

I. 総合研究報告

吃音、トゥレット、場面緘黙の実態把握と
支援のための調査研究

中村 和彦

厚生労働省科学研究費補助金（障害者政策総合研究事業）
総合研究報告書

吃音、トゥレット、場面緘黙の実態把握と支援のための
調査研究

研究代表者 中村和彦

国立大学法人弘前大学大学院医学研究科神経精神医学講座 教授

研究要旨

本研究では、「顕在化しにくい発達障害」であるトゥレット症、吃音症、場面緘黙症において、①実態把握をすること、②重症度指標と生活困難指標を明確化すること、③重症度及び生活困難度に関する有用な質問項目の選定と妥当性及び信頼性の検証、④支援機関で対応するための支援マニュアルを作成すること、を目的とした。

本調査から、既存のスクリーニングツールでは早期発見が困難であり、新たな尺度作成が必要であること、ASDをはじめとした他の発達障害などの併存症が少ないことがわかった。また、各年代により症状及び生活困難度の程度が異なることが明らかになった。チック症及びトゥレット症において重症度、生活困難指標の有用な項目を特定し、妥当性及び信頼性が確認された。さらに、各障害群における支援マニュアルを作成した。本研究成果により、トゥレット症、吃音症、場面緘黙症の方が抱える生活困難度及び重症度が明確になり、適切な支援につながりやすくなることが期待される。

稲垣 真澄（国立研究開発法人国立精神・神経医療研究センター・精神保健研究所知的・発達障害研究部・部長）

金生 由紀子（国立大学法人東京大学・医学部附属病院 こころの発達医学分野・准教授）

菊池 良和（国立大学法人九州大学・大学病院・助教）

原 由紀（北里大学・医療衛生学部リハビリテーション学科言語聴覚療法学専攻・准教授）

斉藤 まなぶ（国立大学法人弘前大学・大学院医学研究科・准教授）

した支援を提供することが必要とされている。自閉スペクトラム症（ASD）や注意欠如・多動症（ADHD）に比べ、成人期まで症状が残存する吃音症やトゥレット症候群、及び法の定義に含まれながら理解や対策が進んでいない場面緘黙症などは、早期発見や成人期に至るまでの支援は未だ不十分である。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)。8歳で吃音のある子は思春期にも症状が持続し(Howell, 2011)、吃音がない人たちと比べて社交不安障害のリスクが高い(菊池, 2017:研究分担者)。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

A. 研究目的

改正発達障害者支援法では、乳幼児早期から成人に至るまで、当事者と家族のニーズに対応

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おり、チックそのものよりもQOLへの影響が大きい（金生, 2017: 研究分担者）。さらに、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: 研究協力者）。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る。研究分担者の稲垣らは、吃音、チック、不器用、読み書きのチェックリスト、対応マニュアルを作成した。引き続き、各種発達障害に対する支援が必要である。

本研究においては、幼児期から成人期まで、吃音、トゥレット、場面緘黙をひとつの発達障害群ととらえ、各年代の実態を把握し、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第一の目的とした。第二の目的としては、重症度及び生活困難度を特定する有用な質問項目を選定すること、その妥当性及び信頼性を検証することである。さらに、各障害群が適切な支援につながるよう支援マニュアルを作成することを目的とした。

B. 研究方法

1. トウレット症の実態把握と支援のための調査研究（金生由紀子）

日本トゥレット協会（TSAJ）会員に 2019年10月に質問紙を送付して回答への協力を依頼した。また、東京大学医学部附属病院（以下、東大病院）に通院中の患者に 2019年10月から継続的に研究協力を依頼した。さらに、瀬川記念小児神経学クリニック、北新宿ガーデンクリニック、神奈川県立こども医療センター児童思春期精神科にも調査への協力を依頼した。質問紙の回収は2020年6月まで続けた。全員に対して、質問紙による調査を実施した。研究分担者の担当患者及び追加の調査が可能な質問紙調査の回答者に対しては、可能な範囲で半構造化面接による調査も同時に実施した。

面接評価では、チック重症度を測定するYale Global Tic Severity Scale (YGSS)、社会機能を測定するGlobal Assessment of Functioning (GAF) / The Children's Global Assessment Scale (CGAS)を使用した。また、質問紙では、チック重症度の尺度として自記式YGSS、チック及び密接に関連する強迫症状の重症度の尺度としてThe MOVES A Self-Rating Scale for Tourette's Syndrome (MOVES)、強迫症状の尺度として、Padua Inventory (PI) 短縮版（18歳以上のみ対象）、前駆症状の尺度としてPremonitory Urge for Tics Scale (PUTS)、精神的健康の尺度としてGHQ-28、チックへの対処の内容の尺度としてチックへの対処質問紙、チックと関連したQOLの尺度としてThe Gilles de la Tourette Syndrome-Quality of Life Scale (GTS-QOL)を使用し、その他基礎情報（汚言有無・生活の支障の程度など）を収集した。本人が18歳未満の場合には、保護者評定で、チックと関連したQOLの尺度としてThe Gilles de la Tourette Syndrome-Quality of Life Scale (GTS-QOL)、チックへの心理的負担の尺度として親の負担感尺度、親の精神的健康の尺度として、WHO-5、子どもの発達特性の尺度としてChild Behavior Checklist (CBCL)を使用し、その他基本情報（汚言有無・生活の支障の程度など）を収集した。

