

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 —

薦森 英史¹⁾ 伊藤 祐康²⁾ 薦森 絵美²⁾ 高橋 春^{—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関して検討した。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-TR²⁾(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きている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 Mostfisky (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。

運動スキル学習はこ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はいない。

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たと考えらる 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イ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が考えられる。

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、および運動に困難さをもつ 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 距離を置いて刺激を呈示した。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 30 mm 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 0.5 mm 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。

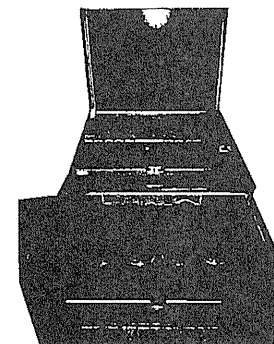


図 1 実験装置

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

cm)になるよう呈示し続けた。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呈示され続けた。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った。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 呈示し、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呈示し、ここまでは 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、ディスプレイ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 のいずれか一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て使用された。

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 週間以上期間において実施した。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スワップを行った。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、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 HSRBP)を用いて下位検定を行った。その結果、Sequence 3 は他の系列呈示の Block (Sequence 1, Sequence 2) ($p < .05$)、及びランダム呈示の Block (PreRandom, PostRandom)よりも有意に反応時間が速かった($p < .05$) (図 3)。また、

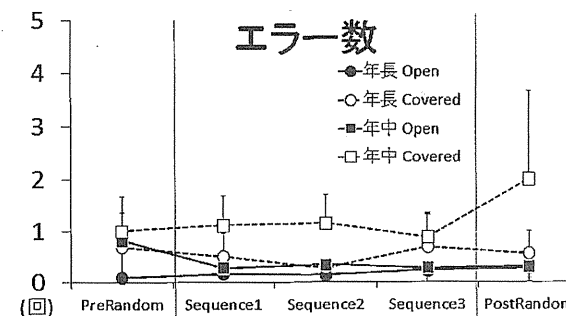


図 2 対照群エラー数

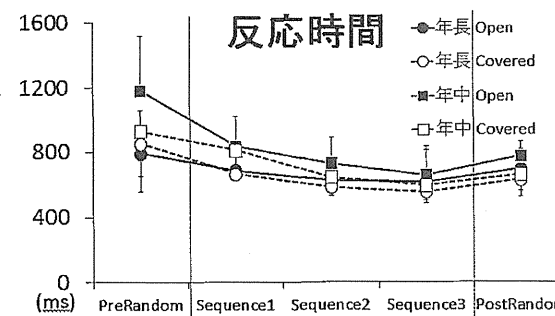


図 3 対照群反応時間

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。

2. 症例

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 2SD 以上のエ

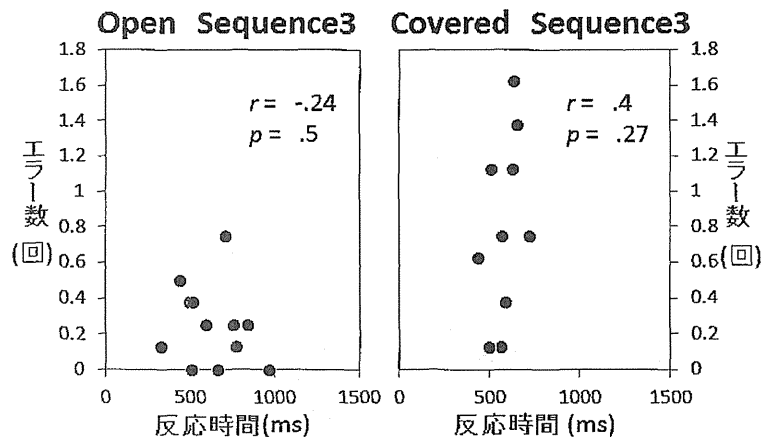


図4 月齢を統制した4Block目のエラー数と反応時間の偏相関分析の結果

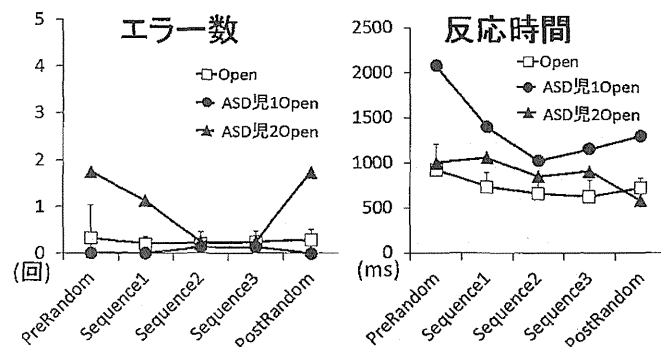


図5 Open条件における対照群、及びASD児1、ASD児2の結果。
対照群は年長、年中の平均の値。左がエラー数。右が反応時間。

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

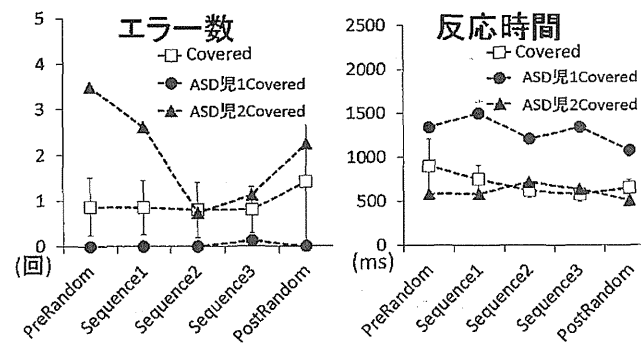


図6 Covered条件における対照群、及びASD児1、ASD児2の結果。
対照群は年長、年中の平均の値。左がエラー数。右が反応時間。

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と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)することが可能である。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っ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提示される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提示される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も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った(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っ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った。

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 $+1SD$ の範囲内になったと考えられる(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条件であっても、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 $\pm 1SD$ 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 児と改善しなかった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った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の変化: 地域ベースの横断的および縦断的研究. 分担研究報告書.
- 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, 銅谷賢治, 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、定型発達幼児8名と ASD 幼児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」といういわゆる 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 (Aspergar'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実現するには、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. (1997a)⁶⁾ 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、他者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、就学前幼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⁾。

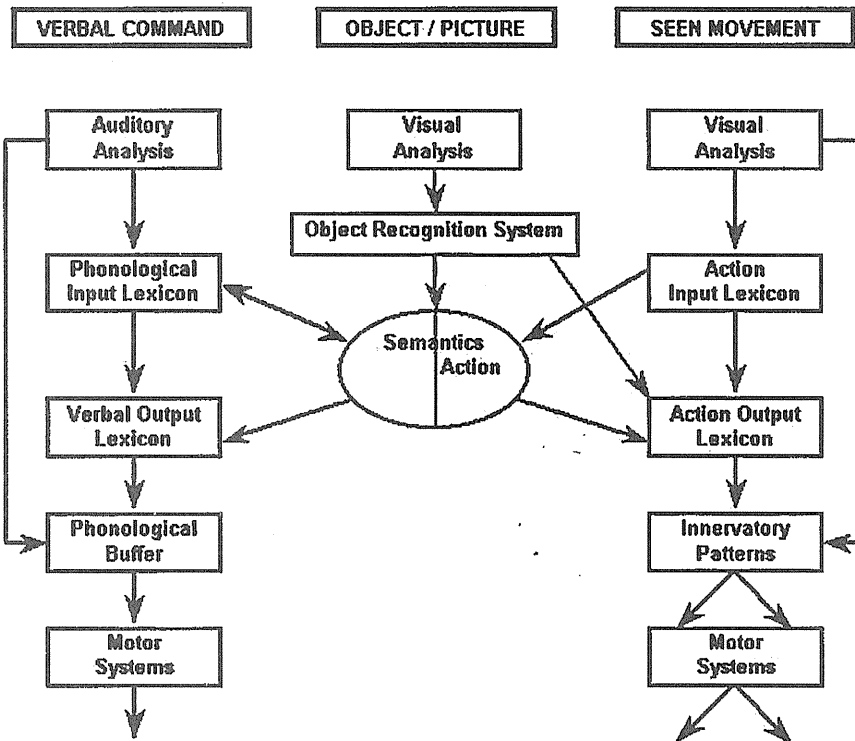


図1 失行症の説明認知モデル(Rothi, 1997aより引用)

