSPM(Statistical Parametric Mapping)などの統計解析が必要であること、一般的に非発作時の集積低下は焦点部より広範囲であること、側頭葉てんかんなどでは焦点以外の集積低下も見られることなどがあげられる¹⁵。

3. マルチモダリティーによるイメージング

これまで述べたように、てんかんの原因は様々であるため、多くの施設で最もよく利用されている脳血流SPECTやFDG-PETであっても、いわゆるゴールドスタ

ンダーではない。FDG-PETでは、二次的なブドウ糖代謝の変化を見ているため、時間分解能に加え、しばしば焦点を含む広い領域での集積や、線条体、視床、対側の小脳など焦点以外での集積が認められるという課題がある。最近、脳波とFDG-PETの同時計測の試みが報告されたが¹⁶、このようなマルチモダリティーによるイメージングは双方の欠点を互いに補完することができる。このように、てんかん外科における焦点の決定に関しては、様々なリガンドによる分子イメージングやMRI/MRS、EEG/MEG、NIRSなど様々なモダリティー、PET-MRI coregistrationやSPMなどの解析手法を含め、様々な手法を組み合わせ、包括的に判断する必要がある³。

一方、PETや高磁場MRI、MEGなどの機器、様々なリガンドの合成は、どの施設でも可能ではないため、センター化、ネットワーク化が推進されるべきである。

今後、てんかんにおける様々な分子イメージング研究の更なる発展により、より詳細な病態理解やてんかん外科の進歩、新規抗てんかん薬や新しい治療戦略の開発などに繋がることを期待している。

文献

- 1) 日本神経学会「てんかん治療ガイドライン作成委員会」: てんかん治療ガイドライン 2010 医学書院 東京, 2010
- 2) 中井昭夫、米倉義晴: 臨床医とコメディカルのための最新クリニックPET 先端臨床技術研究所 東京, 192-197, 2010
- 3) Diksic M, et al: Journal of Cerebral Blood Flow & Metabolism 10: 1-12, 1990
- 4) Fedl M, et al: Epilepsy Research 52: 203-213, 2003
- 5) Fedl M, et al: Neurology 57: 1629-36, 2001
- 6) Natsume J, et al: Neurology 60: 756-61, 2003
- 7) Hirvonen J, et al: J Nucl Med 53: 234-40, 2012
- 8) Vezzani A, et al: Biomark Med 5: 607-14, 2011
- 9) 百瀬敏光、五十嵐 隆: 小児科臨床ビクシス 小児てんかんの最新医療 中山書店、東京, 112-113, 2008
- 10) Hur YJ, et al: Yonsei Med J 54: 572-577, 2013

PETニュース 2 シーメンス 新型PET・CTシステム「Biograph mCT Flow」を販売開始

新技術搭載で、被検者一人ひとりの撮像条件・範囲に合わせた検査を実現

シーメンス・ジャパン株式会社は、現行のステップ＆ショット方式に加え、速度可変型連続移動スキャン機能「FlowMotion」を搭載した新型PET・CTシステム「Biograph mCT Flow」の販売を8月24日より開始した。新たなスキャン技術の搭載により、PET・CT検査の撮像方法、データ収集および画像再構成のプロセスを一新し、被検者一人ひとりに最適な検査を実現する。年間販売台数は30台程度を予定している。

FlowMotionは、被検者ごとに異なる臓器の大きさや条件を考慮し、高分解能撮像や呼吸同期設定、高速スキャンなどのさまざまな撮像条件を、被検者一人ひとりに合わせて設定することが可能。また、リニアモータ駆動式ヘッドを採用しているため、撮像範囲をミリ単位でアントロールでき、精密なデータを収集しながら極めて自由度の高い検査ができる。

これまでのPET検査器のサイズに応じてスキャン範囲が固定された撮像では、必要以上に撮像範囲が大きくなるケースがあったが、FlowMotionでは必要な範囲のみに合わせて撮像できるため、不要なCTデータの収集がなく、被ばくが低減される。

また、FlowMotionによるPET検査器のサイズに制限されない撮像法は、全身領域の信号ノイズ比の一定化に向けた技術であり、撮像範囲全体において優れた定量性を発揮し、治療後のモニタリングなど長期間にわたり高い定量性・再現性を実現した。

さらに、大口径78cm、シヨートボアコンセプトのBiograph mCT Flowは、被検者の負担を大きく低減すると共に、例えば腕を上げて検査をなど、放射線治療中の体位を考慮して行われる治療計画応用としてのPET・CT検査にも最適。

PET・CT装置は販売開始から約10年が経過し、機能画像と形態画像を密接に関連付けられることから、がん診断には欠かせないモダリティとなつた。今後さらに、病期あるいは転移診断に加え、治療効果の確認や治療方針の決定に必要な、より確かな情報を提供することが求められている。

Biograph mCT FlowはPET・CT検査にさらなる自由度をもたらすことができるため、高い定量性を有し、より精度の高い診断や効果的な治療が期待されている。

論 説

発達障害者雇用は戦略である

～まずは発達障害への正しい理解と合理的配慮から～

中井 昭夫

福井大学 子どものこころの発達研究センター 特命准教授

The Employment of People with Developmental Disorders, as the National Growth Strategy
- First Things First: A Proper Understanding and Reasonable Accommodation -

Akio NAKAI, M.D., Ph.D.

Research Center for Child Mental Development, University of Fukui

経済再生・景気回復、被災地の復旧・復興が喫緊の課題である我が国の「成長戦略」の柱のひとつとして「発達障害者雇用」が位置づけられた。しかし、国民レベルでの発達障害の認知は未だ不十分であり、我が国の「ものづくり」を推進するためにも、まず、発達障害の正しい理解や啓蒙、「合理的配慮」と呼ばれる環境整備、雇用側のメリットの創成と支援、これらを支援する人材育成が重要である。そして、発達障害者という特性のある人が、その「人格、才能、創造力、精神的及び身体的な能力」を可能な最大限度まで発達させ（最適化）、社会に参加することのできる、優しく強い「共生社会」の実現が求められる。

キーワード：発達障害者雇用、成長戦略、生活障害、合理的配慮、最適化

1. 成長戦略としての発達障害者雇用

世界的な昨今の経済状況に加え、未曾有の大震災と原発事故という国難を経験した我が国としては、経済再生・景気回復、被災地の復旧・復興は喫緊の課題である。このような中、平成22年政府の政策会議「雇用戦略対話」において、我が国のこれからとの「成長戦略」として、成長分野を中心とする雇用創造、職業訓練・生活保障によるトランボリン型の「第二セーフティネット」の確立、ワークライフ・バランス、女性・高齢者・障がい者等の労働参加促進や多様な働き方の確保などを内容とする「雇用戦略」が示された。これを受け「雇用戦略基本方針2011」として「法定雇用率を達成するための取組の強化、障害者権利条約の批准に合わせた障害者雇用促進法の見直しの検討、国及び地方公共団体における知的障がい者、精神障がい者、発達障がい者等の一層の雇用拡大に取り組む」こととなつ

た。更に、障害者雇用に関しては、従来から身体障害、知的障害については周知されているものの、精神障害については立ち遅れしており、中でも発達障害についてはその体制が特に不十分であったため、平成23年公布の障害者基本法の改正により「発達障害者」については、従来から精神障害者に含まれるものとして法に基づく給付の対象となっているところで、引き続きその旨の周知を図る」とされたところである。

このように、発達障害者雇用は我が国のこれから成長戦略の大きな柱の一つとして位置づけられており、その後政権交代となったものの、これら基本的な考えの重要性は変わらないと考えられる。しかし、発達障害の国民的理解については、まだまだ十分と言える状況になく、発達障害者雇用を推進し、我が国の「ものづくり」を発展させていくためには、まず、発達障害の理解・啓蒙の促進、いわゆる「合理的配慮 Reasonable Accommodation」と呼ばれる環境整備（場所

づくり）、また、雇用側のメリットの創成と周知、これらを支援・推進ができる人材育成（ひとづくり）が重要である。

2. 発達障害とは

発達障害者雇用を推進するには、まず、国民レベルでの発達障害についての認知や正しい理解が肝要である。近年、成人の発達障害に関するものも含め、多くの一般向けの入門書^[1,2,3]や専門書も出版されているので、詳細はそれらに譲ることとし、ここでは発達障害についての最近の考え方や2013年に発表された国際的診断基準の主な変更点などについて紹介する。

2.1 発達障害者支援法における定義

身体障害、知的障害については、様々な法律に基づいた支援の対象にあったが、我が国においては「発達障害」に関してはその狭間で長く法的な裏付けがないまま放置されている状況にあった。このような中、ようやく平成16年末に超党派の議員立法として成立し、翌年4月に施行された「発達障害者支援法」において初めて「発達障害」が法的に定義された。この法律において「発達障害」とは「自閉症、アスペルガー症候群その他の広汎性発達障害、学習障害、注意欠陥多動性障害、その他これに類する脳機能の障害であってその症状が通常低年齢において発現するものとして政令で定めるもの」をいう。（第2条第1項）と定義されている。そしてこの「政令」には、「脳機能の障害であってその症状が通常低年齢において発現するもののうち、言語の障害、協調運動の障害、その他厚生労働省令で定める障害」とされており、更に、ここでの「厚生労働省令」で定める障害として「WHO（世界保健機関）のICD-10（疾病及び閑連保健問題の国際統計分類）における「心理的発達の障害（F80-F89）」及び「小児（児童）期及び青年期に通常発症する行動及び情緒の障害（F90-F98）」に含まれる障害」が医学的・生物学的には様々な議論も想定されるが、少なくとも法律上の「発達障害」に該当する。

2.2 発達障害とは

近年の様々な医学、脳科学研究から「発達障害」とは、遺伝的素因と環境との相互作用による、高次の「脳機能」の発達のアンバランス・偏り（発達不均等：Developmental Imbalance）と理解されている。更に最新の研究からは、ある特定の遺伝子の異常や多型のみ

でも説明できず、生後の生育環境等によるものでもなく、更に、ある単一の脳領域の機能のみでも説明できず、複雑な相互作用の連続的变化の、ある時点での側面を見ているだけではないかと考えられている。

しかし、これらについて語りだすと話が複雑になりますため、ここでは国際診断基準であるDSM（米国精神医学会による精神障害の診断と統計の手引き）にある、代表的な4つのカテゴリーについて紹介する。

2.2.1 自閉症スペクトラム障害（Autism Spectrum Disorder: ASD）

「自閉症スペクトラム障害:ASD」とは、対人関係（社会性とコミュニケーション）の質的な異常とこだわりや行動・興味の限定的パターンを特徴とする発達障害のことを指す。ローラ・ウイングは「こだわりや行動・興味の限定的パターン」の代わりに「想像力の障害」ということを提倡しているが、これについても誤解が多く、ASDのある人は、決して空想や新しいものを創造する「想像力」がないのではなく、彼女の言う「想像力の障害」とは暗黙の了解などの理解、見通しをたてるのが苦手という事を意味している。

ASDの一般社会における大きな誤解の最大の原因是、自閉症を最初に報告したレオ・カナーが統合失調症の最早期の発症型、あるいはその近縁の障害ではないかと考え、その行動を表現する際に統合失調症の症状のひとつであるAutismという用語を用いたこと、更にその日本語が「自閉」と訳されている点だと思われる。実際、医学の歴史の中でも「小児精神病」とされていた暗黙の時代も存在し、また現在でも「自ら」「閉じこもる」という漢字のイメージから「うつ病」「ひきこもり」「内向的」等と誤解されていることが多い。更に、ほぼ同義として、DSMでの「広汎性発達障害 Pervasive Developmental Disorder: PDD」という用語の存在、乳幼児期に言語発達の遅れのない「アスペルガーアー障害」への認知や関心の高まりと自閉性障害との異同についての議論、更にIQ70以上、すなわち知的に遅れないものを「高機能自閉症(広汎性発達障害)」と呼ぶ場合があるが、この「高機能」という表現が、知能が非常に高いのではという誤解を生むなども混乱の原因と考えられる。2013年に発表されたDSM-5（第5版）からは、自閉症障害やアスペルガーアー障害は連続したスペクトラムとして「自閉症スペクトラム障害」に統一される一方、支援の必要度で重症度を分類するなど、より実践臨床に沿ったものとなつた。

また、ASD では、感覚の過敏や鈍麻と表現される独特の身体機能の問題も多い。これらはしばしば、当事者の様々な生活場面での一番の「困り感」であることも私達支援者は留意すべきである。最新の当事者研究からは自閉症の本質は、実は身体感覚や視聴覚等の情報統合の困難であり、空腹感や疲れの感覚、目の前の人の顔や表情の認知も含めて、「大量の身体内外の情報を絞り込み、意味や行動にまとめあげるまでがゆっくりな状態で、しかも一度できた意味や行動のまとめあげパターンも容易にほどけやすい」という「情報のまとめあげ困難説」^[4]が提唱されている。実際、DSM-5 では、これら感覚の過敏・鈍麻、感覚刺激への強い関心などが診断基準に盛り込まれた。アスペルガー障害も含めたスペクトラムとして捉えた場合、ASD の頻度は約 1%，すなわち 100 人に一人程度存在すると報告されている。

2.2.2 注意欠陥・多動性障害 (Attention Deficit/ Hyperactivity Disorder: AD/HD)

注意欠陥・多動性障害(AD/HD)とは、人間の行動を「不注意」「多動」「衝動性」という 3 つの観点から評価した際に、その著しく不適切なレベルの神経生物学的な状態とされている。発達障害の中でも AD/HD は比較的研究が進んでおり、ある遺伝子のタイプ(多型)の組み合わせと妊娠中の喫煙や周産期の問題など環境との関連、基本的にはドバミン、ノルアドレナリンという神経伝達物質が関連する前頭葉での実行機能と線条体での報酬系と呼ばれる脳機能の障害ということが分かってきていている。AD/HD における一般的な誤解には、動き回らないので多動はない、好きな事には集中できているので不注意、注意欠陥ではない、女性にはないということが挙げられる。小児期では授業中の立ち歩きなどがある場合も多いが、大抵は成長につれ、目立つ多動は減少する。しかし、成人の AD/HD でも、よく観察すると、そわそわ、ウロウロとすぐいなくなったり、座っていても姿勢を頻繁に変えたり、貧乏振りやベンチで手遊びしていたり、早口で喋りまくる言葉の多動などが認められる。また、集中できないのは興味や関心のない、いわゆる「課題」に対してであり、逆に興味・関心のあることについては食事をとるものも忘れるほど集中し過ぎてしまうこともあります。近半年では小脳での時間処理の問題も示唆されている。小児期では多動のある男児が目立つので、女性には少ないのではないかと言われていたこともあるが、男児の多動

