

令和2年度 厚生労働科学研究費補助金 障害者政策総合研究事業
「障害児支援の質の向上を図るための各種支援プログラムの効果検証のための研究」
分担研究報告書

自閉症スペクトラムへの応用行動分析に基づく早期介入の課題

研究分担者 井上 雅彦 (鳥取大学医学系研究科臨床心理学講座)

【研究要旨】

自閉症スペクトラムのリスクがある子どもたちを適切に特定し、効果的な早期介入プログラムを提供することは、近年の自閉症スペクトラム支援において大きな課題であり続けている。本論では米国における応用行動分析に基づいた早期介入研究を概観し、我が国における自閉症スペクトラムの早期介入システムの課題について考察した。

A. はじめに

自閉症スペクトラム(以下 ASD) の有病率は、米国 CDC の 2016 年の調査では 8 歳の子ども 1,000 人あたり 18.5 (54 人に 1 人) であり (Maenner et al., 2020) 増加傾向にある。米国では、出生から 3 歳までの発達の遅れもしくは障害がある子どもは、個別障害者教育法 (IDEA) のパート C により連邦政府が義務付ける州の資金による発達支援サービスを受けることができる。米国における早期介入のシステムや開始年齢については州によって差はあるが、ASD の場合、ほとんどの子どもたちは、他の発達上の懸念から、診断評価の前になんらかの介入を開始している (Monteiro et al., 2016) といわれている。確定診断後は ASD に特化した早期介入プログラムに移行することが必要となる。確定診断のために、支援を提供するプロバイダーが ASD の診断援助のためのスクリーニングを実施している地域もある (Eisenhower, et al., 2021; Rotholz, et al., 2017)。特に最近米国では有色人種や第一言語

が英語以外の人々の診断遅滞による格差を是正するため、プロバイダーを訓練し、多段階システムによる ASD スクリーニングシステム (Eisenhower, et al., 2021) が検討されてきている。

我が国においては発達障害者支援法によって早期からの療育が推奨され、高い受診率がある 1 歳半健診に ASD をスクリーニングするためのツールを組み込む地域も増えてきているが、チェックアップ後の早期の ASD 診断から早期介入という流れが確立している地域は少ない。制度的に児童発達支援事業の拡大に伴って早期療育の提供が可能になってきているが、3 歳以前の ASD に特化した早期介入は実施機関が限定されシステムが確立しているとは言えない現状にある。

本論では主として応用行動分析を中心とした ASD の早期介入研究の動向について概観し、わが国における早期介入システムの課題について述べる。

B. 本論

米国における自閉症スペクトラムの早期介入研究の経緯

Centers for Medicare and Medicaid Services (CMS)は 2014 年 7 月に Clarification of Medicaid Coverage of Services to Children with Autism (自閉症の子どもへのサービスのメディケイド適用範囲の明確化) という告示を発行し、応用行動分析 (以下 ABA) は、メディケイドの早期定期スクリーニング、診断、および治療の規定に基づく 21 歳未満の患者に対する給付として提供されることとなっている。

ABA による ASD の早期介入は Lovaas (1987) によって大きなインパクトを与えることとなった。Lovaas (1987) は、介入群として 2、3 歳の自閉症児 19 名に対して週平均 40 時間の療育を 2 年以上にわたって実施した。また統制群として週 10 時間以下の治療を受ける群 (19 名) と別の機関で処遇される群 (21 名) を設定した。その結果、7 歳時点での介入群の平均 IQ83 に対して統制群の IQ 値はそれぞれ 52、58 であり著しい改善が示された。また介入群の 12 名は小学校入学前に知的に正常域に達し、さらにそのうち 9 名は普通学級へ編入したことが報告された。

またその後 McEachin et al. (1993) は、Lovaas (1987) の研究に参加した 9 名の子どものうち 8 名は 13 歳になった時点のフォローアップにおいて知能検査と適応行動尺度で同年代の定型発達児と区別がつかなかっただけでなく普通クラスでサポートなしで過ごしていることを報告している。Lovaas (1987) によって報告された研究結果は、当時の自閉症介入研究の中では先例のないものであったため、発表以来、多くの論争を生んだ。特に Lovaas (1987) が、自閉症からの「最良の結果」(best outcome) や「回復」(recovery)

