様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９　（共通）

科学研究費助成事業　　研究成果報告書

令和　４ 年　６ 月 １５ 日現在

機関番号：１３４０１
研究種目：基盤研究(C)（一般）
研究期間：2018～2021
課題番号：１８Ｋ０２７８８

研究課題名（和文）発達性ディスレクシアの神経基盤の解明と早期発見・介入の試み

研究課題名（英文）Elucidation of the neural basis of developmental dyslexia and attempts at early detection and intervention

研究代表者
巨田　元礼（Ohta, Genrei）

福井大学・学術研究院医学系部門・特別研究員

研究者番号：６０７３９００１

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費）　　3,400,000円

研究成果の概要（和文）：発達性ディスレクシア(developmental dyslexia; DD)早期発見を目的に、就学前に神経発達症の診断で医療機関を受診している年長児に対し読字能力の評価(読字リスクの早期アセスメント)を行い、それらの児が就学後にDD診断ガイドライン検査において、どのような結果を示すかを調べる研究では、1年生の8～9月は特殊音節習得前であり、流暢性を読みの速度で評価することを基本とするガイドライン音読検査によるDD診断は困難であった。
早期アセスメントはDD児の早期発見に寄与すると考えられるが、確実な診断のためには方法整備が必要であり、早期診断のためのアセスメントツールはさらに検討の余地がある。

研究成果の学術的意義や社会的意義
神経発達症を合併しているDD児を早期に発見し、診断するにはそのアセスメントツールの再構築や診断バッテリーの整備が必要であることが明らかになった。

研究成果の概要（英文）：For the purpose of early detection of developmental dyslexia (DD), we evaluated reading ability (early assessment of reading risk) for older children who consulted a medical institution for diagnosis of neurodevelopment before school. In a study to find out what results these children would show in the DD diagnostic guideline test after school, the first graders from August to September were before the acquisition of special syllables, and fluency was evaluated at the speed of reading. Basic guideline DD diagnosis by reading aloud test was difficult. Early assessment is thought to contribute to early detection of DD children, but methods need to be developed for reliable diagnosis, and assessment tools for early diagnosis need further consideration.

研究分野：小児神経学

キーワード：発達性ディスレクシア　早期診断　読字能力の早期アセスメント

※科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属します。

様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９（共通）

１．研究開始当初の背景

学習障害(learning disorders; LD)の中でも、発達性ディスレクシア(developmental dyslexia; DD)については比較的病態の解明が進んでおり、国際ディスレクシア協会による DD の定義は、「単語を正確かつ(または)流暢に認識することに困難を示し、書字が苦手な学習障害である。こうした困難は、一般的には音韻処理の問題に起因し、他の認知能力レベルや学校での指導からは予測できないことが多い。二次的には読解能力の低下や読む機会の減少につながる可能性があり、語彙と背景知識の発達の妨げになり得る。」とされている。

DD は、その障害の性質上、本格的な学習が始まる就学後の児に対しての知見が蓄積されている。しかし、幼児期の読字の発達に焦点を当てた報告はほとんどなく、評価方法、読字能力の標準値や早期介入の効果など依然不明な点が多い。早期介入を実践するための情報はまだ不十分であるため、客観的な評価法の開発が急務である。さらに、小児を対象とする場合、同時に非侵襲性や簡便性に配慮した実用的な評価法が必要である。

これまでの研究では主に就学児を対象としたものが多く、特に本邦において本研究のように幼児期に焦点を当てて、幼児期の読字能力評価方法の作成や早期介入を目的に行われている研究はほとんどなかった。また、横断的評価だけでなく、就学後の読字能力を追跡し、縦断的に早期介入の評価を行っている研究も見当たらなかった。DD が疑われる就学前幼児に対する早期介入は、学習障害児を減らすことや DD 児ひとりひとりの特徴をより正確に把握しオーダーメイドな療育を行っていくことにつながる可能性があると考えられた。