解析方法は以下の通り行った。GTS-QOL日本語版の妥当性、信頼性の検討をするために、先行研究（Cavanna et al., 2008）に準じて確認的因子分析を行い、関連する指標との相関関係を算出した。また、Cronbach's α を算出して信頼性した。年齢別、性別の特徴の検討を検討するために、GTS-QOLの各下位尺度得点及びCBCLの総合得点、内向的問題・外向的問題得点、各下位尺度得点について年齢別、性別に平均点の比較を行った。QOLと精神的健康に関連する要因の検討をするために、親子ペアでのデータ

取得がされている38名に限定して、GTS-QOLの合計得点及びGHQ-28得点を従属変数として、相関関係が確認された変数を独立変数に投入して、ステップワイズの重回帰分析を行った。

さらに、本調査の解析結果をもとに、幼児期、学童期（6～12歳）、青年期（13～18歳）、成人期に分けて、支援マニュアルを作成した。作成にあたっては主としてトゥレット症に関する経験豊富な分担研究班の成員で検討したが、可能な範囲で当事者・家族の意見も参考にした。

2. 吃音症の実態把握と支援のための調査研究 （原由紀・菊池良和）

令和2年2月より外来等において幼児期 22名、学童期 74名、思春期 101名、青年期 73名の計270名に調査を依頼した。分担研究者の原氏の調査結果と合わせて、幼児期 23名、学童期 43名、思春期 66名、青年期 48名の180名から回答を得た。

質問紙は、幼児期は日本語版Kiddy CAT 幼児用コミュニケーション態度テスト、ASEBA CBCL 1.5-5 保護者用、学童期はICFに基づく発話・コミュニケーション活動と参加の質問紙、ASEBA CBCL 6-18 保護者用、思春期はICFに基づく発話・コミュニケーション活動と参加の質問紙、YSR 11-18 本人用、青年期は吃音者の困難さを包括的に評価紙OASES-A、ASEBA ASR 18-59を使用した。また、面接評価が可能な対象者に関しては、適応行動を測定する半構造化面接式のVineland-II 適応行動尺度を実施した。

統計解析は、困り感を抽出するアセスメントツールの信頼性をCronbachの α 係数、妥当性をJMP 16を用いて解析した。

3. 場面緘黙症の実態把握と支援のための調査研究 （中村和彦、研究協力者：高木潤野）

当事者団体である言の葉の会、研究協力者に相談にきた方及びSNSを通じて研究協力に同意していただいた方を対象とした。2020年7月か

ら2020年8月にかけて、対象者に調査協力を依頼し、質問紙調査は260名に配布した。そのうち、133名から回答を得られた。回答者の内訳（男、女）は、幼児12名（2、10）、小学生61名（18、43）、中学生25名（13、12）、高校生以上35名（5、30）であった。

質問紙は、幼児期では保護者評定で、緘黙症状を測定するSMQ-R(A「幼稚園や学校」、B「家庭や家族」、C「社会的状況（学校の外）」の3つの状況で構成)、生活の困難度の尺度としてASEBA CBCL 1.5-5 保護者用、緘黙症状以外の評価を測定するためにかんもくネットが作成した「学校での行動表出チェックリスト」を参考に20項目からなる調査票を作成し、使用した。学童期は保護者評定で、SMQ-R、ASEBA CBCL 6-18 保護者用、「学校での行動表出チェックリスト」を参考に20項目からなる調査票を作成し、使用した。高校生は本人評定で、SMQ-R、発達特性を測定するYSR 11-18 本人用、「学校での行動表出チェックリスト」を参考に20項目からなる調査票を作成し、使用した。青年・成人期では、SMQ-Rの文言を一部改変したもの、ASEBA ASR 18-59本人用、「学校での行動表出チェックリスト」を参考に20項目からなる調査票を作成し、使用した。さらに、全ての対象者に対して、緘黙症状の変化について、「ある時期急激に改善した」「徐々に改善している」「徐々に悪化している」「ある時期急激に悪化した」「改善と悪化の波がある」「あまり変化はしていない」の中から回答を求めた。