という考えを紹介したことも焦点の一つとなった。

Lovaas & Smith (1989) は、彼らの一連の研究結果から、「多くの ASD 児は、ある環境下で他の人間と同じくらい多くのことを学習することが可能であり、その困難は逸脱した神経系と平均的または典型的な環境との間のミスマッチであると見なすことができる。」と主張し、ASD にとって個々の行動を効果的に学習可能にする環境として、1 対 1 の集中的な DTT の必要性を指摘した。Lovaas (1987) 以降の EIBI は、無作為化試験も含め、様々な研究機関や研究者によって、指導時間数や比較群を変えた多くの追試研究が行われてきた。様々なタイプに分化・拡大した EIBI に対する統一的な定義として Maurice, Green, & Foxx, (2001) は、(a) 行動分析の原理に基づいて体系的に実施される治療アプローチであること、(b) できるだけ早期に、好ましくは 3 歳までに適用されること、(c) 般化手続き(他の人や場面で自発できるための指導手続き)の前に 1 対 1 の個別指導形式が提供されること、(d) 個別化され、かつ包括化された多くのスキルを対象とすること、(e) 発達に基づいた階層的なスキルが組み込まれていること、(f) 親の教育サービスと連携して使用されていること、などをあげている。

Lovaas (1987) 以後の代表的な研究である Sallows & Graupner (2005) では、ASD のある児 24 名 (35~37 ヶ月) をクリニック主導群 (n=13) と親主導群 (n=10) に分け、先の Lovaas による UCLA モデルの治療に加えて PRT (Pivotal Response Training)、絵カードを使用した拡張コミュニケーション、仲間との社会的遊び、好きな活動の参加、包括的な就学前授業への参加などを取り入れた治療を二年間実施した。クリニック主導群は 1 年目に週平均 39 時間、2 年目は 37 時間

の治療を、さらに 6～10 時間/週のシニアセラピストのスーパービジョンを受けた。親主導群は1年目で平均 32 時間、2年目で 31 時間の治療を、加えて 6 時間/月のスーパービジョンを受けた。ポストテスト時の測定値には両群に統計的に有意な差はなく、両群あわせて 23 人中 11 人 (48% クリニック主導群 5 人, 親主導群 6 人) が、IQ 平均が 55 から 104 に増加した。これら高成績を示した Rapid learners は、全 IQ、言語性 IQ、動作性 IQ、受容言語、表出言語、Vineland、ADI-R において標準域に達し、フォローアップでも通常教育で支障なく教育を受けていることが報告された。

ASD の早期療育に対するレビュー研究 (Rogers,& Vismara,2008;Smith,& Iadarola,2015)においても、EIBI は「十分に確立された治療」とされ、最近のメタ分析研究 (Makrygianni,Gena,Katoudi,& Galanis, 2018)においても、EIBI による IQ とコミュニケーションの改善について高い有効性が指摘されている。

しかしながら EIBI においてもすべての子どもに著しい効果をもたらすわけではない。先の Sallows&Graupner (2005)において、低 IQ (44 未満) および言語の欠如 (36 ヶ月間の単語なし) であった Moderate Learners とされた 12 名は、事前・事後の各尺度では有意な改善はほとんど見られなかった。重度の知的障害を伴う ASD 児における音声言語の獲得の困難性は、それ以前の EIBI 研究からも指摘されている。ASD のタイプによっては EIBI によって音声言語の獲得だけを目指すのではなく、同じく応用行動分析をベースにしたプログラムである PECS (Picture Exchange Communication System; Bondy & Frost,1994) のような補助代替コミュニケーション (AAC:Augmentative and Alternative Communication)

の指導プログラムを併用することが重要な選択肢と考えられる。

EIBI の費用は、年間 40,000 ドルから 60,000 ドルの範囲とされており、ASD の子どもにかかる社会的費用は 2011 年に 90 億ドルを超えると推定されている (Amendah et al., 2011)。したがって、より早期に ASD のリスクがある子どもたちを適切に特定し、効果的な早期介入プログラムを提供することは、近年の ASD 支援において大きな課題であり続けている。

自然的発達行動介入

ASD の二歳時点での診断技術の向上 (Lord, et. al., 2006) などによって、さらに早期からの療育開始が期待されるようになってきた。この中で、新たな行動論的アプローチとして、自然的発達行動介入 (NDBI : Naturalistic Developmental Behavioral Interventions) に関する研究が進められてきている。

