

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 28 年 6 月 15 日現在

機関番号：12102

研究種目：基盤研究(B) (一般)

研究期間：2011～2015

課題番号：23330201

研究課題名(和文) 発達性「読み」障害に関する臨床的、計算論的、脳機能研究

研究課題名(英文) Clinical, computational and brain science study in developmental dyslexia especially for reading disorders

研究代表者

宇野 彰 (UNO, Akira)

筑波大学・人間系・教授

研究者番号：10270688

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 13,300,000円

研究成果の概要(和文)：本研究の結果、ひらがなの習得には、過去に報告されていた音韻認識能力だけでなく、記号や意味から素早く音韻に変換する自動化能力が重要であることが分かった。そして、良好な認知能力を活用することにより、3条件を満たす場合には、かなをほぼ完璧に習得できる方法を開発できた。このような発達性読み書き障害のある方の多くが習得困難である漢字の脳内処理部位に関して、非言語的図形から漢字という言語的図形に変化するにつれて、処理する部位が連続的に移動することが分かった。そして、トライアングルモデルにて、子ども達の仮名の習得や、習得困難さが計算論的研究によりシミュレーションされた。

研究成果の概要(英文)：As a result, we found that automatization played important role to acquire Hiragana in addition to phonological awareness. We developed effective method to acquire Hiragana nearly perfect using strong cognitive abilities. We found that the brain part of processing in Kanji, most of children with developmental dyslexia have trouble in reading/spelling, was processed continuously from non verbal figure to verbal Kanji. We simulated Hiragana acquisition and difficulty in acquiring using triangle model successfully.

研究分野：認知神経心理学、特別支援教育、言語聴覚障害学

キーワード：読み 認知能力 シミュレーション 機能的MRI ひらがな 漢字 図形 指導法

1. 研究開始当初の背景

発達性読み書き障害は、英語圏での発達性 dyslexia の出現頻度は約10-15%と報告されている (Sally E. Shaywitz 1996)。日本における私たちの報告では、約8%の児童が読み書きの習得に困難をきたしていた (Uno et al. 2009)。すなわち、日本においても、困難を抱えている児童は決して少なくないと思われる。

就学前の幼児が、どの程度ひらがなを読めているのか1988年以降調査がされていなかった。また、教育的介入や訓練の方法に影響のある認知機能や障害メカニズムに関して、英語圏と日本を含む漢字文化圏とで相違があるのか、あるいは共通なのかという点についてまだ一定の見解はなかった。

一方、発達性読み書き障害の生物学的研究に関する報告は少ない。海外では、遺伝子研究、シミュレーション研究、機能的画像研究、脳の形態学的研究、電気・磁気生理学的研究が行われている。しかし日本では、シミュレーション研究と脳の形態学的研究については筑波グループが、機能的画像研究に関しては鳥取大学グループと筑波グループ、電気・磁気生理学的研究に関しては北大グループと精神神経センターグループが実施しているのみである。日本語話者の発達性読み書き障害児者の障害構造は英語圏とは異なっている可能性がある (Uno et al. 2009) ため、生物学的基盤について総合的に検討しなすことが必要であると考えられる。

2. 研究の目的

本研究の目的は、1) 臨床的介入研究として年長児からの縦断的研究を実施し、就学前にどの程度ひらがなが読めているのか調査すること、および文字習得に関連する能力に関して調査し、応用行動分析理論の手法を用いた、根拠のあるトレーニング方法に関する訓練効果を検討する。さらに、児童への介入方法に関して、行動指標を採用した応用行動分析的手法に加えて、ワークステーション上に計算論的立場からシミュレーションを実施し、実際のかつ理論的に科学的介入の根拠を明確にする。

2) 生物学的研究に関しては、MRIを用いたアルファベット語圏の研究では、単語は左の後頭側頭領域の後部から前部に向けて文字断片、文字、1文字、単語全体のように階層的に処理が行われていることが報告されている (Vinkler et al., 2007)。日本語の漢字は、漢字一文字が角、偏や旁という階層的な要素の組み合わせによって構成されるというアルファベット文字とは異なる特徴を持つ。本研究では漢字一文字が脳内で階層的に処理されているのかを検討した。

動物実験では、発達性読み書き障害の剖検例で観察されている小脳回 (microgyria) をラットやマウスで人工的に作り、日本語話者の発達性読み書き障害例で主張されている視空間の認知や学習に関する困難さがみられるかどうかを検討する。また、近年報告されている情報処理過程の冗長性に関連して、時間分解能に優れた誘発電位にて大脳の情報処理過程における情報伝達の問題を検討する。