２．研究の目的

(1) 発達性ディスレクシア(developmental dyslexia; DD)は、知能は正常だが読字困難を示す学習障害の一つである。DD は他の神経発達症に比較し、遺伝的関与が強いとされている。今回我々は単一施設に神経発達症の療育目的に通院している同胞例のうち 1 人以上が DD である同胞間の特徴を検討した。

(2) DD 児は就学前より様々なサインを出しているとされているが、正確な診断は本格的な学習が開始される就学後にならざるを得ず、診断時には学習に対する意欲を失っていることも多く早期診断/支援が重要とされている。本研究では、単一施設で療育を受ける 5,6 歳の年長児に対し、DD の予測が可能かどうか前方視的な検討を行った。

３．研究の方法

(1) 2002 年 4 月から 2017 年 4 月の間に平谷こども発達クリニックで DD と診断された児童 308 例(男 187 例、女 121 例)の中で、幼児期より療育を受けていた症例を対象とした。本クリニックでは、特異的発達障害診断・治療のための実践ガイドラインの音読検査(以後、ガイドライン音読検査とする)を参考に、読字能力についてその他の検査を組み合わせ、DSM-Ⅳ-TR もしくは DSM-5 に照らし合わせ、総合的に DD の診断を行っている。これらの症例について分析を行った。ガイドライン音読検査は、単音・有/無意味の単語、単文の音読検査であり、音読時間と誤読数を測定する。音読時間が平均+2SD を超える所見が 2 つ以上の場合に異常と判定する。

(2) 2017 年 4 月から 2018 年 3 月の間にクリニックに療育に通う年長児 79 人に、読字リスクの早期アセスメントを実施した。この、読字リスクの早期アセスメントとは、①文字を読むことに関心がない、②単語の発音を正確に言えない、③じゃんけんでグーで勝つとグリコと言いながら歩を進める 1 文字に対して 1 音が対応するような遊びができない、④歌詞を覚えることに苦労する、⑤書くことに関心がない の 5 つの項目について、それぞれ ない から たまに、時々、しばしば、常にの 5 段階で評価するものになる。しばしばや常にの項目が陽性となる場合、DD の可能性が高いとされている。読字リスクの早期アセスメントを行った児に対し、就学後、日本では DD 診断のガイドラインとなっている、ガイドライン音読検査を実施し、結果を評価した。

４．研究成果

(1) 上記基準を満たす症例を 20 例確認できた。それらの症例について、その特徴を分析した。初診時主訴としては、ADHD や ASD を疑うようなものが多かった。言葉の遅れを認める症例も比較的多かった。乳幼児期の発達との関連では、始語出現時期に比べ、二語文出現時期が遅れる児がやや多かった。対象児の平均総 IQ は 89 で、範囲は 71-116 であった。初診時診断としては、ADHD が多く 75%であり、次いで ASD が 65%であった。両者の合併例も多くみられた(50%)。
10%の児は、受容・表出性言語発達遅滞の診断で ST が開始されていた。これらの児では就学前より ST が開始されており、DD に特化した訓練が行われたわけではないが、超早期介入群とも言えた。20 例中 15 例で詳細な読字評価が行われた。その内容の分析では、初診時診断の内容による特徴は認められなかった。ガイドライン音読課題の全体的な特徴としては、誤読数よりも音読に時間がかかる児が多いことがわかった。中には指示が通らず、課題自体を行うことができなかった児もいた。音韻認識検査では 14 人中 12 人で、音韻操作の弱さが確認された(85.7%)。聴覚指示のみではスムーズにできなくても、視覚的な情報を加えると答えることができる児もいた。

これらの結果より、神経発達障害の診断で幼児期より療育を受けている児の中に、就学後に DD と診断される児がいくらかあり、ADHD や ASD と診断されている児が多いことが分かった。DD では、読字に困難を示す理由としていくつかの原因が考えられており、また各言語圏で異なる特徴を示すため、読めない理由が一つではないと思われる。神経発達障害の診断がついている児では、音韻操作の問題のみではなく、例えば ADHD では不注意、ASD では言語発達遅滞が読字困難の理由である可能性がある。このような児に、読字能力の評価を十分に行うことには意味があり、その後の対応に生かせる可能性が高いと思われる。今回の報告では正常群の比較情報がなく、今後の検討課題である。

