

科学研究費助成事業（科学研究費補助金）研究成果報告書

平成25年 4月20日現在

機関番号：13401

研究種目：若手研究（B）

研究期間：2010～2012

課題番号：22790560

研究課題名（和文） 自閉症児のきょうだいに対する有効な支援方法の開発に関する研究

研究課題名（英文） The development of the effective support system for siblings with autism spectrum disorder

研究代表者

川谷 正男（KAWATANI MASAO）

福井大学・医学部附属病院・講師

研究者番号：10362047

研究成果の概要（和文）：普段見過ごされがちである自閉症のきょうだい児に対する有効な支援方法の開発に関する研究を行った。多職種の専門家による支援チームを結成し、個々のニーズに合わせたプログラムを開発し、きょうだい支援活動を継続的に実践し、その活動の意義について啓発を行った。また、発達障害の病態診断に有用なバイオマーカーの開発として、酸化ストレスマーカーや脳波検査の有用性について報告した。

研究成果の概要（英文）：We developed the effective support system for the siblings with autism spectrum disorder. We formed support team by specialists of many occupational descriptions, developed the program united with each needs, practiced sibling support service continuously, and educated about the usefulness of our activity. Moreover, we reported the usefulness of oxidative stress markers and electroencephalographic examination for the pathogenesis and diagnosis of developmental disorders.

交付決定額

（金額単位：円）

	直接経費	間接経費	合計
2010年度	700,000	210,000	910,000
2011年度	1,000,000	300,000	1,300,000
2012年度	1,200,000	360,000	1,560,000
総計	2,900,000	870,000	3,770,000

研究分野：医歯薬学

科研費の分科・細目：社会医学、公衆衛生学・健康科学

キーワード：発達障害、きょうだい支援、バイオマーカー

1. 研究開始当初の背景

自閉症スペクトラム障害（ASD）は原因不明の神経発達障害であり、生涯にわたる適切な支援が必要である。ASD当事者への支援だけでなく、周囲の支援者への支援も非常に重要であるが、当事者と生涯にわたって関わりあうきょうだい児への支援は見過ごされがちである。本研究では、医療、教育、心理、福祉など多

方面から、ASDのきょうだい児に対する有効な支援方法を構築し、包括的に実践していくことを試みる。

2. 研究の目的

本研究では、以下の3つの目的に分けて研究を実践していく。

- (1) ASDのきょうだい児に対する有効な支

援プログラムの開発

- (2) 発達障害の病態や診断に有用なバイオマーカーの開発
- (3) きょうだい支援活動の啓発と相互交流

3. 研究の方法

- (1) ASDのきょうだい児に対する有効な支援プログラムの開発

福井県内のASDを持つきょうだい、保護者や支援者に対して、きょうだい支援に関する実態調査を行い、その結果を基に、きょうだい支援プログラムを作成し、ASDのきょうだい児に対する支援活動を継続して実践する。同時に、きょうだい支援プログラム実行前後における支援側と被支援側の意識調査を行い、支援プログラムの有効性、問題点や改善点を再検討する。

- (2) 発達障害の病態や診断に有用なバイオマーカーの開発

希望・同意の得られた発達障害児やそのきょうだい児に関して発達特性の評価（主に酸化ストレスマーカーなどの生化学マーカー、脳波などの生理学的マーカー、認知検査などによる心理的評価など）を多面的かつ縦断的に行う。その上で、きょうだい児の発達特性に合わせた支援プログラムの作成に活用する。

- (3) きょうだい支援活動の啓発と相互交流

発達障害者とそのきょうだいかかわる関係者（当事者、保護者や支援者）に対して、きょうだい支援の重要性や支援プログラムの実際について、講演会を開催し、きょうだい支援の重要性に関して啓発を行い、相互交流を行っていく。さらに、きょうだい支援に関するホームページを作成することによって、周囲の人々への関心を促し、支援の輪を広げていく。