4. 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（稲垣真澄、斉藤まなぶ）

調査対象は、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）参加者とした。

<1歳6ヶ月児健診>

2020年2月から3月に弘前市1歳6ヶ月児健診

に参加した160名の保護者に質問紙を配布し、27名分を回収（回収率13.5%：返信をもって同意）した。

（質問紙調査）

- ①言語調査（マッカーサー乳幼児言語発達質問紙「語と文法」）日本語版
- ②吃音・チック調査（CLASP一部改変）
- ③社会性調査（M-CHAT：Modified Checklist for Autism in Toddlers）
- ④行動調査（CBCL：Child Behavior Checklist）
- ⑤睡眠調査（JSQP：Japanese Sleep Questionnaire for preschooler）
- ⑥ICT（Information and Communication Technology）利用調査

<3歳児健診>

新規調査は2019年4月～2020年9月（2020年5～6月は健診中止）に弘前市3歳児健診に参加した児のうち、保護者の同意が得られた児1587名（男児837名、女児750名）とした。

（質問紙評価）

- ①対人応答性尺度（SRS-2：Social Responsiveness Scale Second Edition）
- ②子どもの強さと困難さアンケート（SDQ：Strength and Difficulties Questionnaire）
- ③感覚プロファイル短縮版（SP）
- ④子どもの行動チェックリスト（CBCL）
- ⑤言語発達調査（LDS：Language Development Survey）

<5歳児健診>

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。

（質問紙評価）

- ①SDQ『子どもの強さと困難さアンケート』
- ②ASSQ『自閉スペクトラム症スクリーニング』
- ③ADHD-RS-IV『ADHD評価尺度』
- ④DCDQ『発達性協調運動障害質問票』
- ⑤PSI-C『育児ストレスインデックス-子どもの側面』
- ⑥CLASP『子どもの様子に関する観察シート』（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』

※二次健診から解析に使用

（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臨床診断：複数の小児科医及び精神科医が本人診察及び保護者に面談を行い、DSM-5を用いて発達障害を診断

（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』

統計解析は、1歳6ヶ月健診はサンプル数が少ないため、カイ二乗検定及び相関分析（spearman）のみ行った。

3歳児健診では、スクリーニングに用いられた尺度同士の相関分析、2018年度調査の結果から社会的認知及びコミュニケーションの早期発見ツールの開発を行った。作成した3つの新基準を、2019年のコミュニティサンプルを用い、現行のスクリーニング基準（SRS-2 \geq 43）と3つの新基準の同等性を検証した。さらに、2019年度の結果を用いて、社会的認知及びコミュニケーションの早期発見ツールの検証を行った。

ROC分析およびカットオフ値によるクロス集計 (χ^2 検定)、相関分析を用いた。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において重回帰分析を行った。

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、吃音症、チック症の有病率、併存症の推定を行った。また、吃音症、チック症と各尺度との関係について相関分析を用いて分析した。さらにCLASPによるスクリーニングについて診断アウトカムを従属変数としてROC分析を行った。有意水準は $p < .05$ を有意とした。

(倫理面への配慮)

各研究分担者は研究計画をあらかじめ所属する施設における研究倫理審査委員会に提出し、その承認後に研究を行った。すなわち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)に基づいて研究対象者に対する人権擁護上の配慮、研究対象者に対する不利益の排除、危険性の排除やそれらについて説明と同意(インフォームド・コンセント)を受けて行った。

C. 研究結果

1. トウレット症の実態把握と支援のための調査研究 (金生由紀子)

全体で135名から質問紙の回答を得た。男性102名、女性33名であり、平均年齢が23.2歳(SD:11.9; 範囲: 7~56歳)であった。チック症状については、東大病院の患者42名で、YGTSSのチック症状得点が、平均20.5(SD:12.5; 範囲: 0~44)であった。

GTS-QOLの日本語版の確認的因子分析の結果、CFI=1.00, RMSEA=0.00であり、先行研究と同様の4因子構造(心理的、身体的、強迫性、認知的)が確認された。関連する指標との相関係数を算出したところ、強迫症状に関するPIとは

$r = 0.77$ 、精神的健康に関するGHQ-28とは $r = 0.71$ 、チック症状に関するYGTSSとは $r = 0.56$ (全て $p < .001$) という結果を得た。信頼性の検証のためにCronbach's α を算出したところ、0.96であった。

GTS-QOLのいずれの下位尺度得点も13~18歳よりも19歳以上の方が高く、また、女性の方が困難を高く報告する傾向があった。

発達特性に関しては、CBCLの得点において6~12歳及び13~18歳で、半数以上の総合得点が臨床域にあり、非常に大きな行動上の問題を有していることが明らかになった。また、13~18歳で女性の方が社会性の問題 ($p = 0.03$) 及び思考の問題 ($p = 0.04$) において高い得点を示した。