は先に述べたように成長につれて一見目立ちにくくなり、また、不注意優勢型の女児は教育現場では気づかれにくく、高い実行機能を必要とする家事や育児などをするようになり、ようやく気づかれることも多く、成人での性比はほぼ 1 対 1 という報告もある。AD/HD は比較的薬物療法が有効な発達障害である。我が国でも小児では 2 つの製剤の使用が認められており、成人の AD/HD に対する薬物療法も可能になりつつある。DSM-IV (第 4 版) では広汎性発達障害と AD/HD の両者の診断基準を満たす場合は、重複診断・診断併記は認められず、「自閉性障害」と診断するという制約があった。しかし、実際には両者の併存は多く存在し、ASD における AD/HD 症状については、AD/HD の薬物療法が有効であるなど臨床的な矛盾を抱えていた。今回の DSM-5 ではこの両者の併存がようやく認められた。AD/HD の頻度は世界的にも約 3~5%，すなわち 100 人に 3~5 人程度存在するといわれている。

2.2.3 学習障害 (Learning Disorder: LD)

文部科学省によれば学習障害とは、「基本的に全般的な知的発達に遅れはないが、聞く、話す、読む、書く、計算する又は推論する能力のうち特定のものの習得と使用に著しい困難を示す様々な状態を指す。原因として、中枢神経系に何らかの機能障害があると推定される」と定義されている。DSM-IV では大きく「読み書き障害」「書字表出障害」「算数障害」に分類される。一方、欧米でよく用いられている「発達性ディスレクシア」は、我が国では「読み書き障害」とも呼ばれ、国際ディスレクシア協会の定義によれば、「神経生物学的原因による特異的な学習障害で、単語認識の「正確」かつ(または)「流暢さ」の困難、綴りとデコーディングの稚拙さを特徴」とし、「典型的には、言語の音韻的要素に関する障害」とされている。「文字」とは音や意味を表す単なる「記号」であり、人類の歴史の中では話し言葉よりも後に出現したもので、「デコーディング」とは、耳から入る「音」と目で見た「記号」を結びつける脳内プロセスである。実際に脳機能画像研究により、「聴覚性(音韻性)ディスレクシア」ではデコーディングを行う脳部位(頭頂側頭部)の活動が低下していること、しかし、効果的な学習により比較的流暢に文字が読めるようになると、定型発達と同じような神経ネットワークが再構築されていることが確認されている。また、私たちは文章を読む際に、単語や区切りなどいくつかの文字をまとまりとして認識する(チャ

ンキング)ことで、速く流暢に読むことができる所以であるが、発達性ディスレクシアではこの脳部位(後頭側頭部)での機能不全は比較的残りやすいと言われている。「読み書き障害」のもう一つの大きなタイプとして「視覚性ディスレクシア」と呼ばれる状態がある。視覚の大細胞系と呼ばれる経路の関与が示唆されており、文字が揺らいだり、歪んだりして見えてしまうが、これらはカラー・フィルターなどを使用することで軽減することがある。学習障害の頻度は世界的には約 6% といわれているが、「読み書き障害」の顕在化は、文字や言語体系、歴史・文化・社会により異なる。日本語にはひらがな、カタカナ、漢字の 3 種類の文字があり、より複雑な事に加え、最近まで臨床的に有用な検査方法もなかったため、日本における頻度は未だ確定したものはない。文部科学省の調査では通常学級に在籍する「学習面で著しい困難を示す」児童・生徒は 4.5% とされ、また、研究的には約 1~2% という報告もある。

DSM-5 では学習障害は Specific Learning Disorder として、「読み障害」では正確性、流暢性に加え、読解力が「読む能力」として、「書き障害」ではスペルの正確性、文法・句読の正確性、文章表現の明晰さ・構成力までが「書く能力」として、「算数障害」では数の概念、算術的記憶、正確で流暢な計算に加え、正確な数学推理までが「算数の能力」として定義されたが、これら各々の基準も曖昧で、実際の評価・診断方法も確立していないため、教育・医療現場での新たな混乱などが想定される。

2.2.4 発達性協調運動障害 (Developmental Coordination Disorder: DCD)

いわゆる「不器用」「運動音痴」と呼ばれる状態で、視覚・触覚・固有覚・位置覚など感覚の入力から、出力である運動制御までの「脳機能」のひとつである「協調」の発達の問題である。「協調」はバランスや姿勢制御、手と目の協応を必要とする運動やスポーツに限らず、会話での発声・構音、食事での咀嚼・嚥下、箸やナイフ・フォークの使用、衣類の着脱、描画・書字、道具の使用など様々な日常生活場面に必要な重要な「脳機能」である。また、從来考えられていたより高い頻度で青年・成人期になってしまっても残存し、成人でも書字や細かい手作業、料理やメイキャップ・髭剃り、姿勢の保持など日常生活や職業上の大きな困難となり、社会参加が妨げられ、うつ病・不安障害や肥満・糖尿病・高血圧など生活習慣病、

心筋梗塞や脳卒中など心血管障害につながることも問題となっている。世界的な報告では、その頻度は約 6~10% と非常に多い状態にもかかわらず、我が国では保育・教育現場や職場はもとより、医療・療育現場においても「不器用さ」が「脳機能」である「協調」の「発達障害」であるという理解や認知は非常に低い。また、DCD は AD/HD の約 50%，学習障害 (LD) の約 50% に併存する。DSM-IV での診断基準では広汎性発達障害を除外することとされているが、臨床の現場では、ASD に「不器用さ」を併せもつことはよく知られている。実際、オーストラリアやスウェーデンのアスペルガー障害の診断基準には「不器用さ」という項目があり、我々の検討でも高機能広汎性発達障害の約 40% にかなりの程度の「不器用さ」があることが示唆されている。この点についても DSM-5 では両者の併存が認められ、より臨床に即した変更となった。最近の脳機能研究によれば協調には前頭葉、頭頂葉、基底核、小脳などが関与し、また、粗大運動が苦手だが微細運動は得意で手先が非常に器用なタイプ、逆に粗大運動は得意でアスリートであるが、微細運動が苦手で書字が非常に汚いなど幾つかのサブタイプの存在も示唆されている。

行動からみると…	精神プロセスからみると…
注意欠陥・多動性障害 AD/HD	学習障害 LD
自閉症スペクトラム障害 ASD	発達性協調運動障害 DCD

社会性/コミュニケーションからみると…

不器用・協調運動からみると…

アスペルガー障害

DSM-IV (1994)では、AD/HD は ASD の裏面・別名の別称は認められない。DCD は LD の併存することとされている。
DSM-5 (2013)では ASD と AD/HD と DCD の併存を認め、また、アスペルガー障害はなくなり DCD が示唆された。

図 1. 主な発達障害の関係

これらの発達障害の現在の診断基準では様々な制約があるが、実際の臨床においては、一個人にいくつかの障害が複雑に重なりあい(図 1)、また、その行動や認知のパターンを「障害特性」と呼ぶが、その表れ方は同じ診断名でも様々であり、更に、これは、定型発達と思われている人からの連続したスペクトラムとして捉えると、チェックリスト形式の操作的診断である DSM や ICD など診断基準の限界、また、後述する「日常生活での困難さ」という観点から言えば、どこからが「障害」であると誰が線を引くのか、しかも、歴史・

文化・社会など周囲の環境との関係や、発達障害も「発達する」ことによってそれらが顕在化するかどうかが変化するということ、加えて、生来の「性格」や「気質」と呼ばれるものとの区別が困難な部分もあり、これらが「発達障害」に対する一般的な理解を更に混乱させている一因ともなっている。

3. 障害って？「新しい障害観」

「発達障害」というと、しばしば「病気ですか？」、「治りますか？」というような質問があつたり、また、その偏見から「障害」を「障がい」「障壁」と表記すべきであるという單なる「言葉遊び」ではと当事者自身・当事者団体自体からも揶揄されてしまうような議論に陥っている側面もある。一方、英語では Disorder 障害、Defect 欠損・欠陥、Disease / Trouble 疾患、Impediment 言語障害、Impairment 機能障害、Disability 能力障害 Difficulty 困難、Barrier/Hurdle/Obstacle 障壁・障害物、Handicapped 社会的不利というように様々なニュアンスで使い分けられている。ここで「広汎性発達障害」、「学習障害」、「注意欠陥・多動性障害」、「発達性協調運動障害」などにおける「障害」とは、あくまでも英語では Disorder であって、「ペセドウ病」「クローン病」などの Disease（疾患）ではないことに留意すべきである。Disorder は否定を表す接頭語である Dis と秩序・整然としている状態を表す Order からなっているように、本来「秩序が乱れている状態、不調、何らかの支障・困難が発生している状態」という意味である。国際的診断基準である DSM や ICDにおいても、ほとんどの障害の診断の条件に「社会的、職業的、または他の重要な領域における機能的臨床的に著しい障害を引き起こしている」「学業成績あるいは日常生活の活動に明らかな支障をきたしていること」等という表現が盛り込まれている。すなわち、「発達障害」とは「ある行動をする際や日常生活を送る上で困っている状態」という「生活障害」であるという視点が我々支援者にはまず必要である。

WHO の新しい障害の捉え方である国際生活機能分類（International Classification of Functioning, Disability and Health ; ICF）モデルでも、「健康状態」として何らかの遺伝的な素因による脳機能の発達のアンバランスがあり、結果「心身機能」として認知の偏りや行動パターンの特徴があったとしても、年齢や性別、ライフスタイルなどの「個人因子」との関係の中で、「環境因子」として周囲の理解や社会的サービス、環境整備などの

「促進因子」を強化すれば、「生活機能」としての「活動」や社会「参加」が可能となり「社会的不利」が生じないようにすることが可能ということが示されている。障害の有無にかかわらず、人格と個性を尊重する「共生社会」の実現を目的に 2006 年国連で採択された「障害者の権利に関する条約」[5]にも、「障害」とは「発展する概念」であり、「障害者と障害者に対する態度及び環境による障壁との間の相互作用」であって、「障害者が他の者と平等に社会に完全かつ効果的に参加することを妨げるものによって生ずるもの」としている。私達がいわゆる「発達障害」とよばれる特性のある方を理解し、支援することで、日常生活などで困難や支障がなくなれば「発達障害」はもはや「障害」ではなく「支援の必要な強い脳の個性」となる。このように「障害」とはむしろ、私達の無知・無理解や Stigma という双方の間の Barrier/Hurdle/Obstacle（障壁・障害物）であり、まずこれらを取り除いていく必要がある。

4. 合理的配慮

「障害者の権利に関する条約」において「合理的配慮 Reasonable Accommodation」という重要な概念がある。「合理的配慮」とは、「障害者が他の者と平等にすべての人権及び基本の自由を享有し、又は行使することを確保するための必要かつ適当な変更及び調整であって、特定の場合において必要とされるものであり、かつ、均衡を失した又は過度の負担を課さないものをいう」と定義されている。我が国はまだ本条約の批准に向けて現在様々な法整備などを行なっている段階だが、2011 年に改正された障害者基本法にも「社会的障壁の除去は、それを必要としている障害者が現に存し、かつ、その実施に伴う負担が過重でないときは、その実施について必要かつ合理的な配慮がされなければならない」と「合理的配慮」が盛り込まれた。

「障害者の権利に関する条約」第 24 条にもあるように、発達障害のある人が、「その人格、才能及び創造力並びに精神的及び身体的な能力をその可能な最大限度まで発達させ（最適化 Optimization）、自由な社会に効果的に参加することを可能とする」ためには、雇用側にも均衡を失せず、過度の負担を課さない適切な工夫が求められる。発達障害への「合理的配慮」の例として、ASD の場合、施設・職場などの導線、備品の場所、1 日の作業過程等を絵や写真、文字を使って、視覚的にわかりやすく提示することなどが挙げられている。これ

らはすでに自閉症スペクトラム障害の療育方法のひとつとして世界的に広く用いられている、ノースカロライナ大学で開発された、Treatment and Education of Autistic and related Communication handicapped Children (TEACCH) プログラムそのものである。TEACCH では、その 4 つの基本的な手技として視覚的構造化、物理的構造化、ワークシステム、スケジュールの可視化があげられている。「視覚的・物理的構造化」とは、課題に集中しやすい環境をつくるために、視覚的な手がかりを利用し、活動の内容と場所が 1 対 1 で対応するようにパーテイションや決められたスペースなどのワークエリアを設けることであり、「ワークシステム・スケジュールの可視化」とはワークエリアで行う課題の内容や量、課題が終了したら次にどうするかなどをわかりやすく可視化する方法である。

更に、感覚の問題（感覚過敏や鈍麻）で、特定の音や光、臭いなどが問題になる場合は、静かな環境、耳栓やノイズキャンセリングヘッドホンの利用、サングラスやカラーフィルターの使用や蛍光灯から LED への変更、マスクや脱臭機・空気清浄機の使用など、また疲れや空腹の感覚がわかりにくい場合は、定期的な休憩時間をとることはもちろん、トイレや水分補給など休憩時間の過ごし方を決めておくなどいわゆる「ちょっとした」工夫や気配り・心遣いも「合理的配慮」にあたる。

このように、雇用側を含めた周囲に発達障害の理解や知識があれば、彼らの抱える困難や生き辛さが容易に理解できるとともに、それらを解決、支援する様々な専門的知識、ノウハウがすでに巷に多数蓄積されており[6]、それらを利用することができると言える。

また、ユニバーサル・デザインを含め、このような観点から整備された、発達障害者にわかりやすい、また過ごしやすい快適な環境（場所づくり）は、言語面でコミュニケーション障害が存在すると見える外国人労働者を含め、当然、定型発達の方にも有効で、分かりやすく、リスクやミスの少ない、また人に優しい職場環境を提供することになるのである。