3. 研究の方法

1) 臨床的研究

(1) 就学前のひらがな習得度および「読み」に関連する認知能力の検討：千葉県内の年長児を対象に、3年間の縦断調査を実施した。読み書きの練習を実施していない幼稚園3園に在籍する年長児230名 (男児125名、女児105名) を対象に国立国語研究所 (1972) および島村ら (1994) と同様の方法論を用いて、ひらがな71文字についての音読課題、書き取り課題、拗音、促音、長音、拗長音、助詞「は」「へ」についての音読課題を実施した。また、音韻能力、視覚認知能力、自動化能力、語彙力が、どのように文字習得に関連しているのかを検討した。

(2) 訓練効果の検討：発達性読み書き障害児36名が対象である。全例全般的知能が正常な小学生で、Rey の AVLT (Auditory Verbal Learning Test) の遅延再生課題にて高得点を示していた。また、訓練開始前の時点において決められた練習をすると自らの意思を表明していた児童である。訓練方法は、1) 50音表をはじめに音だけで覚え、次に2) 50音表を書字可能になるように練習し、3) 学年に応じて書字速度の目標を設定し文字想起の速度をあげる練習を行なった。また、4) 児童によっては拗音の音の分解練習を口頭のみで実施した。

(3) シミュレーション研究：本研究課題以前より、予備研究として、トライアングル・モデルを用いて、発達性読み書き障害の障害メカニズムを解明するためのシミュレーション研究を行っていた。本研究課題では、予備研究結果に基づき、日本語のトライアングル・モデルの精緻化を行った。

2) 生物学的研究

(1) 機能的MRIを用いた研究：実在漢字、偽漢字 (部首レベルでは存在するが、漢字全体としては存在しない)、人造文字 (角レベルでは存在するが、部首の情報はない)、チェッカーボードに対する脳活動を計測した。

(2) 動物実験：視力に優れていると言われている Long-Evans 系ラットを用い視覚記憶実験を実施した。発達性ディスレクシアのある人の脳に見られる microgyria をエーテル麻

酔下の仔ラットの頭皮を切開し - 70 に冷却した直径 2mm のステンスプローブを約 5 秒間頭蓋骨上に置き作成した。その後、自発的場所再認テストを実施し、microgyria のないラットとの視覚記憶に差があるかどうか調べた。

(3) 生理学的研究：熟達した読み手における単語の脳内処理に関して、ひらがなで構成される文字列を用い、その初期処理過程の様相について事象関連電位(ERP)を指標として行動学的ならびに神経生理学的に検討した。ひらがな文字列に対する視覚的注意の対象を変えることにより、流暢な読みに関する基礎的過程を検討した。

4. 研究成果

1) 臨床的研究

(1) 就学前のひらがな習得度および「読み」に関連する認知能力の検討：年長児時点における、ひらがな 71 文字の平均読字数は 64.9 文字、平均書字数は 43.0 文字であった。1988 年の島村らの結果とほぼ同様であった。また、年長児と小学 1 年生の間に読み書き課題成績が有意に向上していることが示され、年長の 11 月から小学校入学後の 6 月にかけて、多くの文字が習得されていた。音読や書字成績を従属変数、認知課題成績を独立変数とした重回帰分析の結果、音読では RAN、単語逆唱、非語復唱の成績が有意な予測変数として抽出された。書取では、図形の模写、単語逆唱、非語復唱の成績が有意な予測変数として抽出され、図形の模写の貢献度がもっとも高かった。また、音読と書取課題それぞれについて成績上位群と下位群間の認知課題の成績を比較した結果、いずれも下位群が上位群に比べて有意に、RAN、音韻情報処理課題、図形の模写と直後再生課題の成績が低かった。ひらがなの音読と書取には、自動化能力、音韻情報処理能力、視覚認知能力が必要であり、特に書取において視覚認知能力がより重要であることが示唆された。

(2) 訓練効果の検討：平均 7 週間以内という短期間にてひらがなやカタカナの書字と音読成績が有意に上昇し、平均 98%以上の文字が読み書き可能になった。さらに 1 年後にも高い正答率が維持され書字の反応開始時間も有意に短縮した。良好な音声言語の記憶力を活用した練習方法の有効性が、正確性においても流暢性においても示されたのではないかと思われた。

(3) シミュレーション研究：2011~2012 年に行った臨床研究において、発達性読み書き障害児が典型発達児に比べ、文字長効果を顕著に示すことが確認された (Sambai et al., 2012)。この現象は、トライアングル・モデルでは説明できない一方、二重経路モデルでは説明可能である。したがって、発達性読み書き障害の障害メカニズムを解釈するため

