

厚生労働科学研究委託費  
障害者対策総合研究事業  
障害者対策総合研究開発事業（身体・知的等障害分野）  
委託業務成果報告（業務項目）

自閉症の早期療育プログラムについてのメタアナリシスによる検討

担当責任者

立花良之 国立成育医療研究センターこころの診療部  
乳幼児メンタルヘルス診療科 医長

研究協力者

小林絵理子（国立成育医療研究センターこころの診療部  
乳幼児メンタルヘルス診療科 臨床研究員）

寺坂明子（国立成育医療研究センターこころの診療部  
乳幼児メンタルヘルス診療科 臨床研究員）

黄淵熙（東北福祉大学子ども科学部子ども教育学科講師 講師）

宮崎セリーヌ（国立成育医療研究センター研究所 成育政策科学研究部 研究員）

太田えりか（国立成育医療研究センター 成育政策科学研究部 室長）

森臨太郎（国立成育医療研究センター成育政策科学研究部 部長）

Jonathan Green（英国 Manchester 大学医学部児童精神科 教授）

**研究要旨** 自閉症は就学前の早期に適切な療育を受けると、認知機能が向上し予後が改善するとされている。これまで数多くの早期療育プログラムが開発・実践されているが、どの療育プログラムを選択すべきかについては、明らかなエビデンスがない。本研究では、数ある自閉症の早期療育プログラムを、Howlin による 3 つのモデル（応用行動分析モデル（Behavior model） コミュニケーションに焦点を当てたモデル（Communication-focused model） 多面的発達モデル（Multimodal developmental model））に分類した。メタアナリシスの手法を用いて、3 つのモデルの間で IQ、表出性言語への効果に違いがあるか、介入プログラム全体のデータを統合した場合に IQ、表出性言語に違いがあるかを検証した。その結果、3 つのモデル間では効果に差はなかったが、自閉症の早期療育を行うと、IQ、表出性言語を向上させる効果があることが明らかとなった。本研究の結果より、自閉症の早期療育プログラムを臨床現場や公共サービスで積極的に行うべきであると考えられる。

A. 研究目的

自閉症は就学前の早期に適切な療育を受けると、認知機能が向上したり、不適応な行動が減ったり、自閉症の重症度が下がり、さらには予後が改善するとされている[1]。これまで数多くの早期療育プログラムが開発・実践されているが、どの療育プログラムを選択すべきかについては、明らかなエビデンスがない。Howlin は数ある自閉症の

療育プログラムを 応用行動分析モデル（Behavior model） コミュニケーションに焦点を当てたモデル（Communication-focused model） 多面的発達モデル（Multimodal developmental model）

の 3 つのタイプに分類した[2]。

本研究において下記の 2 つの仮説を立てた。1) これまでの自閉症の介入プログラム

はIQや言語を伸ばす。2)上記の3つのモデル間に、IQ,表出性言語への効果に差がある。

本研究の目的は、これまで行われた自閉症早期療育プログラムの無作為化比較対照試験(RCT)について、Howlinの3つのモデルに分類し、メタアナリシスの手法を用い、モデルごとおよびすべての介入プログラムを統合して、上記仮説を検証することとした。

## B. 研究方法

自閉症児の早期療育の効果について無作為化比較対象試験(Randomized Controlled Trial: RCT)を行った研究を対象とした。

メタアナリシスに含まれる対象論文は、就学前(0-6歳)の自閉症スペクトラム(ASD)の児童(DSM-IV-TRによる診断基準が自閉症、アスペルガー、広汎性発達障害; ICD-10による診断基準では、子ども時代の自閉症、アスペルガーシンドローム、非典型自閉症、他の広汎性発達障害、特定されない広汎性発達障害が含まれる)と診断されているものに絞った。

就学前の自閉症の児を対象にした介入は3種類に分けた:(1)行動に焦点をあてたモデル(学習理論とABA(応用行動分析)に基づいたもの)(2)コミュニケーションに焦点をあてたモデル(自閉症の主要症状として社会的コミュニケーションの障害をターゲットとしたもの)(3)多面的発達モデル(子どもの発達の様々な側面をターゲットとしたもの)。

RCTで使われているアウトカムについてIQと表出性言語に対する介入プログラムの効果を検証した。

文献の電子検索は国立成育医療研究センター内のコクラン共同計画日本支部の図書館司書が行った。

PsychINFO, Medline, ERIC, Cochrane Database, EMBASE, CINHALL を以下のキーワードで検索した: "autism" "Pervasive Developmental Disorder" "ASD"