5. 発達障害者雇用促進への施策～アメとムチ～

これら、発達障害者の雇用を更に拡大するため施策として、いわゆる「アメ」と「ムチ」が用意されている。「ムチ」としては、従来から「法定雇用率」が設定されており、雇用義務を履行しない場合、行政指導や、

なお改善が見られない場合、企業名の公表などがあるが、この雇用率が平成 25 年 4 月 1 日から民間企業では 1.8% から 2.0%，公共団体では 2.1% から 2.3% に引き上げられた。また、障害者を雇用しなければならない事業主の範囲も、従業員 56 人以上から 50 人以上に変更された。ただ、雇用率順守ありきではなく雇用側、労働者側双方にメリットがある関係の構築が必要である。更に、本来であれば「雇用戦略基本方針 2011」にあるように国及び地方公共団体における雇用拡大が優先されるべきかとも思われる。

また、「アメ」としては、従来から、障害者手帳を取得している発達障害者の雇用にあたっては、ハローワーク又は有料・無料の職業紹介事業者の紹介により継続して雇用する場合、短時間労働で中小企業の場合 90 万円が助成される「特定求職者雇用開発助成金」が利用できる。しかし、診断はあるが、手帳を取得していない、あるいは近年増加している、手帳取得を希望しないケースに関して、高い能力やスキルをもつ発達障害者が「発達障害」として働くために、「発達障害者雇用開発助成金」が新しく創設され、今後、その周知とともに、利用が広がることが予想される。このように、発達障害の診断、あるいは雇用側に知識があれば、様々な支援に関する施策やノウハウの活用が可能となる。

また、平成 24 年厚生労働省「地域の就労支援の在り方に関する研究会報告書」[7]では中小企業等が安心して障害者雇用に取り組むために求められる支援として、雇入れ前から就労支援、定着支援、フォローアップ支援などにおける様々な課題やそれらに関する提言がなされており、今後、これらの推進には雇用、福祉、教育、医療等の各分野の連携が不可欠であるとしている。

実際に、発達障害者を雇用することで、雇用側のメリットとして、社会的な責任や地域貢献、社会的地位や企業・ブランドイメージの向上につながるだけでなく、企業に独自性や多様性、強みを与える、新しい可能性を生み出すチャンスになることが報告されている。このように、「企業戦略」として発達障害雇用を活かすためには、ややともすればチェックリスト等で「○○ができる」というマイナスポイントの積み上げのみでなく、一見「弱点」「欠点」とも思える発達障害の特性を職業上の「強み」とする「発想の転換」が必要である。例えば、実際に、プログラミングやソフトウェアの検証などで高く深い専門知識や技術を活かす、仕分けや繰り返しの作業、点検などでこだわりやルーチンを活かす、デザインや企画などで独特な発想や感性

を活かす、データ入力などで正確性や緻密さを活かす、製品管理や官能試験などで特殊な感覚の能力を活かす、など多くの実例報告があり、発達障害者や家族の自己理解や適切なジョブマッチングとともに、これらの成功事例を広く周知していくことも重要である。

6. 世界は発達障害が創ってきた

世界の偉人と呼ばれる人々の中にも、発達障害ではないかと分析されている人が多く存在していることはよく知られている。科学・技術の分野での例としては、レオナルド・ダ・ヴィンチ、ガリレオ・ガリレイ、トマス・エジソン、アルバート・aignシュタイン、ビル・ゲイツなどがあり、いずれも素晴らしい発明や革新的技術を生み出した天才達であり、もはや、実は世界は発達障害が創ってきたと言っても過言ではない。加えて、このように伝記になるような天才でなくても、たくさんの起業家や技術者が我が国のみならず世界の「ものづくり」を推進し支えてきたはずである。

彼らの生きていた時代には、発達障害の概念はほとんどなく、確かに彼らにも様々な周囲の無理解や生き辛さがあったことはその伝記などからも伺えるが、一方で周囲の「弱み」も含めた「強い個性」としての理解や受容、素晴らしい才能や創造力に対する支援があつたからこそ様々な偉業が達成できたと考えられる例も多く存在する。

我が国での「個性」とは平均した能力がある事が大前提で、更にそれに加えられた優れた能力であったり、またギフテッドとは、英才児、優秀児、天才児などと訳され、 $IQ > 130$ のいわゆる天才を指していたりするが、海外では知能を通常の発達検査で算出される従来のIQだけでなく、「多重知能」、「多重知性」という概念で捉えている。また、高い能力を持つ一方、発達障害などを抱える Twice exceptional (2E) と呼ばれる人への大学教育を含めたギフテッド・タレンティッド教育や支援が行われており、今後我が国でもこのような視点での子どもの理解や教育の推進が望まれる。

7.まとめ

今後、我が国でも、発達障害を正しく理解することで、彼らの「弱み」を認めつつ、「逆転の発想」を含めた、特性を「強み」として活かす支援が進み、これからの方の「成長戦略」として「ものづくり日本」における「場所づくり」、「ひとづくり」を通して、我が国でも

「多様性の受容」や、優しく、強い「共生社会」が実現されることを強く願っている。

8. 謝辞

本論文の要旨は日本設備管理学会 北信越支部 公開シンポジウム「発達障害者が輝いて働くための場所づくり・ものづくり・ひとつづくり」(平成24年9月16日 福井)にて発表した。本研究の一部は、厚生労働科学研究費補助金「障害者対策総合研究事業」、北陸地区国立大学学術研究連携支援、及び厚生労働省 平成24年度障害者総合福祉推進事業により行った。

参考文献

- [1] 中山 和彦、小野 和哉：「図解 よくわかる大人の発達障害」 ナツメ社 (2010)
- [2] 星野仁彌：「発達障害に気づかない大人たち」 桑伝社 (2010)
- [3] 星野仁彌：「発達障害に気づかない大人たち<職場編>」 桑伝社 (2011)
- [4] 繰屋 紗月、熊谷 晋一郎：「発達障害当事者研究—ゆっくりていねいにつながりたい (シリーズ ケアをひらく)」 医学書院 (2008)
- [5] 外務省：障害者の権利に関する条約 (2007)
http://www.mofa.go.jp/mofaj/gaiko/treaty/shomei_32.html
- [6] 独立行政法人高齢・障害者雇用支援機構 障害者職業総合センター職業センター：「発達障害者の支援報告書関連図」 (2012)
<http://www.nivri.jeed.or.jp/center/report/hattatsu.html>
- [7] 厚生労働省：「地域の就労支援の在り方に関する研究会報告書」 (2012)
<http://www.mhlw.go.jp/stf/houdou/2r9852000002gyh3.html>

著者紹介



中井 昭夫 (なかい あきお)
医学博士、小児科専門医、臨床発達心理士。昭和61年 福井医科大学卒業。平成3年 同大学院博士課程修了。福井医科大学救急部助手、小児科助手、McGill大学モントリオール神経研究所ブレインイメージングセンター留学、福井県こども療育センター主任医長等を経て、平成23年より現職。

就学前児における系列運動学習過程の予備的検討
— 運動を苦手とする自閉症スペクトラム障害児 2 名の事例検討 —

萬森 英史¹⁾ 伊藤 祐康²⁾ 萬森 絵美²⁾ 高橋 春一³⁾
山口 佳小里²⁾ 一箭 良枝²⁾ 深津 玲子²⁾

¹⁾理化学研究所脳科学総合研究センター
(〒351-0198 埼玉県和光市広沢 2-1)

²⁾国立障害者リハビリテーションセンター 企画・情報部発達障害情報・支援センター
³⁾国立障害者リハビリテーションセンター学院リハビリテーション体育科

要旨:自閉症スペクトラム障害(Autism Spectrum Disorder: ASD)は運動スキルの獲得に困難を示すことが報告されている。本研究では固有受容感覚フィードバックに強く依存した、特異な学習過程がASDの運動スキル学習に影響する可能性について検討した。就学前ASD児2例を対象とし、系列運動学習課題を実施し、固有受容感覚フィードバックに基づくCovered条件と、視覚フィードバックに基づくOpen条件を設け、予備的に年齢対照群と比較検討をした。その結果ASD児1例目は両条件とも反応時間が遅延し、仮説に反する結果であった。一方2例目はCovered条件においてのみ反応時間が対照群の1SDの範囲内まで改善しており、仮説を支持する結果であった。今後は症例数を増やし仮説を検証する必要がある。

(臨床神経心理 24: 21-29, 2013)

Key words: 自閉症スペクトラム障害、系列運動学習、就学前幼児

はじめに

Wing (1988)^①によれば「自閉症スペクトラム障害: Autism Spectrum Disorder: ASD」は、自閉的行動特徴の数と強度が軽微なものから重度なものまで連続的である、と述べられている。すなわち ASD とは中核症状である「対人関係の障害」、「コミュニケーションの障害」、「想像力の障害」という Wing の 3 つ組を軸とした重症度の違いによる連続体と考えられる。この ASD の概念は古典的自閉症や、DSM-IV-TR^②(Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders: Text Revision)の中で最も軽微で広範な非定型広汎性発達障害(Pervasive Developmental Disorder - Not Otherwise Specified: PDD-NOS)をも包含した連続体であり^③、また臨床群と典型発達群との間においても不連続点ではなく、母集団内で自閉的行動特徴はなめらかに連続すると理解されている^④。

しかし ASD の兆候は中核症状である Wing の 3 つ組み以外に、運動スキル獲得の困難さにおいても見いだされている。例えば Mostofsky (2000)^⑤によれば ASD

は、IQ を統制した対照群と比較して運動スキル学習課題において有意な成績低下を示したと報告しており、また Larson (2008)^⑥は ASD の子どもが獲得する運動スキル学習のパターンは対照群とは異なると報告するなど、ASD における運動スキル学習の困難さや特異性が指摘されている。

運動スキル学習は子どもの日常生活及び学校生活を様々な形で支えている^⑦。歯を磨く・洋服を着る・箸を使うなど、特別に意識せずに我々が行う日常の活動も、幼少時から時間をかけて獲得されたスキルである^⑧。このような運動スキルの獲得に困難を来せば、日常生活に大きな影響を及ぼす可能性が考えられる。

ASD 児は日常生活に不可欠な運動スキル学習に困難を抱えると考えられるが^{⑤, ⑥}、その背景となる認知的要因については未だ充分明らかになっていないない。

運動スキルは系列運動の一つと考えられる。 Hikosaka et al. (2002)^⑨によれば、系列運動学習は、学習の初期においては視覚座標から逐一運動座標

へ情報が変換され系列運動が実現されると考えられている。すなわち、動かす腕の軌道、腕の末端到達点を決定するために、視覚座標で決定された情報を運動座標に変換しなければならない。これは不良設定問題になっているため、エラーが生じやすく、また、遂行時間もそれだけかかることになる⁸⁾。学習が進むに連れ、視覚座標系、運動座標系それぞれが独立した並列的なループを形成すると考えられている。視覚座標系のループは比較的早い段階で形成され、このループでの学習が確立されると、系列の順番に関する知識が蓄積される。この学習段階において、系列運動の遂行はスムーズとは言えないが手順を間違えずに一連の運動を遂行することが可能となり、制御的な学習段階であると考えられる。一方、運動座標系でのループは、形成されるまでに時間がかかるが、一度形成されると処理資源を要さずとも系列運動を正確かつスムーズに遂行することが可能となり、この学習段階は自動的処理段階であると考えられる^{8),9)}。

系列運動学習に困難を抱えると考えら得るASDは、どの過程で困難を呈するのであろうか。Haswell(2009)¹⁰⁾は、ASD児の到達運動が、固有受容感覚に基づく内在的なフィードバックに強く依存していることを示した。通常系列運動学習の初期には視覚座標を運動座標に変換するプロセスが含まれており、これは固有受容感覚のような内在的な手がかりではなく、視覚座標という外在的な手がかりを利用した運動の実行と考えられる。例えば、パソコンの操作においてボタンを見ながらタピングする視覚誘導型の運動がこれに相当すると考えられる。ASD児における系列運動学習が、Haswell(2009)¹⁰⁾の到達運動と同様に固有受容感覚に基づく内在的なフィードバックに強く依存して行われているならば、固有受容感覚のみのフィードバックで学習が行われる条件、例えばパソコン操作におけるブラインドタッチに相当する条件であれば、典型発達児と同様の成績にまで改善する可能性を考えられる。

これまでASDの系列運動学習は就学後の児童を対象としていたが^{5,6)}、ASDの早期発見の観点から、就学前のASD児を対象として検討することは重要な課題と考えられる。しかしながら、就学前の典型発達児

においても、これまで系列運動学習過程については十分検討されていなかった。従って、本研究は就学前典型発達児を対象とし、系列運動学習の学習過程を検討することを目的とする。また、ASD児が系列運動学習に困難を来す認知的要因を予備的に検討するため、本研究では就学前ASD児2例を対象とし、典型発達児と同様の系列運動学習課題を実施した。本研究における仮説は、ASD児が固有受容感覚フィードバックに強く依存して系列運動学習を行っているため、視覚フィードバックによる学習条件においては典型発達児と比較し、学習効率が悪くなる可能性があると考えられた。ASD児が固有受容感覚フィードバックに強く依存した学習を行っているならば、押すべきボタンを遮蔽したブラインドタッチのような条件であればASD児も典型発達児と同様の成績に改善される可能性があると考えられた。系列運動学習に困難を抱えるASD児において、固有受容感覚のフィードバックによる有効性が確認されれば、新しいスキルを獲得する際の支援の一助になる可能性もあり、重要な課題であると考えられる。

目的

Nissen & Bulluer(1987)¹¹⁾のSerial Reaction Time Taskを幼児用に改変して使用し、就学前の典型発達児の系列運動学習過程を検討すること、および運動に困難をもつASD児の系列運動学習過程を検討し、押すべきボタンを遮蔽した固有受容感覚中心のフィードバック条件であればASD児も典型発達児と同様の成績に至るか、2事例を対象とし予備的に検討することを目的とする。