には、二重経路モデルを適用しなければならない。しかし、二重経路モデルの構造は英語、ドイツ語などのアルファベット語に即しており、日本語の音読モデルとしては適合しない。そこで、2012 年以降より、日本語の文字体系に特化した二重経路モデルの開発を行った。アルファベット語の二重経路モデルを日本語の二重経路モデルに応用可能な点と、そうでない点を解明すべく、臨床研究とシミュレーション研究を並行して進めた。先行研究では報告されていない日本語の音読現象 (例：仮名文字列の音読における whammy effect) を発見し、二重経路モデルの枠組みで、仮名文字列の視覚的分析をコンピュータ上でも再現できることが分かった。

2) 生物学的研究

(1) 機能的 MRI を用いた研究：左の後頭側頭領域内において、人造文字、偽漢字、実在漢字の順にピーク部位が後部から前部に移動していた。一方、右の後頭側頭領域では偽漢字と実在漢字のピーク部位が重なっていた。この結果は、左の後頭側頭領域で漢字の処理が階層的に行われていることを示唆するが、刺激の種類によって後頭側頭領域内での反応パターンが異なるか統計学的に検討を行うため、左右の後頭側頭領域内の前後方向に連続的に ROI を配置し、さらなる検討を行った。刺激の種類と ROI の場所を要因とした二要因分散分析を行ったところ、左の後頭側頭領域では、刺激種と ROI の場所との交互作用を認め、刺激種によって最も活動量の高い ROI が異なった。人造文字では一番後ろの ROI、偽漢字は後ろから 2 番目の ROI、実在漢字は後ろから 3 番目の ROI の活動量が最も高かった。一方、右の後頭側頭領域では刺激の種類と ROI の場所との交互作用は認めず、すべての刺激種で最も後ろの ROI の活動量が高く前に行くにしたがって活動量が低下するという共通のパターンを示した。従って、ROI 解析の結果はピーク部位の解析結果を支持した。さらに、左後頭側頭領域のピーク部位をシードとする機能的接続の解析を行ったところ、実在漢字では左下側頭領域と言語関連領域である左前頭回の三角部との接続を認めたが、他の刺激ではこの領域との機能的接続を認めなかった。

日本語漢字は左の後頭側頭領域で構成要素の次元に従って階層的に処理されており、それぞれの構成要素によって異なる機能的接続のパターンを持つことが示唆された。今回の研究成果を活用することで、文字単語の視覚的認知に問題がある発達性読み書き障害児の病態解明につながることを期待される。

(2) 動物実験：自発的物体再認テストにおいて雌の microgyria 群の成績が低下し、自発

的场所再認テストの成績には有意差が認められなかった。自発的物体再認テストにおける microgyria 群の成績低下は, microgyria モデルラットを用いた聴覚課題に関する先行報告 (Fitch et al., 1994; Herman et al., 1997; Clark et al., 2000; Peiffer et al., 2004) や, 視空間学習課題における報告 (Fitch et al., 2008) と一致しており, microgyria が自発的物体再認記憶および自発的场所再認記憶にも障害を及ぼすことが示された。しかしながら, 先行研究にみられるような microgyria 群の成績低下が顕著に現れなかった理由としては, microgyria の重症度の影響が考えられた。Threlkeld et al. (2009) は, 胎生期の MAM 投与による皮質の形成異常の重症度と聴覚課題の成績の検討を行い, より深刻な被験体で成績低下が認められると報告している。したがって手術によって形成される microgyria の深さや範囲によっても課題の成績が左右される可能性がある。今回の freezing injury 手術によって形成された microgyria は, 先行研究で報告されている形成異常より比較的小さいと思われた。今後は, microgyria の重症度や形成される範囲, 皮質の領域と課題の成績を検討する必要があると思われた。

(3)生理学的研究: 実験1において、言語的刺激であれば通常認められるN170の左半球優位性が生じなかったことから、実験2では文字列そのものに注意を向けさせる課題を設定した。その結果、文字間間隔が狭い場合には、文字列に対して左半球優位にN170が認められた。これらのことから文字列が視覚的注意の対象となる場合には、言語的刺激として音韻変換処理が生じたのではないかと考えた。実験3では、文字列あるいは記号列における左端または右端に出現する刺激が特定の特徴を備えているかどうかを判断させる課題を用いた。その結果、視覚的注意が文字の特定要因に向けられた場合には、両側にN170が生じた。文字単位の知覚的カテゴリー化を反映するものと推定された。上述の実験1.2.3から、文字列刺激に対して注意が向けられた場合にのみ言語的処理が進行するものと推定された。したがって視覚的注意が的確に機能しない場合には文字列が存在しても言語的処理が進行しないことが想定され、文字列への注意のありかたに関して両側性N170が指標となり得ることも検討された。文字列に対して自動的に言語的処理が開始されるのではなく、視覚的注意が言語的処理の進行に密接に関与することが示されたのではないと思われた。