"Aspergers syndrome" "Asperger"  
"PDD NOS" "intervention"  
"treatment" "therapy"  
"communication" "interpersonal"  
"speech" "interaction"  
"relationship" "social" "behavior"  
"behavior analysis" "behavior  
modification" "behavior therapy"  
"modification" "ABA" "preschool  
students" "preschool" "infant"  
"baby" "babies" "toddler"  
"kindergarten" "nursery schools"  
"treatment effectiveness evaluation"  
"psychotherapeutic outcome"  
"comparative studies" "randomized  
controlled trials"。

文献の抄録のスクリーニングと該当しそうな文献のフルテキストのレビューは小林が行い、レビューされた文献は、立花とのディスカッションのなかで、選択が決定された。文献の選択は、以下の含有基準、除外基準に基づいて決定された。

含有基準:(1)ASDあるいは広汎性発達障害の診断がついているプリスクールの児である、(2)RCTである、(3)介入を行うものは、両親や保護者、教師、特別支援士、言語療法士、心理士や他の医療関係の学生もふくめる(4)就学前の年齢で少なくとも0-6歳の間であること。

除外基準:(1)ASDと診断された就学前の児を対象としていない(2)認知や行動の介入を評価した研究ではない(3)RCTではない(4)主な介入として代替医療が行われた(5)投薬治療である(6)行動に焦点をあてたモデル、コミュニケーションに焦点をあてたモデル、多面的発達モデルのいずれのモデルにも属さない介入である(7)対照群の児が、地域で通常提供されているような治療ではない特定の早

期介入プログラムを受けていた(8) The Cochran Collaboration が提供している Risk of bias tool で、ハイリスクと判断された研究

Risk of bias は、The Cochrane Collaboration のハンドブック[3]に基づき、5人の著者(立花、黄、小林、宮崎、寺坂)が分担して行い、不一致の場合には、立花と小林のディスカッションで同意に達した。Risk of bias には以下が含まれる: わりつけの欠如、わりつけの隠ぺいの欠如、盲検化、不完全なアウトカムデータ、選択的アウトカムの報告、ほかのバイアス。このようなバイアスについて、個々の研究から該当する情報を記入したうえで(例: わりつけの隠ぺい方法を詳細にわたって記す、など) Risk of bias を評価した。Risk of bias は、判断結果によって3つのカテゴリ(1) Risk of bias の低いもの (2) Risk of bias が不明なもの (3) Risk of bias の高いもの に分けられた。この Risk of bias の分析結果に基づき、メタ分析に含む研究が決定された。

アウトカムの平均値と SD などメタ分析に必要な数字は著者に連絡し、返事がかえってきたもの、情報が入手できたもののみをインプットし、メタ分析に含めることとした。

メタアナリシスは、Review Manager V 5.1. (Cochrane Collaboration software) を使って行われた。

### C. 結果

メタアナリシスの対象となる論文の選択の結果を図1に示す。

対象となった研究の Risk of bias の結果を図2に示す。

IQ、表出性言語についてのメタアナリシスの結果を図3.1、図3.2に示す。

IQ については、3つのモデル間に差はなく( $p=0.52$ )、効果量は 0.32(95% 信頼区間: 0.07-0.56)であった。

表出性言語については、3つのモデルに差はなく( $p=0.86$ )、効果量は 0.16(95% 信頼区間: 0.00-0.33)であった。

### D. 考察

本研究では、応用行動分析モデル(Behavior model)、コミュニケーションに焦点を当てたモデル

(Communication-focused model)、多面的発達モデル(Multimodal developmental model)とも、IQ・言語能力に効果を持つことが明らかになった。従来効果が実証され医療・教育・福祉政策でも一部の国や地域で取り入れられている ABA と、近年新たな潮流となっている、コミュニケーションに焦点を当てたプログラム、多面的発達モデルとの比較を行い、介入のタイプに抛らず、本研究のどのタイプも一定の効果があることが明らかとなった。本研究での3つのタイプについての効果の比較においては、仮説に反して差は見られなかった。

自閉症介入研究について、無作為化比較対照試験のみでメタアナリシスを行っており、エビデンスレベルは高い。

この数年、無作為化比較対照試験が急増したため、これまで行われてきた先行研究のメタアナリシスに比べ、多くの研究を含めてメタアナリシスを行うことができた。

本研究では、3つのタイプにモデルを分けたが、3つのモデルの内容には一部重なるところがあり、厳密に3つにわかれるわけではない。たとえば、Kasari らの見立て遊びや模倣遊びの介入研究[4]は communication-focused model として分類したが、他のモデルでも見立て遊びや模倣遊びは含まれる。どのモデルも、行動療法が基本になっており、ABA のエッセンスが含まれているといえる。研究によってア