GTS-QOL、GHQ-28を目的変数とし、チックの重症度、チックへの対処満足度、CBCLの外向的問題、内向的問題、総合的問題、年齢を説明変数とするステップワイズの重回帰分析を行った。その結果、GTS-QOLに対してはCBCLの外向的問題 ($\beta = .95$)、GHQ-28に対してはCBCLの内向的問題 ($\beta = .65$) が有意な関連を示した。

上記の解析結果をもとに作成した支援マニュアルでは、各年齢帯に対して、「1) 想定される状態と評価の視点」を述べた上で、「2) 支援」として、(1) 支援の基本、(2) 本人への支援、(3) 家族への支援、(4) 関係者への支援をまとめた。但し、トウレット症の最悪時がDSM-5では10~12歳とされていることやメタ認知の発達などから、学童期の項目に、10歳以降での留意点を付記した。また、青年期の項目に、高等教育機関への進学や就労に向けての留意点も追加した。

支援マニュアルに対応する評価は、幼児期及び学童期(~12歳)と青年期及び成人期(13歳~)に大別して設定した。12歳までは保護者による評価として、チックについてはCheck List of obscure disabilities in Preschoolers (CLASP) (稲垣(編), 2020) のく

せに関する項目を、生活困難については、YGTSSの生活への支障についての質問項目を保護者評価用に改良して本調査において用いたものが、簡便でありかつ実態を表していると考えられたため活用することとした。13歳からは本人による評価として、チックについては自記式YGTSSを、生活困難についてはGTS-QOLを用いることとした。

2. 吃音症の実態把握と支援のための調査研究 (原由紀・菊池良和)

幼児期の困り感について7項目抽出した(例:スムーズに話ができない時に、途中で話すのをやめてしまうことがある)。学童・思春期の困り感5項目(例:授業で、教科書を声に出して読む)抽出した(信頼性 0.79)。青年期の困り感4項目(例:自分の吃音を心配・不安)抽出した(信頼性 0.81, 妥当性 $p < 0.01$)。

3. 場面緘黙症の実態把握と支援のための調査研究 (中村和彦、研究協力者:高木潤野)

場面緘黙の重症度は、A「幼稚園や学校」、B「家庭や家族」、C「社会的状況(学校の外)」の領域ごとの平均値により年齢群ごとに比較した。「社会的状況」を除き、中学生がもっとも低い傾向が見られた。また「園や学校」は幼児から中学生にかけて低下するが、高校生以降では数値が高くなる傾向が見られた。「社会的状況」は、高校生以降では高い傾向であった。反対に「家庭や家族」は年齢が上がると下がる傾向が見られた。

緘黙症状の変化について、「ある時期急激に改善した」及び「徐々に改善している」を「改善傾向」、「ある時期急激に悪化した」及び「徐々に悪化している」を「悪化傾向」としてまとめた。ただし、複数の項目に該当すると回答した者についてはそれぞれの項目に含めている。幼児は改善傾向7名(58.3%)、悪化傾向(25.0%)、改善と悪化の波がある3名(25.0%)、小学生は

改善傾向34名(55.7%)、悪化傾向13名(21.3%)、改善と悪化の波がある9名(14.8%)、中学生は改善傾向13名(52.0%)、悪化傾向12名(48.0%)、改善と悪化の波がある2名(8.0%)、高校生以降は改善傾向27名(77.1%)、悪化傾向9名(25.7%)、改善と悪化の波がある9名(25.7%)、あまり変化はしていない6名(17.1%)であった。いずれの年齢群においても「改善傾向」に該当する者が多い傾向が見られ、中でも高校生以降が最も多かった。一方「悪化傾向」の者も全ての群で20%以上存在し、中学生では約半数を占めていることが分かった。

CBCLでは、いずれの年齢群においても「全問題尺度」の平均値標準値データの平均値よりも4標準偏差以上高い結果が示された。内向尺度では、幼児から高校生において、得点の平均が標準値データの平均値より2標準偏差以上高かった。外向尺度については標準値データの平均値よりは高いものの、1標準偏差の範囲内であった。

緘黙症状以外の行動の問題について、各年齢群で各項目の平均値を比較した。その結果、学校・職場の「⑤注目される状況で、動作を行う」「⑥休憩時間に、移動する、好きなことをするなどの動作を行う」の得点がいずれの年齢群においても低く、困難度が高いことがわかった。また、家庭内においても、「⑩家庭内で、荷物の受け取りや来訪者への対応などを行う」「⑪家庭内で、家族以外に電話をしたり、電話に出たりする」はいずれの年齢群においても得点が低く、困難度が高い傾向が見られた。また、「⑮通勤・通学以外で外出する(外出先で移動する)」や「⑳外出先で、食事をとる」といった年齢が上がるにつれて困難度が増加する項目があることも明らかになった。