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

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個の課題を施行した。transitive gestures の映像を5秒間iPadで提示した後、「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

課題番号	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	歯ブラシで歯みがき
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	ドライバでねじを回す
9	包丁で野菜を切る
10	クシで髪をとく

表2 intransitive gestures (有意味)課題

課題番号	課題内容
練習1	くさい(鼻をつまむ)
練習2	ピース
1	バイバイ
2	静かにして(人差し指を立て、しーっ)
3	こっちにおいて(手招き)
4	あくびをする(片手でインディアンのように)
5	寒い(腕を交差させ両腕をこする)
6	オッケー
7	拍手をする
8	敬礼
9	腕組み
10	耳をそばだてる(耳の横に手をあてる)

表3 intransitive gestures (無意味)課題

課題番号	課題内容
練習1	口をつまむ
1	チョップの形で手を顔の横で前後に振る
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—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	胸の前で両腕組まない
10	耳の上に手のひらをのせる

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個の課題を施行した。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に偽ランダムにして提示した。「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 で提示した後、「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、やって見せてください」と道具使用を促す【道具使用課題】。

道具使用后、「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 4 transitive gestures 認知課題

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	ペンチ
2/グラス	ティーカップ	水ビッチャー	バナナ
3/鉛筆	定規	ノート	針
4/宙ブラン	ボディブラン	ゴップ	消しゴム
5/靴下	手袋	スポン	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	紐
8/ドライパー	のみ	ねじ	紐
9/包丁	食用はさみ	にんじん	裁断機
10/クシ	ブラシ	髪	帽子

III. 幼児期用 Praxis 評価バッテリーの予備的検討

II で作成した幼児用 Praxis 評価バッテリーを用いて、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。

② ASD 幼児

<ASD 児 1> 5 歳 7 ヶ月の男児。

・自閉症診断面接尺度 (Autism Diagnosis

Inter view-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・常同的行動パターン 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かっていず、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、transitive gestures

道具使用、intransitive gestures (有意義)、intransitive gestures (無意味)) となる。intransitive gestures (有意義) 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 (有意義) 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

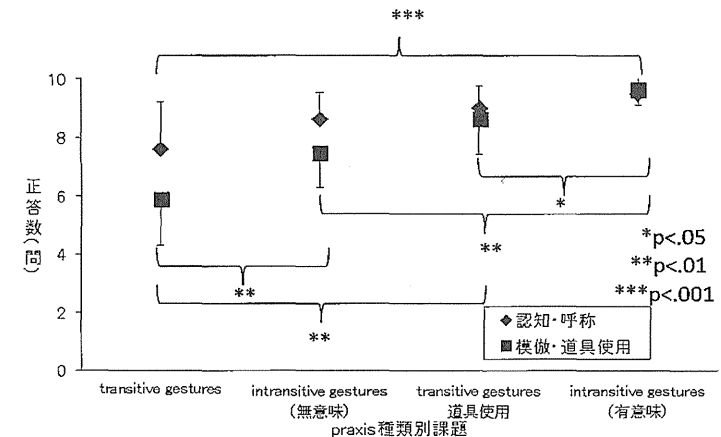


図 2 定型発達幼児における各課題の正答平均数

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 (有意義)	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

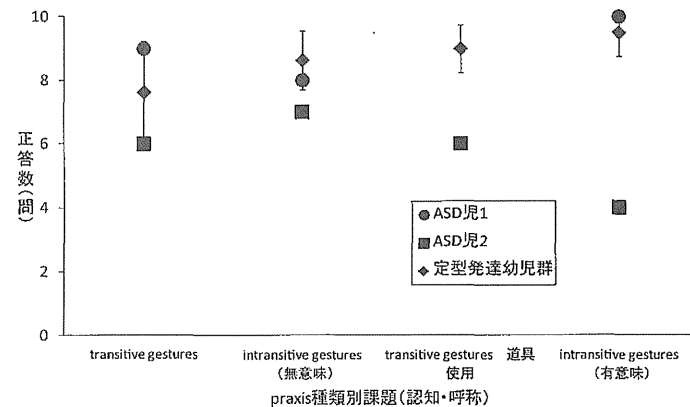


図3 ASD 児2名と定型発達幼児群の動作種類別認知課題の正答数

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 児1は、intransitive gestures が10問全問正解となった。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 児2については、最も高かったのは、intransitive gestures(有意味)7点、次いで transitive gestures と transitive gestures 道具呼称で6点、最も成績が低下したのは intransitive gestures(無意味)で4点だった。

定型発達幼児と比較して、2名とも成績の低下が定型発達幼児の平均正答数の2SD以上だった課題は、transitive gestures 道具呼称で、定型発達幼児が平均9問正解のところ、ASD 児1、2ともに6問だった。次に、模倣・道具使用課題で見ると、ASD 児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 児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

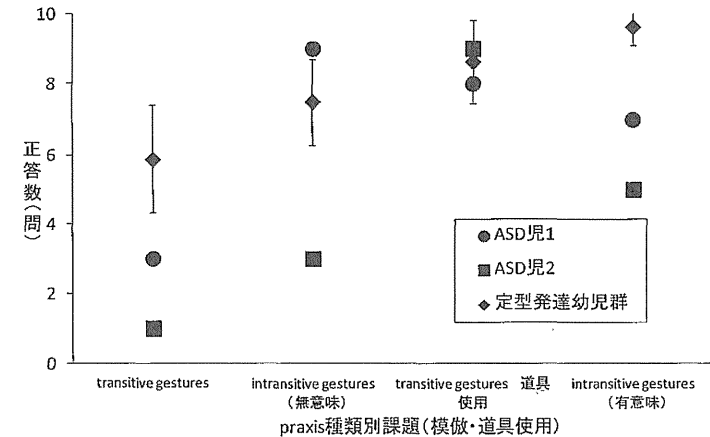


図4 ASD 児2名と定型発達幼児群の動作種類別模倣・実行課題の正答数

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 児1	9	1	0	1	0	0
ASD 児2	6	4	1	3	0	0
定型発達幼児 (N=8)	平均 7.63	2.38	0.63	1.38	0.38	0
	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。

定型発達幼児と比較して、2名とも成績の低下が定型発達幼児の平均正答数の2SD以上だった課題は、intransitive gestures(有意味)模倣で、定型発達幼児が平均9.625問正解のところ、ASD 児1は7問、ASD 児2は5問だった。

各課題の誤答のエラータイプ

定型発達幼児および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 道具使用課題の4種類の課題についてエラータイプ別の出現

数を集計した。

① 定型発達幼児

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分析ではどの課題でも 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					Other
				Spatial	Content	Temporal	BPT		
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	0
		SD	1.55	1.55	1.49	1.06	0.00	0.53	0.00
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	0
		SD	1.19	1.25	1.13	0.46	0.00	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	-	0
		SD	0.52	0.52	0.52	0.00	0.00	-	0.00
BPT=Body Part For Tool 重複も含む									

BPT=Body Part For Tool
底複も含む

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 評価バ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)⁹⁾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)⁹⁾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、人差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)¹³⁾, Boyatzis & Watson(1993)¹⁴⁾。本研究でも、見本の身振りが呈示される 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 評価バ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 を道具使用ありとなしに二分した。

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・道具使用課題より有意に正答数が高かった。その 1 つの要因として、発達の視点から、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、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、呈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 評価バッテリーの予備的検討～ASD 児 2 名について

ASD 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 児 2 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 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幼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 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 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)⁹⁾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)⁸⁾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¹⁵⁾、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、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)¹⁶⁾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きたい。

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 LJG, Ochipa C, Heilman KM: A cognitive neuropsychological model of limb praxis and apraxia. In *Apraxia: The neuropsychology of action*, by Rothi LJG, 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) Zoia 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 LJG, Raymer AM, Heilman KM: Limb praxis assessment. In *Apraxia: The neuropsychology of action*, by Rothi LJG, Heilman KM, Psychology Press, Hove, UK, 1997b

12) Power E, Code C, Croot 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.

