

平成 27 年度 厚生労働科学研究費補助金（地域医療基盤開発推進研究事業）

平成 28 年度 厚生労働行政推進調査事業費補助金（地域医療基盤開発推進研究事業）

総合・分担研究報告書

脳性麻痺による発達障害の診断、評価

研究分担者 山内 裕子 国立成育医療研究センター 発達評価センター

研究要旨 近年早産児における認知面の障害が特に就学児において注目され、発達障害のハイリスク児としての低出生体重児、脳性麻痺との関連が指摘されている。脳性麻痺児には視知覚障害、知的障害が合併することがこれまで報告されており、また脳性麻痺の認知機能は身体機能と正の相関があり、脳性麻痺の患者の状態に応じ、身体運動面とともに、認知面の評価、支援も行っていく必要があるといわれている。脳性麻痺児の社会的機能の予後については、スウエーデンの報告では粗大運動機能と、両手の微細運動機能、IQ とが社会参加と教育の制限を予測するとあった。しかしながら本邦において、幼児期を経て、学童期、青年期まで生活している脳性麻痺の患者は多くなっていると予想されるが脳性麻痺に関する報告や脳性麻痺児の知的発達の特徴についての研究はほとんどない。つまり知的な予後や脳性麻痺に合併した発達障害については、いまだ明らかになっていることは少なく、脳性麻痺児に言語的問題が隠れている可能性がどの程度あるのかも明らかではない。そのため脳性麻痺に合併した発達障害の診断、評価として言語、コミュニケーション発達を簡便に評価できるシステムを開発する必要がある。

目的：脳性麻痺児の言語、コミュニケーション発達の評価尺度の開発を行う。

方法：国立成育医療研究センター発達評価センター、リハビリテーション科を受診した患者 35 名を対象としたパイロット調査において、今回開発した言語コミュニケーション尺度（ABLS-C）の点数と、国内で使用されている発達心理検査の言語、認知能力、全般的な発達指数との関連について検証した。

結果：全症例の ABLS-C スコアの平均は 10.29 点、知的発達の遅れがある群（N=19）では 9.11 点、知的発達の遅れがない群（N=16）では 11.69 点、自閉症スペクトラム児では（N=5）8.8 点であった。言語的問題が明らかである群では（LS70 以下と定義）新版 K 式の言語領域スコアと ABLS-C の総スコアは有意に低かった。

A．研究目的

背景：近年の周産期医療の進歩により低出生体重児の増加に伴い、発達障害の増加が著しく、脳性麻痺は発達障害のリスク因子の一つである。脳性麻痺児には視知覚障害

が高頻度に合併することがわかっており、また早産低体重出生児で痙直両麻痺を併発した場合においては 2 次的な知的発達障害も見られる。しかしながら本邦においては、脳性麻痺に関連した発達障害の報告はほと

んどない。これは運動麻痺が明らかではない GMFCS レベルの軽度の脳性麻痺においては、言語的問題が見逃されていることを示してはいただろうか。

発達障害は、肉体、身体、あるいはその両方に障害を引き起こしうる、重度の、慢性的な症状であり、20歳に達する前に発症し、永続的な症状が見られる。身辺自立、言語の理解と使用、学習、移動、自己管理、自立した生活能力、経済的な自立の中の主要な日常生活のうちひとつ以上の分野にかなりの機能障害を引き起こすといった定義がされている。

脳性麻痺の病態や全体像の重症度を検討する評価法は運動能力を評価する GMFCS が広く使用されているものの、言語理解、言語表出、コミュニケーションのような言語の発達を評価する方法については、いずれも専門職の評価を必要とし、全般的な発達検査の一部の代用であったり、対面式で時間がかかるものが中心である。そのため、現状では個人の状態により検査を行うのが一般的である。近年、脳性麻痺における社会活動や学習障害と、粗大運動と微細運動とは相関があると報告されていることから、脳性麻痺の重症度を検討するうえでは認知機能や言語機能についても評価する必要がある。脳性麻痺の診断がつけられる幼児期に簡便に評価し、知的発達のリスクが高い群には早期に介入できるようスクリーニングできることは、脳性麻痺患者の支援として重要と考える。

このため特に言語獲得に重要な時期である乳幼児期の子どもを対象に簡便、言語コミュニケーション能力を評価するためのツールは必要と考えられる。

B. 研究方法

国立成育医療研究センター発達評価センター、リハビリテーション科を受診した患者 35 名を対象としたパイロット調査において、今回開発した言語コミュニケーション尺度 (ABLS-C) の点数と、国内で使用されている発達心理検査の言語、認知能力、全般的な発達指数との関連について検証した。

1. 患者の属性は、早産、低出生体重児を含み、基礎疾患をもっている患者が 29 名、基礎疾患なしが 6 名、知的発達の遅れあり 19 名、知的発達の遅れがなし 16 名であった。自閉症スペクトラム児は 5 名いた。検査時年齢は 0 歳 7 か月から 5 歳 2 か月で平均検査年齢 2 歳 3 か月 (27.34 か月) であった。