4. 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 (稲垣真澄、斉藤まなぶ)

1) 1歳6か月健診

①言語調査

平均月齢19ヶ月で、平均表出語彙は86語(3-346)であった。吃音とチックの頻度との関連はなかった。動物の名前、食べ物と飲み物、体の部分、人々、日課とあいさつ、動作語の5位で平均5つ以上習得していた一方で、11%に有意語がなかった。

②吃音・チック調査

3.7%の児に繰り返しの吃音がしばしばある、7.4%に引き伸ばしの吃音がときどきある、3.7%にブロックの吃音のごくまれにあるの回答だった。しかしながら、いずれの児も半年以上、症状が継続していなかった。チックは、運動チックでは3.7%の児に顔や頭のチックがしばしばある、11.1%に首、肩、胴のチックがしばしばある、あるいはときどきある、7.4%に腕、手、足のチックがときどきあるの回答だった。音声チックでは7.4%の児が音チックはときどきある、7.4%で声チックがしばしばある、あるいはときどきある、の回答だった。

③社会性調査

18.5%の児が社会性の問題ありの基準を満たしたが、表出言語数と社会性には有意な関連はなかった。

④行動調査

22.2%が臨床域の行動上の問題を抱えていた。しかし、語彙数と行動の問題に有意な関連はなかった。吃音・チックの頻度と行動の問題の相関分析では、吃音が半年以上続いた場合にはCBCLの注意の問題と負の関連が見られたのみで、音声チックでは、身体愁訴、睡眠の問題、その他、内向性と小から中程度の関連が見られた。また、運動チックでは、情緒反応、身体愁訴、内向性において小から中程度の関連が見られた。

2) 3歳児健診

①社会性及びコミュニケーション障害の早期発見ツールの検証

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、54名が何らかの発達障害の診断基準を満たした(ASD37名、ADHD19名、DCD17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、重回帰分析を行い、3つの基準を算出した。SRS-2の12項目(社会的気づき1項目、社会的認知1項目、対人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。ROC分析では3基準とも良好なAUCが得られた。現行カットオフ以上の取りこぼしが最も少なく、かつ現行の1%対象人数を減らせるのは新基準1カットオフ値11と判断した。新基準1co \geq 11点ではリスク児となる割合は11.4%(感度82.8%、特異度96.8%)であった。

3) 5歳児健診

①吃音症とチック症の推定有病率

5才児1055名(男児562名、女児493名)、平均月齢61か月にCLASPを用いて吃音症とチック症の有病率を推定した。CLASP吃音(保護者評定)は0.7%、CLASP吃音(教師評定)は1.2%、CLASPチック(保護者評定)は5.4%、CLASPチック(教師評定)は6.8%であり、教師評定の方がやや有病率が高めであった。

二次健診受診者は130名(男児88名、女児42名)、平均月齢は64か月だった。発達判定では、問題なし7名、要観察28名、要支援95名であった。吃音とチックは全員にチェックシートを用いた問診と観察を行った。吃音症は、男児1.42%、女児0.41%、計0.95%、チック症は、

男児2.85%、女児1.42%、計2.18%、重複している児は、男児0.18%、女児0.20%、計0.19%であった。

また、吃音の併存診断は、ASD 40%、ADHD 50%、DCD 40%、ID 10%、チック 20%であり、ASD、ADHD、DCDとの併存が4~5割みられた。チックの併存診断は、ASD 30.4%、ADHD 43.5%、DCD 26.1%、ID 8.7%、吃音 8.7%であり、ASD、ADHD、DCDとの併存が2~4割みられた。

②CLASPと他尺度との関係

吃音はチックよりも他の尺度との関連がやや少なかった。ASDやADHD、SP感覚特性尺度との弱い正の相関がみられた。

CLASP保護者評定とTASP（教師評定）は、関連はみられなかったが、教師評定同士だと、吃音は部分的な弱い負の相関、チックは広く中程度前後の負の相関が示された。CLASP保護者評定とは、吃音（話し方）で「情動反応、注意の問題、攻撃的行動、その他の問題」との関連、くせ（チック）で「情動反応、睡眠の問題、その他の問題」との関連がみられた。

CLASPによるスクリーニングは検出困難であり、吃音（保護者7・教師13）では、感度0、特異度99.3であった。チック（保護者49・教師70）では、感度.471、特異度.951であった（保護者評定の場合）。

