

Ⅱ. 分担研究報告

吃音、トゥレット、場面緘黙の早期発見尺度の
検証及び併存症の調査研究

及び

場面緘黙症の実態把握と支援のための調査研究

斉藤まなぶ

厚生労働科学研究費補助金（障害者政策総合研究事業）
分担研究報告書

吃音、トゥレット、場面緘黙の早期発見尺度の検証及び併存症の調査研究
及び
場面緘黙症の実態把握と支援のための調査研究

研究分担者 齊藤まなぶ¹
研究協力者 高木潤野²、高柳伸哉³、森裕幸⁴

1：弘前大学大学院医学研究科 神経精神医学講座 准教授

2：長野大学 社会福祉学部社会福祉学科 准教授

3：愛知東邦大学 人間健康学部 准教授

4：弘前大学大学院医学研究科 子どものこころの発達研究センター 特任助手

研究要旨

我が国においては、吃音症やトゥレット症、緘黙症などの言語コミュニケーションに困難さを持つ障害は、社会的障壁により、学校場面等の社会生活において生活に困難感を抱えていることが少なくない。これらの障害の有病率や社会生活における具体的な困難さは明らかになっていない。

本分担研究では、1歳半健診、3歳児健診、5歳児健診を通じて、乳幼児期における言語コミュニケーション障害の疫学調査を行い、乳幼児健診における吃音、チック、緘黙の推定有病率、具体的な困難さを調査すること、場面緘黙症については各年代への実態調査を通じて、症状及び生活困難感を把握し、統一された対応に向けた支援マニュアル作成への示唆を得ることを調査目的とした。さらに、発達障害のスクリーニングとして有効な質問項目の抽出、既存の尺度のWeb版作成を開始した。

CLASPによる推定有病率は、吃音で保護者評定では0.4%、保育士評定では0.2%で、チックは保護者評定が3.7%、保育士評定が7.0%であった。吃音の推定発症率は保護者評定で2.1%、教師評定で3.0%であった。吃音症とチック症は5歳においてある程度顕在化しており、CLASPのようなチェックシートにおいて見つけられていくことが明らかとなった。TASPからは、吃音症、チック症ともに社会適応に影響があり、発達面・心理面から適切な支援が必要であることが示唆された。

3歳において発達障害を予測するための評価項目は抽出することができたが、吃音症やチック症の早期介入のためには、教師や保育者の評価を合わせたスクリーニングが必要である。

A. 研究目的

日本の乳幼児健診における顕著な発達障

害の有病率は1.6%と低いが、スクリーニングツールの妥当性及び信頼性が検証され、使用できる尺度が増えるとともに発達障害が社

会的に認知されてきたため、一部地域においてASDやADHD、IDは早期発見、早期介入が可能になってきている。一方で、「顕在化しにくい発達障害」とされる吃音症、トゥレット症、場面緘黙症においては、それぞれの有病率が1%程度、0.3%~0.8%、0.2%と言われているが、吃音症、トゥレット症、場面緘黙症における乳幼児期の有病率は明らかになっていない。吃音症の4歳での発症率は11.2%であり、12か月後にはその約1割は自然軽快し、幼児期の時点では生活上の影響は少ない(Reilly, 2013)ものの、周囲から吃音の指摘を少しずつ受け始める(伊藤, 1995)。また、トゥレット症は有病率が0.3~0.8%と低いものの、他の精神障害(強迫性障害やASD、ADHDなど)との合併が80~90%と高率であることが報告されている。場面緘黙症は50%に言語の未熟さ(Kolvin&Fundudis, 1981)に加え、社会的場面やコミュニケーションの利用の困難さを有している(高木, 2016)。「顕在化しにくい発達障害」とされる吃音症、トゥレット症、場面緘黙症は早期から言語のつまづきがあり、その子どもたちの実態及び生活の困難さも明らかになっていない。そのため、「顕在化しにくい発達障害」において実態及び抱える生活の困難さを明らかにし、早期発見・早期支援の体制を整備する必要がある。