症例

ASD児1: 右利き、研究参加時5歳7ヶ月の男児である。

1. 心理検査所見

簡易知能検査であるレーブン色彩マトリックス(Raven's Coloured Progressive Matrices: RCPM)の結果24/36であった。語彙の理解力検査である絵画語

彙発達検査(Picture Vocabulary Test-Revised、PVT-R)の結果、言語発達年齢は3歳10ヶ月相当であった。新版K式発達検査の結果、全領域が5歳10ヶ月(姿勢・運動:年齢相応、認知・適応:6歳6ヶ月、言語・社会:3歳8ヶ月)であった。

2. 運動発達評価

運動発達を評価するため、粗大運動に関する直接検査であるTest of Gross Motor Development 2(TGMD2)を実施した。その結果、移動能力4歳3ヶ月相当、物体操作能力3歳0ヶ月相当の結果が示され、生活年齢を下回る運動発達が示された。

3. ASD診断のための構造化面接

医療研究施設において、ASD診断に用いる自閉症診断面接(Autism Diagnosis Interview Revised: ADI-R)、自閉症診断観察検査(Autism Diagnostic Observation Scale: ADOS)を実施した。ADI-Rの結果、相互的対人関係の領域16点(自閉症>10)、コミュニケーションの領域8点(自閉症>7)、限局的・反復的情動的行動パターン5点(自閉症>3)であった。ADOSの結果、意思伝達の領域6点(自閉症>4)、社会的相互交渉の領域10点(自閉症>7)、意思伝達と社会的相互交渉領域の総合点16点(自閉症>12)であった。ADI-R及びADOSの結果からASD児1は自閉症スペクトラム障害の診断基準を満たしていると考えられた。

ASD児2: 右利き、研究参加時5歳9ヶ月の男児である。医療機関において特定不能の広汎性発達障害(Pervasive Developmental Disorder - Not Otherwise Specified: PDD-NOS)と診断を受けていた。

1. 心理検査所見

簡易知能検査であるレーブン色彩マトリックス(以下RCPM)の結果、7/36であった。語彙の理解力検査であるPVT-Rの結果、言語発達年齢は3歳7ヶ月であった。3歳10ヶ月時に実施した新版K式発達検査の結果、全領域が4歳1ヶ月(姿勢・運動:3歳10ヶ月、認知・適応:3歳6ヶ月、言語・社会:4歳1ヶ月)であった。

2. 運動発達評価

運動発達を評価するため、TGMD2を実施した。そ

の結果、移動能力3歳3ヶ月相当、物体操作能力3歳未満という結果が示され、生活年齢を下回る運動発達が示された。

実験方法

1. 実験参加児

1) 対照群

RCPMおよびPVT-Rにおいて年齢平均を下回る得点の低下が認められない22名(範囲:4歳10ヶ月から6歳8ヶ月、平均生活年齢:5歳10ヶ月[SD=6ヶ月]男児11名、女児11名)であった。

2) 症例

ASD児1、ASD児2であった。

2. 手続き

装置: 実験にはPsychology Software Tools製のE-Primeがインストールされている携帯型パソコンPanasonic CFR5を使用した。パソコン画面は実験参加者から50cm距離において刺激を示した。画面の背景は白とした。実験参加者のボタン押しはE-prime付属のserial response boxを経由し、直径30mmのボタンを横一列に配置した反応装置を使用して行った(図1)。ボタン間隔は0.5mmであった。参加者は利き手に専用のグローブをはめ、手の平全体でボタンを押すよう教示された。

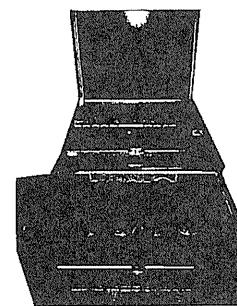


図1 実験装置

刺激: 画面に4つのBox(縦2.6cm、横3.2cm)を、中央から水平方向に等間隔(Boxの中心間距離4.3

cm)になるよう表示し続けた。ウサギのイラスト(直径1.5 cm)を4つのBoxのいずれか一つに出現させた。出現したイラストはそのBoxに対応するボタンを参加者が押すまで表示され続けた。実験は誤反応があるとコンピュータにはエラーが記録されるよう設定されていたが、正反応が出るまで次の試行には進めなかつた。正反応と同時にイラストは消失し、画面中央下に直径2.5 cmの赤○を300 ms表示し、参加者に正解であることをフィードバックした。500 msの遅延後、4つのBoxのいずれか一つにウサギのイラストを表示し、ここまでを1試行とした。参加者に実験終了の見通しをもたせるため、ディスプレーの左上には試行の数だけ点を水平方向に配置し、画面中央とは別にウサギのイラスト(直径1.5 cm)を、試行が進むたびに点に沿って右方向に1つずつ移動するよう設定した。

実験計画:実験は5 Blockから構成されていた。系列学習の効果を検討するため1 Block目と5 Block目はRandom条件、2 Block目から4 Block目までを系列条件とした。1 Block及び5 Blockの試行数は20試行で、ウサギのイラストは4つのBoxのいずれか1つにランダムに出現した(1 Block目をPreRandom、5 Block目をPostRandomと命名した)。2から4 Blockは各40試行であった。その40試行は、5試行で1つのパターンとなる系列を8回繰り返す5×8系列で構成されていた。2から4 Blockを通して同じ系列が繰り返し使用された。

実験は参加者が反応装置のボタンを見ながら反応できるOpen条件と、自分の押しているボタンが見えないよう手元と反応装置を遮蔽するCovered条件の2条件から構成され、各条件5 Blockずつ実施された。2条件は同日には実施せず、1週間以上期間をおいて実施した。Open条件とCovered条件における2から4 Blockでは異なる系列を使用し、系列学習が条件間で転移しないよう考慮された。Open条件とCovered条件の実施順については参加者毎カウンターバランスを行った。系列学習の効果があれば、ランダムな1 Block目と5 Block目における単純なボタン押しの学習の効果に対し、系列ありの2 Block目から4 Block目の方が、反応時間の減少、及びエラー数の減少が

大きくなると予測された。

3. 分析方法

2 Blockから4 Blockまでの系列条件では1系列(5試行)実施に要した平均反応時間、及び1系列(5試行)完遂するまでのエラー数を分析対象とした。Block 1 (PreRandom)とBlock 5 (PostRandom)は系列のないRandomな20試行であるが、系列ありのSequence 1 (Block 2)から3 (Block 4)までのBlockと比較検討するため5試行毎の平均反応時間とエラー数を算出して分析の対象とした。対照群の系列学習の効果を検討するため、条件(Open, Covered)×学年(年中、年長)×Block(1-5 Block)の3要因混合配置による分散分析を実施した。正試行の反応時間のみを分析対象とし、エラー試行の反応時間は分析から除外した。またスミルノフ・グラブス検定を用いて検出された外れ値に関しても分析から除外した。統計処理は「R version 2.7.2」を用いて行った。

また統計処理は実施しないが、対照群に対するASD児1、2の系列学習の効果も検討した。

結果

1. 対照群

エラー数に関して、学年×条件×Blockの3要因分散分析を実施した。その結果、学年の主効果($F(1,18) = 6.8918, p = .0172$)、及び条件の主効果($F(1,18) = 11.728, p = .003$)が有意であった。また交互作用は3要因のみが有意であった($F(4,72) = 2.52, p = .048$)(図2)。

反応時間に関する、学年×条件×Blockの3要因分散分析の結果、学年の主効果が有意傾向であり($F(1,18) = 4.047, p = .06$)、またBlockの主効果が有意であった($F(4,72) = 21.0026, p < .0001$)。Blockの主効果に関してHolm's Sequentially Rejective Bonferroni Procedure(以下HSRPB)を用いて下位検定を行った。その結果、Sequence 3は他の系列表示のBlock (Sequence 1, Sequence 2) ($p < .05$)、及びランダム表示のBlock (PreRandom, PostRandom)よりも有意に反応時間が速かった($p < .05$)(図3)。また、

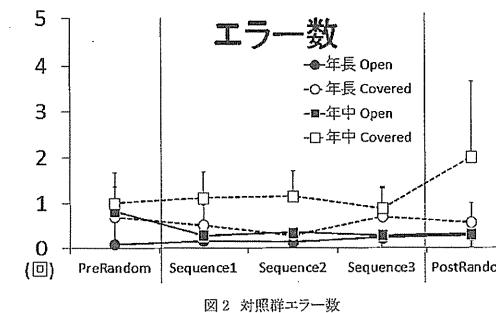


図2 対照群エラー数

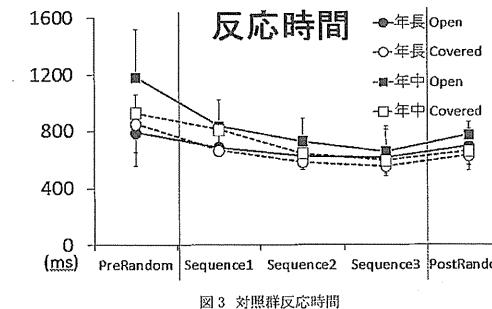


図3 対照群反応時間

2. 症例

Sequence 2 (Block 3)が Sequence 1 (Block 2)よりも有意に反応時間が速かった($p < .01$)(図3)。

対照群における反応時間の減少が正確さと速さのtrade-offの結果生じている可能性があるかを検討するため、Open条件、Covered条件それぞれにおいてBlockごと月齢を統制した反応時間とエラー数の偏相関分析を実施した。その結果Open条件におけるPreRandomにおいてのみ偏相関が有意傾向であった($r = -.6, p = .07$)が、系列学習が最も進んでいると考えられる4 Block目(Sequence 3)において、Open条件($r = -.24, p = .5$)、Covered条件($r = .4, p = .24$)ともに有意な偏相関は示されず、またそれ以外のBlockにおいても同様に有意な偏相関は示されなかった。

Open条件において、ASD児1のエラー数(PreRandom; 0回, Sequence 1; 0回, Sequence 2; 0.125回, Sequence 3; 0.125回, PostRandom; 0回)は全てのBlockにおいて平均エラー数(PreRandom; 0.33回, Sequence 1; 0.2回, Sequence 2; 0.2回, Sequence 3; 0.25回, PostRandom; 0.29回)よりも少なかった(図5)。一方、ASD児2はPreRandom、Sequence 1の双方において対照群に対し2 SD以上高いエラー数(各 1.75回, 1.13回)を示していたが、Sequence 2、Sequence 3においては平均の1 SDの範囲内のエラー数であった(各 0.25回, 0.25回)。PostRandomにおいて再び対照群の2 SD以上のエ

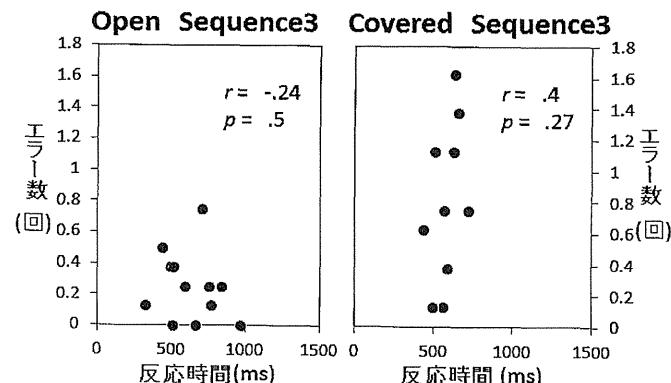
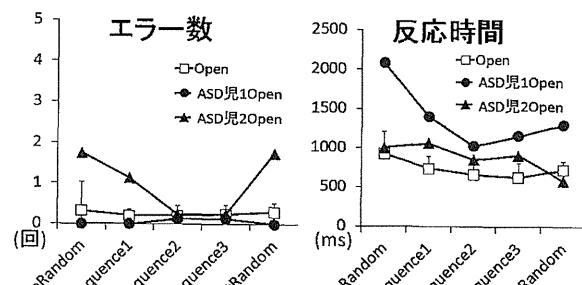


図4 月齢を統制した4Block目のエラー数と反応時間の偏相関分析の結果

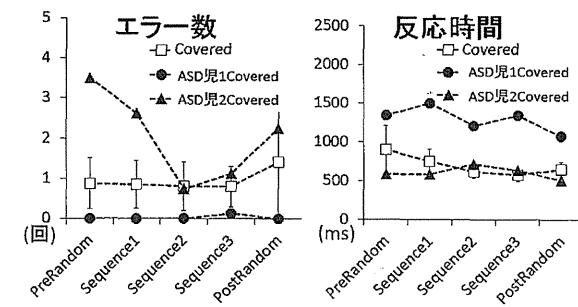
図5 Open条件における対照群、及びASD児1、ASD児2の結果。
対照群は年長、年中の平均の値。左がエラー数。右が反応時間。

ラー数を示した(1.75回)。

Open条件の反応時間において、ASD児1はPreRandomに対し、Sequence1から3において反応時間が減少しているが、対照群との比較では、全てのBlockにおいて2SD以上反応時間が遅延した(図5)。一方、ASD児2においてはSequence1において対照群の2SD以上、Sequence3において1.5SD以上反

応時間が遅延した(図5)。

Covered条件において、ASD児1は全てのBlockにおいて対照群平均よりもエラー数が少なかった(PreRandom; 0回, Sequence1; 0回, Sequence2; 0回, Sequence3; 0.125回, PostRandom; 0回)(図6)。一方、ASD児2においてはPreRandom、及びSequence1のエラー数が平均の2SD以上の多さを示

図6 Covered条件における対照群、及びASD児1、ASD児2の結果。
対照群は年長、年中の平均の値。左がエラー数。右が反応時間。

したが(各々3.5回, 2.63回)、Sequence2、Sequence3、PostRandomにおいて平均の1SDの範囲内であった(各0.75回, 1.13回, 2.25回)(図6)。

Covered条件の反応時間において、ASD児1はPreRandomにおいてのみ対照群平均の1.5SDの範囲内であったが、その他のBlockにおいて対照群の2SD以上の遅延を示した。一方、ASD児2は全てのBlockにおいて対照群の1SDの範囲内の反応時間を示し、これはASD児2のOpen条件でのSequence1からSequence3の反応時間よりも速い結果であった。