これまでの報告では、DD 児の最初の徴候は言語発達遅滞であるというものや、幼児期の DD の特徴として、音の出るゲームや、韻を踏んだ言葉遊びにあまり反応を示さないことが挙げられている[①]。また、ディスレクシアの親から生まれた子供の 1/4～1/2 近くが DD であったり[①]、遺伝的に DD のリスクのある児では、音韻操作の問題のみではなく、それ以外の言語スキルにも影響があるとされている[②]。神経発達障害との合併の報告には、DD に ADHD や ASD が合併することは稀ではなく、ADHD の 43.6%、PDD の 25.8%に読字困難例を認めたとある[③]。

結論として、DD 児の幼児期の症状として、ADHD や ASD 様の発達特性を持つものもみられ、これらの症例において、就学後読字困難が明らかになり、DD の診断が追加されることがある。DD においては早期介入の効果についての報告が増えており、発達障害診療においても言葉の遅れを認める児や、音韻操作の苦手な児においては、DD の早期診断の可能性についても考慮する必要があることが分かった。

(2) 読字リスクの早期アセスメントを施行した年長児は 79 人あり、このうち追跡可能症例は 68 人おり、その中で、IQ が 70 以上でガイドライン音読検査を行えた児は 54 人だった。それらの診断は結果のようになり、主に ADHD と ASD が占めていることがわかる。

54 人を、ガイドライン音読検査を行った時期で分類し、9 月までに施行したものを早期評価群としたところ、46 人あり、10 月以降に施行したものを後期評価群としたところ、33 人であった。両時期に評価を行えた児は 25 人あり、両期評価群とした。早期評価群のうち、検査で異常判定の児は 25 人おり、54.3%と高くなったが、後期評価群では 9 人で 27.3%であり、低下していた。早期評価群では、拗音に代表される特殊音節が読めない児が多く、音読に時間がかかり異常と判定されるものが多かったため、この時期の流暢性の評価としては不十分と考えられた。

両期評価群の検査結果の変化を示す。上段グラフは、左が検査の速度項目異常の変化を、右が誤読項目異常の変化を示している。全体的に低下傾向にあり、早期で異常判定だったが、後期で正常になったものは 44%あった。小学 1 年生では検査時期により個人内で結果が変化し、半数弱で改善を示していることがわかった。

早期アセスメントとの関連を確認したところ、DD の可能性が高いとされる、常に・しばしばの項目を認めた児は 22 人おり、早期評価群では異常判定の割合が 68.4%と高値を示したが、後期評価群では 21.4%と低下を示した。早期評価群ではガイドライン音読検査の異常と関連があったが、後期評価群では関連が乏しくなることが示された。両時期に評価を行えた群では、早期評価時に異常判定となった児でも後期評価時には正常と判定されたた児が 70%あり、早期アセスメントで読字リスクが

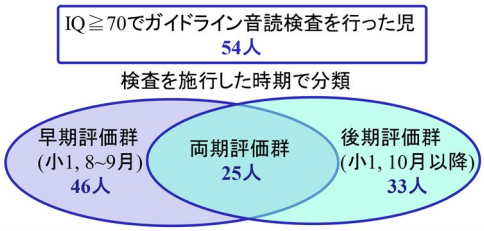
結果

54人の診断

診断		人数(人)		割合
ADHD		15		27.8%
ASD		12		22.2%
ADHD+ASD		20		37.0%
その他	言語発達遅滞	2	7	13.0%
	未診断	5		
合計		54		100%

ADHD; attention-deficit/hyperactivity disorder, 注意欠如多動症
ASD; autism spectrum disorder, 自閉スペクトラム症