5. 主な発表論文等

(研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線)

[雑誌論文](計 84件)

三盃亜美、宇野彰、春原則子、金子真人：
全般的な知的水準が境界領域であった読み書き障害群の認知能力。LD研究, 査読有, 25, 2016. (印刷中)

Hashimoto K, Uno A: Cognitive neuropsychological analysis of differential reading and spelling disorder mechanisms in a patient with aphasia. Neurocase, 査読有, 2016 Feb, 1-6, DOI:10.1080/13554794.2015.1137950

猪俣朋恵、宇野彰、酒井厚、春原則子：
年長児のひらがな読み書き習得に関わる認知能力と家庭での読み書き関連活動。音声言語医学, 査読有, 57(2), 208-216, 2016. <https://www.jstage.jst.go.jp/browse/jjlp/-char/ja/>

谷尚樹、後藤多可志、宇野彰、内山俊朗、山中敏正：発達性ディスレクシア児童の音読における書体の影響。音声言語医学, 査読有, 57(2), 238-245, 2016. <https://www.jstage.jst.go.jp/browse/jjlp/-char/ja/>

Higuchi H, Moriguchi Y, Murakami H, Katsunuma R, Mishima K, Uno A : Neural Basis of hierarchical visual form processing of Japanese Kanji characters. Brain and Behavior, 査読有, 2015 Nov 4;5(12):e00413. DOI: 10.1002/brb3.413. eCollection 2015.

Park H R, Uno A : Cognitive abilities underlying reading accuracy, fluency and spelling acquisition in Korean Hangul learners from Grades 1 to 4: A cross-sectional study. DYSLEXIA, 査読有, 21(3), 235-253, 2015. DOI:10.1002/dys.1500.

高崎純子、春原則子、宇野彰、金子真人、栗屋徳子、後藤多可志、狐塚順子：小学生のひらがな非語音読に関する分析 発達性読み書き障害児と通常学級在籍児。音声言語医学, 査読有, 56(4), 308-314, 2015. DOI:10.5112/jjlp.56.308

宇野彰：発達性読み書き障害児を対象としたバイパス法を用いた仮名訓練 障害構造に即した訓練方法と効果および適応に関する症例シリーズ研究。音声言語医学, 査読有, 56(2), 171-179, 2015. DOI:10.5112/jjlp.56.171

Okumura Y, Kasai T, Murohashi H. Attention that covers letters is necessary for left-lateralization of an early print-tuned ERP in Japanese hiragana. Neuropsychologia, 査読有, 69, 22-30, 2015. DOI:10.1016/j.neuropsychologia.2015.01.026. Epub 2015 Jan 19.

後藤多可志、宇野彰、春原則子、金子真人、栗屋徳子、狐塚順子：有色透明フィルム使用が発達性読み書き障害児群の音読速度に与える影響について - 明るさを統制し

ない場合の色の要因について - .音声言語医学, 査読有,55(3),187-194,2014.

DOI: 10.5112/jjlp.55.187

三盃亜美, Max Coltheart, 宇野彰, 春原則子: 発達性読み書き障害成人例の仮名文字列音読における語彙処理と非語彙処理の発達の問題 - 文字長と語彙性効果を指標にして - . 音声言語医学, 査読有,55(1), 8-16, 2014 .

DOI:http://doi.org/10.5112/jjlp.55.8

Okumura, Y., Kasai, T., and Murohashi, H. Early print-tuned ERP response with minimal involvement of linguistic processing in Japanese Hiragana strings. Neuroreport. 査読有, 25(6), 410-414, 2014 DOI: 10.1097/WNR.000000000000110.

Park H R, Uno A: Investigation of cognitive abilities related to reading and spelling in Korean: Readers with high, average, and low skill levels. DYSLEXIA, 査読有,18(4), 199-215, 2012. DOI:10.1002/dys.1443. Epub 2012 Sep 24. 金子真人, 宇野彰, 春原則子; 就学前年長児における入学後の読み困難の出現を予測する確率とその限界 - スクリーニング検査としての Rapid Automated Naming の有効性. 脳と発達, 査読有, 44(1), 29-34, 2012. https://www.jstage.jst.go.jp/browse/ojjsn/44/1/_contents/-char/ja/

Sambai A, Uno A, Kurokawa S, Haruhara N, Kaneko M, Awaya N, Kozuka J, Goto T, Tsutamura E, Nakagawa K, Wydell Taeko N: An Investigation into Kana Reading Development in Normal and Dyslexic Japanese Children using Length and Lexicality Effects. 査読有, Brain&Development, 34(6), 520-528, 2012. DOI:10.1016/j.braindev.2011.09.005.