考 察

1. 対照群

エラー数に関して、Block要因の主効果は認められないことから、順番に関する知識の獲得は学習の初期段階からすでに床効果を示している可能性が考えられた。また、条件(Open条件、Covered条件)に関する主効果が有意であった。このことは、就学前児の運動遂行に関して、ボタンの視覚座標からボタン押しを実現するための運動座標へ変換するため、視覚的にフィードバックして効果器(手)を動かす視覚-運動変換過程が重要である可能性が考えられた。本研究では3要因の交互作用が有意であった。このことはPostRandomにおけるCovered条件においてエラー数が増加していることに関連している可能性が考えられ

る。Sequence1(Block2)からSequence3(Block4)まで同じ系列を学習し続けているため、系列に関する知識が潜在的に学習され、PostRandomにおいても獲得済みの運動パターンがランダムなボタン押しへの正確な運動遂行に干渉した可能性も考えられる。また、PostRandomではOpen条件の方がCovered条件よりエラー数が少ない。Open条件では視覚座標から運動座標に変換(運動すべき位置に効果器を到達させるための運動プログラムを生成、実行)することができる。従って、これまで獲得した運動パターンとは違う反応を求められても、Open条件であれば視覚フィードバックにより正しい反応を生成することが可能である。しかしCovered条件のように、視覚情報から運動情報に変換することが困難な条件では、これまで獲得した運動パターンは視覚フィードバックによつては修正されないため、Covered条件におけるPostRandomにおいてより干渉効果が強くなった可能性が考えられる。

反応時間に関して、Block要因の主効果が有意で、同じ系列が繰り返し表示されるBlockにおいてはSequence1(Block2) > Sequence2(Block3) > Sequence3(Block4)の順で反応時間が改善していること、かつランダムに刺激が表示されるPostRandom(Block5)においては、Sequence3(Block4)の反応時間に対し遅延していることから、Sequence1からSequence3の間の反応時間の改善は、単純なボタン

押しの速さによる改善だけでは説明できず、同じ系列を反復し遂行することによる系列運動学習の結果、PostRandomよりSequence 3 の反応時間が速くなった可能性が考えられた(図 3)。また Sequence 1 から Sequence 3 で見られる反応時間の改善(図 3)は、月齢を統制した反応時間とエラー数の偏相関分析において有意性を見いだせず、特に系列学習が最も進んでいると考えられる Sequence 3(Block 4)においても同様に有意性を見いだせなかつた(図 4)。従って、Sequence 1 から Sequence 3 にかけての反応時間の減少が、正確さを欠いたために反応時間が速くなつたというような正確さと速さの Trade off の関係は本研究の結果からは見いだせなかつた。

以上のことから、就学前の対象群において、同じ系列を反復することによる系列運動学習の効果が認められ、また固有受容感覚フィードバックのみよりも視覚フィードバックを伴う学習条件のほうが、反応が正確であること、更に視覚フィードバックを伴う条件の方が、新たな反応を求められた場合でも獲得済みの系列運動が干渉しないよう制御可能である可能性が考えられた。

2. ASD児 2名の検討

ASD児 2名の系列運動学習の結果、Open 条件、Covered 条件双方において、少なくとも Sequence 2、Sequence 3 までにはエラー数が収束し、対照群の平均値以下あるいは平均値の +1SD の範囲内になつたと考えられる(図 6)。一方で反応時間の結果から、ASD児 1 は Open 条件 Covered 条件双方で Sequence 1 から Sequence 3 の系列学習の Block でさえ平均値より 2SD 以上反応時間が遅延する結果を示した(図 5)。更に ASD児 1 は全ての Block において Covered 条件が Open 条件より遅延していた(図 5)。この結果は本研究の仮説であった「ASD児は固有受容感覚フィードバックに強く依存して系列運動学習が行われており、押すべきボタンを遮蔽したブラインドタッチのような条件であれば ASD児も典型発達児と同様の成績に至る」という仮説に矛盾する結果を示した。ASD児 1 の反応時間の結果は、効果器(手)と押すべきボタンの両方が見える Open 条件であつても、反応が遅延することを示しており、ASD児 1 の系列運動学

習の困難さは固有受容感覚フィードバックに強く依存した学習過程の特異性に起因するという仮説では説明が困難であると考えられた。ASD児 1 における反応の遅延及びスキル自動化を妨げる要因について、今後更に検討を要する。

一方 ASD児 2においては Open 条件及び Covered 条件双方において、エラー数が対照群平均値の ±1SD の範囲まで収束していた。また Open 条件の反応時間では Sequence 3 において平均値から 1.5SD 以上遅延していたが、一方で Covered 条件における反応時間は全ての Sequence 1 から Sequence 3 まで一貫して対照群の ±1SD の範囲内のパフォーマンスを示し、また Open 条件と比較して、Covered 条件において反応時間が改善していることが示された。これは当初考えていた運動の苦手な ASD児は固有受容感覚による強いフィードバックに由来して系列学習が行われているとする仮説を支持する結果であった。

本研究では、Covered 条件で反応時間が改善した ASD児と改善しなかつた ASD児双方が見いだされた。その要因として、ASD児が併せ持つ運動の苦手さの背景には異なる複数の認知的要因が関与している可能性も考えられる。発達性協調運動障害はサブタイプ分類が試みられていることもあり(Visser, 2003)¹²⁾、そのことからも発達性協調運動障害が単一の原因に由来する障害ではない可能性を示唆している。本研究は運動の苦手さを併せ持つ ASD児 2例の予備的検討で、2事例が示した結果の違いが ASD児における個人差の範囲であるのか、あるいは運動の苦手さの背景にある認知的要因の違いに影響された結果の違いであるのか十分検討することが困難であった。今後は症例数を増やし、対照群と比較検討することが必要であると考えられる。

引用文献

- 1) Wing, L. The continuum of autistic characteristics. In: Schopler, E., Mesibov, G.B., ed. Diagnosis and assessment in autism. Plenum; New York: 1988: 91-110.
- 2) American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4. American Psychiatric Association; Washington DC: 2000. text rev.
- 3) Kamio, Y., Inada, N., Moriwaki, S. et al. (2013). Quantitative autistic traits ascertained in a national survey of 22 529 Japanese schoolchildren. *Acta Psychiatr Scand*, 128(1): 45-53.
- 4) 森脇愛子, 小山智典, 神尾陽子(2010). 一般児童における発達障害の有病率と関連要因に関する研究②. 平成 22 年厚生労働省科学研究費補助金(障害者対策総合研究事業 精神障害分野) 1 歳からの広汎性発達障害の出現とその発達的変化: 地域ベースの横断的および剪断的研究. 分担研究報告書.
- 5) Mostofsky, S., Dubey, P., Jerath, V.K., et al. (2006). Developmental dyspraxia is not limited to imitation in children with autism spectrum disorders. *J Int Neuropsychol Soc*, 12: 314-26.
- 6) Larson, J. C., Bastian, A. J., Donchin, O., et al. (2008). Acquisition of internal model of motor tasks in children with autism. *Brain*, 131(11): 2894-903.
- 7) Nakai, A., Miyachi, T., Okada, R. et al. (2011). Evaluation of the Japanese version of the Developmental Coordination Disorder Questionnaire as a screening tool for clumsiness of Japanese children. *Research in Developmental Disabilities*, 32, 1615-1622.
- 8) 中原弘之, 銀谷賢治, 彦坂興秀(2000). 順序動作の学習の脳内ネットワーク. 脳の科学, 22: 1075-1085.
- 9) Hikosaka, O., Nakamura, K., Sakai, K. et al. (2002). Central mechanisms of motor skill learning. *Curr Opin Neurobiol* 12(2): 217-22.
- 10) Haswell, C. C., Izawa, J., Dowell, L. R. (2009). Representation of internal models of action in the autistic brain. *Nature Neuroscience*, 12(8): 970-972
- 11) Nissen, M. J., & Bullemer, P. (1987). Attentional requirements of learning: evidence from performance measures. *Cognitive Psychology*, 19: 1-32.
- 12) Visser, J. (2003). Developmental coordination disorder: a review of research on subtypes and comorbidities. *Human Movement Science*, 22: Dewey,

就学前幼児および自閉症スペクトラム障害児の日常動作表象獲得に関する
認知神経心理学的予備的検討

薦森 絵美¹⁾ 伊藤 祐康¹⁾ 山口 佳小里¹⁾ 薦森 英史²⁾
高橋 春一³⁾ 一箭 良枝¹⁾ 深津 玲子¹⁾

¹⁾国立障害者リハビリテーションセンター企画・情報部 発達障害情報・支援センター
(〒359-8555 埼玉県所沢市並木4丁目1番地)

²⁾理化学研究所脳科学総合研究センター

³⁾国立障害者リハビリテーションセンター学院リハビリテーション体育科

要旨：自閉症スペクトラム障害(Autism Spectrum Disorder:ASD)は、いわゆる3つ組といわれる主症状とともに、運動発達の遅れや不器用さの併存がしばしば報告される。本研究では発達段階で習得される動作(praxis)に着目し、就学前の幼児期praxis評価バッテリーの開発に向けて予備的検討として、定型発達児8名とASD児2名において調査を実施した。ASD児では、定型発達児と比べ、日常動作の模倣や使用される道具呼称で成績の低下が見られ、運動表象獲得過程での発達の遅れや質的な違いの可能性を示唆すると考えられた。

(臨床神経心理 24: 31-41, 2013)

Key words: 自閉症スペクトラム障害(ASD)、幼児、praxis

I. はじめに

近年、自閉症スペクトラム障害(Autism Spectrum Disorder:ASD)と呼ばれることが多い発達障害について、「対人関係の障害」「コミュニケーションの障害」「想像力の障害」といわゆるWingの3つ組を主症状とした、重症度の違う連続体と考えられている¹⁾。このスペクトラムの中には、米国精神医学会のDiagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 4th edition text revision(以下、DSM-IV-TR; American Psychiatric Association, 2000²⁾)で定義される、自閉性障害(autistic disorder)、アスペルガー障害(Asperger's disorder)、特定不能の広汎性発達障害(Pervasive Developmental Disorder - Not Otherwise Specified: PDDNOS)等が含まれる。また、これらの診断基準には含まれないが、ASDの中には、運動発達の遅れや不器用さの併存がしばしばみられる^{3,4)}。

日常生活において器用な動きを表現するには、要素的運動機能(筋力)のみならず、高次の運動機能が必要である。そこで我々はまず、praxisを道具の使用有無により transitive gestures(道具使用あり)と intransitive gestures(拍手、バイバイなど)に分類す

る⁵⁾。ASD児では要素的運動機能は問題がないと考えられるので、その不器用は、高次の運動機能の発達に遅れあるいは障害があることが原因である可能性が考えられる。Rothi et al.(1997a⁶⁾の失行症の説明認知モデル(図1)を参考として考えれば、たとえば他者の「バイバイ」を見てその意味はわかるが、自分の「バイバイ」の動作がぎこちない、手の振り幅が大きすぎたり小さすぎたりといった動きになる児では、他のバイバイを視覚入力、分析して Action Input Lexicon, Semantics を獲得・蓄積しているが、Action, Action Output Lexicon の獲得・蓄積が十分ではないのかもしれない。

学齢以上の児を対象とした研究で、定型発達児や注意欠陥多動性障害(Attention -Deficit/Hyperactivity Disorder: AD/HD)児よりもASD児のpraxis評価の成績が有意に低い結果が報告されている^{5,7~10)}が、就学前児についてはこれまで報告がない。また小児に特化したpraxis評価バッテリーも知る限り現在のところ開発されておらず、成人用の評価バッテリーを改変して学齢期に使用している⁸⁾。

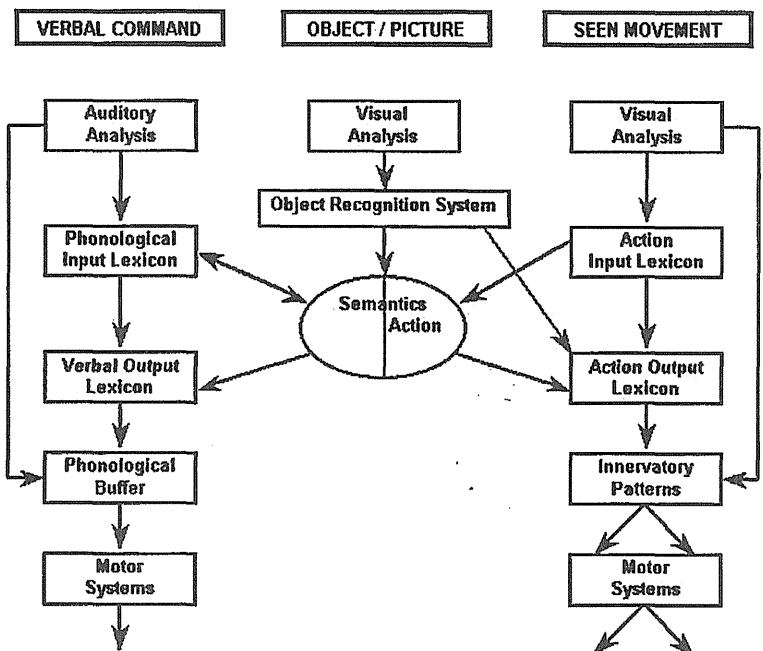


図1 失行症の説明認知モデル(Rothi, 1997aより引用)

本研究は、①Mostofsky et al. (2006)⁸⁾の学齢期用 Praxis 評価バッテリーを幼児用に改変し、日本版バッテリー開発に向けて作成を行い、②作成したバッテリーを用いて、定型発達幼児と ASD 幼児の Praxis 表象獲得過程を評価し、予備的検討を実施する。以上の 2 点を目的とする。

II. 幼児用 Praxis 評価バッテリー開発

<方法> Florida Apraxia Battery (Rothi et al., 1997b¹¹⁾)を学齢期用に改変したもの (Mostofsky et al., 2006⁸⁾)をもとに、Florida Apraxia Battery 改訂版 (Power et al., 2010¹²⁾)も参考に、日本語版幼児用に改変した。