Child Dev, 64, 729-735, 1993

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. *Neuropsychology*, 23, 563-570, 2009

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

薦 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 秩父学園 薦 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 ヶ月程度、物体操作能力で 2 年 5 か月以上、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供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かかわらず、運動がうまくできなかったり、模倣が苦手であったりといった問題が多く

みられると述べている。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も多いとされている。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を対象にした研究はきわめて少ない。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のであろうか。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 (第 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 項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、「止まったボールを打つ」、「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な指標である。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ていれば 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種目すべてから、CaseAの立ち幅跳びを除く全ての項目において標準値以下であった。対象児2名の結果について、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	5歳
		物体操作能力	18	5	5	3歳未満
		粗大運動率	79	8		
			素点	標準値	%タイル	年齢相当
CaseB	5歳5か月	移動能力	28	9	37	4歳9か月
		物体操作能力	16	4	2	3歳未満
		粗大運動率	79	8		

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
「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、課題を終えるごとにカードを外した。 ②得点板を用いて練習の回数を示した。	・見通しを持たせることで課題に集中して取り組むことが可能となった。
「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回って戻ってくる動きの理解ができず、コーンの手前でターンして戻った。	・「コーンを回る」ことが視覚的に分かりやすいよう、矢印を用いて床に折り返し地点を示した。	・「コーンを回って戻る」ことがスムーズにできるようになった。
「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、ボールを床へたたきつけるように投げる様子が見られた。	・1.7mのバーを投球ラインから1.5m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。
「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った。	・課題の後に楽しさや興味に応じた遊びを取り入れ、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、継続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に共通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、スケジュールをパターン化した上で、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、口頭での教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。「速く走る」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、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

Effectiveness of Using the Modified Checklist for Autism in Toddlers in Two-Stage Screening of Autism Spectrum Disorder at the 18-Month Health Check-Up in Japan

Yoko Kamio · Naoko Inada · Tomonori Koyama ·
Eiko Inokuchi · Kenji Tsuchiya · Miho Kuroda

© Springer Science+Business Media New York 2013

Abstract To determine whether the Modified Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT) in conjunction with the routine 18-month health check-up identifies Japanese toddlers with autism spectrum disorder (ASD). Two-stage screening using the M-CHAT was conducted with 1,851 children attending the check-up. Final ASD diagnosis was confirmed at age ≥ 3 years. Screening identified 20/51 children with ASD: 12/20 true positives were developmentally delayed, whereas 16/22 false negatives were high-functioning. Sensitivity was 0.476, specificity 0.986, positive predictive value 0.455, and likelihood ratio 33.4 for children with ASD. With a few modifications, M-CHAT screening successfully detected toddlers with ASD with and without developmental delay and is a promising

screening tool to complement existing community surveillance.

Keywords Autism spectrum disorder · Community-based surveillance · Early detection · Modified Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT) · Screening

Introduction

Autism spectrum disorders (ASDs) are lifelong developmental disorders and the earliest symptoms start to manifest overtly from the age of 1 year onwards. Since early educational intervention can optimize long-term prognosis (Kamio et al. 2013; Rogers and Vismara 2008), early detection and diagnosis are crucial. The American Academy of Pediatrics (AAP) recommends that in addition to broad developmental screening at 9, 18, and 24 months, all children receive autism-specific screening at 18 and 24 months of age, and it cautions against a “wait-and-see” approach for children with suspected ASD (Johnson and Myers 2007). Although many screening tools are available for children aged 18 months and older (Johnson and Myers 2007), several issues such as the optimal age for screening, general developmental surveillance versus standardized autism-specific screening, and barriers to standardized screening remain to be answered by a series of longitudinal studies (Barton et al. 2008; Charman et al. 2001). Moreover, most screening tools have been evaluated in clinical samples referred for specialized assessment (Allen et al. 2007; Eaves et al. 2006) or in a mixture of clinical and population-based samples (Robins et al. 2001); only a few have been examined in total population studies (Baird et al. 2000; Dietz et al. 2006; Pandey et al. 2008; Robins 2008). Also, parents who do not suspect their child to have ASD

Y. Kamio (✉) · N. Inada · T. Koyama · E. Inokuchi · M. Kuroda
Department of Child and Adolescent Mental Health, National
Institute of Mental Health, National Center of Neurology and
Psychiatry, 4-1-1 Ogawa-Higashi, Kodaira, Tokyo 187-8553,
Japan
e-mail: kamio@ncnp.go.jp
N. Inada
e-mail: nainada-ky@umin.ac.jp
T. Koyama
e-mail: tomok-ky@umin.ac.jp
E. Inokuchi
e-mail: eiko_i@osa.att.ne.jp
M. Kuroda
e-mail: prfm-krd@asahi-net.or.jp
K. Tsuchiya
Research Center for Child Mental Development, United
Graduate School of Child Development, School of Medicine,
Hamamatsu University, Hamamatsu, Japan
e-mail: tsuchiya@hama-med.ac.jp

may respond to the same screening questions differently from those who do suspect it, and the results of screening should be interpreted cautiously if screening tools are used outside the setting in which their psychometric properties are known to apply (Gray et al. 2008).

Among the autism screening tools available, the Checklist for Autism in Toddlers (CHAT) (Baron-Cohen et al. 1992) was the first. In a total population study (n = 16,235) with follow-up from age 18 months up to 7 years (Baird et al. 2000), two-stage CHAT screening of 18-month-old children identified 10 of 94 children with Pervasive Developmental Disorders (PDDs) using the high-risk threshold, showing a sensitivity of 0.106, a specificity of 1.00, and a positive predictive value (PPV) of 0.833. In another study, two-stage screening of 31,724 children aged 14–15 months using the Early Screening of Autistic Traits Questionnaire (ESAT) identified 18 children who were diagnosed with ASD at an average age of 23.3 months, giving a PPV of 0.25 (Dietz et al. 2006). The Modified Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT) was developed as a more sensitive alternative to the CHAT (Robins et al. 2001) and has been extensively validated (Chlebowski et al. 2013; Pandey et al. 2008; Robins 2008; Kleinman et al. 2008), although its psychometric properties confirmed through long-term follow-up were determined for a combined clinical and low-risk sample (Kleinman et al. 2008). Against this background, the present study evaluated the utility of M-CHAT screening for Japanese toddlers in primary health settings. We targeted children aged 18 months for practical reasons: all Japanese children have a regular general health check-up at 18 months of age, as stipulated by the Maternal and Child Health Act, and the attendance rate is over 90 % (Mothers' & Children's Health & Welfare Association 2007).

Methods

Catchment Area

The catchment area was the suburbs of Fukuoka City, one of the biggest cities in Japan. Its total population is 93,093 according to the 2003 administrative register. The 2000 national census shows that 74 % of the working population is employed in manufacturing with the remainder working in the commerce, service, agriculture, forestry, or fishery sectors.

Participants

From April 2004 to March 2007, 2,141 children (95.4 % of the 2,245 total population cohort) attended the routine 18-month health check-up at a local health center. Written informed consent to participate in this study was obtained

from the parents of 2,113 children (consent rate = 98.7 %). Exclusion of 262 children without any follow-up data after age 3 left 1,851 children (87.6 %) for the subsequent analyses (Table 1). The 262 children excluded and the remaining 1,851 children were not significantly different in terms of sex ratio, mean age at M-CHAT screening, or screening results.

Screening Tool

Children were screened using the Japanese version of the Modified Checklist for Autism in Toddlers (M-CHAT-JV). Its high mother-father and test–retest reliability as well as concurrent and discriminant validity for Japanese toddlers have been reported (Inada et al. 2011). The majority of the Japanese general population aged 18 months has been confirmed to manifest all of the preverbal social behaviors screened by the M-CHAT-JV (Inada et al. 2010).