③育児ストレスとの関連

ASD症状、ADHD症状及び「顕在化しにくい発達障害」と育児ストレスの関連を検証したところ、ADHD症状（ $\beta=1.16$, $p<.001$ ）とASD症状（ $\beta=.92$, $p=0.01$ ）には育児ストレスとの関連が見られ、チック症状、吃音症状、SLD症状、DCD 吃音症状とTASPの尺度との関連は、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が低か

った。加えて、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・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・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。

D. 考察

1. トウレット症の実態把握と支援のための調査研究（金生由紀子）

本調査研究は、135名という我が国としては多数のトウレット症患者の実態について多側面からの検討を可能にしたこと自体が有意義であると考えられる。

GTS-QOL日本語版の妥当性、信頼性を検証を行った結果、トウレット症という疾患に特異的なQOLを多面的に評価することによって生活困難度を把握することが可能になった。先行研究と同様の方法で検証を行ったにもかかわらず、本研究ではチック症状は重症ではないにもかかわらずGTS-QOL得点が高い傾向にあり、QOLが低かった。先行研究と比較して、我が国のトウレット症患者がよりQOLが低くなる可能性があり、支援のためにもさらなる検討が必要である。

CBCLの総合的問題得点が臨床域の者が6~18歳で半数以上であったことは、トウレット症で

併発症状が高率に認められるという従来の知見と一致している。

思春期以降の女性で男性よりもCBCLの社会性の問題及び思考の問題が高い傾向を認めた。トゥレット症表現型を潜在クラス分析で検討した先行研究では、強迫観念/強迫行為、恐怖症、パニック発作を示した女性関連のクラスを認めたという報告がある (Rodgers et al., 2014)。本研究で使用したCBCLの思考の問題には強迫症状に関する項目も含まれているため、本研究においても女性の社会性の問題及び思考の問題が高い結果が得られたと考えられる。

GTS-QOLに対して重回帰分析でCBCLの外向的問題が関連したことは、トゥレット症でチック症状よりも併発症状が生活に影響を与えることが多いという従来の知見に対応する。

支援マニュアル及びそれに対応する評価については、本調査結果や既存の資料を参考にして年齢別に作成・整備したことの意義はあると考える。

2. 吃音症の実態把握と支援のための調査研究 (原由紀・菊池良和)

吃音症の困り感は幼児期、学童期、思春期、青年期で困る場面が変化していく。吃音当事者の困り感を支援していくためには、年代ごとの社会的障壁を把握している必要があるだろう。

3. 場面緘黙症の実態把握と支援のための調査研究 (中村和彦、研究協力者：高木潤野)

緘黙症状については、年代ごとに症状が異なっている傾向が明らかになった。SMQ-Rの得点では「園や学校」は幼児から中学生にかけて低下するが、高校生以降では数値が高くなる傾向が見られた。また症状の変化については、全体では「改善傾向」に該当する者が多い一方で、中学生では「悪化傾向」の者も半数程度存在した。このことから、本研究で対象とした場面緘黙児者の中では、中学生の緘黙症状が比較的

い傾向が見られたと言える。この理由として、幼児期や小学生で改善傾向を示す比較的軽少な者は中学校入学以前に緘黙症状が改善する一方で、緘黙症状が比較的重い者が中学生まで残る可能性が考えられる。

生活の困難さについては、いずれの年齢群においても「全問題尺度」及び「内向尺度」において困難度が高い傾向が明らかになった。特に「内向尺度」については、ほぼ全ての年齢群で得点の平均が標準値データの平均値より2標準偏差以上高かった。内向尺度は「不安/抑うつ」、「引きこもり/抑うつ」、「身体愁訴」の項目で構成されており、場面緘黙当事者の多くは緘黙症状以外の内向的な問題を抱えていることが明らかになった。場面緘黙当事者への支援にあたっては、支援ニーズが緘黙症状のみではないことに留意する必要性が指摘できる。

場面緘黙症の人たちにとって日常生活における具体的な困難とされる場面として、学校・職場における「⑤注目される状況で、動作を行う」「⑥休憩時間に、移動する、好きなことをするなどの動作を行う」であることがわかった。また、社会的状況だけでなく、家庭内においても困難が見られることが明らかになった。さらに、「⑮通勤・通学以外で外出する (外出先で移動する)」や「⑳外出先で、食事をとる」のように年齢が上がるにつれて困難度が増加する場面があることも明らかになった。

以上のことから、各年代における生活困難感には差があり、それぞれのニーズに応じた支援体制の整備を進めていく必要性を裏付ける結果となった。

4. 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 (稲垣真澄・斉藤まなぶ)