ウトカムは様々であり、メタアナリシスを行った全てのアウトカムで3つのタイプの比較をできているわけではない。

今回、介入後データのみで解析したが、ベースラインで大きな差があるものもある。また、研究の行われた地域によって、対照群が受けている介入に大きな差がある。介入群のほうがより濃厚な支援を地域で受けた研究があり、今回は解析の対象外とした[5]。

#### これまでのメタアナリシス研究との比較

これまでの自閉症介入研究のメタアナリシスでは、

- ・ABA についてみたもの[6]
- ・親を療育者としたプログラム[7]
- ・「心の理論」関連のプログラム[8]

であった。

今回の研究では、幅広いタイプのプログラムを包括的に比較対照し、さらに3つのタイプを統合して効果を検証している。

#### 本研究の臨床上・政策上の意義

本研究の結果より、自閉症の早期療育が社会生活上重要な認知機能(IQ、言語能力)を伸ばし、児の社会予後を改善する効果が期待できることが明らかになった。これらの結果より、自閉症の早期療育プログラムを臨床現場や公共サービスで積極的に行うべきであると考えられる。

ニューヨーク州の早期療育ガイドライン(New York State Department of Health, 1999)は下記のような要素を自閉症療育に入れるべきとしている[9]。

- (a)社会的刺激に注意を向ける
- (b)他者を模倣する
- (c)言語の理解と使用
- (d)おもちゃで適切に遊ぶ
- (e)他者と社会的にかかわる

これらの要素は、今回解析の対象となったどのプログラムにも多かれ少なかれ入っ

ている。どのような療育のタイプに効果があるかについては、明確な差は明らかにならなかった。

これまで効果の実証されているプログラムやそれらのエッセンスを取り入れたプログラムが、日本の療育現場に即した形で適切に実践されていくのが望ましいと考えられる。

#### **E. 結論**

自閉症の早期療育プログラムについて無作為化比較対照試験のメタアナリシスを行った。Howlin の3つのモデルの分類によるモデル間の比較では、IQ、言語能力に対する効果の差はなかった。3つのモデルをすべて合わせて介入プログラム全体でみると、児のIQ、言語能力を向上させる効果があることが明らかとなった本研究の結果より、自閉症の早期療育プログラムを臨床現場や公共サービスで積極的に行うべきであると考えられる。

#### **F. 健康危険情報** なし

#### **G. 研究発表**

1. 論文発表 なし
2. 学会発表 なし

#### **H. 知的財産権の出願・登録状況**

1. 特許取得 なし
2. 実用新案登録 なし
3. その他 なし

#### **I. 引用文献・出典**

1. Rogers, S.J. and L.A. Vismara, *Evidence-based comprehensive treatments for early autism*. Journal of clinical child and adolescent psychology: the official journal for the Society of Clinical Child and Adolescent Psychology, American

- Psychological Association, Division 53, 2008. **37**(1): p. 8.
2. Howlin, P., I. Magiati, and T. Charman, *Systematic review of early intensive behavioral interventions for children with autism*. Journal Information, 2009. **114**(1).
  3. Waters, E., et al., *Interventions for preventing obesity in children (review)*. Cochrane collaboration, 2011(12): p. 1-212.
  4. Kasari, C., S. Freeman, and T. Paparella, *Joint attention and symbolic play in young children with autism: a randomized controlled intervention study*. Journal of Child Psychology and Psychiatry, 2006. **47**(6): p. 611-620.
  5. Rogers, S.J., et al., *Effects of a brief Early Start Denver Model (ESDM)-based parent intervention on toddlers at risk for autism spectrum disorders: A randomized controlled trial*. Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry, 2012. **51**(10): p. 1052-1065.
  6. Spreckley, M. and R. Boyd, *Efficacy of applied behavioral intervention in preschool children with autism for improving cognitive, language, and adaptive behavior: a systematic review and meta-analysis*. The Journal of pediatrics, 2009. **154**(3): p. 338-344.
  7. Oono, I.P., E.J. Honey, and H. McConachie, *Parent mediated early intervention for young children with autism spectrum disorders (ASD)*. Evidence Based Child Health: A Cochrane Review Journal, 2013. **8**(6): p. 2380-2479.
  8. Fletcher-Watson, S., et al., *Interventions based on the Theory of Mind cognitive model for autism spectrum disorder (ASD)*. The Cochrane Library, 2014.
  9. Department of Health, N.Y.S., *Description of the Common elements of Effective Intervention Programs*. Report of the Recommendation: Chapter 4 -Intervention Methods for Young Children with Autism. URL: [https://www.health.ny.gov/community/infants\\_children/early\\_intervention/disorders/autism/ch4\\_pt1.htm](https://www.health.ny.gov/community/infants_children/early_intervention/disorders/autism/ch4_pt1.htm), 1999

