

. 総合研究報告

顕在化しにくい発達障害の特性を早期に抽出するアセスメントツールの開発および普及に関する研究

稲垣真澄

厚生労働科学研究費補助金（障害者政策総合研究事業）
総合研究報告書

顕在化しにくい発達障害の特性を早期に抽出するアセスメントツールの開発および普及に
関する研究

研究代表者 稲垣真澄

国立精神・神経医療研究センター精神保健研究所 知的障害研究部長

研究要旨

本研究は「顕在化しにくい発達障害」の特性を明らかにすること、スクリーニングするアセスメント手法を確立すること、そして現場での導入を考えて統合された評価シートを作成し、その妥当性、信頼性を検討することを目的とした。とくにチック症、吃音症、不器用症、読み書き障害という顕在化しにくい発達障害に焦点を絞り、スクリーニングできる手法の開発を2年間かけて目指した。

昨年度2811名の解析結果をもとに4つの障害を同時に評価する観察シート（19項目）を作成した。今年度は全国11地方のサンプルエリアから、観察シートの調査を行い合計3542名のデータを得た。その結果、観察シートについて、尺度特性としての信頼性・妥当性が示された。また、観察シートによる障害リスクの有無判別と実際の医療診断の一致率は85.0～97.1%、特異度は85.2～97.1%を示し、極めて高い判別精度が得られた。本観察シートは、顕在化しにくい発達障害を就学前の早期かつ高精度にスクリーニングする学術的意義に加えて、紙面1枚で実質5分程度の所要時間という簡便さを併せ持つため、費用面・実施面において社会実装にむけた実現性を有する行政的意義の高いものと考えられた。

金生由紀子（東京大学大学院医学系研究科
こころの発達医学分野・准教授）

原 由紀（北里大学医療衛生学部リハビリ
テーション学科・講師）

中井昭夫（兵庫県立リハビリテーション中
央病院子どもの睡眠と発達医療センター・
副センター長）

原 恵子（上智大学大学院言語聴覚障害
学・准教授）

北 洋輔（国立精神・神経医療研究センタ
ー精神保健研究所・室長）

A．研究目的

改正発達障害者支援法（平成28年法律第
64号：平成28年6月1日交付：同年8月
1日施行）で発達障害は広汎性発達障害（自
閉症スペクトラム障害（ASD））、学習障害
（LD）、注意欠如・多動性障害（ADHD）
およびその他これに類する脳機能の障害で
あると明文化された。

ASDとADHDは社会性や多動・衝動性
の症状が家族や周囲の者に気づかれること
や乳幼児健診等がきっかけとなり、早期評

価や診断および介入・支援の方針が立てられている。

一方、その他の発達障害にはチック症、吃音症、不器用などが含まれる。これらは各々単独、あるいはASDやADHDと併存し発症するが、その特性を幼児期において精確に抽出する評価手法は明確でない。その理由として、チック、吃音症では症状の変動性があり、就学以前たとえば5歳までに発症しても自然軽快することなどが指摘できる。しかし不器用、吃音、チックが青年期～成人期まで症状が残存する場合には、学業や就労場面で著しい支障をきたすことも知られる。したがってLD(読み書き障害)を含めて、その他の発達障害の特性を就学前の段階で早期に発見するアセスメントツールを開発し、それらの普及を図ることは発達障害の早期支援の観点から重要であり、合理的配慮の策定にも有用となることを考えた。

以上から本研究の目的は「顕在化しにくい発達障害」の特性を明らかにすること、

それらをスクリーニングするアセスメント手法を確立すること、そして現場での導入を考えて統合された評価シートを作成し、その妥当性、信頼性を検討することとした。

具体的には、現実的な社会的実装を鑑みて、簡便にかつ短時間で、巡回相談員等が利用できる観察シートの作成を目指す。対象は高有病率に比して顕在化しにくい発達障害として、吃音症、チック症、読み書き障害、不器用症とする。本研究は二年計画であり、初年度(28年度)は研究分担者が各障害の評価項目の開発(各々20項目程度)し、得られた成果を元に障害判別に有

