

令和 2 年 9 月 3 日現在

機関番号：83902

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2015～2019

課題番号：15K09609

研究課題名(和文) 共同注意の発達の意義に基づく社会性認知機能の解明：ウィリアムズ症候群との比較研究

研究課題名(英文) Study on social cognition based on the development of joint attention:  
Comparison with Williams syndrome

研究代表者

中村 みほ (Miho, Nakamura)

愛知県医療療育総合センター発達障害研究所・障害システム研究部・客員研究者

研究者番号：70291945

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,700,000円

研究成果の概要(和文)：本研究はウィリアムズ症候群にみられる共同注意の遅れの実態とそのメカニズムについて、注意をシフトすることの苦手さ、特に「顔に対する注意を外す(顔からの注意解放)能力」の発達異常の観点から検討し、ヒト乳幼児における社会性認知の指標を提案することを目的として計画された。しかしながら、その検討の過程において、「注意を外す」こと以前に、「提示された視覚刺激に注意を向ける」ことの困難さをコントロールすることが期間内に成功せず、当初予定した成果を得るに至らなかった。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本検討が当初の目的とした成果が得られれば、ウィリアムズ症候群の知見をもとに、ヒトにおける共同注意の発達において、注意を向けること、それを外すことの観点からの知見が得られ、その発達メカニズムと言語発達における意義を明らかにできる可能性があった。残念ながら、今回の研究機関ではそれらを明らかにするに至らなかった。

研究成果の概要(英文)：In this study, we tried to investigate the delay in joint attention in Williams syndrome and its mechanism, from the viewpoint of abnormalities in attention shift, especially difficulty "in disengaging attention to the face (attention release from the face)". It was designed for the purpose of examining and proposing an index of social cognitive function in human infants. However, in the process of the examination, it was difficult for each participant to "focus one's attention to the presented visual stimulus" in the first place, before "to disengage their attention". We were unable to resolve this issue within the research period. For this reason, the original goal of this study could not be achieved.

研究分野：小児神経

キーワード：ウィリアムズ症候群

## 1. 研究開始当初の背景

自閉症スペクトラム障害とウィリアムズ症候群はその社会性の発達においてしばしば比較検討されている。自閉症スペクトラム障害とウィリアムズ症候群は共同注意 (Joint Attention) 機能の発達遅延という点で共通しているものの、幼児期以降の社会性認知の表現様式は大きく異なることが観察されている。従って、人懐っこいとされるウィリアムズ症候群患児において、共同注意の発達様式を客観的に明らかにすることが、ヒト社会性認知発達のメカニズムの解明の一端を担うと、申請者は考えた。

ウィリアムズ症候群は顔認知についても特徴があり、とりわけ顔への注意(志向性)が強いとされる。その理由として、“顔からの”注意シフトのしにくさが指摘されている。一般にヒトでは共同注意の遅れは全般的な注意シフトの出来なさとして説明されている。一方、自閉症スペクトラム障害においては顔への注視が少ないことが報告されている。

これらのことから我々は共同注意の発達(乳児の社会性の発達)においては顔への適切な注目と“顔からの”適切な注意のシフト、すなわち顔からの注意の解放がともに重要であるとの仮説を持つに至った(自閉症スペクトラム障害の障害は、ウィリアムズ症候群はにより強く関連すると推定)。

## 2. 研究の目的

本研究はウィリアムズ症候群にみられる共同注意の遅れの実態とそのメカニズムについて、注意シフトの異常性、特に「顔からの注意解放(顔に対する注意をはずす)能力」の発達異常の観点から客観的に検討し、ヒト乳幼児における社会性認知機能の指標を提案することを目的として計画された。

本研究は、特徴的な認知特性を持つウィリアムズ症候群を対象とすること、共同注意の発達と顔への注意志向性(注意の外しにくさ)の関連に初めて着目し、視線追跡装置を用いた客観的評価を行うことで、共同注意発達メカニズムの新側面の解明を以下の個別目標を設定して目指した。