また、場面緘黙症はICD-11では、不安・恐怖関連症群に位置づけられているものの、言語コミュニケーションに困難さを持つが故の社会的障壁により、学校場面等の社会生活において生活に困難感を抱えていることが少なくない。そのため、学習や社会生活場面において支援体制を整備していく必要がある。場面緘黙症は50%に言語の未熟さ(Kolvin&Fundudis, 1981)に加え、社会的場面やコミュニケーションの利用の困難さを有している(高木, 2016)。有病率は小学生で有病率は0.5%、幼児期では1%と言われており、成人期は明らかになっていない。欧米の研究ではASDが3割程度合併していると言わ

れている。3歳までは、集団生活が始まっていないと緘黙症状が顕在化しないため、健診では発見が難しいとされており、日本における場面把握の実態については明らかになっていないことが多い。以上のことから、場面緘黙症の実態把握を行い、支援マニュアルを含む支援体制を整えていく必要がある。

本分担研究では、1歳半健診、3歳児健診、5歳児健診において、言語を中心とした言葉の発達および吃音や知育などコミュニケーションに関わる発達の問題を調査し、乳幼児健診における吃音、チック、緘黙の有病率を推定する。また、5歳児の保育者にTASP(保育・指導要録のための発達評価シート)等の発達尺度を用いて、3障害への気づきについて調査を行った。また、日本における幼児期、学童期、思春期、青年・成人期といった各年代の場面緘黙症の実態を把握し、実態に即した重症度指標及び生活困難度指標を明確化することを目的とした。また、各年代の生活困難感に即し、統一された対応に向けた支援マニュアル作成への示唆を得ることを目指した。

B. 研究方法

1. 乳幼児調査

1) 対象者と実施時期

弘前市における乳幼児健診(1歳6ヶ月児健診、3歳児健診、5歳児健診)の対象者に調査協力の依頼をした。2020年2月から3月において1歳6ヶ月児健診の対象者160名に質問紙を配布した。また、2018年4月から2019年3月に3歳児健診の対象者1090名の解析に加え、2019年4月から2020年1月に同様の調査を行い、2020年2月から3月は200名にCBCLを追加し結果を回収した。5歳児健診は2019年1~3月及び7~9月に2019年度施行の5歳児健診対象者1265名に質問紙を配布し、1088名(86.0%)の保護者及び教師または

保育者より回答を得、2019年5月及び11月に計123名に二次健診を行った。

2) 調査方法

各年代に分けて調査を行い、吃音、チック(トゥレットを含む)、緘黙等コミュニケーション障害の有病率を推定する。また得られた結果から発達障害を予測する項目を抽出し、早期発見につながるアンケートフォームを開発する。実施した調査は以下のとおりである。

<1歳6ヶ月児健診>

(質問紙調査)

- ①言葉の評価: 日本語マッカーサー乳幼児言語発達質問紙「語と文法」
- ②自閉症特性: 日本語版M-CHAT
- ③メンタルヘルスと問題行動: ASEBA CBCL 1.5-5 保護者用
- ④吃音症状とチック症状: 言葉に対するチェックリスト
- ⑤睡眠調査: JSQP、CSHQ
- ⑥ICT機器使用状況アンケート
(面接評価) ※2歳以降
- ①知能検査: WIPPSI、田中ビネー
- ②社会機能検査: Vineland™-II適応行動尺度
- ③自閉症評価: ADOS-2
- ④小児科医または精神科医によるDISCO班構造化面接の上、DSM-5診断

<3歳児健診>

(質問紙評価) ※一次スクリーニング

- ①自閉症特性: SRS-2対人応答性尺度
- ②行動特性: SDQ (子どもの強さと困難さアンケート)
- ③感覚特性: SP感覚プロファイル短縮版
(面接評価) ※SRS-2が43点以上を対象に二次健診を施行
- ①PARS-TR短縮版
- ②知能検査: WIPPSI、田中ビネー

- ③社会機能検査: Vineland™-II適応行動尺度
- ④運動検査: MABC-2
- ⑤自閉症評価: ADOS-2
- ⑥小児科医または精神科医によるDISCO半構造化面接の上、DSM-5診断

<5歳児健診>

※一次スクリーニング

(質問紙評価)