用な3-5項目の抽出を実施した。そして二年度目(29年度)は、抽出した評価項目から統合版の観察シートの作成(19項目)を行い、信頼性・妥当性・精度の検証を経た上で、解釈・手立て等が記載された観察シートの策定を行った。

B. 研究方法

1. 対象児

研究分担者の協力を得て、わが国の全11地方(内閣府地区分類)のサンプルエリアから、合計3542名(55機関)のデータを得た。本サンプル数は、各障害の推定有病率(誤差±1%)および推定信頼区間(95%)の観点から十分なサンプルサイズであり、全11地方の就学前機関(保育園・幼稚園・こども園)と医療機関をカバーしているため、本邦の年長児の代表値と見なせると考えた。(11地方分類:北海道地区・東北地区・関東地区・東海地区・東山地区・北陸地区・近畿地区・中国地区・四国地区・北九州地区・南九州地区)。

2. 評価項目

チック症、吃音症、読み書き障害、不器用症のそれぞれの評価項目を統合した観察シート(以下、観察シートとする:表1)を利用した。観察シートの作成過程は以下となる。

初年度に各研究分担者・研究協力者が各障害の評価項目の開発を行い、調査を行った。初年度のトータルの調査人数は5601名に及んだが、解析に当たって延べデータ数は2811名(チック症:776、吃音症:100、読み書き障害:1527、不器用症:408)となった。児の評価は、評価者との直接面談

もしくは評価者による自記式とした。各障害の評価項目について、次の観点で統計学的に検証し、十分な信頼性と妥当性を認めた：因子構造（構造方程式モデリング）・一貫性（係数・IT 相関）・再検査信頼性（係数・ICC・Bland-Altman 解析）・基準関連妥当性（係数）。

また、障害判別に有用な項目を抽出するために、項目応答理論（2パラメータロジスティックモデル）、数量化 II 類およびロジスティック解析等に基づいて各 3~5 項目を選択した。これらの項目による各障害判別の精度は、感度 85.5~100.0%、特異度 72.6~98.0%であり、スクリーニングとして有用な基準を満たした。

なお吃音症（原 由記）では、音の繰り返し、引き延ばし、そして詰まって出ないブロックの 3 項目に注目し、これらが変動しつつも 1 年以上継続しているかどうかを考慮して項目を抽出した。

チック症（金生由紀子）では早期アセスメントのための評価項目としてオリジナルの調査票から検討を行った。チック症状の中で頻度が高い項目であったり、親からみてくせに対する支援ニーズと有意な相関が認められたりした項目を重視した。また、一般に幼児期には複雑音声チックが少ないことも考慮して 5 項目を抽出した。

読み書き障害（原 恵子、北 洋輔）では、文字に対する知識、文字への関心、エマージョントリテラシー（読み下記への関心の芽生え）、語の音韻表象の明確さに関するもの、音韻操作の項目、聴覚ワーキングメモリ、視覚運動コントロールに注目した。

不器用症（中井昭夫、研究協力者：斉藤まなぶ）に関しては、発達性協調運動障害

（DCD）診断あり、無しの全例に DCD-Q 全 15 項目を一次投入し AIC 基準によるステップワイズロジスティック解析を加えて、適合度検証（Hosmer & Lemeshow 検定）の後、DCD 診断を予測するのに有効な DCD-Q 項目が 11 個抽出された。その後、項目応答理論の処理により、最終的に「走り方」、「身体遊び」、「描く様子」、「描かれた内容」、「座位の様子」をそれぞれ問う 5 項目が選ばれた。

以上より、初年度に抽出した各項目（吃音症 4 項目、チック症 5 項目、読み書き障害 5 項目、不器用症 5 項目）を統合して全 19 項目からなる観察シートを完成した（表 1）。

各評価項目は 5 件法（全くない~常にある）で回答を求め、得点が高いほど、その項目に関する困難が大きいとした（最小 1 点~最大 5 点、ただし #4 を除く）。

3. 評価方法

本研究課題が巡回相談時に利用する観察シートの開発であることを鑑みて、面接形式を基本とし、評価者による自記式を併用した。面接形式では、調査者が児の主たる保育者・担任に直接面接し、評価項目について児童一人一人について回答を求めた。自記式では、保育者・担任が児童一人一人について評価項目に記載した。調査者の属性としては、研究者の他、言語聴覚士・理学療法士・作業療法士・臨床心理士・臨床発達心理士などの専門家とした。評価の所要時間は、児童一人一人について約 5-10 分の所要時間であった。