Figure 1 解析対象論文抽出のフローチャート

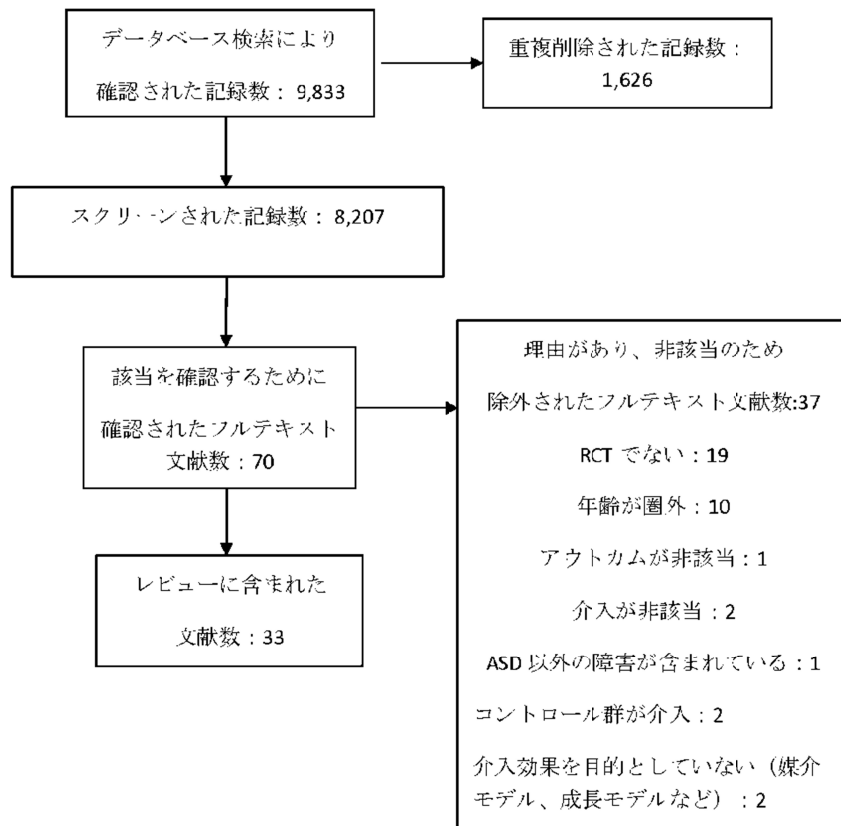


図2 対象となった論文の Risk of bias の結果