月齢19ヶ月はすでに平均86語の単語を理解しており、4~7%に吃音、7~11%にチックの症状があることが明らかになった。チックも含

め、自然軽快が多いため、発症時期と予後については今後も調査を要する。また、吃音やチックが行動の問題や睡眠の問題と関連がみられたが、これは併存するASDやADHDなどの発達障害の症状と関連している可能性がある。

3歳向けに作成されたコミュニケーション障害の新尺度は、この社会的コミュニケーションに関する質問を5つ含んでおり、カットオフ値を11点とすれば、現行のSRS-2のカットオフ値（弘前市では43点）と同等（感度82.8%、特異度96.8%）と判断できる。弘前市では2021年度より新尺度を用いて、スクリーニングを行っていく。

5歳児の吃音とチックの有病率は、稲垣らが報告したものとほぼ同値であった。CLASPでは症状のある児を捉えやすいと考える。一方、ASDやADHDの早期発見が主体の発達健診のシステムでは、吃音やチックのある児の約半数二次健診を受診するため、取りこぼしが生じていると考える。また、CLASPの調査と二次健診の時期は3~4ヶ月のタイムラグがあり、自然軽快した可能性もあり、スクリーニングと二次健診での診断に相違が生じたと考える。吃音やチック頻度と問題行動などは関連があった。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。

吃音及びチック症状の気づきでは、保護者より園での気づきが多い可能性が示唆された。

さらに、各発達障害の症状と育児ストレスの関連では、吃音症状とチック症状において有意な結果は認められなかった。養育者が吃音、チックそれぞれの症状についてストレスを感じにくく、子どもたちの困り感に気づきにくいことが考えられる。

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。

E. 結論

吃音症、チック症、トゥレット症、場面緘黙症の実態把握調査を行った。乳幼児期の調査から、顕在化しにくい発達障害すなわち吃音症、チック症、トゥレット症、場面緘黙症のアセスメントに関して、既存のスクリーニングツールでは早期発見の難しさが示唆された一方で、5歳児時点ではCLASPによる早期スクリーニングが可能であることが明らかになった。また、各年代により症状及び生活困難度の程度が異なることが明らかになった。これらのことから、障害の症状だけでなく、年齢や性別、社会的状況などを考慮した治療あるいは支援の必要性が示唆された。

また、得られたデータを解析した結果、チック症及びトゥレット症において、生活困難指標、重症度指標に関する有用な項目を特定し、妥当性及び信頼性が確認された。さらに、解析結果及び臨床的知見をもとに、各障害群における支援マニュアルを作成した。本研究で作成した質問紙及びマニュアルを活用することで、顕在化しにくい発達障害であるトゥレット症、吃音症、場面緘黙症の方の生活困難度及び重症度が明

確になり、より適切な支援につながることを期待される。

F. 健康危険情報

なし

G. 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) Yoshida S, Adachi M, Takahashi M, Takanyanagi N, Yasuda S, Osada H, Nakamura K. The factor structure and construct validity of the parent-reported Inventory of Callous-Unemotional Traits among school-aged children and adolescents. *PLoS One.* 2019, 14(8): e0221046.
- 3) Hirota T, Adachi M, Takahashi M, Nakamura K. Cross-cultural adaptation and psychometric properties of the Social Capital Questionnaire for Adolescent Students among preadolescents and adolescents in Japan. *Psychiatry Clin Neurosci.* 2019, 73(9):601-602
- 4) 中村 和彦. 【成人期発達障害の治療-現状と今後の課題】ASDの治療 薬物療法の役割(解説/特集), *精神科*, 2019, 35巻3号:291-295.
- 5) 中村 和彦. 【発達障害～適切な支援のための医療とは～】発達障害の薬物治療の現在(併存症も含む)(解説/特集), *Pharma Medica.* 2019, 37巻8号: 13-20.
- 6) 中村和彦、松原侑里、坂本由唯. ADHD(注意欠如多動性障害)の臨床症状と診断, 診断と治療, 2019, Vol.107 No.11: 1345-1353.
- 7) 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-year-old children. *Molecular Autism*, 2020, 11:35,
- 8) Tanaka M, Saito M, Takahashi M, Adachi M, Nakamura K. Interformat Reliability of Web-Based Parent-Rated Questionnaires Assessing for Neurodevelopmental Disorders among Preschoolers: A Community Developmental Health Check-up Setting Study. *JMIR Pediatr Parent.* 2021, 4(1):e20172.
- 9) Sakamoto Y, Shimoyama S, Furukawa T, Adachi M, Takahashi M, Mikami T, Kuribayashi M, Osato A, D Tsushima, Saito M, Ueno S, Nakamura K. Copy Number Variations in Japanese Children with Autism Spectrum Disorder. *Psychiatric Genetics.* 2021, 31(3):79-87.
- 10) Manabu Saito, Kazuhiko Nakamura, Kazuyoshi Hirota Concerns for Labor Analgesia and Autism Spectrum Disorders. *Journal of Anesthesia*, 2021,35(2):319-320.
- 11) Misaki Mikami, Tomoya Hirota,

Michio Takahashi, Masaki Adachi, Manabu Saito, Shuhei Koeda, Kazutaka Yoshida, Yui Sakamoto, Sumi Kato, Kazuhiko Nakamura, Junko Yamada. Atypical Sensory Processing Profiles and Their Associations With Motor Problems In Preschoolers With Developmental Coordination Disorder. *Child Psychiatry & Human Development*, 2021, 52(2):311-320.