Because the original M-CHAT was intended to target children aged 2 (Robins et al. 2001), we assumed that the threshold might miss some children aged 18 months in a non-selected population. A preliminary analysis of data from the first one hundred 18-month-old children showed that the total 3 criteria used in the original study (Robins et al. 2001) still worked to identify possible cases (n = 7), but the critical 2 criteria identified only one in 100 children and missed 6 of 7 possible cases. In light of this, we modified the original threshold by defining 10 items as our key item set (comprising the original 6 items and newly added items 6, 20, 21, and 23) and lowered the threshold for the first-stage screening by replacing the original first-stage threshold of “any 3 from the total 23 or any 2 from the critical set criteria” with “any 3 from the total 23 or any 1 from the critical set criteria”. For the second-stage screening, we adopted the original threshold, namely a total of 3 or any 2 from the critical set criteria.

Procedure: Screening and Follow-Up

1. *Screening using the M-CHAT* (Fig. 2) Our two-stage screening consisted at the first stage of administering the M-CHAT-JV at 18 months of age (any 3 from the total 23 or any 1 from the critical set criteria) and at the second stage of a follow-up telephone interview (FUI) at 19–20 months of age (any 3 from the total 23 or any 2 from the critical set criteria). The FUI followed a translated script with specific examples in which all failed items were reviewed with a parent in accordance with the original procedure (Robins et al. 2001). When reviewing the failed responses with the parents, trained interviewers did not use the term ‘fail’ and attempted not to cause anxiety or distress for the parents. They also offered feedback or advice when necessary. Parents were provided concrete examples of the target behaviors

Table 1 Characteristics of participants

	Participants classified as having ASD (n = 51) n (%), mean (SD), range	Total participants (n = 1851) n (%), mean (SD), range
Sex ratio, M : F	35 : 16	942 : 909
Age at M-CHAT-JV (months)	18.6 (0.6) 18–21	18.7 (0.6) 17–26
M-CHAT-JV total (failed items)	4.1 (3.2) 0–13	1.0 (1.4) 0–13
M-CHAT-JV critical 10 (failed items)	2.3 (2.2) 0–8	0.3 (0.9) 0–8
Number of evaluations	1.9 (0.8) 1–3	-
Age at final evaluation	50.6 (14.2) 33–73	-
IQ/DQ ^a	80.1 (26.7) 20–134	-
Developmental delay ^b	26 (51.0 %)	-
Participants diagnosed with ASD by the research team (n = 34)		
AD : other ASD, (boys)	16 (14) : 18 (11)	
No. of evaluations	2.3 (0.6) 1–3	
Age at final evaluation (months)	49.4 (11.5) 33–73	
CARS total scores	34.0 (4.7) 24.5–44.5	
ADI-R toddler total scores ^c	25.5 (7.5) 11–39	
ADOS (a) + (b) total scores ^d	13.4 (3.8) 9–23	
IQ/DQ	82.1 (28.1) 20–134	
≥85	17	
70–84	4	
50–69	8	
35–49	4	
<35	1	

AD autistic disorder, ADI-R the Autism Diagnostic Interview-Revised, ADOS the Autism Diagnostic Observation Schedule, ASD autism spectrum disorder, CARS the Childhood Autism Rating Scale, M-CHAT-JV the Japanese version of the Modified Checklist for Autism in Toddlers

^a 43 of 51 participants were assessed by standardized intellectual/developmental tests

^b In addition to the 43 participants with IQ/DQ data, 8 participants were clinically judged on the presence of developmental delay

^c 30 participants were evaluated using the ADI-R

^d 19 participants were evaluated using the ADOS

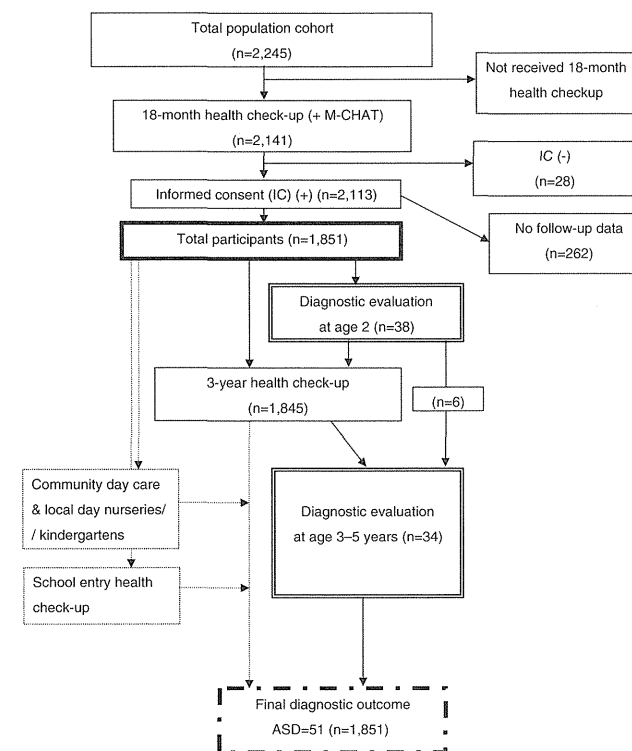
in order to help our judgment of their responses. If the child continued to fail the M-CHAT-JV after the FUI, the family was told that their child was not doing some things that were important for social communication at this age and an evaluation was recommended (Fig. 1).

2. **Diagnostic evaluation at age 2** Screen positives were invited for diagnostic evaluation at age 2. Evaluations were conducted by the research team consisting of child psychiatrists, licensed psychologists, and primary care nurses who were already familiar with the children with special needs. The evaluation instruments included the Japanese versions of the Childhood Autism Rating Scale (CARS) (Kurita et al. 1989; Schopler et al. 1988), the Autism Diagnostic Interview-Revised (ADI-R) (Tsuchiya et al. 2012; Lord et al. 2000), and the Autism Diagnostic Observation Schedule (ADOS) (Lord et al. 1994). Children who were evaluated at age 2 were invited for full evaluation at ages 3, 4, and 5, irrespective of the diagnosis at this age.

3. **Routine 3-year health check-up** Children at age 3 received a routine health check-up including pediatric examination and parental interview by primary care nurses. Parental interviews were conducted based on a checklist containing autism-specific items derived from the ADI-R. The items included in the checklist comprised 10 social domain items, 8 communication domain items, and 2 repetitive or restricted behavior items. Among the 20 items in total, 7 items were picked up from the conventional checklist used for the routine health check-up at age 3 and 13 items were modified from the ADI-R items and newly added.

The social domain items inquire about eye contact, facial expression, nodding as yes, interest in peers, attracting adults' attention, point following, showing as joint attention, play with mother, play with peers, and social reference. The communication domain items ask about imitating what mother does, pretend play by himself/

Fig. 1 Study design



herself, pretend play with others, saying only words, saying his/her name, speaking 2-word sentences, understanding what he/she is said, and using why or what questions. The repetitive or restricted behavior domain items ask about being upset when a routine is broken or when in new environment, and stereotyped movement.

In a pilot study of 39 consecutive children who received the 3-year health check-up, failing more than 3 social or communication items produced a sensitivity of 0.857 and a specificity of 0.400 (Kamio et al. unpublished). Therefore, in the present study, this threshold in combination with behavioral observation by the primary health professional was used to detect false negative children at age 3. Among 1,830 children whose item records had no missing data, 2.24 % (41/1,830) failed more than 3 items, suggesting that the second screening at age 3 may be helpful for detecting false negatives.

The 20-item autism-specific checklist used was created in order to follow up as many false negatives as we could at

age 3. That is, children who were suspected of having ASD at age 3 based on the parental interview using the checklist or on behavioral observation during the medical examination were invited, along with screen-positive children, for full follow-up evaluation including the CARS, ADI-R, or ADOS at ages 3, 4, and 5.

4. **Community day care and local day nurseries/kindergartens** More than 90 % of the participating children went to local day nurseries or kindergartens during preschoolerhood, and children with special needs were referred to community day care centers. The research team members (primary care nurses) regularly visited these centers to monitor, consult on, and obtain clinical information about the children with special needs during preschoolerhood.