2. ABLS-C

今回開発を目指す ABLS-C (Ability for Basic Language and communication Scale for Children) は、「覚醒」「言語理解」「言語表現」「明瞭度」「社会性」の 5 領域で構成されており、それぞれを 4 段階 (0 - 3) で評価する。(図 1)

健常の発達がみられる子どもにおいては、1 歳の時点で覚醒 3、言語理解 1、言語表現 1、明瞭度 0、社会性 1 の 6 点 / 15 点、2 歳の時点で通常は、覚醒 3、言語理解 3、言語表現 3、明瞭度 2、社会性 2 の 13 点 / 15 点であると考えられる。今回年齢 0 歳から 6 歳までの 35 人について医師もしくは言語聴覚士、心理士による ABLS-C のスコアを採点した。

なお妥当性検証、信頼性検証は研究協力者によって検証された。

3. ABLS-C と新版 K 式との関係

今回の調査において新版 K 式における認知、言語、全般発達との ABLIS-C 総点数との関連性について検証した。STATA13 ranksum test。

(倫理面への配慮) 本研究は患者の個人データを反映するものではない。また同様に個人情報漏えい等の問題もない。

C. 研究結果

N=35	mean	SD	min	max
出生体重(g)	2346.63	922.18	487	3570
週数(gw)	35.49	4.84	22	41
月齢(m)	27.34	16.86	5	62
覚醒	2.94	0.24	2	3
言語理解	1.91	0.92	0	3
言語表現	2.09	0.92	1	3
明瞭度	1.34	1.16	0	3
社会性	1.89	0.99	0	3
ABLIS-Cスコア	10.29	3.70	4	15
運動	80.03	24.30	17	124
認知	81.52	16.34	48	112
言語	78.56	18.40	31	108
全発達指数	80.09	16.92	39	109

全症例 35 人の ABLIS-C 総スコアは、10.29 点(覚醒 2.94 言語理解 1.91 言語表現 2.09 明瞭度 1.34 社会性 1.89) 知的発達の遅れがある群で総スコア 9.11 点(図 2)、知的発達の遅れがない群では 11.69 点(図 3) 自閉症スペクトラム児(MR 合併 4 名)では 8.8 点であった。早産児(週数 37 週未満) N=15 では 11.06 点、満期児 N=20 では 9.7 点であった。

今回のサンプルでは ABLIS-C のスコアと新版 K 式の言語領域において相関する傾向があった。(P=0.0589) 一方で全発達指数(P=0.726) 認知面(P=0.580)ではその傾向は認めなかった。言語的問題が明らかである群では(LS70 以下と定義) ABLIS-C のスコアは有意に低かった。(P= 0.0061)

D. 考察

1999 年の小西らの厚生労働省研究報告

書からは、軽度の脳性麻痺児の場合はほとんどが普通級に在籍しつつも、学習や対人関係など様々な問題を生じ、本人や家族、教師も対応に苦慮しているとある。また伊藤らの北海道で療育を受けている脳性麻痺患者の知的発達に関する検討では、脳性麻痺児の知的発達の特徴については未だ検討が不十分であるとしながらも、早産・底出生体重児で出生したことによる脳損傷が原因の脳性麻痺児の知的発達の予後は良好であるが、視覚認知障害が関与する非言語性学習能力障害の傾向を示す児童が多いとあった。

脳性麻痺児にこれまで言われているような特有の空間認識から構成障害、対人関係の特有の障害は身体面の評価のみの判断では困難であり、幼児期から十分に病態を評価、支援していくためには、軽症脳性麻痺児に言語的問題が隠れている可能性があるかどうか、知的発達についても評価していく必要がある。そのため今回そのスクリーニングができるツールとして言語評価システムとして ABMS-C を開発した。

今回のサンプルでは ABLIS-C のスコアと新版 K 式の言語領域において相関を認めた。一方で全発達指数、認知面では相関は認めなかった。

今後症例数を増やして検討するか、もしくは、社会、認知面の評価については、別の尺度の使用を検討する必要があると考えられた。また、ABLIS-C の総スコアが 2 - 3 歳以上での頭打ちになってしまう点については、この評価法においては、3 歳以上の言語の問題をスクリーニングすることは困難であることを示していると考えられる。今回では 3 歳以降においては発達に遅れが

ある症例でも、スコアは15点となっていた。そのため今回の評価法を0 - 1歳、1 - 3歳、3歳以上など年齢に応じ検討、また3歳以降の年代別の簡便な言語、コミュニケーション評価尺度について今後開発する必要があると思われる。

沖縄での脳性麻痺のコホート研究 (Mayumi 2013) においては、5年生存率 0.967、18年生存率 0.889 と長期的に生活している脳性麻痺児が多く生存していることは明らかで、その20%はGMFCSであった。フォローアップ開始年齢は24.5か月(2歳2か月SD2.6)とあり、脳性麻痺の診断が2歳前にすべて診断できるわけではないとしているが、2 - 3歳前後で、簡便に言語障害、知的発達のスクリーニングができるような評価法が利用できると子供の状態像を評価する上で効果的であると考えられる。今後このABLS-Cが利用可能かどうかさらに他のLCスケールやASQ, デンバー発達検査などの知的発達検査と比較して検討していく必要がある。