2. 学会発表

- 1) 齊藤まなぶ、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 2019年12月
- 2) 中村和彦、「5歳児発達健診と学校コホートの試み」第46回日本脳科学会 シンポジウム 滋賀2019年11月
- 3) 中村和彦、特別講演「注意欠如/多動性障害の診断と治療について」八戸市精神科医科学術講演会、2019年10月
- 4) 中村和彦、特別講演「5歳児発達検診、学校コホートの試み」第89回日本心身医学会東北地方会2019年8月
- 5) 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.

- 6) 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
- 7) 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
- 8) 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
- 9) M. Adachi, M. Takahashi, T. Hirota, N. Takayanagi, S. Sayura, Y. Sakamoto, M. Saito and K. Nakamura. Suicidality in Autism Spectrum Disorder Comorbid with ADHD Symptoms in a Non-Clinical School-Aged Population. The International Society for Autism Research (INSAR) , Montreal, Canada 1-4, May, 2019
- 10) Y. Matsubara, M. Takahashi, S. Ono and K. Nakamura. Reduced Regional Gray Matter Volume in the Frontal Lobe May be the Neural Basis Underlying Atypical Sensory Processing in Autism Spectrum Disorder. The International Society for Autism Research (INSAR) , Montreal, Canada 1-4, May, 2019.
- 11) M. Takahashi, Y. Matsubara, K. Nakamura and S. Ono. The White Matter Microstructure of Basal Ganglia Related Atypical Sensory Processing in ASD. The International Society for Autism Research (INSAR) , Montreal, Canada 1-4, May, 2019.
- 12) Kazuhiko Nakamura. Gender Difference of Gaze Fixation Patterns in 5-year-old Children The Usefulness in Early Detection of Girls with Autism Spectrum Disorder. 58th American College of Neuropsychopharmacology (ACNP) Orlando, Florida, USA. 9, Dec 2019.
- 13) 齊藤まなぶ、大里絢子、吉田和貴、中村和彦 日本小児神経学会シンポジウム『顕在化しにくい発達障害の早期発見と支援』話題提供者4：「発達性協調運動症の早期発見と支援」 2020年8月日本小児神経学会, WEB開催
- 14) Saito Manabu, Ninomiya Masaru, Hakoshima Shuji, Tsuchiya Kenji, Osato Kaneda Ayako Mikami Tamaki, Sakamoto Yui , Yoshida Kazutaka , Terui Ai, Nakamura Kazuhiko. Creation of eye tracking pattern algorithm for 5 year old ASD screening. 21-23 August 2020 NPBPPP web, Japan
- 15) 齊藤まなぶ、田中勝則、大里絢子、足立匡基、坂本由唯、三上珠希、照井藍、鈴木裕幸、新川広樹、高橋芳雄、中村和彦 5歳児発達健診でのwebスクリーニングシステムの活用 2020年9月日本小児神経学会WEB開催
- 16) 齊藤まなぶ、田中勝則、山村靖彦、和久田学、大里絢子、足立匡基、三上珠希、坂本由唯、照井藍、森裕幸、新川広樹、高橋芳雄、栗林理人、中村和彦 5歳児発達健診Webスクリーニングシステム(ここあぼ®)の完成 2020年10月 第116回日本精神神経学会学術集会WEB開催
- 17) 齊藤まなぶ、坂本由唯、吉田和貴、三上珠希、大里絢子、照井藍、中村和彦 視線追跡装置 Gazefinder を用いた5歳児の ASD スクリーニングアルゴリズムの開発 2020年11月 日本児童青年精神医学会WEB開催
- 18) M Saito, M Takahashi, A Terui, Y Sakamoto, M Adachi, H Shinkawa, H Mori, K Nakamura. Prevalence of sleep problems in Japanese preschoolers and children with developmental disabilities. 2020 Dec IACAPAP WEB

- 1) 中村和彦, 小児の注意欠如・多動症 (ADHD), 今日の治療指針2020年度版, 医学書院, 東京, 2020, 1520-1522.

H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む。)

なし

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他

なし