5. **School entry health check-up** Children at age 5 received a health check-up before school entry. For children with developmental concerns, detailed

interviews were conducted with the children and parents using an interview-based instrument, the Pervasive Developmental Disorders Autism Society Japan Rating Scale (Ito et al. 2012), and an IQ assessment was conducted by our research team.

Because diagnostic judgments by experienced clinicians are considered to be the “gold standard” for autism diagnosis (Volkmar et al. 2005), final diagnosis was decided according to DSM-IV-TR (American Psychiatric Association 2000) on the basis of all available information obtained after age 3 by the research team. IQs/DQs were assessed by different measures depending on mental age, using the Tanaka-Binet Intelligence Scale V for children, the Enjoji’s Analytical Developmental Test under age 4, or the Japanese version of the Wechsler Intelligence Scale for Children-Third Edition (WISC-III) at age 5.

Clinical measures were compared by group with the use of ANOVA and the Bonferroni multiple comparison test. The proportion of boys versus girls, developmental delay versus high-functioning, and the presence/absence of the targeted problems were compared with use of the Chi square test. Statistical analysis was performed using SPSS software. The protocol of this study was approved by the Ethics Committee of the National Center of Neurology and Psychiatry. This study was performed in accordance with the ethical standards laid down in the 1964 Declaration of Helsinki and its later amendments.

Results

Throughout the screening and surveillance process of the 1,851 children, we identified 51 children with ASD: 20 screen positives, 22 screen negatives, and 9 non responders (i.e., children who needed FUI but were missed among the attrition group) (Figs. 1, 2). Thirty-four children were directly evaluated by the research team (minimum ASD). Sixteen were diagnosed with autistic disorder (AD). Table 1 outlines their demographic and diagnostic characteristics. In addition, 17 children were clinically judged by the research team to have ASD on the basis of available information, such as that from local clinicians, which brought the total number of children with ASD up to 51 (maximum ASD).

Prevalence rate was estimated to be 0.0184 (95 % confidence interval [CI] 0.0123–0.0245), and 0.0276 (95 % CI 0.0201–0.03501) for minimum and maximum ASD, respectively. The boy/girl ratio of 2.8 and 2.2 and proportion of developmental delay of 38.2 and 52.9 % in the 34 and 51 children with ASD, respectively, were in parallel with the latest reported figures (Kim et al. 2011), indicating the representativeness of this sample. Regarding AD, the prevalence rate was estimated as 0.0086 (95 % CI 0.0044–0.0129).

The sensitivity, specificity, PPV, and likelihood ratio (LR) for maximum ASD, minimum ASD, and AD through both the first-stage screening and the entire two-stage screening are shown in Table 2. Calculations for the two-stage screening including FUI were based on 1,727 children after excluding 124 FUI non-responders. Re-screening with FUI improved the specificity, PPV, and LR but reduced the sensitivity for maximum and minimum ASD and AD. Since probability is influenced by prevalence of the disorder studied, we calculated the posttest probability assuming that a prevalence rate of 2.5 % for all ASDs according to Bayes’ theorem, giving a posttest probability of 0.47 and 0.51 for maximum and minimum ASD, respectively. These figures mean that almost one in every two screen positives will subsequently be diagnosed with ASD.

Among 319 screen positives at the first stage who needed FUI, only 195 were followed (response rate 61 %). One-hundred twenty-four non-responders (NR) had a significantly lower mean total M-CHAT-JV score (mean 2.81 ± 1.85) than the 195 responders (mean 3.35 ± 2.15) ($t = 2.32$, $p < 0.05$) and included significantly more girls (50 vs. 37 %) ($\chi^2 = 2.32$, $p < 0.05$), while neither group differed significantly in regard to age at M-CHAT-JV, critical items, or the proportion of nonverbal children at 18 months of age. Of the 124 NR, 9 were identified as having ASD before they were evaluated by our research team, 5 of whom had sought professional help regarding language delay.

The true positives (TP, $n = 20$), false positives (FP, $n = 24$), false negatives (FN, $n = 22$), and true negatives (TN, $n = 1661$) were compared according to demographic and diagnostic characteristics (Table 3). Although TP had significantly higher M-CHAT-JV total and critical scores than FP, FN, and TN ($ps < 0.001$), TP could not be discriminated from FP or FN by either sex ratio, maternal age at childbirth, perinatal problems, mother’s feeling of difficulty with child rearing at 18 months, or mother’s concerns about the child’s emotional or behavioral difficulties at 3 years. A comparison between TP and FN revealed that CARS, ADI-R, and ADOS scores at 3 years or older did not significantly differ between TP and FN, but there were significantly more children with developmental delay among TP (60 vs. 27 %, $p < 0.05$). As for the 24 FP cases, mothers of 22 children reported finding child-rearing difficult on the routine 18-month health check-up questionnaire, and those of 12 children expressed some concern about their child’s emotional or behavioral difficulties on the routine 3-year health check-up questionnaire. Although there were not necessarily objective records available to support their reports at or above 3 years of age, one boy had a DQ of 61 at 2, and 3 boys were clinically judged as having mild developmental delay at the 3-year pediatric check-up. In addition, the research team evaluations

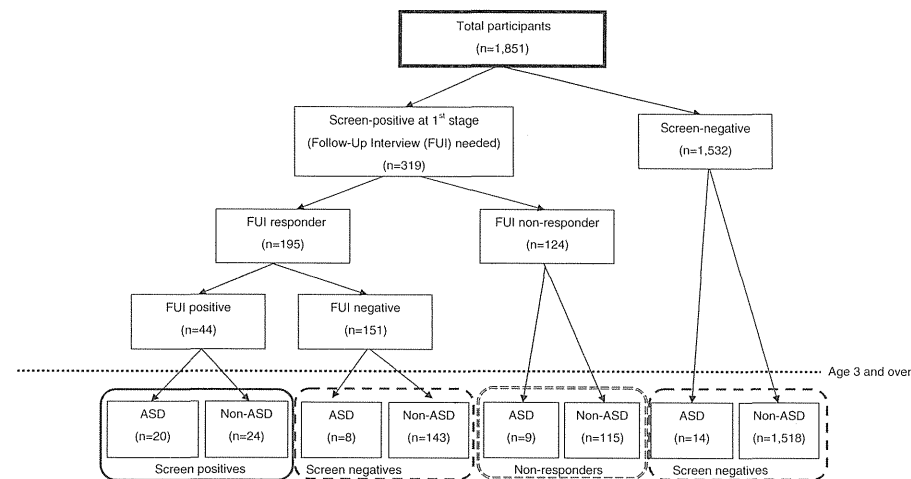


Fig. 2 Results of screening. Non-responders are children who needed a follow-up telephone interview but were missed among the attrition group

Table 2 Psychometric properties of the M-CHAT-JV screening

		Sensitivity 95 % CI	Specificity 95 % CI	PPV 95 % CI	Likelihood ratio 95 % CI
Maximum ASD	1st	0.725 (37/51)	0.843 (1,518/1,800)	0.116 (37/319)	4.631
		0.594–0.828	0.840–0.846	0.095–0.132	3.703–5.382
	1st + 2nd	0.476 (20/42)	0.986 (1,661/1,685)	0.455 (20/44)	33.433
Minimum ASD	1st	0.351–0.596	0.983–0.989	0.335–0.569	20.228–52.908
		0.765 (26/34)	0.839 (1,524/1,817)	0.082 (26/319)	4.742
	1st + 2nd	0.603–0.875	0.836–0.841	0.064–0.093	3.670–5.497
AD	1st	0.457–0.748	0.982–0.988	0.322–0.527	25.967–60.921
		0.625 (10/16)	0.832 (1,526/1,835)	0.031 (10/309)	3.712
	1st + 2nd	0.388–0.815	0.830–0.833	0.019–0.041	2.276–4.885
		0.500 (7/14)	0.978 (1,676/1,713)	0.159 (7/44)	23.149
		0.274–0.725	0.977–0.980	0.087–0.231	11.695–36.670

“Maximum ASD” referred to 51 children who were classified as autism spectrum disorder (ASD) based on available information

“Minimum ASD” referred to 34 children who were directly evaluated and diagnosed as ASD by the research team. “AD” referred to 16 children who were directly evaluated and diagnosed as autistic disorder by the research team

PPV positive predictive value

confirmed two subthreshold ASD cases: one girl was diagnosed with ASD at both age 2 (IQ 68) and 3 (IQ 89), but at age 4 (IQ 123) the symptoms no longer met the diagnostic criteria. Another boy was a floppy infant with autistic features at age 2, and subsequently motor developmental delay became apparent with reduced autistic symptoms.