4. 研究成果

- (1) ASDのきょうだい児に対する有効な支援プログラムの開発

- ① 福井県におけるASDのきょうだい支援に関する実態調査

2010年度に福井県のASDのきょうだい7名、保護者60名、支援者171名（医療・療育関係者71名、教育・保育関係者64名、保健・福祉関係者12名など）に対して、アンケート調査を行った。調査項目は、ASD当事者についての障害説明、ASD当事者についての悩み、ASDのきょうだいとの関わりの経験、ASDのきょうだい支援の必要性、ASDのきょうだい支援の経験、ASDのきょうだい支援への参加希望などである。きょうだいでは、両親から当事者の障害説明を受けている（86%）、当事者に関する悩みがある（100%）。悩みの内容は、両親の扱い方（43%）、友達付き合い（0%）、進路（29%）、結婚や出産（29%）、当事者との関わり方（43%）であった。第三者による支援を受けた経験（0%）、第三者によるきょうだい支援が必要と感じる（83%）、きょうだい支援活動への参加を希望する（80%）であった。保護者では、きょうだい児に当事者の障害を説明している（66%）、きょうだい児に対する悩みがある（98%）であり、その内容は、親の思いがうまく伝わっていない（25%）、当事者の障害をうまく説明できない（36%）、きょうだい児の将来が心配（65%）、当事者との関わり方について（56%）、きょうだい児が発達障害である可能性について（20%）であった。第三者によるきょうだい支援を受けた経験（10%）、第三者によるきょうだい支援が必要と感じる（84%）、きょうだい支援活動への参加を希望する（75%）であった。支援者では、きょうだい児との関わりの経験がある（52%）、きょうだい支援の経験があ

る(9%)、きょうだい児は第三者によるきょうだい支援が必要である(84%)、支援者としてきょうだい支援活動への参加を希望する(75%)であった(表)。

表. 福井県におけるASDのきょうだい支援に関する実態調査

	きょうだい(7名)	保護者(60名)	支援者(171名)
悩み	100%	98%	
支援の経験	0%	10%	9%
支援の必要性	83%	84%	91%
参加希望	80%	75%	65%

今回のアンケート調査からは、福井県ではASDのきょうだいに対する支援活動はほとんど行われていないのが現状であった。しかし、きょうだい支援に対するニーズは非常に高く、障害理解や受容、障害特性への対応、家族関係や友達関係、将来のことなど、非常に多岐にわたっており、年齢や個々のニーズに応じたきめ細やかな支援が望まれていた。

②福井県におけるASDのきょうだい支援活動

小児科医、臨床心理士、教諭、保護者など、多職種の有識者による「きょうだい支援の会」を結成し、前述のアンケート調査の結果を参考にして、福井県でASDのきょうだい支援活動(きょうだいの会)を立ち上げた。

きょうだいの会の目的は、①ASDを持つ「きょうだい」同士が自由に交流し、楽しく過ごせる場とすること、②自発的に生じた様々な思いを自由に話し合える場とすること、③ASD当事者の障害理解を深めること、④「きょうだい支援」の啓発と相互交流、とした。参加対象者は、発達障害や精神疾患の診断を受けていないASD児の小中学生のきょうだいで、年

齢や発達特性に応じて参加の制限を設けた。事前に面談を行い、参加者とその保護者が「きょうだいの会」の主旨を十分に了解した上で参加していただいた。

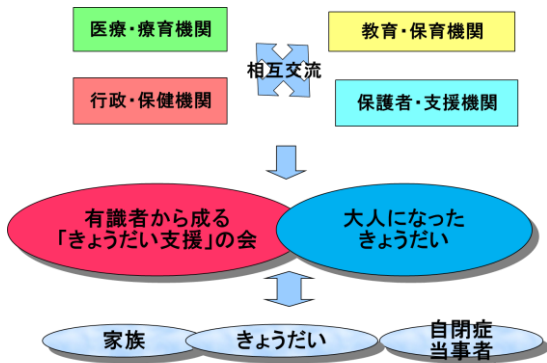
小学3年生から中学2年生までの女兒5名が参加した。1年間に4回、きょうだいだけでレクリエーションを中心とした活動を行い、時折、ASDの障害理解を深める勉強会も盛り込んだ。実際の活動内容は、参加者の希望を組んで、今のニーズに沿った内容を企画した。「きょうだいの会」への参加は参加者の自主性を尊重した。

「きょうだいの会」は、参加者からは非常に好評で、普段の生活では経験できない活動であること、保護者や当事者と離れて活動できること、同じ立場のきょうだい同士で交流できること、などが挙げられた。また、ASDや当事者のことについて、肯定的なこと、否定的なことも含め、自由に表出し話し合える場にもなっていた。

きょうだい支援活動における医師の役割は、1) 発達障害に関する医療的な情報提供、2) 当事者の障害受容や理解への貢献、3) きょうだいの発達障害の特性に関する医療的側面からの支援、4) 他の支援者や機関とのネットワーク構築、5) きょうだい支援活動の啓発などが挙げられた。

今後のきょうだい支援活動の課題として、1) きょうだいの今のニーズに配慮した支援活動を構築、2) 発達障害圏内の「きょうだい」への対応、3) 他の「きょうだい支援」活動との相互交流、4) 小児から成人まで、さまざまな世代での縦や横の交流が挙げられた。支援者間の交流以外に、被支援者間の交流も重要であり、小児期にきょうだい支援を受けたきょうだい児が、大人になったときに、支援者となって、きょうだい児にかかわっていく連携ができることを期待される。