手続き

① transitive gestures の模倣および認知

表1に示した 2 個の練習課題と 10 個の課題を実施した後、「今の動きを真似してください」と模倣を促し、実施してもらう【模倣課題】。模倣終了後、「今、真似をした動きはどれを使っていたと思いますか?」と 4 つの道具(写真)が並ぶ選択肢を提示し 1 つを選択させる。選択課題は Power et al. (2010)¹²⁾を参考に、正解の道具に加え、意味的に正解に近いエラー(意味エラー)、機能的に正解に近いエラー(機能エラー)、意味は全く違うが動きが近いエラー(運動エラー)の 3 つのエラー選択肢で構成された。4 つの道具の配置はランダムにした【認知課題】。

表1 transitive gestures 課題

課題順番	課題内容
練習1	電話の受話器で話す
練習2	ゼリー(アイス・プリンなど)をスプーンで食べる
1	ハサミで紙を切る
2	グラスで水を飲む
3	鉛筆で紙に書く
4	苗籠で苗がさき
5	靴下をはく
6	ハンマーで釘をうつ
7	ボタンをとめる
8	ドライバーでねじを回す
9	包丁で野菜を切る
10	クシで髪をとかす

② intransitive gestures の模倣および認知

表2に示した intransitive gestures の 2 個の練習課題と 10 個の課題に、表3で示した無意味な動きの 1 個の練習課題と 10 個の課題を実施した。これら有意味、無意味の課題は、同条件の刺激が 3 回以上連続しないよう隨ランダムにして表示した。「これから見せるビデオは、あなたが知っている動きもあれば、見たことない、はじめてみる変な動きもあります。全部真似をしてもらいます。その後に、今の動きは知っているか知らないかを教えてください」と教示し、映像を 5 秒間 iPad で表示した後、「今の動きを真似してください」と模倣を促し、実施してもらう【模倣課題】。模倣終了後「今、真似をした動きは知っていますか? それとも知りませんか?」と正誤判断を求める【認知課題】。

③ transitive gesturesにおける道具使用および呼称

①の gesture で実際に使用される道具を渡し、「どうやって使うか、やって見てください」と道具使用を促す【道具使用課題】。

道具使用後、「この道具の名前はなんといいますか」と呼称を求める【呼称課題】。

Transitive gestures、intransitive gestures、および intransitive gestures 課題でダミーとして使用した無意味な動きの刺激リストは表1、表2、表3に示した。

また、transitive gestures 認知課題での道具選択に使用した刺激リストは表4に示した。

スコアリング

模倣および道具使用課題実施中の様子をビデオ記録し、2 名によって正誤判断およびエラー分析を実施する。エラー分析は Mostofsky et al. (2006)⁸⁾、Power et al. (2010)¹²⁾を参考にし、以下 5 つのエラーカテゴリに分類する。

- Spatial(例:動きが拡大／縮小されている。関節の向きが異なる)
- Content(例:内容の取り間違え)
- Temporal(例:回数が極端に多い／少ない)
- Body Part For Tool(BPT)(例:身体を道具の一部のように使用する。)
- Other(その他、分類不能なもの)、No response(反応なし)

表3 intransitive gestures(無意味)課題

課題順番	課題内容
練習1	口をつまむ
1	チョップの形で手を頭の横で前後に振る
2	鼻の下に手を平行に置く
3	チョップの形で手を頭の上で前後に動かす
4	両こめかみにグーの手を合わせる
5	両手を頭の上で平行に動かす
6	親指一もう片方の人差し指同士で交差した 2 つの輪を作る
7	手の甲で拍手
8	おでこに手で三角を作る
9	胸の前で両腕組まい
10	耳の上に手のひらをのせる

課題番号/正答	意味エラー	機能エラー	運動エラー
練習1/電話機	糸電話	メモ帳	バナナ
練習2/スプーン	箸	箸	シャベル
1/ハサミ	植木ばさみ	紙	ベンチ
2/グラス	ティーカップ	水ピッチャー	バナナ
3/鉛筆	定規	ノート	針
4/歯ブラシ	ボディブラシ	コップ	消しゴム
5/靴下	手袋	スパン	紙袋
6/ハンマー	スパナ	釘	木べら
7/ボタン	ファスナー	ボタンのない服	鍵
8/ドライバー	のみ	ねじ	鍵
9/包丁	食用はさみ	にんじん	乾燥機
10/クシ	ブラシ	髪	帽子

表4 transitive gestures 認知課題

III. 幼児期用 Praxis 評価パッテリーの予備的検討

II で作成した幼児用 Praxis 評価パッテリーを用いて、定型発達幼児と ASD 幼児にて Praxis 評価の予備的検討を行った。

課題実施中の様子は分析のため全てビデオ撮影を行った。各課題の手続きを以下に示す。

参加児

①定型発達幼児

A 市 B 保育園に通う4~6歳の男児2名、女児6名、計8名の幼児を対象とした。

平均年齢5歳7ヶ月(SD 5ヶ月)、PVT-R(絵画語い発達検査)で計測した平均語い年齢は5歳10ヶ月(SD 17ヶ月)、RCPM(レーヴン色彩マトリックス検査)の平均得点は36点満点中20.25(SD 5.14)だった。

②ASD 幼児

<ASD 児 1>5歳7ヶ月の男児。

・自閉症診断面接尺度(Autism Diagnosis

Interview-Revised:ADI-R)

相互的対人関係の領域16点(自閉症>10)

コミュニケーションの領域8点(自閉症>7)

限局的・反復的・常図的行動パターン5点(自閉症>3)

・自閉症診断観察検査(Autism Diagnostic

Observation Scale:ADOS)

意思伝達の領域6点(自閉症>4)

社会的相互交渉の領域10点(自閉症>7)

意思伝達と社会的相互交渉の領域の総合点16点(自閉症>12)

いずれの結果も自閉症の診断に必要なカットオフ値を超えていた。ASD 児1は医療機関にはかかっていないが、診断は受けていないが、これらの結果より ASD 特性を有していることが示唆される。

PVT-Rは3歳10ヶ月相当、RCPMは24点だった。5歳5ヶ月時に実施した新版K式発達検査の結果は次の通りである。

姿勢・運動:年齢相応

認知・適応:6歳6ヶ月

言語・社会:3歳8ヶ月

全領域:5歳10ヶ月

<ASD 児 2>5歳9ヶ月の男児。

医療機関 D にて特定不能の広汎性発達障害(PDD-NOS)と診断を受ける。

PVT-Rは3歳7ヶ月相当、RCPMは7点だった。

3歳10ヶ月時に実施した新版K式発達検査の結果は次の通りである。

姿勢・運動:3歳10ヶ月

認知・適応:3歳6ヶ月

言語・社会:4歳1ヶ月

全領域:4歳1ヶ月

結果

各課題の平均正答数

① 定型発達幼児

定型発達幼児の得点を図2および表5に示す。

認知・呼称課題と模倣・道具使用課題という回答方法別に分けて検討すると、それぞれ4種類の praxis 種類別課題(transitive gestures、intransitive gestures

道具使用、intransitive gestures(有意味)、intransitive gestures(無意味))となる。intransitive gestures(有意味)のダミー課題として使用した intransitive gestures(無意味)も、運動表象を用いない動作として分析対象とした。平均正答数は認知・呼称課題で10問中 transitive gestures が7.63問、intransitive gestures(無意味)が8.63問、transitive gestures 道具使用が9.00問、intransitive gestures(有意味)が9.50問だった。模倣・道具使用課題で transitive gestures が5.88問、intransitive gestures(無意味)が7.50問、transitive

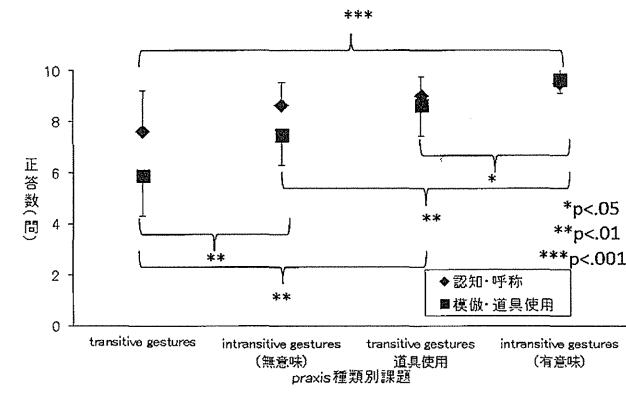


図2 定型発達幼児における各課題の正答平均数

表5 参加児ごとの各課題別正答数(課題数は各10問)

	認 知			模倣・実行		
	ASD 児 1	ASD 児 2	定型発達幼児 (N=8)	ASD 児 1	ASD 児 2	定型発達幼児 (N=8)
transitive gestures	平均 9	6	7.63	3	1	5.88
	SD —	—	1.60	—	—	1.55
intransitive gestures (無意味)	平均 8	7	8.63	9	3	7.50
	SD —	—	0.92	—	—	1.20
transitive gestures 道具使用	平均 6	6	9.00	8	9	8.63
	SD —	—	0.76	—	—	1.19
intransitive gestures (有意味)	平均 10	4	9.50	7	5	9.63
	SD —	—	0.76	—	—	0.52

gestures 道具使用が 8.63 問、intransitive gestures(有意味)が 9.63 問だった。これらの結果に対し、回答方法(認知・呼称、模倣・道具使用)、praxis 種類(transitive gestures、transitive gestures 道具使用、intransitive gestures(有意味)、intransitive gestures(無意味))の被験者内 2 要因分散分析を実施した。その結果、回答方法の主効果($F(1,7) = 6.30, p = .04$)、praxis 種類の主効果($F(3,21) = 18.36, p < .001$)が有意であった。Praxis 種類の主効果に関して下位検定を実施した結果、transitive gestures と intransitive gestures(有意味) ($p < .001$)、transitive gestures と transitive gestures 道具使用 ($p < .001$)、transitive gestures と intransitive gestures(無意味) ($p < .001$)、intransitive gestures(有意味)と transitive gestures 道具使用 ($p < .05$)、intransitive gestures(有意味)と intransitive gestures(無意味) ($p < .001$) の間に有意差が見られた。Intransitive gestures(無意味)と transitive gestures 道具使用の間には有意な差は見られなかった ($p = .10$)。また回答方法と praxis 種類の交互作用は有意傾向であった($F(3,21) = 2.90, p = .06$)。回答方法の主効果から認知・呼称課題の方が模倣・道具使用課題よりも成績は有意に高かった。

② ASD 幼児

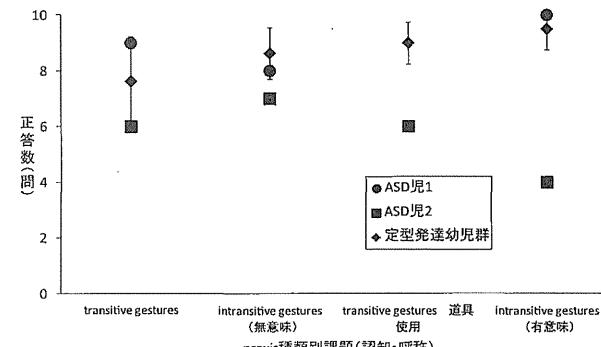


図 3 ASD 幼児 2 名と定型発達児童群の動作種類別認知課題の正答数

ASD 幼児の得点を図 3、4 および表 5 に示す。認知・呼称課題について ASD 幼 1 は、intransitive gestures が 10 問全問正解となつた。次いで、transitive gestures 9 問、intransitive gestures(無意味)8 問、最も成績が低下したのは transitive gestures 道具呼称 6 問だった。

ASD 幼 2 については、最も高かったのは、intransitive gestures(有意味)7 問、次いで transitive gestures と transitive gestures 道具呼称で 6 問、最も成績が低下したのは intransitive gestures(無意味)で 4 問だった。

定型発達児童と比較して、2 名とも成績の低下が定型発達児童の平均正答数の 2 SD 以上だった課題は、transitive gestures 道具呼称で、定型発達児童が平均 9 問正解のところ、ASD 幼 1、2 ともに 6 問だった。次に、模倣・道具使用課題でみると、ASD 幼 1 については、最も高かったのは intransitive gestures(無意味)で 9 問正解だった。次いで、transitive gestures 道具使用で 8 問、intransitive gestures(有意味)で 7 問、最も成績が低下したのは、transitive gestures で 3 問だった。

ASD 幼 2 については、最も高かったのは transitive gestures 道具使用で 9 問だった。次いで intransitive

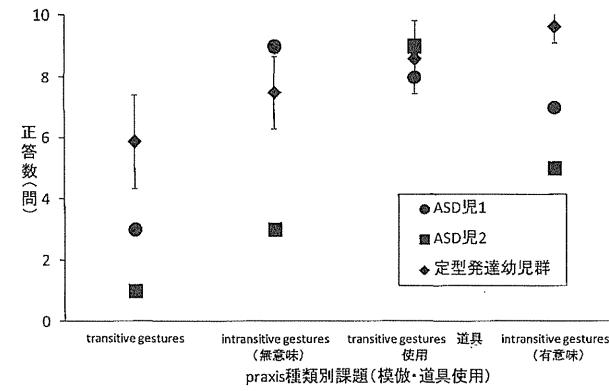


図 4 ASD 幼 2 名と定型発達児童群の動作種類別模倣・実行課題の正答数

表 6 参加児ごとの transitive gestures 認知課題の正答数とタイプ別エラー数の平均値

	正答数	合計 エラー数	エラータイプ			
			意味	機能	運動	反応なし
ASD 幼 1	9	1	0	1	0	0
ASD 幼 2	6	4	1	3	0	0
定型発達児童 (N=8)	平均	7.63	2.38	0.63	1.38	0.38
	SD	1.60	1.60	0.52	1.41	0.52
						0.00

gestures(有意味)で 5 問、intransitive gestures(無意味)で 3 問、最も成績が低下したのは transitive gestures で 1 問だった。

定型発達児童と比較して、2 名とも成績の低下が定型発達児童の平均正答数の 2 SD 以上だった課題は、intransitive gestures(有意味)模倣・定型発達児童が平均 9.625 問正解のところ、ASD 幼 1 は 7 問、ASD 幼 2 は 5 問だった。