Discussion

This study aimed to examine prospectively the utility of an autism-specific screening in conjunction with community developmental surveillance for a non-selected Japanese population. Two-stage screening with the M-CHAT-JV identified 20 of 51 children with ASD across all intellectual

Table 3 Comparison of demographic and diagnostic characteristics: true positive, false positive, false negative, and true negative

	True positive		False positive		False negative		True negative		F	χ^2	p
	n	M (SD)	n	M (SD)	n	M (SD)	n	M (SD)			
Sex ratio (M : F)	20	14 : 6	24	16 : 8	22	15 : 7	1,661	835 : 826		8.2	<0.05
Age at M-CHAT-JV (months)	20	18.6 (0.5)	24	18.5 (0.5)	22	18.7 (0.7)	1,661	18.7 (0.6)	0.5	0.1	>0.05 ^a
M-CHAT-JV total	20	6.3 (3.0)	24	4.5 (2.0)	22	1.7 (1.6)	1,661	0.8 (1.0)	238.0		>0.05
M-CHAT-JV critical10	20	3.5 (2.1)	24	2.5 (1.2)	22	0.8 (1.2)	1,661	0.1 (0.5)	322.0		<0.001
Gestational age (weeks)	18	38.2 (2.1)	23	39.0 (1.7)	22	39.1 (1.4)	1,604	39.0 (1.6)	1.7		>0.05
Birth weight (g)	18	2949.5 (517.7)	23	3130.3 (389.5)	22	3029.6 (425.2)	1,647	3049.3 (419.4)	0.9		>0.05
Maternal age at childbirth	20	30.2 (5.1)	24	30.8 (4.6)	22	32.8 (4.1)	1,653	30.1 (4.7)	1.8		>0.05
Perinatal problems (present: absent)	19	4 : 15	24	6 : 18	22	6 : 14	1,597	426 : 1171		0.5	>0.05
Mother's feeling of difficulty with child-rearing at 18 months (present: absent)	20	19 : 1	23	22 : 1	22	21 : 1	1,659	1633 : 26		3.5	>0.05
Mother's concerns about the child's emotional or behavioral difficulties at 3 years (present: absent)	14	8 : 6	20	12 : 8	22	7 : 15	1,646	1120 : 526		14.2	<0.001
CARS total	20	34.2 (5.7)	10	23.7 (5.1)	12	32.8 (4.0)	4	26.4 (1.9)	14.5		<0.001 ^b
ADI-R toddler total	17	26.9 (9.0)	6	16.5 (7.1)	12	23.0 (4.9)	4	15.5 (9.8)	4.3		<0.05 ^b
ADOS (a) + (b) total	9	13.7 (3.7)	2	1.0 (0.0)	10	12.7 (3.9)	3	6.7 (3.8)	9.9		<0.01 ^b
IQ/DQ	20	73.3 (27.7)	11	91.1 (15.6)	18	88.3 (26.0)	5	78.2 (6.7)	0.9		>0.05
≥85	6		8		11						
70–84	2		2		3		4				
50–69	9		1		1		0				
35–49	2		0		3		0				
<35	1		0		0		0				
Developmental delay (%)	12/20 (60 %)		4/24 (17 %)		6/22 (27 %)					8.9	<0.005
										4.6	<0.05

^a Three groups of TP, FN, and FP were compared using the Chi square test

^b Three groups of TP, FN, and FP were compared using ANOVA

functioning levels. This indicates that the autism-specific screening at 18 months of age in primary health settings is feasible and useful when combined with community-based surveillance for preschoolers.

The controversial issue regarding the age of screening was partly answered in this study. Our findings indicate that the age of 18 months can be applied with acceptable predictive values, better than those in the earlier pioneering work (Baird et al. 2000). A possible explanation for why the M-CHAT-JV screening could identify children with ASD at this age is that the M-CHAT items might represent age-specific social development such as joint attention and pretend play that few typically developing children lack at 18 months (Inada et al. 2010; Oosterling et al. 2010), and that it could detect nonverbal social maldevelopment even in children with high-functioning ASD (HFASD). In the present study, only 30 % of 20 detected children with ASD had IQ at or above 85 and the 60 % had IQ/DQ below 70 (see Table 3). We found that the proportion of children with IQ/DQ below 70 was significantly greater among true-positive children than false-negative children, although the severity of autistic symptoms assessed by the CARS, ADI-R, or ADOS at 3 years did not differ between them. This finding suggests that the parent-report M-CHAT-JV screening measure at 18 months was more sensitive to low-functioning ASD than to high-functioning ASD, similar to earlier studies with unselected/low-risk children (Pandey et al. 2008; Kleinman et al. 2008; Baron-Cohen et al. 1996) in which detected children were mainly developmentally retarded. If the reduced sensitivity to high-functioning ASD is partly due to a lack of parental awareness, in addition to the parent-report M-CHAT-JV questionnaire, it could be possible to improve sensitivity by direct observation of some of its items by primary health nurses. In order to examine this hypothesis, a prospective study is currently underway to compare the sensitivity of the parent-report M-CHAT alone with that of the M-CHAT plus direct observation.

We recognize that we could not evaluate all screen-positive children directly, but we did instead clinically judge children who were not directly evaluated based on the information available from community surveillance. Since early detection of ASD should be economically balanced with existing surveillance procedures (Charman et al. 2002), in the absence of any better alternative screen, we recommend enhancing community developmental surveillance by supplementing it with the M-CHAT screen-rescreen procedure. Although a one-point screening model may be cost-effective, we conclude that a comprehensive model comprising repetitive screening and subsequent community surveillance will be more appropriate, considering the various developmental trajectories of children with ASD (Fernell et al. 2010; Robins et al. 2001). An

advantage of the time lag associated with the screen-rescreen procedure might be that it gives parents time to pay attention to their child's ongoing social development. To answer definitively the issue about the optimal age of screening, more empirical studies are needed and the merits and demerits for each screening procedure should be determined based on long-term follow-up data.

Our results indicated that there were at least twice as many children with HFASD missed (n = 8) as those detected (n = 16) at screening, which is consistent with Kleinman et al. (2008). In general, parents seem to be unaware of reduced social development in their child with HFASD. However, there is the possibility that these missed children show a different developmental trajectory in the very early years from that of the detected children.

Many clinicians will likely be concerned at the high screen-positive rate at the first stage of screening (17 %) because parents of children who were incorrectly suspected of having ASD might suffer unnecessary distress. This high rate might be related to the high attrition rate of 39 % (124/319) between the two stages. Since we could not systematically investigate the attrition group (the non-responders), details of the referral pattern for children with ASD who were screen positive at the first stage but who were later missed are not clear in this study. If we raise the first-stage screening threshold to approach the original one (any 3 from the total 23 or any 2 from the critical set criteria), this reduces screen positive cases (n = 39), and as a result slightly increases the PPV from 0.455 up to 0.462 (18/39) but also reduces the sensitivity from 0.476 up to 0.439. Closer inspection reveals that mothers of the majority of the false-positive children actually had been concerned about their child-rearing by age 3, and through evaluations, several children were confirmed to have problems in either cognitive, language, social, or motor domains even though the symptoms did not meet the diagnostic criteria for ASD. These findings could suggest that the false-positive cases in our study might have neurodevelopmental symptoms that extend beyond those of ASD, which are in common with those seen in many children referred to clinics (Gillberg 2010). Following this thought further, the M-CHAT screening at 18 months may be sensitive to children with mild but overlapping neurodevelopmental problems in multiple domains to some degree. This issue should be investigated in future studies using a comprehensive neurodevelopmental assessment tool.