〔学会発表〕(計 91 件)

Inomata T, Uno A, Sakai A, Haruhara N: Contribution of cognitive abilities and home literacy environment to reading fluency in Japanese. British Dyslexia Association 10th International Conference, March 10-12, 2016. Oxford, UK.

Uno A: Relationship between Cognitive abilities and reading/writing skills in Japanese speaking children. British Dyslexia Association 10th International Conference, March 10-12, 2016. Oxford, UK.

Uno A: Teaching Reading Japanese. Focusing on the children with developmental dyslexia. Korean Reading Association International Conference, October 17 2015. Seoul, Korea.

猪俣朋恵, 宇野彰, 酒井厚, 春原則子: 小学校低学年児におけるひらがな音読の流

暢性の発達に関わる認知能力と環境要因. 第 15 回発達性ディスレクシア研究会・2015 年 8 月 1-2 日, サポートホール高松 (香川県高松市)

Uno A: Japanese and Korean speaking children with Developmental dyslexia ; diagnosis and treatment. The 2nd Special workshop Korean Speech-Language & Hearing Association, May 29-30, 2015. Kwanju, Busan, Korea

Higuchi H, Moriguchi Y, Murakami H, Katsunuma R, Mishima k, Uno A: Differential Functional Connectivity Patterns between Japanese Real Kanji, Pseudo Kanji, and Artificial Characters. East Asia Joint Symposium on Reading and Spelling, March 7-8, 2015. Taipei, Taiwan.

Uno A: The relationship between reading /spelling skills in logographic Kanji and their Visual Attention Span (VAS) as well as other cognitive skills in Japanese speaking children.

Symposium: New insights on the role of visual attention span in reading and spelling: A cross linguistic approach. 21 Annual Meeting Society for the Scientific Study of Reading, Santa Fe, July 16-19, 2014. New Mexico, USA

Higuchi H, Moriguchi Y, Katsunuma R, Murakami H, ba K, Terasawa Y, Motomura Y, Mishima K, Uno A: Visual form processing of Japanese Kanji characters in the left inferior temporal region: An fMRI study. British Dyslexia Association 9th International Conference. March 27-29, 2014. Guildford, UK

猪俣朋恵, 宇野彰, 春原則子, 酒井厚: 小学 1 年生におけるひらがなの読み書きに影響する年長時点の認知要因と環境要因. 第 13 回発達性ディスレクシア研究会・2013 年 7 月 6-7 日, 広島国際大学広島キャンパス (広島県広島市)

Uno A: The effects of visual attention span (VAS) on Kanji reading by Japanese children with and without dyslexia: a cross sectional study. The 19th Annual meeting of Society of Scientific Reading. July 11-14, 2012. Montreal, Canada

〔図書〕(計 10 件)

宇野彰: 第 2 章第 3 節 学習障害 (LD) のアセスメント. 黒田美穂編著: これからの発達障害おアセスメント-支援の一步となるために: 金子書房, pp32-38, 2015(査読無)

宇野彰: 8CD コミュニケーション症群/コミュニケーション障害群. キーワードで読む

発達障害研究と実践のための医学診断/福祉サービス/特別支援教育/就労支援：日本発達障害学会監修：福村出版，pp28-29，2015。（査読無）

宇野彰：第3章第3部 言語発達障害. 関連する障害(2)学習障害. 平野哲雄，長谷川賢一，立石恒雄，能登谷晶子，倉井成子，斎藤吉人，椎名英貴，藤原百合，苅安誠，城本修，矢守麻奈編集：言語聴覚療法臨床マニュアル改訂第3版：協同医書出版社，pp114-115，2014（査読無）

〔その他〕

ホームページ等

<http://unoakiralab.web.fc2.com/>

6. 研究組織

(1) 研究代表者

宇野 彰 (UNO, Akira)

筑波大学・人間系・教授

研究者番号：10270688

(2) 研究分担者

山田 一夫 (YAMADA, Kazuo)

筑波大学・人間系・准教授

研究者番号：30282312

守口 善也 (MORIGUCHI, Yoshiya)

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・客員研究員

研究者番号：40392477

室橋 春光 (MUROHASHI, Harumitsu)

北海道大学・教育学研究所(研究院)・特任教授

研究者番号：00182147