各課題の誤答のエラータイプ

定型発達児童および ASD 幼児のエラータイプを表 6、表 7 に示す。

Transitive gestures 模倣および認知課題、intransitive gestures 模倣課題、transitive gestures 道具使用課題について Spatial エラーが最も多く出現した。Transitive gestures 模倣課題については、Spatial エラー 3.25 回に次いで、Body Part for Tool(BPT) エラー 0.5 回、Content エラー 0.38 回と続いた。transitive gestures 道具使用課題については、Spatial エラー 0.88 回、次いで Content エラーが 0.25 回となった。intransitive gestures 模倣課題では、Spatial エラー 0.38 回のみの

数を集計した。

① 定型発達児童

Transitive gestures 認知課題では、機能エラーが最も多く出現し 1.38 回、次いで意味エラーが 0.63 回、運動エラー 0.38 回となった。Transitive gestures 模倣課題、intransitive gestures 模倣課題、transitive gestures 道具使用課題におけるエラーアンalysisではどの課題でも Spatial エラーが最も多く出現した。Transitive gestures 模倣課題については、Spatial エラー 3.25 回に次いで、Body Part for Tool(BPT) エラー 0.5 回、Content エラー 0.38 回と続いた。transitive gestures 道具使用課題については、Spatial エラー 0.88 回、次いで Content エラーが 0.25 回となった。intransitive gestures 模倣課題では、Spatial エラー 0.38 回のみの

表7 参加児ごとの模倣・道具使用各課題タイプ別エラー数の平均値

参加児	正答数	合計エラー数	エラータイプ					
			Spatial	Content	Temporal	BPT	Other	
transitive gestures 模倣	ASD児1	3	7	4	2	0	1	0
	ASD児2	1	9	3	5	1	2	0
	定型発達 幼児	平均	5.88	4.13	3.25	0.38	0	0.5
		SD	1.55	1.55	1.49	1.06	0.00	0.53
transitive gestures 道具使用	ASD児1	9	1	0	1	0	0	0
	ASD児2	9	1	0	1	0	1	1
	定型発達 幼児	平均	8.63	1.13	0.88	0.25	0	0
		SD	1.19	1.25	1.13	0.46	0.00	0.00
intransitive gestures (有意味) 模倣	ASD児1	8	2	2	0	0	-	0
	ASD児2	5	5	5	0	0	-	0
	定型発達 幼児	平均	9.63	0.38	0.38	0	0	-
		SD	0.52	0.52	0.52	0.00	0.00	-

BPT=Body Part For Tool
重複も含む

出現であった。

② ASD 幼児

Transitive gestures 認知課題では両児とも定型発達幼児同様、機能エラーが最も多い。ASD児1は機能エラー1問のみ、ASD児2は機能エラー3問、次いで意味エラー1問だった。

模倣では Spatial エラーのみを両児とも示した。一方で、transitive gestures 模倣では ASD児1は Spatial エラーが4問と最も多く、次いで Content エラー2問、BPT エラー1問だった。ASD児2は Content エラーが5問と最も多く、次いで Spatial エラー3問、BPT エラー2問、Temporal エラー1問であった。

Transitive gestures 道具使用課題では、両児とも Content エラーのみを1問ずつ示した。

エラー数およびエラータイプについて表6、7にまとめた。

IV. 考 察

幼児期用 Praxis 評価パッテリー開発について

課題について、課題刺激の選択においては、

Mostofsky et al.(2006)⁸⁾の他、学齢期を対象とした praxis 研究^{5, 9, 10)}を参考に、幼児期の発達段階に合わせ、日常生活で動作獲得が見込まれる動き、目にする機会が見込まれる動きを中心にして設定した。認知課題については、言語能力の差が解答に反映しないよう、写真選択問題や、YesかNoかの二者択一など、言語による応答を極力除いた形を採用した。

言語指示に対する動作応答が9歳以前では十分に利用できないという Zoia et al.(2002)¹⁰⁾の見解から、本研究では幼児期である参加児が課題に十分に参加できることを第一に考え、言語指示による動作課題は除外した。この点については今後検討が必要であると考えられる。

また、エラー分析について、Mostofsky et al.(2006)⁸⁾を参考に、Body Part For Tool(BPT)エラーを設定した。これは、想像上で物を用いた身振りを行う際に、たとえば歯磨きの身振りを、人指し指で歯を磨く等を指すエラーで、幼児期に出現しやすいエラーと言われている(Overton & Jackson(1973)¹¹⁾, Boyatzis & Watson(1993)¹²⁾。本研究でも、見本の身振りが表示される transitive gestures の模倣課題にもかかわらず、

定型発達幼児、ASD 幼児両群にわずかだがこのエラーが観察された。

幼児期用 Praxis 評価パッテリーの予備的検討～定型発達児について

Praxis の処理過程を検討するために、[認知・呼称]課題と[模倣・道具使用]の2つに分けて検討した。また、Praxis を道具使用ありなしに二分した。

対象の定型発達幼児について、PVT-R の平均語彙年齢が5歳10ヶ月(SD 17ヶ月)、RCPM の平均得点は36点満点中 20.25(SD 5.14)であり、RCPM の5~6歳児平均評点は21.0(SD 4.34)であることから¹⁰⁾、本研究に参加した定型発達幼児には明らかな知的能力および言語発達に遅れは認められない。

回答方法(認知・呼称、模倣・道具使用)、praxis種類(transitive gestures、transitive gestures 道具使用、intransitive gestures(有意味)、intransitive gestures(無意味))の被験者内2要因分散分析を実施した結果、回答方法の主効果が認められ、認知・呼称課題の成績が模倣・道具使用課題よりも有意に正答数が高かった。その1つの要因として、発達的視点から、視覚イメージと意味の結びつきの方が早く、その後、実際に体を使って表現することが可能になってくる可能性が考えられる。

また、Praxis 種類の主効果に関して、下位検定を実施した結果、intransitive gesture(有意味)は他の3課題(transitive gesture, intransitive gesture(無意味)、transitive gesture(道具使用))よりも有意に正答数が高かった。さらに transitive gesture(道具使用)が transitive gesture より有意に正答数が高かった。この結果は、定型発達学童の模倣課題結果を intransitive gesture、pantomime(transitive gesture)、object use(transitive gesture(道具使用))の3種類に分けて検討した Stieglitz et al.(2011)⁵⁾の報告と一致した。

模倣・道具使用課題でのエラー分析の結果、定型発達幼児では transitive gesture(道具使用)、intransitive gesture ではエラーはほとんど出現せず、transitive gesture でのエラーは spatial エラーが最も多かった。これは先行研究と一致する⁸⁾。Spatial エラーとは、表示動作に比べ模倣した動作の動きが縮

小されていたり、関節の向きが違う等を指している。Transitive gesture で spatial error が多いことは、道具イメージに合わせて手の微細な動きを調節することによる運動自体の複雑さや多様さや空間認知などの影響が考えられる。

このように、定型発達幼児の運動表象獲得過程において、Action Input Lexicon、Semantics の獲得・蓄積と Semantics (Action)、Action Output Lexicon の獲得・蓄積には獲得時期に差がある可能性や、動作の種類によっても差がある可能性が考えられる。

幼児期用 Praxis 評価パッテリーの予備的検討～ASD 幼児2名について

ASD 幼児2名の結果については、まず、2名とも PVT-R の結果は年齢平均よりも低い値となり、言語発達面において本研究の定型発達幼児と差が生じ、この点においては留意して考察する必要がある。ASD 幼児2名については RCPM においても得点が低い傾向が見られたが、検査刺激の数字に注意が向くことが多く、検査内容の理解が不十分であった可能性も考えられる。

2名とも発達検査では全般的な知的な発達において大きな遅れは示されていない。

2名はそれぞれ異なる結果傾向を示したが、類似した結果もいくつか存在し、それは定型発達児の結果とは異なるものだった。

一つは transitive gestures 道具呼称課題で、定型発達児と比べ、ASD 幼児2名とも成績低下が顕著であった。しかし、道具呼称には失敗しても、道具使用は両児とも定型発達児同様に好成績であったことは、道具の名前はわからなくとも、実物があれば既知道具の操作は可能であったことを示す。これは、本研究に参加した ASD 幼児2名の言語発達が年齢で期待されるよりも低いことに由来するかもしれない。一方で、intransitive gestures(有意味)模倣課題は定型発達幼児よりも ASD 幼児2名は大きく成績が下回った。1名は認知課題でも大きく成績が下回っていた。Intransitive gestures(有意味)は、「バイバイ」や「おいで」「静かにして」など、他者とのコミュニケーションに使うジェスチャーを主に含んでおり、Mostofsky et al. (2006)⁸⁾も

言及しているように、ASD児の社会性障害が結果に影響した可能性が考えられる。Stieglitz et al. (2011)⁹でも、intransitive gestures と transitive gestures の結果に差があり、二つの gestures 認知の発達が異なる可能性について触れている。本研究のASD児2名の transitive gestures の結果は、模倣課題は定型発達幼児よりも成績が下回る傾向を示した。しかし、認知課題は1名が定型発達児と比べて成績低下、1名が成績良好と個人差が大きかった。本研究はASD児2名の事例的検討で結果の解釈には限界があり、今後さらに検討していく必要があると考えられる。

またASD児2については、4種類の認知・呼称課題すべてで成績が低下しており、このことは、RCPMの得点の低さとも関連が考えられる。ASDでは視覚的注意の独特さが指摘されることがあり¹⁰、transitive gestures 模倣課題におけるエラータイプで Content エラーが多いことからも、課題の本質的な部分に注目が行き届かず、課題の成績に影響している可能性が考えられる。

また、Dowell et al. (2009)¹⁰は、学齢期ASD児の praxis performance error 数と自閉症診断観察検査(ADOS)の得点との有意な相関を示しており、今後、自閉症症状の重症度と praxis の関連も検討すべき点である。

研究に参加した2名のASD児の結果は事例検討であり、結果の解釈は限定的ではあるが、定型発達幼児との違いを示すものも含まれており、ASDにおいて幼児期の時点ですでに定型発達幼児と比べ動作課題で困難さを示しており、運動表象獲得過程での遅れまたは質的違いの可能性を示唆するかもしれない。

今後、今回開発した幼児用 Praxis 評価バッテリーの改良を図るとともに、症例数を増やして検討していくたい。

文 献

- 1) Wing L: The autistic spectrum. Lancet, 350: 1761-1766, 1997
- 2) American Psychiatric Association: Diagnostic and statistical manual of mental disorders, 4th ed, Text Revision(DSM-IV-TR), Washington DC, 2000
- 3) Bhat AN, Landa R, Galloway JC: Current perspectives on motor functioning in infants, children, and adults with autism spectrum disorders. Physical Therapy, 91, 1116-1129, 2011
- 4) Fournier KA, Hass CJ, Naik SK, et al.: Motor coordination in autism spectrum disorders; a synthesis and meta-analysis. J Autism Dev Disord, 40, 1227-1240, 2010
- 5) Stieglitz HH, Bartolo A, Corley M, et al.: Exploring the relationship between gestural recognition and imitation; evidence of dyspraxia in autism spectrum disorders. J Autism Dev Disord, 41, 1-12, 2011
- 6) Rothi LJC, Ochipa C, Heilman KM: A cognitive neuropsychological model of limb praxis and apraxia. In Apraxia: The neuropsychology of action, by Rothi LJC, Heilman KM, Psychology Press, Hove, UK, 1997a, pp.29-49
- 7) MacNeil LK, Mostofsky SH: Specificity of dyspraxia in children with autism. Neuropsychology, 26, 165-171, 2012
- 8) Mostofsky SH, Dubey P, Jerath, VK, et al.: Developmental dyspraxia is not limited to imitation in children with autism spectrum disorders. J Int Neuropsychol Soc, 12, 314-326, 2006
- 9) Dewey D, Cantell M, Crawford S (2007). Motor and gestural performance in children with autism spectrum disorders, developmental coordination disorder, and/or attention deficit hyperactivity disorder. J Int Neuropsychol Soc, 13, 246-256, 2007
- 10) Zola S, Pelamatti G, Cuttini M, et al.: Performance of gesture in children with and without DCD; effects of sensory input modalities. Dev Med Child Neurol, 44, 699-705, 2002
- 11) Rothi LJC, Raymer AM, Heilman KM: Limb praxis assessment. In Apraxia: The neuropsychology of action, by Rothi LJC, Heilman KM, Psychology Press, Hove, UK, 1997b
- 12) Power E, Code C, Croft K, et al.: Florida Apraxia Battery-Extended and revised Sydney (FABERS): design, description, and a healthy control sample. J Clin Exp Neuropsychol, 32(1), 1-18, 2010
- 13) Overton WF, Jackson JP: The representation of imagined in action sequences; a developmental study. Child Dev, 44, 309-314, 1973
- 14) Boyatzis CJ, Watson MW: Preschool children's symbolic representation of objects through gesture. Neuropsychology, 23, 563-570, 2009
- 15) Happé F: Autism: Cognitive deficit or cognitive style? Trends Cogn Sci, 3, 216-222, 1999
- 16) Dowell LR, Mahone EM, Mostofsky, SH: Associations of postural knowledge and basic motor skill with dyspraxia in autism: Implication for abnormalities in distributed connectivity and motor learning. Child Dev, 64, 729-735, 1993

短報

運動を苦手とする広汎性発達障害児における運動発達調査 —幼児期2例を対象として—

国立障害者リハビリテーションセンター学院 一 箭 良 枝

国立障害者リハビリテーションセンター学院 高 橋 春 一

国立障害者リハビリテーションセンター研究所発達障害情報・支援センター 深 津 玲 子、伊 藤 祐 康
葛 森 絵 美、山 口 佳 小 里

国立障害者リハビリテーションセンター自立支援局 秋葉学園 葛 森 英 史

Key word : スポーツ統括団体、統合、組織体制

Abstract

It is known that most of children with PDD(Pervasive Developmental Disorders) have a weakness for gross motor performance. In this study, we researched motor development of two 5-year-old children with PDD having weakness of gross motor performance. MKS motor ability test for children and Test of Gross Motor Development-II (TGMD-II) were used to assess their gross motor performance. As a result, almost all sub-test of MKS motor ability test for children was below the standard. The result of TGMD-II, their motor development age equivalents were around 7 to 8months younger in locomotor subtest, more than 2years and 5months younger in object control subtest than their age. From these result, there is a possibility that motor development of children with PDD is below the standard from 5years old. And, there is also a possibility that the motor development age of object control was below that of locomotor. From this research, children with PDD need intervention about gross motor ability from early childhood. Especially, we think that intervention about object control ability is more important.