NDBI の源流は、かつて般化促進のために開発された日常場面での言語指導技法である機会利用型指導法 (IT; Incidental Teaching) と、発達心理学から得られた前言語発達に関する知見の融合にある (Schreibman et al., 2015)。主な NDBI として、基軸行動発達支援法 (PRT : Pivotal Response Training)、早期介入デンバーモデル (ESDM:Early Start Denver Model)、JASPER (Joint Attention, Symbolic Play, Engagement and Regulation)、などがあげられる。

前述のように NDBI の特徴は、乳幼児期の ASD 児における視線や注意や情動の共有といった前言語的行動に関する発達科学の知見を取り入れたことにある。具体的には大人との適切なかわりの中でのアイコンタクトや模倣や自発的なコミュニケーション行動を強化することで、その後の言語発達全体の促進と、ASD 症状の顕在化や重篤

化の抑制を目的としている。

Smith, & Iadarola, (2015)によるレビュー研究では、NDBI を含むDSP (developmental social-pragmatic) によるエビデンスレベルの向上が指摘されている。

地域による効果研究

米国では2002年10月から2004年5月にかけて、国立精神衛生研究所(NIMH)の支援を受けたワーキンググループが、ASDへの心理社会的介入に関する調査・研究の指針を作成した。この指針をもとにSmith, et. al (2007)は、治療効果を科学的に検証するためには統制された研究によって特定の治療法の有効性が実証された後、をすすめるべきであるとした。「efficacy study」という用語は、厳密な実験統制下もしくは実験室タイプの設定で実施される研究に対して使用される。これに対して「effectiveness study」という用語は、地域の臨床現場で働くスタッフが行う幅広いクライアントへのサービス提供による効果研究を指す(Howard, Moras, Brill, Martinovich, & Lutz, 1996)。例えばEIBIに関する地域社会での実証研究の一つとしてEldevik, Hastings, Jahr, & Hughes(2011)は、平均年齢3.5歳のASD診断のある児を対象に、通常の治療を受けている12人の対照群と、13.6時間の1対1のEIBIを2年間受けた31人を比較した結果、EIBI群の子どもは、フォローアップ時にIQおよび適応機能の両方で有意に高いスコアを得た。

現在EIBIだけでなくNDBIにおいても同様に地域社会における実証研究が進められている。現在の研究動向としては、早期の診断から早期療育研究へ、DTTによるEIBIから遊びや日常的なかかわり場面を利用したNDBIへ、クリニックベースから家庭や園学校ベースでの指導へと展開してきている。NDBIにおいてもASD児が低年齢で不

適応行動のパターンを確立する可能性が低い場合において大きな有効性を示す(Schreibman et. al., 2015)と指摘されている。今後、2歳代での介入研究の増加とともにASDのタイプ別の効果、長期的フォローアップ研究などが求められる。

我が国におけるASDに関する早期介入の課題

前述のようにASDの早期療育においては、ABAに関連したアプローチが高いエビデンスを示すことが多くの研究によって示されてきた。しかし日本のようにABAの専門家が不足している地域では、ABAによる療育を受けることが困難であったり、受けることができたとしても低強度(療育時間や回数が少なく制限される)であったり、養育者の経済的コストが高くなる傾向にある。

Haraguchi et. al (2020)は、低強度の行動的介入(週平均5.5時間)または非ABAの介入を受けたASDのある就学前の子どもたちの行動変化を、日本の地域で1年間にわたって実施、追跡し、比較した。結果、地域で介入を受けている子どもたちは、言語と社会性発達の改善を示した。特に低強度のABAを受けた子どもたちの改善の程度は、非ABAの介入を受けた子どもたちよりも言語と社会性発達において統計的に有意であった。またこれらの改善は、特に1対1の介入の合計の強度に関連していた。また他のアウトカム指標の改善の程度にグループ差はみられなかった。

この結果は、ASDのある就学前の子どもたちを対象とした地域ベースの療育において、低強度のABAが言語・社会性発達促進に有益であることを示している。米国のような集中介入は困難であっても、支援提供施設での低強度ABA療育に加えて、ペアレント・トレーニングや親を媒介とした家庭療育との組み合わせが現状としては現実的なのかもしれない。

わが国では制度的に児童発達支援事業の拡大

に伴って早期療育の提供が可能になってきているが、ABAを取り入れた民間療育機関は首都圏や大都市に限定され、数的にも不足している。またこれらの療育機関に関する調査においては、スタッフの確保と育成、親の経済的負担が大きな課題となっている（井上ら, 2015）。