- ①家族構成・親の職業・収入・発達歴・既往歴
- ②主養育者の飲酒喫煙歴・ストレス状態 (K6)
- ③SDQ『子どもの強さと困難さアンケート』
- ④ASSQ『自閉スペクトラム症スクリーニング』
- ⑤ADHD-RS-IV『ADHD評価尺度』
- ⑥DCDQ『発達性協調運動障害質問票』
- ⑦PSI-C『育児ストレスインデックス-子どもの側面』
- ⑧JSQP『子供の睡眠習慣質問票日本語版』
- ⑨CLASP『子どもの様子に関する観察シート』
- ⑩BDHQ3y『簡易型自記式食事歴法質問票3~5歳児用』

(教師または保育者記入)

- ①SDQ『子どもの強さと困難さアンケート』
- ②CLASP『子どもの様子に関する観察シート』
- ③TASP『保育・指導要録のための発達評価シート』

※二次健診

(面接調査)

- ①知能検査: WISC-IVまたは田中ビネー
- ②運動検査: MABC-2及びS-JMAP
- ③視線の測定: Gazefinder
- ④自閉傾向: PARS-TR短縮版
- ⑤発達障害構造化面接: DISCOアルゴリズム版
- ⑥既往症、家族歴: 保健師による問診
- ⑦臨床診断: 複数の小児科医及び精神科医が本人及び保護者に面談を行い、DSM-5を用いて診断
(質問紙調査)
- ①SRS-2『対人応答尺度』

- ②SP『感覚プロファイル』
- ③Conners3 (ADHDの診断および症状評価ツール)
- ④CBCL『子どもの行動チェックリスト』
- ⑤養育尺度
- ⑥BRIEF (実行機能の評価尺度)

3) 統計解析

3歳児健診、5歳児健診の二次健診での診断数と、調査数からハイリスクでありかつ診断不明な児を引いた数を母数として、有病率の推定を行った。また、3歳児健診、5歳児健診のスクリーニングに用いられた尺度の項目を独立変数とし、発達障害診断の有無を従属変数として重回帰分析を行った。

発達障害と社会適応の関連を調べるために、発達障害特性とTASP得点におけるROC分析を行った。さらに、性別と吃音症、チック症の社会適応の違いについて検討をするために、性別と社会適応について、吃音症とチック症のそれぞれで分散分析を行った。社会適応上の問題とチックと吃音の症状の関連を検討するために、TASPの下位尺度、指標と吃音症状の得点、チック症状の素点の相関分析を行った。

4) 倫理的配慮

研究計画は弘前大学大学院医学研究科倫理委員会に提出し、その承認後に研究を行った。
(承認番号2020-008)

2. 緘黙症調査

1) 対象者と実施時期

幼児から中学生は、協力者の中から本研究への協力が得られそうな方に、調査票 (ASEBA、SMQ-R等) を郵送する。本人から回答が得られにくいケースが多いことが想定されるため、中学生についても保護者からの回答とする。幼児の保護者46名、小中学生の保護者154名に調査票を発送予定である。

ただし新型コロナウイルス (COVID-19) の影響により2020年3月より全国の公立学校等が一斉休校になっていることを受け、調査票の発送を見合わせている。場面緘黙の症状は学校等の社会的状況において顕著に現れることから、全国の公立学校等が再開された後に発送を行う予定である。

高校生から成人は2019年度に高木研究室に相談等のあった方、及び研究者のネットワークを通じて協力の意志が確認できた方で、「家や安心できる状況では会話をすることができる」「学校や職場等の社会的な状況では(ほとんど/まったく) 話すことができない」「このような状態が1ヶ月以上続いている」に該当する方を対象とする。高校生から成人の場面緘黙当事者61名に調査票を発送予定である。ただし発送については同様に、学校や職場等における社会生活が再開された後に行う。

2) 調査方法

(緘黙症状の評価)

①SMQ-R (日本版場面緘黙質問票) 成人はSMQ-R大人用改変版を使用。

②緘黙症状以外の評価: 「学校での行動表出チェックリスト」 (かんもくネット, 2013) を参考に作成した評価シートを使用。成人についても項目を大人用に改変したものを使用。

(ASEBA)