4. 解析方法

解析に使用したデータセットは、全データのうち医師による確定診断がなされているもの 1134 名 (32.0%) とした。後述する障害判別に関わる精度算出が重要となるために、医師による確定診断が第三者においても確認出来るものを組み込み基準 (inclusion criteria) とし、厳密なデータセットとして解析対象とした。本データセットの割合は、全体の 32.0% を占めており、サンプル数を考慮しても、全データ解析と同様の動向が十分に得られる値である。

(1) 信頼性

観察シート 19 項目に関する信頼性として、Cronbach の α 係数 (等質性) と項目-全体得点相関 (Item-Total Correlation: IT 相関、識別力) を算出した。 α 係数および IT 相関は作成経緯より各障害に対応する項目群ごとに算出している。

(2) 構造的妥当性

19 項目に関する構造的妥当性について、構造方程式モデリング (structural equation modeling: SEM) による検証的因子分析を行った。観察シートの作成経緯より、因子構造は、各障害 (4 障害) とそれに対応する評価項目群 (3~5 項目) としてパスを作成した。各障害間の共分散と、同一項目群内にある評価項目間の誤差共分散のみを許容するモデルとして妥当性を検証した。モデル適合度指標としては、

χ^2/df ・GFI (the Goodness-of-Fit Index)・AGFI (the Adjusted Goodness-of-Fit Index)・CFI (the Comparative Fit Index)・RMR (Root Mean square Residual)・RMSEA (the Root Mean

Square Error of Approximation) を利用した。適合度指標の基準は以下とした: $\chi^2/df < 5$ 、GFI > 0.95 、AGFI > 0.95 、CFI > 0.95 、RMR < 0.05 、RMSEA < 0.05 。各パスが有意か否かについては Wald 検定を用いた ($\alpha = 0.05$)。

(3) 判別精度

観察シートの該当項目数によるリスクの有無判別が、実際の障害判別とどの程度一致するかを検討した。まず、観察シートの 5 件法の回答について、上位 2 回答の「しばしばある」「常にある」を「該当」とし、それ以外を「非該当」とした。初年度算出した基準から、各障害について該当項目数が 1 つ (チック症・読み書き障害・不器用症) または 2 つ (吃音症) 以上ある場合を、「リスク有り」、それ以外を「リスク無し」とする基準とした。そして、リスク有無と実際の医療診断との関連から、真陽性 (リスク有り×診断有り)・偽陰性 (リスク無し×診断有り)・偽陽性 (リスク有り×診断無し)・真陰性 (リスク無し×診断無し) に分類し、度数分布を算出した。その上で、各障害について感度・特異度・一致率を算出して、観察シートの判別精度として検証した。

(1)~(3) の解析は R3.3.3 および IBM SPSS Amos 19 で行った。

(倫理面への配慮)

本研究は人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (平成 26 年文部科学省・厚生労働省告示第 3 号) に基づき、国立精神・神経医療研究センター倫理委員会に承認されたプロトコル (A2015-004) に従い実施した。

C . 研究結果

(1) 信頼性

各障害の 係数は.72～.83 であり、それぞれの IT 相関は.63～.88(all ps < 2.2e-16) であった (表 2)。また、項目削除による係数の大幅な変動が認められないことから、各障害に対する評価項目群 (3-5 個) の信頼性が良好であると判断された。更に、各障害の評価合計点を算出したところ、各障害間で有意な相関が認められた (表 3・図 1 : $r = .26 \sim .63$, all ps < 2.2e-16)。

(2) 構造的妥当性

図 2 に SEM を用いた検証的因子分析の結果を示す。以下のモデル適合度指標から、観察シートが構造的に妥当であると判断された : $\chi^2/df = 3.271$; GFI = .969; AGFI = .949; CFI = .968; RMR = .015; RMSEA = .045。また、Wald 検定の結果、全てのパスは有意であった ($p < .001$)。