ABAによる介入は、専門書を読んだり講義を聴いたりしただけで効果を上げられるものではなく、専門知識に加えて臨床現場でのスーパービジョンが必要である。普及のためには専門家の養成が不可欠である。米国を中心に認定行動分析士BCBA(Board Certified Behavior Analyst)などの資格認定基準が設けられているが、わが国では行動分析学を学べる大学や大学院は限られ、また大学院卒のセラピストが十分な報酬を受けることは未だ困難な現状にある。

Inoue & Takagi (2021)は発達障害のあるまたはその疑いのある子どもを担当する幼稚園教師と保育士にWEBを介した6回のオンライン講義と2回のオンライン相談によって機能的行動評価(FBA)に基づくプログラムを提供した。10人の支援者全員がFBAを実施し、7人が個別の行動支援計画(BIP)を作成し、問題行動を記録し改善が示された。このようにネットを介した講義やOJTによる研修システムは効率的であり、今後の普及が望まれている。現状の児童発達支援事業にかかわる支援者に対してASDのための適切な支援方法研修を効率的に提供できるシステムの構築が急務であると考えられる。

ASDの臨床ニーズは、認知、言語、運動、身辺自立、社会性、情動、集団適応、問題行動、余暇、就労、心理的併存症など広範囲の発達領域にまたがり、それらは成長に伴って変化する。早期療育によって発達初期に知能や言語発達が促進され、ある程度発達のキャッチアップが得られたと

しても、児童期以降に対人関係や社会性に関する困難性を有するリスクや、問題行動や精神疾患の併存リスクに対しては、都度その状態に合わせた個別的支援を要する（井上, 2015）。ASDにおいては早期介入も含めた重層的な支援体制の検討も必要となる。

C. 文献

Amendah D, Grosse SD, Peacock G, Mandell DS. The economic costs of autism: a review. In: Amaral D, Geschwind D, Dawson G, eds. *Autism Spectrum Disorders*. Oxford, England: Oxford University Press; 1347–1360, 2011

Bondy, A. S., Frost, L. A.: *The picture exchange communication system: Training manual*. Cherry Hill, NJ: Pyramid, 1994.

Eisenhower, A., Pedraza, F. M., Sheldrick, R. C., Frenette, E., Hoch, N., Brunt, S., & Carter, A. S.. Multi-stage screening in early intervention: A critical strategy for improving ASD identification and addressing disparities. *Journal of autism and developmental disorders*, 51(3), 868-883, 2021.

Eldevik, S., Hastings, R. P., Jahr, E., Hughes, J. C.: Outcomes of behavioral intervention for children with autism in mainstream pre-school settings. *Journal of autism and developmental disorders*, 42(2): 210-220, 2012.

Haraguchi, H., Yamaguchi, H., Miyake, A., Tachibana, Y., Stickley, A., Horiguchi, M., Inoue, M., Noro F. & Kamio, Y. One-year outcomes of low-intensity behavioral interventions among Japanese preschoolers with autism spectrum disorders: Community-based study. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 76, 101556, 2020.

Howard, J.S., Sparkman, C.R., Cohen, H.G., Green, G., Stanislaw, H.: A comparison of intensive behavior analytic and eclectic treatments for young children with autism. *Research in Developmental Disabilities*,

26: 359–383, 2005.

Inoue, M., & Takagi, A. (2021). The Telehealth Program for Kindergarten and Nursery Teachers in Charge of Children with Behavioral Problems. *Yonago Acta Medica*, 64(1): 143–146, 2021..

井上雅彦:行動論的アプローチは ASD 治療の到達点として何を指すのか.精神療法,41(4):498-504, 2015.

Lang, R, Regester, A, Lauderdale, S, Ashbaugh, K, Haring, A.: Treatment of anxiety in autism spectrum disorders using cognitive behaviour therapy: A systematic review. *Developmental Neurorehabilitation* 13: 53-63, 2010.

Lord, C., Risi, S., DiLavore, P. S., Shulman, C., Thurm, A., & Pickles, A.: Autism from 2 to 9 years of age. *Archives of general psychiatry*, 63(6): 694-701, 2006..

Lovaas, O. I.: Certain comparisons between psychodynamic and behavioristic approaches to treatment. *Psychotherapy: Theory, Research and Practice*, 8:175-178,1971

Lovaas, O.I. : Behavioral treatment and normal educational and intellectual functioning in young autistic children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology* 55: 3-9,1987.