幼児: CBCL1.5-5

小中学生: CBCL6-

高校生: YSR

成人: ASR

幼児~中学生は保護者が評価、高校生及び成人は本人評価とする。

3) 統計解析

緘黙症状の重症度と困り感について解析を行う。また、診断に有効な項目を症状で5項目程度抽出し、日常生活の困難さ5項目程度も含めて、20項目程度の簡便なチェックリストを作

成し、抽出した項目の妥当性等について検証を行う。

4) 研究計画は弘前大学大学院医学研究科倫理委員会に提出し、その承認後に研究を行った。
(承認番号2020-008)

C. 研究結果

1. 乳幼児調査

1) 1歳6カ月健診

160名に配布した調査用紙を2020年4月より順次回収を予定している。

2) 3歳児健診

①言語発達及び行動の調査

3歳児健診にて言語調査を追加した220名分は、アンケートを回収後、データの解析を行う。

②社会性及びコミュニケーションの早期発見ツールの開発

一次スクリーニングを行った1090名のうち、SRS-2が43点以上であったハイリスク児は129名であった。このうち、大学病院を受診したのは63名であった。54名が何らかの発達障害の診断基準を満たした(自閉スペクトラム症 37名、注意欠如多動症 19名、発達性協調運動症 17名、知的発達症 10名、境界知能 9名 ※併存障害含む)。SRS-2の65項目、SDQの20項目に対し、重回帰分析を行ったところ、SRS-2の12項目(社会的気づき1項目、社会的認知1項目、社会的コミュニケーション5項目、社会的動機付け2項目、こだわり行動3項目)、SDQの2項目(多動1項目、仲間関係1項目)が診断を有意に予測する項目として抽出された。

3) 5歳児健診

①医師の診断による推定有病率

5歳児健診における吃音症、チック症、緘黙症の有病率は現在解析中である。分担研究者の

稲垣氏の調査にて、5歳児における吃音症の推定有病率は保護者評定で0.4% (CI: 0.1-1.0)、教師評定で0.2% (CI: 0.0-0.7)、推定発症率は保護者評定で2.1% (CI: 1.3-3.2)、教師評定で3.0% (CI: 2.0-4.2)であった。チック症の推定有病率は、保護者評定で3.7% (CI: 2.6-5.0)、教師評定で7.0% (CI: 5.5-8.7%)であった。吃音症では、保護者評定の方が基準値をこえる児の割合が多く、チック症では教師評定の方が基準値をこえる児が多かった。また、吃音症では基準値を超えた15名のうち、10人は併存がなく、併存があった5名(33%)のうち4名が知的発達症または境界知能の併存であった。チック症については、基準値を超えた70名のうち、66名に併存症がなく、併存症があった4名(6%)全てに知的発達症または境界知能の併存があった。

②TASP及びCLASPを用いた吃音症状とチック症状と社会適応の比較

吃音症状とTASPの尺度との関連は、順応性 ($F(3, 466)=2.71, p<.05, \text{判定なし}>$ 教師のみ判定)、コミュニケーション ($F(3, 469)=15.48, p<.001, \text{判定なし}>$ 及び保護者のみ判定) $>$ 教師のみ判定 $>$ 保護者・教師両判定)、微細運動 ($F(3, 468)=2.98, p<.05, \text{判定なし}>$ 教師のみ判定)、粗大運動 ($F(3, 467)=5.18, p<.01, \text{判定なし}>$ 保護者・教師両判定)であった。特にコミュニケーションで教師のみ判定及び保護者・教師両判定の吃音群の適応度が低く、言葉の問題が把握されていた。また、粗大運動や順応性・微細運動で主に教師のみ判定の吃音群の適応度が低かった。加えて、内在化指標 ($F(3, 464)=4.94, p<.01, \text{判定なし}>$ 教師のみ判定) $>$ 保護者・教師両判定)、学業指標 ($F(3, 466)=5.76, p<.001, \text{判定なし}>$ 教師のみ判定) $>$ 保護者・教師両判定)、総合指標 ($F(3, 462)=2.95, p<.05, \text{判定なし}>$ 教師のみ判定)であり、内在化・学業指標で判定なしよりも教師のみ判定及び保護者・教師両判定群において適応度が有意に低か