(3) 判別精度

表 4 に判別精度の結果を記す。観察シートによるリスク有無判別と実際の医療診断の一致率は 85.0～97.1%、特異度は 85.2～97.1%であり、極めて高い判別精度を示した。

D . 考察

1 . 学術的意義 : 観察シートの信頼性・妥当性・判別精度

初年度に抽出した評価項目が 19 項目に統合することで信頼性等に影響が生じるかをまず検討した。統合版では安定的な識別力 (IT 相関) 等質性 (係数) が各障害

の評価項目から認められた。また、19 項目による構造的妥当性も認められた。これらから、別々に抽出した評価項目を統合して作成した観察シートは、尺度特性として信頼性・妥当性が極めて良好であり、尺度として利用することに十分耐えうるものと考えられる。

更に、障害間の特徴として、読み書き障害と不器用症の強い関連が認められたことは、統合した観察シートゆえに得られた成果である。従来から、読み書き障害と発達性協調運動障害の高い併存率が指摘されている。本知見は、これらの指摘と一致するものであり、就学前の早期の発達段階から単一の障害だけでなく、複数の障害に目を向けた診断や治療の必要性を示す基礎資料とも言える。

観察シートの成果で最も重要な点は、極めて高い判別精度を持つことである。一部の疾患では感度は低いものの、特異度は全疾患で 85%を越えており、スクリーニングとしての機能、すなわち“リスクのあるものを取りこぼさない”ことができると考えられる。観察シートは、精度面においても今後のスクリーニングに向けて有用なものと考えられた。

顕在化しにくい 4 つの発達障害を、就学前期において、同時・高精度・簡便にスクリーニングする方法は国内外で前例が少なく、オリジナリティの高いものである。治療・支援面の臨床的意義はもとより、リスク児を早期に見つけることで各疾患が顕在化する前の生物学的な前駆症状の解明や重症化前の予防技術開発など、各分野での研究発展の源泉となる貴重な学術的意義を有する成果が得られたと考える。

2. 行政的意義：観察シートによる直接・間接効果

観察シートを利用することは、顕在化しにくい発達障害の早期発見につながるものと考えられる。これらの障害に対する早期発見は、児への直接の早期支援のみならず、保護者・保育士等への障害啓蒙、家庭内での養育レジリエンスの向上など、障害に対する合理的配慮施策の効率的な運用を可能とする。特に本観察シートは、紙面1枚(A4)で実質5分程度という簡便さがあり、費用面・実施面において社会実装の実現性は高い。また、裏面には判別の手立てや支援のヒントを記載し、障害を専門としない幼稚園教諭・巡回相談員等にも活用可能とした。これらの点において、本研究成果の行政的意義は大きいものと考えられた。

3. 達成度と残された課題

日本全国のデータを元に簡便かつ高精度なアセスメントツールを開発した点は当初の目標を十二分に達成した。今後は本観察シートの運用・普及と顕在化しにくい発達障害への支援施策の展開に向けて、社会実装を主眼とする取り組みが必須である。またスクリーニングで抽出した児に対する精査方法の確立、および早期介入方法の開発が求められるであろう。

E. 結論

2年間に渡る研究により、顕在化しにくい発達障害すなわち吃音症、チック症、不器用、読み書き障害を早期に、かつ高精度にスクリーニングする観察シートを開発した。

研究協力者（所属）

加賀佳美（国立精神・神経医療研究センター精神保健研究所知的障害研究部）

斉藤まなぶ（弘前大学 医学部 神経精神医学講座）

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 稲垣真澄：発達障害児を持つ保護者の養育レジリエンスの向上にむけて．小児の精神と神経，2017; 57(1): 11-18.
- 2) 稲垣真澄，米田れい子：特集 限局性学習症（学習障害）総論：医療の立場から．児童青年精神医学とその近接領域，2017; 58(2): 205-16.
- 3) 稲垣真澄，米田れい子：知的障害．猿田享男，北村惣一郎編集，1336 専門家による私の治療，2017-18 年度版，日本医事新報社．東京，2017; 1670-1672.
- 4) 稲垣真澄，加賀佳美：言語発達．伊藤利之監修，小池純子，半澤直美，高橋秀寿，橋本圭司編集，こどものリハビリテーション医学第3版発達支援と療育，医学書院，東京，2017; 61-71.