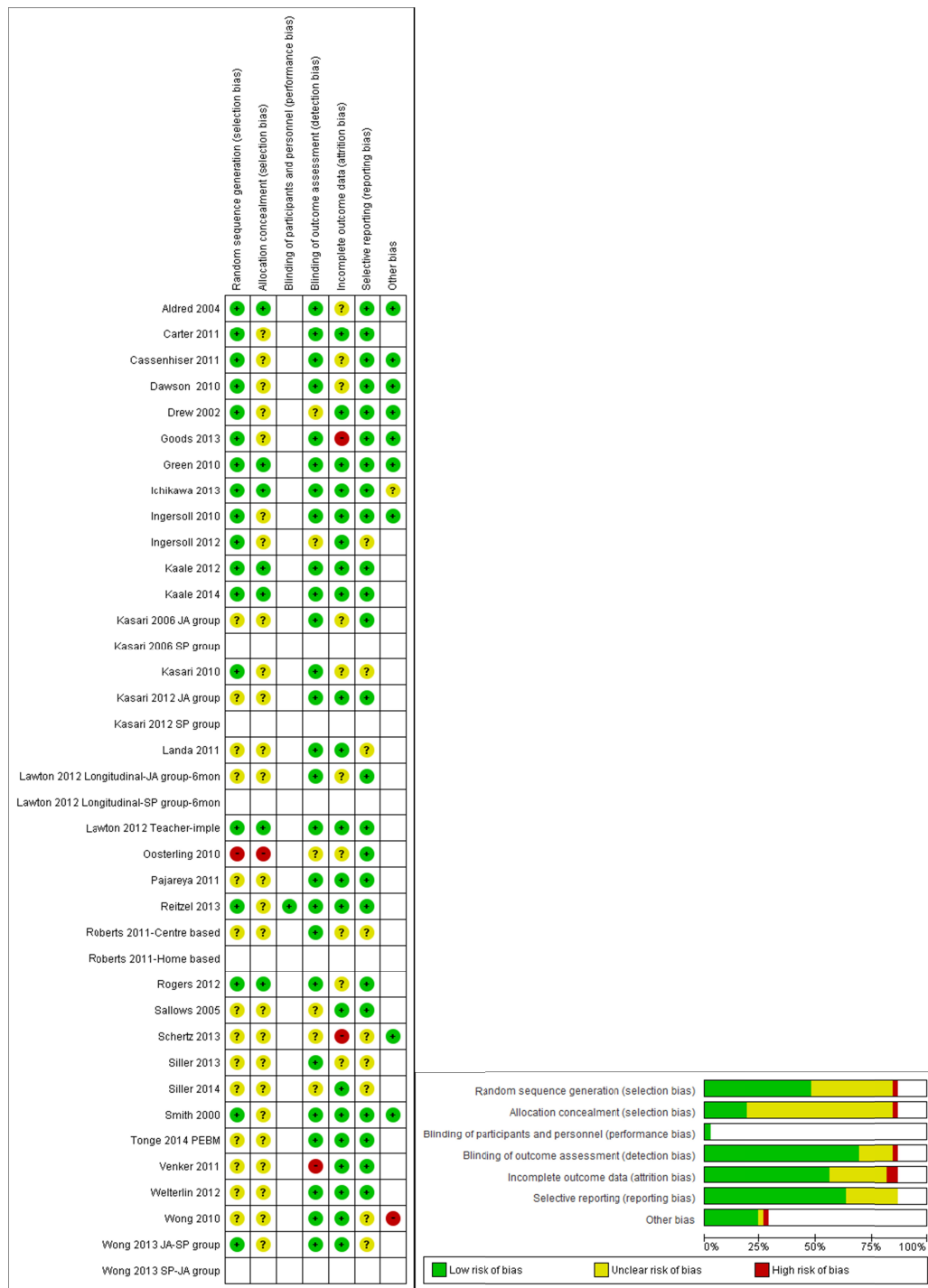


图 3.1 IQ

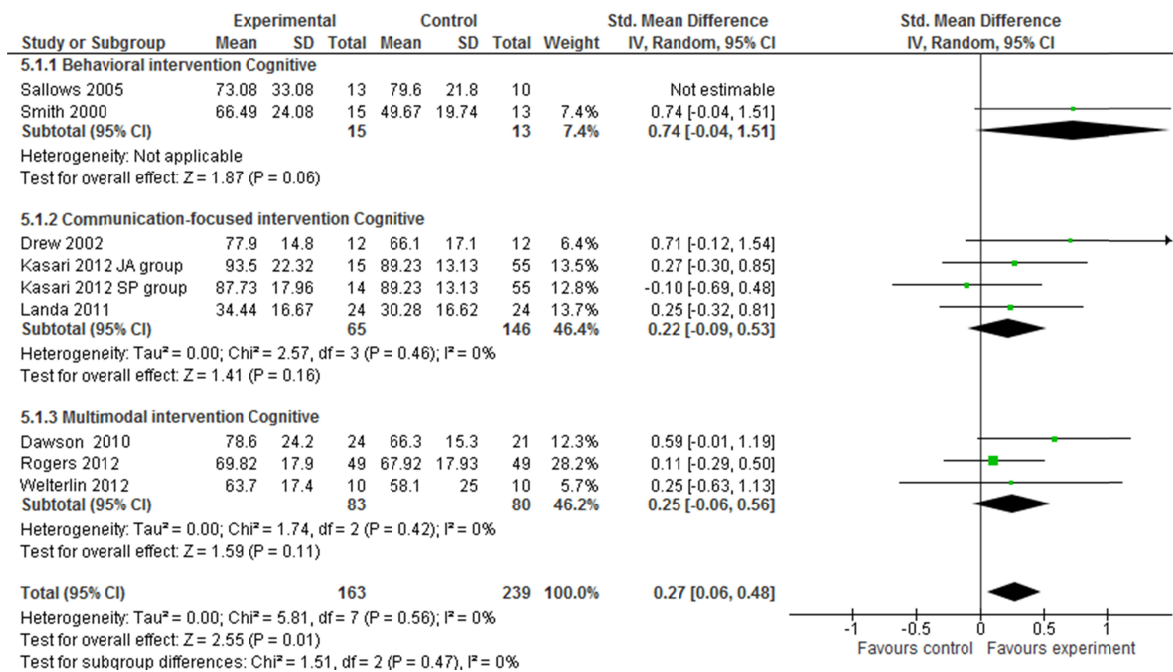


图 3.2 表出性言語