った。

チック症状は、落ち着き ($F(2, 500)=28.36$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、注意力 ($F(2, 498)=25.33$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、社会性 ($F(2, 500)=34.59$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、順応性 ($F(2, 496)=18.44$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、コミュニケーション ($F(2, 500)=4.25$, $p<.05$ 、判定なし>教師のみ判定)、微細運動 ($F(2, 499)=3.76$, $p<.05$ 、判定なし>教師のみ判定)であった。落ち着き・注意力・社会性・順応性で教師のみ判定のチック群の適応度が判定なし及び保護者のみ判定群より有意に低く、行動・感情・対人関係などの問題は教師の方がより認識していた。加えて、外在化指標 ($F(3, 500)=21.61$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、内在化指標 ($F(3, 496)=14.32$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)、学業指標 ($F(3, 499)=14.21$, $p<.001$ 、判定なし>教師のみ判定)、総合指標 ($F(3, 494)=21.13$, $p<.001$ 、判定なし・保護者のみ判定>教師のみ判定)であり、外在化・内在化・学業指標などで判定なし群や保護者のみ判定群より教師のみ判定群の適応度が有意に低いことが示された。

TASP (教師) とCLASP (保護者・教師) の相関係数は、保護者評定とは有意な相関はあっても「弱い負の相関(-.388 - -.203)」までしかみられないが、教師評定とはDCDが「強い負の相関(-.732 - -.499)」、LDが「中程度の負の相関(-.689 - -.331)」、続いてチック・吃音の順で「弱い負の相関(-.435 - -.206)」が示された。

③CLASPのWeb版作成

弘前市5歳児健診一次スクリーニングWebシステムにCLASPを組み込み、2020年1月より保護者のWeb評価を開始した。

2. 緘黙症調査

幼児の保護者46名、小中学生の保護者154名、高校生から成人61名については、今後調査票を発送する。

D. 考察

推定有病率は、吃音で保護者評定では0.4%、保育士評定では0.2%で、チックは保護者評定が3.7%、保育士評定が7.0%であり、過去の報告からみると妥当な結果となった。吃音の推定発症率は保護者評定で2.1%、教師評定で3.0%であり、これらも妥当な結果といえる。CLASPによる調査では吃音症の33%、チック症の6%に併存障害が存在し、併存症としては知的発達症が最も多かった。幼児の段階では他の発達障害あるいは精神障害の合併は比較的少なく、併存障害は年齢が上がるにつれて、二次障害として発症する可能性が示された。

TASPは概ね2割の子どもが境界水準以上 (113名、22.2%) に該当し、ASD、ADHD、DCD、MR、LD傾向等の発達障害特性の把握に関して、総合的な一次スクリーニングツールとしても有用 (ROC = .864 - .933) である。教師評定では吃音症もチック症も社会適応度が症状のない子に比べ低いことが示唆されており、保護者に比べ教師で鋭敏に抽出しやすい可能性がある。吃音症と社会適応との関連においては、コミュニケーションにおいて社会適応に困難を生じやすく、吃音症のある児にとって心理的苦痛を感じている可能性が考えられる。また、チック症と社会適応に関しては、運動面以外の場面での社会不適応と弱いもしくは中程度の関連が認められ、チック症状の程度が社会生活上の不適応に影響を及ぼす、もしくは社会不適応上の問題がチック症状に影響を及ぼしている可能性が考えられる。吃音・チックは発達障害特性でも特異な症状で、TASP以外の独自の把握が必要であると考えられる。

3歳においてSRS-2及びSDQからコミュニケーションを含めた発達特性についてスクリーニングとして有用な14項目を抽出した。今後は別サンプルで検証を行い、妥当性を検証していく。また、1歳半、3歳におけるコミュニケーション障害、緘黙症についても同様に解析を進めていく。