【要旨】

広汎性発達障害（以下PDD）児の中には、体操や球技をはじめとする粗大運動を苦手とする子供が多いことが指摘されている。本研究では、運動を苦手とするPDDのある5歳男児2名を対象として運動発達調査を実施した。評価指標として、MKS幼児運動能力検査、及びTest of Gross Motor Development-II (TGMD-II)を用いた。運動発達調査の結果、MKS幼児運動能力検査ではほとんどすべての項目において同年齢の標準値を下回っていた。TGMD-IIでは、移動能力で7～8ヵ月程度、物体操作能力で2年5ヵ月以上、運動発達に遅れがみられた。これらの結果から、PDD児の運動発達は、幼児期の5歳の段階から遅れがみられる可能性が示唆された。また、道具を使用した物体操作能力の遅れがより大きい可能性も示唆された。本研究から、幼児期の段階から運動能力に関する支援が必要であり、特に、道具を使用した物体操作能力に関する支援が重要である。

【はじめに】

広汎性発達障害（PDD）とは、自閉性障害やアスペルガー症候群をはじめとした、自閉症類似の病態の総称である。PDDの抱える問題として、「社会性の障害」、「言語コミュニケーションの障害」、「固執性」の3つの障害が挙げられ、DSM-

IVやICD-10などの国際的な診断基準の基本となっている¹⁾。これらの障害以外に、PDD児の中には運動を苦手とする子どもが多いことが指摘されている。岩永²⁾は、PDD児の中には、運動麻痺がないにも関わらず、運動がうまくできなかつたり、摸倣が苦手であったりといった問題が多く

みられるとしている。また、感覚過敏や低反応など感覚処理の問題がみられることが多いとされている。これらの運動や感覚処理の問題により、PDD児の多くが多動やパニックを起こしてしまったり、書字や工作などの手先の運動、体操や球技などの粗大運動が苦手であったりという問題がみられる。このような問題が、生活や学習面の問題となっていることが多いと指摘している。

このように、運動面の問題は、日常生活においても大きく影響していることから、PDD児の運動発達について実態を明らかにし、適切な支援を行っていく必要があると考えられる。

学齢期のPDD児の運動発達に関する調査³⁾によると、PDD児の運動発達は、実年齢の約半分程度であるという結果が報告されている。しかしながら、国内においてPDD児の運動発達に関する研究は少なく、特に、学齢期以前の幼児期においても運動発達の遅れはみられるであろうか。また、遅れているのであれば、どの程度の遅れであろうか。

本研究では、幼児期の運動を苦手とするPDD児を対象に運動発達調査を実施し、その実態について検討する。

【対象と方法】**(1) 対象**

運動を苦手とするPDD児を対象とした療育プログラムに参加する幼児2名、CaseA、CaseBを対象とした。

- ・ CaseA：男児、5歳7か月、同胞なし
- ・ CaseB：男児、5歳5か月、同胞（弟1人）

2名ともに知的障害は認められず、通常の幼稚園・保育園に通っている。

(2) 調査期間

2012年5月～10月にかけて実施した運動を苦手とするPDD児を対象とした療育プログラムの中で調査を行った。療育プログラムは、介入前評価、運動指導5回、介入後評価の順にプログラムを実施した。本研究では運動指導の前の5月～6月に実施した介入前評価を調査対象とする。

(3) 評価指標**① MKS幼児運動能力検査⁴⁾**

MKS幼児運動能力検査は、4歳から6歳の幼児を対象とした全国標準値を持つ運動能力検査である。「25m走（往復走）」「立ち幅跳び」「ソフトボール投げ（テニスボール投げ）」「両足連続飛び越し」「体支持持続時間」「捕球」の6種目の下位項目で構成されている。各種目について、全国標準を基にした5段階の評定点が設定されている。本研究では、「往復走」「立ち幅跳び」「テニスボール投げ」「捕球」の4種目を調査対象として、MKS幼児運動能力検査実施要項を基に検査を実施した。

② TGMD-2(Test of Gross Motor Development-II)⁵⁾

TGMD-2は、3歳から10歳までの子どもを対象とした粗大運動能力を評価するテストである。「走る」「ギャロップステップ」「片足跳び」「跳び越え」「立ち幅跳び」「スライドステップ」からなる道具を使用しない移動能力テスト6課題と、「止まつたボールを打つ」「止まってドリブル」「捕球」「蹴る」「オーバーハンドスロー」「アンダーハンドスロー」からなる道具を使用した物体操作テスト6課題の計12課題で構成された運動発達テストである。TGMD-2は、膝の屈曲や両足での離地・着地など、運動時のフォームを評価する質的指標である。テスト課題ごとに3～5項目の運動パフォーマンスの判断基準があり、基準となる動作ができるれば1点、できていなければ0点として採点する。移動能力、物体操作能力それぞれの合計得点から運動発達年齢を算出する。本研究では、TGMD-2のマニュアルに基づいて検査を実施した。

【結果】**(1) MKS幼児運動能力検査**

表1は、MKS幼児運動能力検査の結果を示したものである。表の上段に測定記録、下段の括弧内は評定点を示している。表2は評定点の判定解釈と理論的出現率を示している。5段階の評定点は、3点を標準値として、5点に近づくほど発達が進んでいる状態を示している。

CaseAについて、立ち幅跳びは評定点4点と、標準値を上回っていたが、他の3種目については、標準値以下の2点であった。CaseBについて、

捕球は2点、他の3種目は1点と、4種目すべてにおいて標準値以下であった、対象児2名の結果

から、CaseA の立ち幅跳びを除く全ての項目について、標準値を下回っていた。

表1. MKS 幼児運動能力検査の結果

	往復走	立ち幅跳び	テニスボール投げ	捕球
CaseA	9"81 (2)	115cm (4)	4m (2)	4回 (2)
CaseB	11"12 (1)	63cm (1)	3m (1)	5回 (2)

上段に各項目の実測値、下段括弧内の数は評定点を示す。評定点は年齢ごとに5段階に分けられ、3点が該当年齢の標準値である。

表2. 評定点の判定解釈と理論的出現率

評定点	判定解釈	理論的出現率
5点	発達が標準より非常に進んでいる	7%
4点	発達が標準よりかなり進んでいる	24%
3点	標準的な発達である	38%
2点	発達が標準より少し遅れている	24%
1点	発達が標準よりかなり遅れている	7%

表3. TGMD-2 の測定結果

	年齢	素点			
		標準値	%タイル	年齢相当	
CaseA	5歳7か月	移動能力	30	8	25
		物体操作能力	18	5	5
		粗大運動率	79	8	3歳未満
CaseB	5歳5か月	移動能力	28	9	37
		物体操作能力	16	4	2
		粗大運動率	79	8	3歳未満

表4. 運動場面におけるエピソードとその対応

問題点	⇒ 対応	⇒ 結果
①エピソード1 (CaseA, CaseB) ・プログラムの見通しがつかない 不安がみられた。	①スケジュールカードを提示し、課題を覚えるごとにカードを外しました。 ②得点板を用いて練習の回数を示した。	・見通しを持つことで課題に集中して取り組むことが可能となった。
②エピソード2 (CaseB) ・「往復走」において、指導者のデモンストレーション及び口頭による説明ではコーンを倒していくところの理解ができず、コーンの手筋でターンして貰った。	・「コーンを倒す」ことが視覚的に分かりやすいよう、矢印を用いて円に折り返し地点を示した。	・「コーンを倒していく」ことがスマートにできるようになった。
③エピソード3 (CaseA) ・「テニスボール投げ」では、「遠くへ投げる」運動イメージを持つことができず、ボールを床へたきつけるように投げる様子がみられた。	・1.7mのバーを投球ラインから1.7m離れた地点に設置し、このバーを越えて投げるように指導した。	・目標が明確になり、バーを設置していない時よりも投球距離が伸びた。
④エピソード4 (CaseA, CaseB) ・反復練習は対象児にとって目的意識を持つことができず、自発性や意欲が生じなかつた。	・課題の後に楽しさや興味に応じて遊びを取り入れ、課題に対する動機づけを高める工夫をした。	・遊びが課題に対する強化子となり、意欲して課題を実践することができた。

(2) TGMD-2

表3は、TGMD-2 の測定結果を移動能力、物体操作能力別に示したものである。表中の「標準値」は10を平均として標準化した値、「%タイル」は全体に対して該当の標準値が占める割合を示している。CaseA の標準値は移動能力で8、物体操作能力で5であった。CaseB では移動能力9、物体操作能力4であった。対象児2名ともに、平均を下回っていることが分かった。%タイルについても、同年齢の集団の中で非常に低い結果であることが分かった。これらの標準化した値を発達年齢に換算した「年齢相当」は、移動能力については、CaseA が5歳、CaseB が4歳9か月という結果が示され、実年齢に対して7~8か月程度の遅れがみられた。物体操作能力については、さらに大きな遅れがみられ、CaseA, CaseB ともに3歳未満であった。CaseA, CaseB と共にして移動能力よりも物体操作能力でより顕著な運動発達の遅れがあった。「粗大運動率」は、移動能力、物体操作能力を総合した指標で、100を平均として算出された値である。CaseA, CaseB ともに平均を下回る79であった。移動能力、物体操作能力を総合した「%タイル」は、CaseA, CaseB ともに8%であった。全体としての運動発達についても、平均を大きく下回っていることが分かった。

(3) 調査および運動指導場面におけるエピソード

本研究の運動発達調査および調査後に実施した運動指導場面において、PDD の特性に合わせた対応が必要とされる場面がみられた。表4にエピソードとその対応を記述した。

エピソード1は、見通しを持つことが困難であることへの対応である。運動場面では、スケジュールをバーン化した上で、カードを用いて視覚的に構造化して示した。また、「あと何回で終わる」のかが分かるよう、得点板を用いて練習の回数を示した。その結果、検査室から出るといった行動は見られなくなり、課題に集中して取り組むことができるようになった。このように、「何を」、「どれだけ」するのか、「いつ終わる」のかを明確に示し、安心して課題に取り組める環境づくりが重要であった。

エピソード2, 3においてみられたように、口頭での指示やデモンストレーションでは、運動をイメージすることが困難であった。そのため、走るコースを床に矢印で示したり、ボールを投げる目標となるバーを設置したりといった視覚的に構造化された環境設定が必要であった。

エピソード4では、動機づけを高めるための工夫を行った。「遠くへ投げる」とことや、「遠くへ投げる」ことに対する意味理解の困難さから、運動に対す

る目的意識を持つことができない様子がみられた。運動に意欲的に取り組んでもらうためには、対象児にとって運動の動機づけとなるような「楽しさ」を取り入れることが必要であった。

【考察】

(1) 運動発達調査

幼児期の PDD 児 2 名に MKS 幼児運動能力検査及び TGMD-2 を実施した結果、2 つの検査に共通して標準的な 5 歳児の運動能力よりも低下していることが示された。Staples らによる学齢期の PDD 児を対象に行われた運動発達に関する研究³⁾から、PDD 児の運動能力は定型発達児よりも有意に低いことが示されている。本研究の結果から、幼児期においても運動能力が低い傾向であることが示唆された。

しかし、表 3 における移動能力と物体操作能力の運動発達年齢について、Staples らの研究では、学齢期の PDD 児の運動発達は、移動能力と物体操作能力で同程度の遅れであると報告されたが、本研究の結果においては、対象児 2 名ともに物体操作能力の遅れが顕著にみられた。その要因として、移動能力が比較的日常生活場面で用いられる動きであることや、自分自身の身体をコントロールすることで完結する運動であるのに対して、物体操作能力は、遊びの中などで自発的に行なわなければ体験することのできない運動であることが考えられる。さらに、身体をコントロールすることに加えて、ボールなどの物体の動きに応じて自分自身の動きを対応させていくという、より高次の能力が求められることが考えられる。

本研究より、対象とした PDD 児 2 名は、標準的な 5 歳児で獲得されている基本的な運動能力が獲得されていないことが示された。運動発達の遅れにより、日常生活に必要な運動の獲得が困難であったり、運動遊びを通じた社会性や身体の発達を促進する機会が損なわれたりする可能性も考えられる。これらの経験が幼児期以降の生活に大きく影響すると考えられることからも、幼児期の段階から運動発達に対する支援を行っていくことが重要であると考える。

(2) 運動場面で必要な配慮

対象児の運動場面において得られたエピソード

から、対象児が安心して運動に取り組めるよう、それぞれの特性に合わせた環境設定が重要であることが分かった。見通しを持たせることや、視覚的な情報を適宜用いることなど、指示の仕方や環境設定を対象児の理解できる形に工夫することが指導者に求められると考えられる。また、運動の楽しさを実感できるようプログラム内容を工夫し、運動への動機づけを高めるための仕掛けづくりが重要である。これらの工夫をすることによって成功体験が生まれ、対象児の運動に対する意欲や自発性を引き出すことが可能となると考えられる。

【参考文献】

- 1) 佐藤由宇：第 2 章、田中千穂子、栗原はるみ、市川奈緒子（編）、発達障害の心理臨床 子どもと家族を支える療育支援と心理臨床的援助、64-78、株式会社有斐閣、2005
- 2) 岩永竜一郎：自閉症スペクトラムの子どもへの感覚・運動アプローチ入門、47-56、東京書籍株式会社、2010
- 3) Kerri L. Staples, Greg Reid : Fundamental Movement Skills and Autism Spectrum Disorders, J Autism Dev Disord, 40, 209-217, 2010
- 4) 幼児運動能力研究会：MKS 幼児運動能力検査、<http://youji-undou.nifs-k.ac.jp/>
- 5) Dale A. Ulrich : Test of gross motor development second edition Examiner's Manual, pro-ed, 1-59, 2000