2. 学会発表

- 1) Inagaki M, Suzuki K, Kobayashi T, Moriyama K, Kaga M, Hiratani M, Watanabe K, Yamashita Y: Development of a parenting resilience questionnaire of caregivers rearing children with developmental disorders. AOCCN 2017, Fukuoka, 2017.5.11.
- 2) 稲垣真澄：コーディネーター挨拶．日

本発達障害連盟主催 平成 29 (2017)
年度発達障害医学セミナー：顕在化し
にくい発達障害の早期発見と支援に向
けて，東京，2017.8.26.

G . 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

表 1

☆子どもの様子に関する観察シート☆

記入日： _____ 年 _____ 月 _____ 日 記入者： _____ ID： _____

評価する子どもについて										
性別：		男	・	女	年齢：	_____ 歳 _____ ヶ月	評価方法：	観察・聴取（担任・保護者）		
医療機関による診断名：						未診断 ADHD ASD 吃音 チック LD DCD 知的障害 その他（ _____ ）				
もっともあてはまる欄に☑チェックしてください						全く ない	ごく まれ にある	時々 ある	しば しば ある	常に ある
話 し 方	1	初めの音やことばの一部を、何回か繰り返す (例：「ぼ・ぼ・ぼ・ぼくが」、「おか・おか・おかあさん」など)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	2	初めの音をひきのばす (例「ぼ——くがね」)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	3	言いたいことがあるのに、最初のことが出づらく、力を込めて話す (時に顔をゆがめることもある)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	4	1～3の話し方の様子が、変動はみられるが、1年以上継続している				<input type="checkbox"/>	←なし/1年以上→		<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
く せ	5	1年前から現在までに、顔面や頭部の繰り返す動きのくせ (例：まばたき、顔をしかめるなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	6	1年前から現在までに、首、肩または胴体の繰り返す動きのくせ (例：首を振る、肩をすくめるなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	7	1年前から現在までに、腕、手、脚または足の繰り返す動きのくせ (例：繰り返し何かを触る、飛び跳ねるなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	8	1年前から現在までに、音の繰り返しのくせ (例：コンコン喉をする、咳払いなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	9	1年前から現在までに、声の繰り返しのくせ (例：ハミングのようにフンフン言う、甲高い声など)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	10	文字を読むことに関心がない (例：絵本の絵を見るだけで、文字を読もうとした り、何と書いてあるか尋ねない)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
読 み 書 き	11	単語の発音を正確に言えないことがある (例：「いす⇒いしゅ」という幼稚な発 音ではなく、「エレベーター⇒エベレーター」「クリスマス⇒クスリマス、クスリス マス」のように、音の順番の変化、音の数の増減など)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	12	自分の名前や、ことばを言いながら、一音一歩ずつ移動する、あるいはコ マを動かす遊びが出来ない (例：“くりご”の遊びなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	13	歌の歌詞を覚えることに苦労をする (歌詞を理解する/しなないに関わらず)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	14	文字や文字らしきものを書きたがらない、書くことに関心がない				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
運 動	15	他の子と比べて、走り方がぎこちない、あるいは不自然である (例：膝が伸 びきついたり、手足が運動せずにばらばらになるなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	16	遊具やブロック遊びなど、身体を使う遊びで、うまく身体を動かしたり、 スムーズに遊びを進めたりできない (例：ジャングルジムや縄跳び、鉄棒、平均 台を使った遊びなど)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	17	絵などを描くときに、何を描くかは思いついているのに、描く動作 (手の 動きなど) がスムーズでなく、時間がかかる (描くものを考えていたり、分から なくて時間がかかる場合は除く)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	18	お絵かきや塗り絵の時に、何を描いたか大人に伝わらない (独創的なという 意味ではなく、“ぐちゃぐちゃ”で伝わりづらい)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
	19	長い時間座るときに、疲れやすく、姿勢が崩れたり、椅子からずり落ちた りする (体幹が弱く、身体がぐにゃぐにゃとなるなど。但し、集中が続かず、離席す る場合などは除く。)				<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