E. 結論

脳性麻痺児の予後予測の上では運動面の評価とともに言語、コミュニケーションなどの知的面の評価も重要である。言語障害の合併を簡便な評価システムとしてABLS-Cの開発を試みた。今回の評価システムを継続的に使用し、他の発達検査法と比較検討していく必要がある。

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 (予定を含む)

1. 特許取得 なし
 2. 新案登録 なし
 3. その他 なし
- 研究協力者

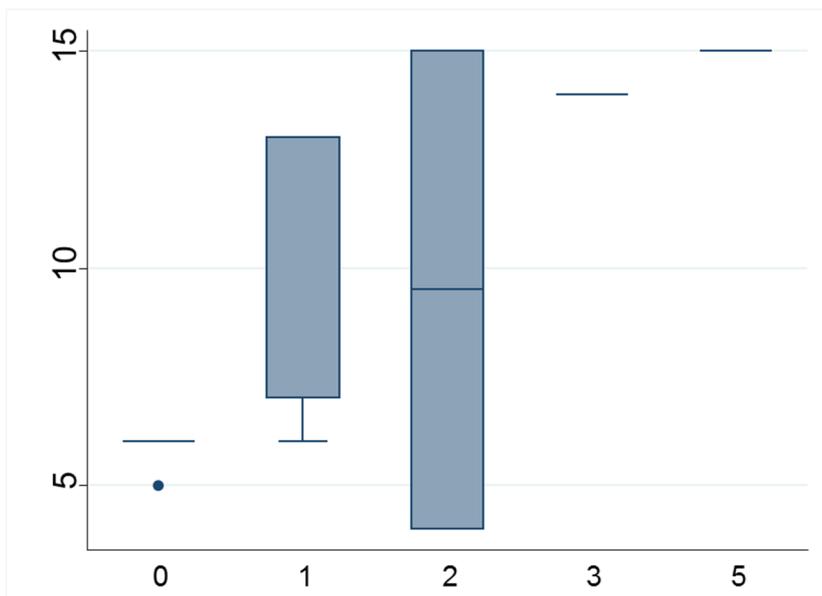
玉井智、池田夏葉、加藤佳子、竹厚誠

Ability for Basic Language and communication Scale for Children (ABLS-C)

グレード	0	1	2	3
1 覚 醒	痛み刺激に反応なし 	揺らすと覚醒する 	声掛けで覚醒する 	覚醒している
2 言語理解	声かけに反応しない 	呼びかけ(声)にふりむく 	ジェスチャーや指さしを用いれば、言語指示に従うことができる 	ジェスチャーや指さしなしに、ことばだけで指示に従うことができる
3 言語表現	発語がない 	アー、ウーなど声をだす 	指さしをする 	意味のあることばを話す
4 明瞭度	発語はできるが周囲は全く聞き取れない 	発語はでき、時々わかることばがある 	時々わからないことばがある 	全部わかる
5 社会性	視線があわない 	あやすと笑う 	バイバイをする 	友達といっしょに遊ぶ

図2

Total score

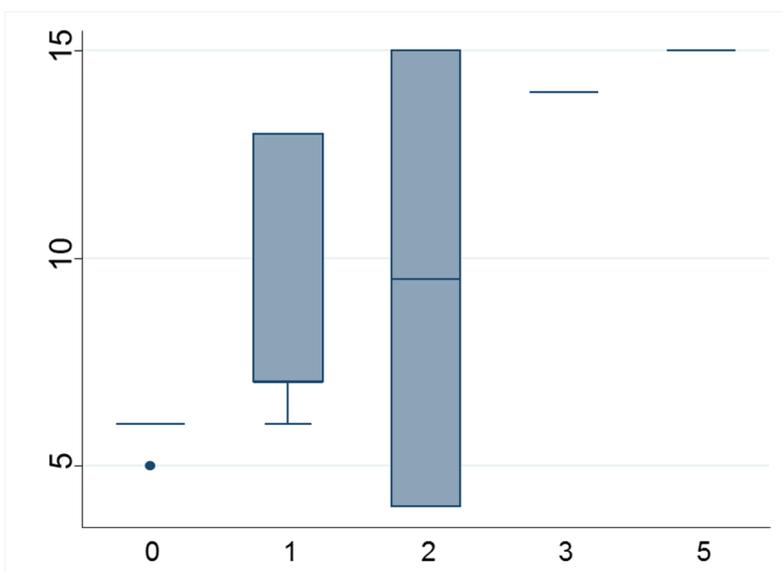


知的発達遅れのある群 (N=15)

2歳まではバラツキが大きいですが、36か月をこえるとすべて13点以上であった。

図3

Total score



知的発達遅れのない群 N=16

1歳半未満の点数は5点 8点ではバラつきがあったが、20か月以上ではすべて13点以上であった