Two major limitations exist in the current study. First, although efforts were made in cooperation with local day nurseries and clinicians to identify missed screen-positive and ASD-suspected screen-negative cases, the attrition rate was high and community-based developmental surveillance was not then sufficient in itself to monitor all children. The final diagnosis of 17 ASD cases was made based on such

indirect information. There is also the possibility that we missed a subset of children with ASD, particularly those with milder autistic symptoms, average intelligence, or girls, for whom diagnosis of ASD tends to be delayed (Mandell et al. 2005; Shattuck et al. 2009). As a result, the sensitivity and specificity of the M-CHAT-JV that we calculated based on these results can only be considered estimates of their upper bounds. Second, although various standardized instruments were used for case ascertainment of strictly defined ASD cases, the most standard ones such as the ADOS and ADI-R were not available in Japan at the beginning of this study. The total prevalence rate in our study is similar to the latest figure available from a study using strict scientific methodology (Charman et al. 2002), which indicates the quality of case ascertainment in our study.

In summary, two-stage autism-specific screening using the M-CHAT with some modification of the threshold could effectively identify Japanese children with ASD, even HFASD. We would like to emphasize that not only screening but also continual community-based developmental surveillance is necessary for detecting children with ASD. Such enhancement of multidisciplinary community assessment should result in promoting the development of children with ASD and improve their quality of life (Kamio et al. 2013).

Acknowledgments This work was funded by RISTEX (Japan Science and Technology Agency) of Japan. We would like to thank Drs. Deborah Fein and Diana Robins for their invaluable advice on this project and comments about the findings, and Dr. Hisateru Tachimori for statistical advice. The contents of this paper were presented at the "Exploring Autism Research Collaboration between Japan and United States Joint Academic Conference on Autism Spectrum Disorders" held in Tokyo, Japan, December 1–3, 2011.

Conflict of interest The authors declare that they have no conflict of interest with respect to this article.

References

- Allen, C. W., Silove, N., Williams, K., & Hutchins, P. (2007). Validity of the social communication questionnaire in assessing risk of autism in preschool children with developmental problems. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 37, 1272–1278.
- American Psychiatric Association (2000) *Diagnostic and statistical manual of mental disorders*. 4th ed., text revision. (DSM-IV-TR). Washington, DC: American Psychiatric Association.
- Baird, G., Charman, T., Baron-Cohen, S., Cox, A., Swettenham, J., Wheelwright, S., et al. (2000). A screening instrument for autism at 18 months of age: A 6-year follow-up study. *Journal of American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 39, 694–702.
- Baron-Cohen, S., Allen, J., & Gillberg, C. (1992). Can autism be detected at 18 months? The needle, the haystack, and the CHAT. *The British Journal of Psychiatry*, 161, 839–843.

- Baron-Cohen, S., Cox, A., Baird, G., Swettenham, J., Nightingale, N., Morgan, K., et al. (1996). Psychological markers in the detection of autism in infancy in a large population. *The British Journal of Psychiatry*, 168, 158–163.
- Barton, M., Chlebowski, C., & Fein, D. (2008). Screening for autism spectrum disorders in young children: A review. *Seishin Hoken Kenkyu (Journal of Mental Health)*, 54, 7–28.
- Charman, T., Baron-Cohen, S., Baird, G., Cox, A., Swettenham, J., Wheelwright, S., et al. (2002). Is 18 months too early for the CHAT? *Journal of American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 41, 235–236.
- Charman, T., Baron-Cohen, S., Baird, G., Cox, A., Wheelwright, S., Swettenham, J., et al. (2001). Commentary: The modified checklist for autism in toddlers. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31, 145–148.
- Chlebowski, C., Robins, D. L., Barton, M. L., & Fein, D. (2013). Large-scale use of the modified checklist for autism in low-risk toddlers. *Pediatrics*, 131, e1121–e1127. doi:10.1542/peds.2012-1525.
- Dietz, C., Swinkels, S., van Daalen, E., van Engeland, H., & Buitelaar, J. K. (2006). Screening for autistic spectrum disorder in children aged 14–15 months. II: Population screening with the early screening of autistic traits questionnaire (ESAT). Design and general findings. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 36, 713–722.
- Eaves, L. C., Wingert, H., & Ho, H. H. (2006). Screening for autism: Agreement with diagnosis. *Autism*, 10, 229–242.
- Fernell, E., Hedvall, A., Norrøgen, F., Eriksson, M., Höglund-Carlsson, L., Barnevik-Olsson, M., et al. (2010). Developmental profiles in preschool children with autism spectrum disorders referred for intervention. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 790–799.
- Gillberg, C. (2010). The ESSENCE in child psychiatry: Early symptomatic syndromes eliciting neurodevelopmental clinical examinations. *Research in Developmental Disabilities*, 31, 1543–1551.
- Gray, K. M., Tonge, B. J., Sweeney, D. J., & Einfeld, S. L. (2008). Screening for autism in young children with developmental delay: An evaluation of the developmental behaviour checklist: Early screen. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1003–1010.
- Inada, N., Kamio, Y., & Koyama, T. (2010). Developmental chronology of preverbal social behaviors in infancy using the M-CHAT: Baseline for early detection of atypical social development. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 4, 605–611.
- Inada, N., Koyama, T., Inokuchi, E., Kuroda, M., & Kamio, Y. (2011). Reliability and validity of the Japanese version of the modified checklist for autism in toddlers (M-CHAT). *Research in Autism Spectrum Disorders*, 5, 330–336.
- Ito, H., Tani, I., Yukihiro, R., Adachi, J., Hara, K., Ogasawara, M., et al. (2012). Validation of an interview-based rating scale developed in Japan for pervasive developmental disorders. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 6, 1265–1272.
- Johnson, C. P., & Myers, S. M. (2007). Identification and evaluation of children with autism spectrum disorders. *Pediatrics*, 120, 1183–1215.
- Kamio, Y., Inada, N., & Koyama, T. (2013). A nationwide survey on quality of life and associated factors of adults with high-functioning autism spectrum disorders. *Autism*, 17, 16–27.
- Kim, Y. S., Leventhal, B. L., Koh, Y. J., Fombonne, E., Laska, E., Lim, E. C., et al. (2011). Prevalence of autism spectrum disorders in a total population sample. *The American Journal of Psychiatry*, 168, 904–912.
- Kleinman, J. M., Robins, D. L., Ventola, P. E., Pandey, J., Boorstein, H. C., Esser, E. L., et al. (2008). The modified checklist for

- autism in toddlers: A follow-up study investigating the early detection of autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 827–839.
- Kurita, H., Miyake, Y., & Katsuno, K. (1989). Reliability and validity of the childhood autism rating scale-Tokyo version (CARS-TV). *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 19, 389–396.
- Lord, C., Risi, S., Lambrecht, L., Cook, E. H., Jr, Leventhal, B. L., DiLavore, P. C., et al. (2000). The autism diagnostic observation schedule-generic: A standard measure of social and communication deficits associated with the spectrum of autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 30, 205–223.
- Lord, C., Rutter, M., & Le Couteur, A. (1994). Autism diagnostic interview-revised: A revised version of a diagnostic interview for caregivers of individuals with possible pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 24, 659–685.
- Mandell, D. S., Novak, M. M., & Zubritsky, C. D. (2005). Factors associated with age of diagnosis among children with autism spectrum. *Pediatrics*, 116, 1480–1486.
- Mothers' & Children's Health & Welfare Association. (2007) *Maternal and child health statistics of Japan (in Japanese)*. Tokyo.
- Oosterling, I. J., Wensing, M., Swinkels, S. H., van der Gaag, R. J., Visser, J. C., Woudenberg, T., et al. (2010). Advancing early detection of autism spectrum disorder by applying an integrated two-stage screening approach. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 51, 250–258.
- Pandey, J., Verbalis, A., Robins, D. L., Boorstein, H., Klin, A. M., Babitz, T., et al. (2008). Screening for autism in older and