- 1) ウィリアムズ症候群における共同注意と言語の発達遅滞様式を検証すること。
- 2) 注意のシフト機能の脆弱性、顔からの注意解放の特殊性が、ウィリアムズ症候群において観察されるか否か 定型発達児との比較のもと、「共同注意の発達レベルと注意シフトに関連が認められるか」「注意の解放は顔に対するものが他のオブジェクト(非顔)に対するものよりも困難か」を検証する。それにより、共同注意の発達に対し注意シフト全般の異常もしくは顔に局限した注意解放機能の障害の関与が考えられるか否かを判定する。手法としては disengagement task を用い、視線追跡装置により客観的に検討することを目指す
- 3) そのうえで、定型発達児、ウィリアムズ症候群を持つ児の両方において、共同注意、注意シフトと注意解放、言語発達の時間的関連性はどうか? 顔からの注意解放のもたらす影響を含めた相互の関連について、発達途上の児において新たに明らかにし、社会性認知の発達過程の理解に新しい視点を加えることを目指す。

### 3. 研究の方法

- 1) ウィリアムズ症候群乳幼児と定型発達乳児において、共同注意を含む社会性認知の発達をチェックリストにより評価する。15名のウィリアムズ症候群乳幼児の既存データを合わせ、定型発達児との比較の元、ウィリアムズ症候群で共同注意の発達が本当に遅れているかを確認する。
- 2) ウィリアムズ症候群において顔、もしくは他のオブジェクト（非顔）からの注意解放を視線追跡装置 tobii により客観的に評価する。先行研究における disengagement task を活用して検討する。当初はウィリアムズ症候群学童と精神年齢、生活年齢を一致させた定型発達学童を対象とする。その後新規参加例（ウィリアムズ症候群乳児）について同様に実施する。
- 3) 共同注意機能と注意解放機能の関連性について定型発達乳児で検討する。

### 4. 研究成果

上記計画において、1)のウィリアムズ症候群を持つ児について、臨床的に共同注意の発達と語彙の獲得の関連を確認することについては、当初の計画に沿って対象症例について実施を進めた。しかしながら優位な相関を確認するにはさらなる症例数の増加が必要と考えられた。

2)については研究協力を得、ウィリアムズ症候群の対象となった児において当初の計画を試みた。

しかしながら、対象となった同症候群幼児らにおいては、注意のシフトの検討を行う前段階として、「注意を一点に向けること」自体に困難を極め disengagement task の実施の第一歩が不能であった。様々な視覚刺激を試みるもその点について改善策に至らず、「共同注意の発達レベルと注意シフトに関連が認められるか」「注意の解放は顔に対するものが他のオブジェクト（非顔）に対するものよりも困難か」という当初の検討を実施するに至らなかった。

このことから、3) 定型発達の検討に資するデータを得るにも至らなかった。

以上より、当初の研究計画の実行には至らなかった。

やむなく代替として、ウィリアムズ症候群における言語発達について、ウィリアムズ症候群の認知特性（視空間認知障害）の与える影響に関し、各認知領域と語彙発達との関連について検討を進めた。特に、特徴的な認知特性である視空間認知障害について、同様の視空間認知障害を示しうる疾患（脳室周囲白質軟化症や 自閉症スペクトラム）と合わせて検討し、「疾患横断的に」視空間認知の発達の遅れが、当該分野の語彙発達（位置を表す言葉や時間を表す語彙の発達など）について影響をもたらすか否かの検討を新たに計画し、実施中である。