E. 結論

吃音症とチック症は5歳においてある程度顕在化しており、CLASPのようなチェックシートにおいて見つけられていくことが明らかとなった。また、吃音症、チック症ともに社会適応に影響があり、発達面・心理面から適切な支援が必要であることが示唆された。3歳において発達障害を予測するための評価項目は抽出することができたが、吃音症やチック症の早期介入のためには、教師や保育者の評価を合わせたスクリーニングが必要である。次年度は調査の継続及び妥当性の検証とともに他のテストバッテリーとのさらなる解析を進めていく。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Wang G, Takahashi M, Wu R, Liu Z, Adachi M, Saito M, Nakamura K, Jiang F. Association between Sleep Disturbances and Emotional/Behavioral Problems in Chinese and Japanese Preschoolers. Behav Sleep Med. 2019 May 7:1-12.
- 2) Fujioka T, Tsuchiya KJ, Saito M, Hirano Y, Matsuo M, Kikuchi M, Maegaki Y, Choi D, Kato S, Yoshida T, Yoshimura Y, Ooba S, Mizuno Y, Takiguchi S, Matsuzaki H, Tomoda A, Shudo K, Ninomiya M, Katayama T, Kosaka H.

Developmental changes in attention to social information from childhood to adolescence in autism spectrum disorders: a comparative study. Mol Autism. 2020 Apr 9;11(1):24.

2. 学会発表

- 1) 斉藤まなぶ、北洋輔、大里絢子、三上美咲、小枝周平、三上珠希、稲垣真澄、中村和彦 就学前の発達性協調運動障害（DCD）早期発見のためのチェックリストと活用マニュアルの完成～顕在化しにくい発達障害を早期に抽出するアセスメントツールの開発研究から～ 第60回日本児童青年精神医学会 沖縄
- 2) Manabu Saito, Tomoya Hirota, Yui Sakamoto, Masaki Adachi, Michio Takahashi, Ayako Osato-Kaneda, Young Shin Kim, Bennett Leventhal, Amy Shui, Sumi Kato, Kazuhiko Nakamura Prevalence and Cumulative Incidence of Autism Spectrum Disorders and the Patterns of Co-occurring Neurodevelopmental Disorders in a Total Population Sample of 5-years-old children. The 10th Congress of The Asian Society for Child and Adolescent Psychiatry and Allied Professions (ASCAPAP), Chiangmai, Thailand 9-11, October 2019.
- 3) Saito, M, Aoki, T, Koeda, S, Mikami, M, Yoshida, K, Kaneda-Osato, A, Masuda, T, Sakamoto, Y, Mikami, T, Yamada, J, Tsuchiya, K, Katayama, T, and Nakamura, K Innovation of Eye tracking device for early detection of children with developmental coordination disorder 13th International Conference on Developmental

Coordination Disorder , Jyväskylä 6-8,
June, 2019

科学 特集 発達障害の 30 年 2019 年 4
月号 通巻 32 号

- 4) Ai Terui, Manabu Saito, Tomoya Hirota, Yui Sakamoto, Yuri Matsubara, Masaki Adachi, Michio Takahashi, Ayako Osato and Kazuhiko Nakamura Prevalence and Comorbidities of Autism Spectrum Disorder and Study of the Method of the Developmental Health Checkup in a Japanese Community-based Population Sample of Five-year-old Children The International Society for Autism Research (INSAR) , Montreal, Canada 1-4, May, 2019
- 5) Tomoya Hirota, Manabu Saito, Yui Sakamoto, Masaki Adachi, Michio Takahashi, Young Shin Kim, Bennett Leventhal, Amy Shui, Sumi Kato, Kazuhiko Nakamura Prevalence and Cumulative Incidence of Autism Spectrum Disorders in a Total Population Sample of 5-year-old children in Japan The International Society for Autism Research (INSAR) , Montreal, Canada 1-4, May, 2019
- 6) 齊藤まなぶ、北洋輔、稲垣真澄 就学前の DCD 早期発見のためのチェックリストの完成 第3回日本DCD学会 長崎市 2019年4月14日

G. 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. 実用新案登録

なし

3. その他

なし

3. 著書

- 1) Saito M, Miyahara M. The school lunch in Japan. Participation: Optimising Outcomes in Childhood-Onset Neurodisability. Mac Keith Press, London, 2020, 201-203.
- 2) 齊藤まなぶ・小枝周平・大里絢子・三上美咲・坂本由唯・三上珠希・中村和彦(共著) 発達性協調運動障害(DCD) . そだちの