- younger toddlers with the modified checklist for autism in toddlers. *Autism*, 12, 513–535.
- Robins, D. L. (2008). Screening for autism spectrum disorders in primary care settings. *Autism*, 12, 537–556.
- Robins, D. L., Fein, D., Barton, M. L., & Green, J. A. (2001). The modified checklist for autism in toddlers: An initial study investigating the early detection of autism and pervasive developmental disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 31, 131–144.
- Rogers, S. J., & Vismara, L. A. (2008). Evidence-based comprehensive treatments for early autism. *Journal of Clinical Child and Adolescent Psychology*, 37, 8–38.
- Schopler, E., Reichler, R. J., & Renner, B. R. (1988). *The childhood autism rating scale (CARS)*. Los Angeles: Western Psychological Services.
- Shattuck, P. T., Durkin, M. D., Maenner, M., Newschaffer, C., Mandell, D. S., Wiggins, L., et al. (2009). The timing of identification among children with an autism spectrum disorder: Findings from a population-based surveillance study. *Journal of American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 48, 474–483.
- Tsuchiya, K. J., Matsumoto, K., Yagi, A., Inada, N., Kuroda, M., Inokuchi, E., et al. (2012). Reliability and validity of autism diagnostic interview-revised, Japanese version. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, .doi:10.1007/s10803-012-1606-9.
- Volkmar, F., Chawarska, K., & Klin, A. (2005). Autism in infancy and early childhood. *Annual Review of Psychology*, 56, 315–336.



RESEARCH

Open Access

Normative data and psychometric properties of the strengths and difficulties questionnaire among Japanese school-aged children

Aiko Moriwaki and Yoko Kamio*

Abstract

Background: Although child mental health problems are among the most important worldwide issues, development of culturally acceptable mental health services to serve the clinical needs of children and their families is especially lacking in regions outside Europe and North America. The Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ), which was developed in the United Kingdom and is now one of the most widely used measurement tools for screening child psychiatric symptoms, has been translated into Japanese, but culturally calibrated norms for Japanese schoolchildren have yet to be established. To this end, we examined the applicability of the Japanese versions of the parent and teacher SDQs by establishing norms and extending validation of its psychometric properties to a large nationwide sample, as well as to a smaller clinical sample.

Methods: The Japanese versions of the SDQ were completed by parents and teachers of schoolchildren aged 7 to 15 years attending mainstream classes in primary or secondary schools in Japan. Data were analyzed to describe the population distribution and gender/age effects by informant, cut-off scores according to banding, factor structure, cross-scale correlations, and internal consistency for 24,519 parent ratings and 7,977 teacher ratings from a large nationwide sample. Inter-rater and test-retest reliabilities and convergent and divergent validities were confirmed for a smaller validation sample (total $n = 128$) consisting of a clinical sample with any mental disorder and community children without any diagnoses.

Results: Means, standard deviations, and banding of normative data for this Japanese child population were obtained. Gender/age effects were significant for both parent and teacher ratings. The original five-factor structure was replicated, and strong cross-scale correlations and internal reliability were shown across all SDQ subscales for this population. Inter-rater agreement was satisfactory, test-retest reliability was excellent, and convergent and divergent validities were satisfactory for the validation sample, with some differences between informants.

Conclusions: This study provides evidence that the Japanese version of the SDQ is a useful instrument for parents and teachers as well as for research purposes. Our findings also emphasize the importance of establishing culturally calibrated norms and boundaries for the instrument's use.

Keywords: Child mental health, Questionnaire, Reliability, Validity, Normative banding, Strengths and difficulties questionnaire

Background

Mental health problems affect 10-20% of children and adolescents worldwide [1], and substantial evidence indicates continuity in psychopathology from childhood into adulthood [2-4]. Despite heightened public concern in Japan for childhood mental health problems [5-7], many of these children remain unidentified and have no access to professional support due to various barriers including an insufficient specialized community health service system and parents or school teachers having inadequate knowledge of and stigma against child mental health problems. Recognizing this urgency, the Japanese Ministry of Health, Labour and Welfare has provided basic training opportunities for primary health professionals and promoted multidisciplinary work in the community since 2008. In addition, in 2009, the Ministry of Education, Culture, Sports, Science and Technology revised the School Health Act to strengthen the role that school personnel play in the early identification of children with mental health problems.

To support such initiatives, we need to develop reliable and valid measurement tools of psychopathological symptoms in Japanese children. At present, among the various questionnaires available for measuring mental health problems in children and adolescents, the Child Behavioral Checklist (CBCL) [8] has long been viewed as the "gold standard" because of its comprehensive nature. Although the CBCL is a solid instrument for conducting in-depth assessment, the 25-item Strengths and Difficulties Questionnaire (SDQ) [9] may be more suitable for screening purposes. The SDQ was created by Goodman by adding items on concentration, peer relations, and social competence to the established Rutter questionnaires. Because the SDQ measures not only behavioral problems but also the strengths of children and adolescents aged 4-16 years [10], parents and teachers can easily complete it. Furthermore, authorized translations of the SDQ are available free of charge [11]; <http://www.sdqinfo.com>. Due to its ease of use, the SDQ has now been translated into more than 75 languages and extensively validated in clinical and community samples [12-25]. These prior studies revealed that population-specific SDQ norms vary widely across countries.

To the best of our knowledge, only one study has examined the Japanese version of the SDQ. That study analyzed parent ratings in a community sample of 2,899 children aged 4-12 years [18] and found a gender effect on parent ratings, showed cut-off scores according to score banding, and confirmed its five-factor structure and satisfactory internal consistencies. However, given the value of having multiple informants reporting on children's mental health problems especially for psychological assessment [26,27], we must examine whether its psychometric properties differ by rater. Also, to evaluate

clinical usefulness, we need to examine it in a psychiatric clinical population as well as in a community population. The urgency to enhance school mental health care necessitates establishing culturally calibrated norms for Japanese schoolchildren based on a nationwide sample rather than on data from a restricted local area. Therefore, this study examined the applicability of the Japanese version of the SDQs for parents and teachers by establishing norms and cut-offs according to bandings and extending validation of its psychometric properties to a large, nationwide, and representative sample as well as a smaller clinical sample.

Methods

This cross-sectional epidemiological study investigated the score distribution with gender and age effects, factor structure, reliability, and validity of the Japanese versions of the parent and teacher SDQs.

Participants and data collection

Participants comprised a large-sized sample recruited from primary and secondary schools (normative sample) and a small-sized sample (validation sample) that was locally recruited. The schools were recruited countrywide with assistance from the Japanese Ministry of Education, Culture, Sports, Science, Technology and local government boards of education. We did not include private schools, national schools, or schools for handicapped children. Data were collected between December 2009 and March 2010 at the end of the Japanese school year to ensure that teachers knew their students well.

Normative sample

The parent SDQ to be completed at home was distributed to all parents of schoolchildren (aged 7-15 years) attending mainstream classes in 148 primary schools and 71 secondary schools in the 10 geographical areas making up Japan, with a letter from the investigators and school principals informing them about the study. From the parents of 87,548 children, 25,779 returned questionnaires to the investigators (29.4% response rate). Among these schools, 142 primary schools and 69 secondary schools (2,769 classes) agreed to participate in the teacher rating portion of the study. First, parents were informed about the study with a letter from the investigators and school principals. Second, among schoolchildren whose parents gave written consent, classroom teachers chose 4 children (2 boys, 2 girls) per class using a predetermined rule. In classes where less than 4 parents gave consent, teachers were asked to complete the questionnaire for all children whose parents who consented. We received 8,272 questionnaires rated by 2,183 teachers (78.8% response rate; 2,183/2,769). Among all questionnaires returned, we excluded 1,260 parent

* Correspondence: kamio@ncnp.go.jp
Department of Child and Adolescent Mental Health, National Institute of Mental Health, National Center of Neurology and Psychiatry, 4-1-1 Ogawa-Higashi, Kodaira, Tokyo 187-8553, Japan



© 2014 Moriwaki and Kamio; licensee BioMed Central Ltd. This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License (<http://creativecommons.org/licenses/by/2.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.