また、本研究実施期間中、いくつかの関連論文を発表した。

## 5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計8件（うち査読付論文 7件/うち国際共著 0件/うちオープンアクセス 2件）

1. 著者名 Kurahashi Naoko, Futamura Yukiko, Nonobe Norie, Ogaya Shunsuke, Maki Yuki, Yoshimura Ikuko, Suzuki Takeshi, Hosokawa Yosuke, Yamada Keitaro, Aso Kosaburo, Maruyama Koichi, Nakamura Miho	4. 巻 40
2. 論文標題 Is hiragana decoding impaired in children with periventricular leukomalacia?	5. 発行年 2018年
3. 雑誌名 Brain and Development	6. 最初と最後の頁 850 ~ 856
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.braindev.2018.05.018	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Muramatsu Yukako, Tokita Yoshihito, Mizuno Seiji, Nakamura Miho	4. 巻 39
2. 論文標題 Disparities in visuo-spatial constructive abilities in Williams syndrome patients with typical deletion on chromosome 7q11.23	5. 発行年 2017年
3. 雑誌名 Brain and Development	6. 最初と最後の頁 145 ~ 153
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.braindev.2016.09.003	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 中村 みほ	4. 巻 18
2. 論文標題 ウィリアムズ症候群のコミュニケーションの異質性	5. 発行年 2016年
3. 雑誌名 認知神経科学	6. 最初と最後の頁 128 ~ 134
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.11253/ninchishinkeikagaku.18.128	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 村松友佳子, 夏目淳, 中村みほ	4. 巻 47
2. 論文標題 脳室周囲白質軟化症の1例における認知および言語能力の検討	5. 発行年 2015年
3. 雑誌名 脳と発達	6. 最初と最後の頁 363 - 369
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Hirai M, Muramatsu Y, Mizuno S, Kurahashi N, Kurahashi H, Nakamura M.	4. 巻 8
2. 論文標題 Typical visual search performance and atypical gaze behaviors in response to faces in Williams syndrome.	5. 発行年 2016年
3. 雑誌名 Journal of Neurodevelopmental Disorders	6. 最初と最後の頁 8
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Hirai Masahiro, Muramatsu Yukako, Mizuno Seiji, Kurahashi Naoko, Kurahashi Hirokazu, Nakamura Miho	4. 巻 9
2. 論文標題 Preserved search asymmetry in the detection of fearful faces among neutral faces in individuals with Williams syndrome revealed by measurement of both manual responses and eye tracking	5. 発行年 2017年
3. 雑誌名 Journal of Neurodevelopmental Disorders	6. 最初と最後の頁 38
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1186/s11689-017-9190-0	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Kitamura Yuzuki, Kita Yosuke, Okumura Yasuko, Kaga Yoshimi, Okuzumi Hideyuki, Ishikawa Yuji, Nakamura Miho, Inagaki Masumi	4. 巻 42
2. 論文標題 Discrepancy between musical ability and language skills in children with Williams syndrome	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Brain and Development	6. 最初と最後の頁 248 ~ 255
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.braindev.2019.12.002	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計7件 (うち招待講演 1件 / うち国際学会 3件)

1. 発表者名 Kurahashi N, Ogaya S, Maki Y, Suzuki Y, Hosokawa Y, Yamada K, maruyama K, Aso K, Nakamura M
2. 発表標題 Hiragana decoding impairment in three Japanese children with periventricular leukomalacia
3. 学会等名 第60回日本小児神経学会学術集会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 中村みほ 村松友佳子 倉橋直子 水野誠司 稲垣真澄
2. 発表標題 ウィリアムズ症候群における日本語語彙獲得
3. 学会等名 第59回日本小児神経学会
4. 発表年 2017年

1. 発表者名 Miho Nakamura, Yukako Muramatsu, Ayako Umemura, Seiji Mizuno
2. 発表標題 The acquisition of Japanese vocabulary in children with Williams syndrome.
3. 学会等名 the 14th International Child Neurology Congress (国際学会)
4. 発表年 2016年

1. 発表者名 中村みほ 村松友佳子 梅村紋子 水野誠司
2. 発表標題 ウィリアムズ症候群幼児における日本語語彙表出の領域別獲得過程の検討
3. 学会等名 第58回日本小児神経学会
4. 発表年 2016年

1. 発表者名 中村みほ
2. 発表標題 ウィリアムズ症候群におけるコミュニケーションの異質性 シンポジウム「社会脳の発達とその障害(発達障害)」
3. 学会等名 第21回認知神経科学会学術集会(招待講演)
4. 発表年 2016年

1. 発表者名 Miho Nakamura Fumio Hayakawa Ryusuke Kakigi
2. 発表標題 Study on cognitive profiles of patients with 22q11.2 deletion syndrome: comparison with the findings of Williams syndrome
3. 学会等名 13th European pediatric neurology society congress (国際学会)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 Miho Nakamura, Yukako Muramatsu, Yoshito Tokita, Naoko Kurahashi and Seiji Mizuno
2. 発表標題 Disparities in developmental trajectories of visuo-spatial constructive ability in Williams syndrome patients with typical deletion on chromosome 7q11.23
3. 学会等名 12th European pediatric neurology society congress (国際学会)
4. 発表年 2017年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究 分担者	稲垣 真澄  (Inagaki Masumi)  (70203198)	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   (82611)	
連携 研究者	水野 誠司  (Mizuno Seiji)  (20393150)	愛知県医療福祉総合センター発達障害研究所・遺伝子医療研究部・研究員(非常勤)   (83902)	
連携 研究者	倉橋 直子  (Kurahashi Naoko)  (20621824)	愛知県医療福祉総合センター発達障害研究所・障害システム研究部・研究員(非常勤)   (83902)	