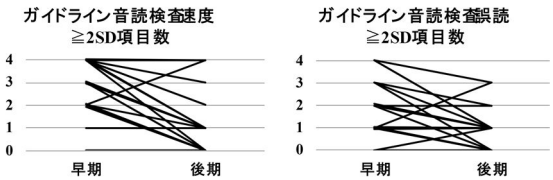
ガイドライン音読検査の結果



検査時期	人数(人)	異常判定(人)	割合
早期評価群	46	25	54.3%
後期評価群	33	9	27.3%

- 早期評価群では特殊音節が読めず、音読に時間がかかり異常と判定されるものが多かった(流暢性の評価ではない)。

両期評価群の検査結果の変化



人数(人)	変化	人数(人)	割合
25	異常⇒正常	11	44.0%
	正常⇒正常	7	28.0%
	異常⇒異常	7	28.0%

- 小学1年生では検査時期により個人内で結果が変化し、半数弱で改善を示していることがわかる

あると判断された児も就学後に検査では改善を示すことがわかった。
さらに、早期アセスメントとの関連を確認するために、早期アセスメントの合計点を 0 点、1～5 点の低得点群、6～10 点の中得点群、11 点以上の高得点群に分類し、それぞれの時期の異常例の割合や改善率について比較した。早期アセスメントの合計点は早期評価群において異常症例の割合に正の相関を示した。しかし、後期評価群では相関はなく、改善率においても関連性は示されなかった。
就学前の読字能力として、北は 年長児の約 85%が 45 文字の清音ひらがなのうち 40 文字以上を読むことができる[④] としており、島村らは ひらがな 71 文字の読字数を調べた調査では、年長児において、60～71 文字が約 85%という結果であった[⑤] と報告している。これらは清音、濁音、半濁音までの評価であり、拗音については評価に含まれていない。また、就学後の読字能力については、高橋は 読みの速さは、小学 1 年では個人差が大きく、速く流暢に読める児は読解力に優れるが、学年の上昇とともに速さの差は縮んでいく[⑥] としている。関らは小学 1 年生に行う読字検査として、就学早期からの利用を想定する場合、拗音を含まない検査が良いが、2 学期以降には拗音を加える必要性が示唆される[⑦] と報告している。ガイドライン音読検査には拗音も含まれており、1 年生時の早期評価ツールとしては不十分である可能性が示唆されている。
以上の結果より、1 年生の 8～9 月は、特殊音節習得前であり、流暢性を読みの速度で評価することを基本とするガイドライン音読検査による DD 診断は困難であった。今回の結果は発達障害児童に対する検討であり、定型発達の児童に対する評価ではないことには留意する必要があると考えられ、早期アセスメントによる予測が困難であった理由として対象によるバイアスが影響した可能性はあると思われた。

早期アセスメントとの関連①

早期アセスメントで3, 4点項目(常に・しばしば)を認めた児
(DDと相関があるとされる)
22人

検査時期	人数(人)	異常判定(人)	割合
早期評価群	19	13	68.4%
後期評価群	14	3	21.4%

- 早期評価群ではガイドライン音読検査の異常と関連があるが、後期評価群では関連が乏しくなる
- 両期評価群における改善率

早期異常(人)	後期正常(人)	改善率
10	7	70.0%

- 早期アセスメントで読字リスクがあると判断された児も就学後に検査では改善を示すことが多い

早期アセスメントとの関連②

- 早期アセスメントの合計点を 0点・低得点(1-5点)・中得点(6-10点)・高得点(11-20点)群に分類
- 早期/後期評価における異常症例、改善率を比較

合計得点群	人数(人)	早期 異常	後期 異常	改善
0点	9	3/8 (37.5%)	1/4 (25.0%)	2/3 (66.7%)
低得点	27	11/23(47.8%)	4/17 (23.5%)	4/13 (30.8%)
中得点	9	6/9 (66.7%)	3/6 (50.0%)	2/4 (50.0%)
高得点	7	5/6 (83.3%)	1/6 (16.7%)	4/5 (80.0%)

- 早期アセスメントの合計点は早期評価群において異常症例の割合において正の相関を示した
- 後期評価群においては相関は得られず改善率とも関連が示されなかった。

早期アセスメントとの関連②

- 早期アセスメントの合計点を 0点・低得点(1-5点)・中得点(6-10点)・高得点(11-20点)群に分類
- 早期/後期評価における異常症例、改善率を比較

合計得点群	人数(人)	早期 異常	後期 異常	改善
0点	9	3/8 (37.5%)	1/4 (25.0%)	2/3 (66.7%)
低得点	27	11/23(47.8%)	4/17 (23.5%)	4/13 (30.8%)
中得点	9	6/9 (66.7%)	3/6 (50.0%)	2/4 (50.0%)
高得点	7	5/6 (83.3%)	1/6 (16.7%)	4/5 (80.0%)