Lovaas OI, Smith T (1989) : A comprehensive behavioral theory of autistic children: Paradigm for research and treatment. *Journal of Behavior Therapy and Experimental Psychiatry* 20: 17-29.

Makrygianni, M. K., Gena, A., Katoudi, S., Galanis, P. : The effectiveness of applied behavior analytic interventions for children with Autism Spectrum Disorder: A meta-analytic study. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 51:18-31, 2018.

Maenner, M. J., Shaw, K. A., Baio, J. Prevalence of autism spectrum disorder among children aged 8 years—autism and developmental disabilities monitoring network, 11 sites, United States, 2016. *MMWR Surveillance Summaries*, 69(4), 1, 2020

Maurice, C. E., Green, G. E., Foxx, R. M. : Making a

difference: Behavioral intervention for autism. Pro-ed, 2001.

McEachin, J. J., Smith, T., Lovaas, O. I. : Long-term outcome for children with autism who received early intensive behavioral treatment. *American Journal on Mental Retardation*, 97(4): 359-372, 1993.

Monteiro, S. A., Dempsey, J., Broton, S., Berry, L., Goin-Kochel, R. P., & Voigt, R. G. (2016). Early intervention before autism diagnosis in children referred to a regional autism clinic. *Journal of Developmental Behavioral Pediatrics*, 37(1), 15–19.

Rogers, S. J., Vismara, L.A. : Evidence-based comprehensive treatments for early autism. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 37(1): 8-38, 2008.

Rotholz, D. A., Kinsman, A. W., Lacy, K. K., & Charles, J. Improving early identification and intervention for children at risk for Autism Spectrum Disorder. *Pediatrics*, 139(2), e20161061, 2017.

Sallows, G. O., & Graupner, T. D. : Intensive behavioral treatment for children with autism: Four-year outcome and predictors. *American journal on mental retardation*, 110(6): 417-438, 2005.

Schreibman L, Dawson G, Stahmer AC, Landa R, Rogers SJ, McGee GG, Kasari C, Ingersoll B, Kaiser AP, Bruinsma Y, McNerney E, Wetherby A, Halladay A.: Naturalistic Developmental Behavioral Interventions: Empirically Validated Treatments for Autism Spectrum Disorder. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 45(8): pp2411-2428, 2015.

Smith, T., Scahill, L., Dawson, G., Guthrie, D., Lord, C., Odom, S., ... Wagner, A.: Designing research studies on psychosocial interventions in autism. *Journal of autism and developmental disorders*, 37(2): 354-366, 2007.

Smith, T., Iadarola, S. : Evidence base update for autism spectrum disorder. *Journal of Clinical Child & Adolescent Psychology*, 44(6): 897-922, 2015.

D. 研究発表

Inoue, M., & Kaneko, S. (2020). Survey of Japanese Welfare Facility Staff and Special School Teachers Facing Difficulties at Work with Persons with Challenging Behaviors. *Yonago Acta Medica*, 63(4), 326-334.

Inoue, M., & Oda, M. (2020). Consultation on the Functional Assessment of Students with Severe Challenging Behavior in a Japanese Special School for Intellectual Disabilities. *Yonago Acta Medica*, 63(2), 107-114.

Haraguchi, H., Yamaguchi, H., Miyake, A., Tachibana, Y., Stickley, A., Horiguchi, M., Inoue, M., Noro F. & Kamio, Y. (2020). One-year outcomes of low-intensity behavioral interventions among Japanese preschoolers with autism spectrum disorders: Community-based study. *Research in Autism Spectrum Disorders*, 76, 101556.

井上雅彦・奥田泰代 (2020) ペアレント・メンターにおける自己体験の語りの意味 自閉症スペクトラム研究 18(1),15 - 20.

石坂務・井上雅彦 (2020) 感覚過敏性と家庭内暴力を呈した 自閉症スペクトラム児に対する登校支援 自閉症スペクトラム研究 18(1), 5 - 13.

由留木健悟・井上雅彦 (2020) 自閉スペクトラム症者における画面を介したコミュニケーション 鳥取臨床心理研究. 13, 3-10.

山中智央・井上雅彦 (2020) 場面緘黙症を認知した際の母親に生じる心理的反応の質的分析 : 緘黙児・者を持つ母親の手記を通して 鳥取臨床心理研究.13, 21-31

G. 知的財産権の出願・登録状況

なし