図. 福井県における自閉症児のきょうだい支援



(2) 発達障害の病態や診断に有用なバイオマーカーの開発

① 酸化ストレスマーカー

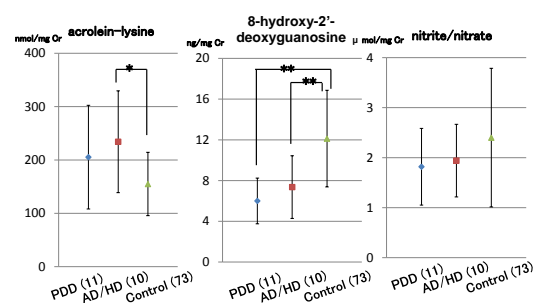
【目的】広汎性発達障害 (PDD) と注意欠陥/多動性障害 (AD/HD) の診断に有用なバイオマーカーとして、尿中の酸化ストレス特異的マーカーが両者の鑑別や診断に有用か検討した。

【方法】PDD11例 (平均10.5±3.8歳: 5~17歳, 男9例) とAD/HD10例 (平均9.5±3.2歳: 6~16歳, 男4例) から早朝尿を採取し, 8-hydroxy-2'-deoxyguanosine (8-OHdG, ELISA法), acrolein-lysine (ELISA法), nitrite/nitrate (比色定量法) の濃度を計測した。定型発達健常者100例 (1~21歳, 男50例) から得られた年齢別基準値 (Tamura S, et al. Free Radic Res. 2006;40:1198-205.) に基づいて, 対象群での計測値をSDスコアで表した。

【結果】PDDとAD/HDの尿中8-OHdG (ng/mg Cr), acrolein-lysine (nmol/mg Cr), nitrite/nitrate (μmol/mg Cr) の平均[SD] 濃度はPDD (6.0 [2.2], 205.3 [97.2], 1.8 [0.8]), AD/HD (7.4 [3.1], 234.2 [75.4], 1.9 [0.7]) と両群間で有意差はみられなかつ

た(図)。SDスコアはPDD (-1.5±0.6, 1.3±2.1, -0.4±0.5), AD/HD (-1.2±0.8, 1.8±2.2, -0.3±0.8) であった。両群とも acrolein-lysineが有意に上昇している症例がPDD4例, AD/HD3例みられた。

図. 広汎性発達障害, 注意欠陥/多動性障害と各種酸化ストレスマーカーの関連性



【結論】今回の研究結果からは, 酸化ストレスの尿中特異的マーカーはPDDとAD/HDの鑑別には有用ではなかった。しかし, 一部の症例では脂質酸化が亢進している症例があり, PDDやAD/HDの病態との関連が示唆された。

② 脳波

【目的】脳波を用いてPDDとAD/HDの神経生理学的特徴を明らかにし, 両者の鑑別において脳波検査の有用性について検討した。

【方法】DSM-IVに合致したPDD64例とAD/HD22例の小児を対象とし, てんかん, 知的障害や進行性神経疾患併存例は除外した。覚醒から自然睡眠時の30分以上の脳波記録を解析し, 臨床兆候, 知能検査や臨床診断との関連について多変量解析を用いて検討した。

【結果】PDD群で背景波異常と前頭極-前頭部 (Fp-F) の突発波を多く認め, AD/HD群で中心-側頭部 (C-T) の突発波を多く認めた。また, 固執や衝動性を認める症例は, Fp-FやC-T領域の突発波を多く認めた。多変量解析の結果では, 背景波異常, Fp-FやC-T領域の突発波の有無の組み合わせにより, PDDとAD/HDの鑑別(表1), PDDを併存しないAD/HDとPDDを併存する

AD/HDの鑑別に有用であった（表2）。

表1. PDD例とAD/HD例の鑑別に有用な因子

	単変量解析			多変量解析			
	未調整 オッズ比	95% 信頼区間	p値	調整済み オッズ比	95% 信頼区間	p値	
臨床 症状	衝動性	0.49	0.15-1.63	0.25	0.57	0.15-2.21	0.42
	かんしゃく	0.75	0.24-2.34	0.62	0.53	0.13-2.19	0.38
	不器用	2.00	0.69-5.76	0.20	2.79	0.84-9.29	0.10
脳波 異常	背景波異常	2.80	0.58-13.46	0.20	4.77	0.74-30.53	0.099
	瀾淫性突発波	2.05	0.61-6.83	0.25	2.13	0.50-9.08	0.31
	Fp-F突発波	0.47	0.12-1.81	0.28	6.27	0.87-45.44	0.069
	C-T突発波	0.49	0.17-1.40	0.18	0.13	0.022-0.70	0.018
回帰 モデル	背景波異常			5.29	0.86-32.55	0.073	
	Fp-F突発波			5.04	0.92-27.73	0.063	
	C-T突発波			0.15	0.034-0.68	0.013	