- 早期アセスメントの合計点は早期評価群において異常症例の割合において正の相関を示した
- 後期評価群においては相関は得られず改善率とも関連が示されなかった。

＜引用文献＞

① Shaywitz SE. Sci Am. 1996; 275: 98-104.
② Scarborough HS et al. Read Writ. 1991; 3: 219-33.
③ 岡 牧朗 ら. 脳と発達. 2012; 44: 378-86.
④ 北 洋輔. 発達障害医学の進歩. 2018; 30: 54-65.
⑤ 島村 直己 ら. 教育心理学研究. 1994; 42: 70-6.
⑥ 高橋 登. 教育心理学研究. 2001; 49: 1-10.
⑦ 関 あゆみ ら. 小児の精神と神経. 2016; 56: 145-53.

５．主な発表論文等

〔雑誌論文〕　計0件

〔学会発表〕　計7件（うち招待講演　0件／うち国際学会　1件）

１．発表者名 平谷 美智夫，巨田 元礼，小坂 拓也，川谷 正男，滝口 慎一郎，大嶋 勇成
２．発表標題 幼児期より療育を受け， 就学後に発達性ディスレクシアと診断された児童の臨床的特徴
３．学会等名 第122回日本小児科学会学術集会
４．発表年 2019年

１．発表者名 巨田 元礼，平谷 美智夫，小坂 拓也，川谷 正男，滝口 慎一郎，大嶋 勇成
２．発表標題 年長時に読字リスクの早期アセスメントを実施した児の小学1年生での読字能力の調査
３．学会等名 第122回日本小児科学会学術集会
４．発表年 2019年

１．発表者名 Genrei Ohta, Masao Kawatani, Takuya Kosaka,Takiguchi Shin-ichiro, Hiratani Michio, Yusei Ohshima
２．発表標題 Clinical characteristics of children with neurodevelopmental disorders whose siblings have developmental dyslexia
３．学会等名 15th Asian Oceanian Congress of Child Neurology（国際学会）
４．発表年 2019年

１．発表者名 平谷 美智夫，榊 智史，為国 順治，巨田 元礼，川谷 正男，小坂 拓也，滝口慎一郎，藤澤 隆史，石谷 禎孝，松浦 直己
２．発表標題 クリニックでDDと診断された児童308例の背景因子
３．学会等名 第122回日本小児精神神経学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 巨田 元礼，平谷 美智夫，榊 智史，為国 順治，川谷 正男，小坂 拓也，滝口慎一郎，藤澤 隆史，石谷 禎孝，松浦 直己
２．発表標題 幼児期から療育を受けた児童におけるDDの早期発見に関する研究
３．学会等名 第122回日本小児精神神経学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 石谷 禎孝，平谷 美智夫，榊 智史，為国 順治，巨田 元礼，川谷 正男，小坂 拓也，滝口慎一郎，藤澤 隆史，松浦 直己
２．発表標題 中学生時代における学習成績とメンタルヘルスの問題
３．学会等名 第122回日本小児精神神経学会
４．発表年 2019年

１．発表者名 巨田 元礼、川谷 正男、小坂 拓也 、滝口慎一郎、米谷　博、平谷 美智夫、大嶋 勇成
２．発表標題 同胞発症神経発達症のうち少なくとも一人が 発達性ディスレクシアの臨床的特徴
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

〔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	高橋　哲也 (Takahashi Tetsuya) (00377459)	福井大学・学術研究院医学系部門・客員准教授 (13401)	

６．研究組織（つづき）

	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	水野　賀史 (Mizuno Yoshifumi) (50756814)	福井大学・子どものこころの発達研究センター・准教授 (13401)	

７．科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕　計0件

８．本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関