表 2

#	吃音		#	チック		#	読み書き		#	不器用	
	Item-Total correlations	Cronbach's α coefficients if item deleted		Item-Total correlations	Cronbach's α coefficients if item deleted		Item-Total correlations	Cronbach's α coefficients if item deleted		Item-Total correlations	Cronbach's α coefficients if item deleted
1	.87	.57	5	.72	.72	10	.88	.74	15	.67	.73
2	.67	.74	6	.72	.67	11	.69	.82	16	.75	.70
3	.88	.49	7	.74	.68	12	.67	.82	17	.76	.70
			8	.63	.71	13	.74	.81	18	.73	.71
			9	.72	.67	14	.86	.75	19	.70	.77
Cronbach's α coefficients-all item		.72	Cronbach's α coefficients-all item		.74	Cronbach's α coefficients-all item		.83	Cronbach's α coefficients-all item		.76

表 3

	チック症	読み書き障害	不器用症
吃音症	.36	.27	.26
チック症		.37	.38
読み書き障害			.63

表 4

		吃音	チック	読み書き	不器用
該当 人数	真陽性	4	9	17	6
	偽陰性	0	12	2	3
	偽陽性	33	61	108	167
	真陰性	1097	1052	1007	958
観察 シート 精度	感度	100.0%	42.9%	89.5%	66.7%
	特異度	97.1%	94.5%	90.3%	85.2%
	一致率	97.1%	93.6%	90.3%	85.0%

図 1

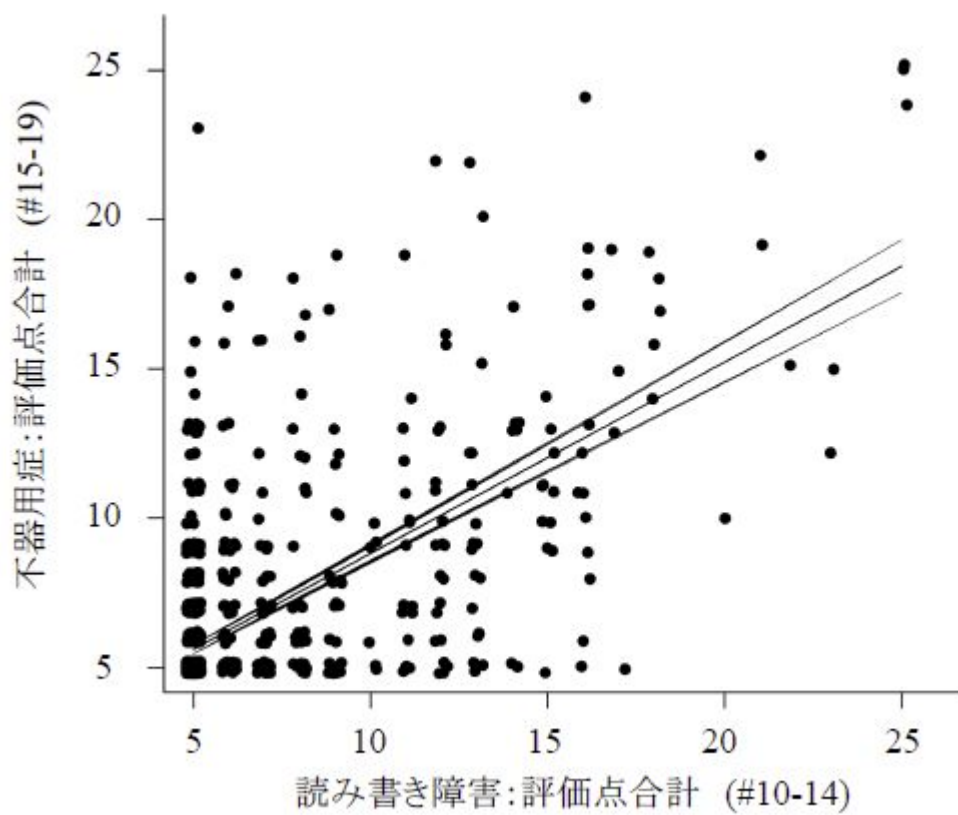


図 2