表2. AD/HD併存PDD例とAD/HD例の鑑別に有用な因子

	単変量解析			多変量解析			
	未調整 オッズ比	95% 信頼区間	p値	調整済み オッズ比	95% 信頼区間	p値	
臨床 症状	衝動性	0.59	0.17-2.04	0.40	0.74	0.18-3.09	0.68
	かんしゃく	0.64	0.20-2.05	0.46	0.40	0.09-1.76	0.22
	不器用	1.95	0.65-5.82	0.23	2.63	0.75-9.26	0.13
脳波 異常	背景波異常	3.08	0.63-15.10	0.17	6.19	0.82-46.51	0.077
	瀾淫性突発波	1.88	0.54-6.48	0.32	2.24	0.44-11.27	0.33
	Fp-F突発波	0.16	0.68-10.27	0.16	9.38	1.09-80.50	0.041
	C-T突発波	0.54	0.18-1.59	0.26	0.09	0.01-0.72	0.023
回帰 モデル	背景波異常			7.54	1.01-42.55	0.049	
	Fp-F突発波			6.76	1.08-42.55	0.042	
	C-T突発波			0.12	0.02-0.66	0.015	

【結論】脳波検査は、小児のPDDとAD/HDの鑑別、あるいはPDDを併存しないAD/HDとPDDを併存するAD/HDの鑑別に有用であった。

(3) きょうだい支援活動の啓発と相互交流

自閉症のきょうだい支援の必要性や福井におけるきょうだい支援活動の実際、きょうだい支援における小児科医の役割などについて、第52回日本小児神経学会総会や第115回日本小児科学会総会で報告した。専門関係者や保護者に対しては、平成23年9月の福井大学子どもの発達研究センターキックオフシンポジウムで、「自閉症児のきょうだい支援の必要性と実際」に関するシンポジウムや平成24年11月には、福井大学医学部附属病院臨床研修センターで、大学生による「きょうだいから見たきょうだい支援」のシンポジウム、横浜、名古屋、鹿児島できょうだい支援活動を行っている専門講師を招聘して特別講演会を開催した。また、「きょうだいの会」や「自閉症児のきょうだい支援」に関する啓発活動として、

福井県内外の医療関係者、教育関係者、福祉関係者などの専門家や保護者などに対して講演会を開催した。さらに、これらの研究成果を公表する場として、ホームページ「自閉症児のきょうだい支援」

<http://kyoudai.med.u-fukui.ac.jp/>を開設した。

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6件)

- ① Kawatani M, Hiratani M, Kometani H, Nakai A, Tsukahara H, Tomoda A, Mayumi M, Ohshima Y. Focal EEG abnormalities might reflect neuropathological characteristics of pervasive developmental disorder and attention-deficit/hyperactivity disorder. *Brain Dev* 2012;34(9):723-30. 査読有
DOI: 10.1016/j.braindev.2011.11.009.
- ② Kawatani M, Nakai A, Okuno T, Tsukahara H, Ohshima Y, Mayumi M. A case of intracranial saccular aneurysm after primary varicella zoster virus infection. *Brain Dev* 2012;34(1):80-2. 査読有
DOI: 10.1016/j.braindev.2011.11.009.
- ③ 川谷正男. きょうだいにも目を向けよう. *日本小児科医会会報* 43: 191, 2012. 査読無
- ④ Hattori A, Komaki H, Kawatani M, Sakuma H, Saito Y, Nakagawa E, Sugai K, Sasaki M, Hayashi YK, Nonaka I, Nishino I. A novel mutation in the LMNA gene causes congenital muscular dystrophy with dropped head and brain involvement. *Neuromuscul Disor* 22, 2012, 149-151.

査読有

DOI: 10.1016/j.nmd.2011.08.009.

- ⑤ Kawatani M, Tsukahara H, Mayumi M.
Evaluation of oxidative stress status in children with pervasive developmental disorder and attention deficit hyperactivity disorder using urinary-specific biomarkers. Redox Rep 2011;16(1):45-6. 査読有
DOI:
10.1179/174329211X12968219310873.
- ⑥ 川谷正男. 【「発達障害」の疑問に答える (教育・支援編)】発達障害児の親ときょうだいへの支援はどうあるべきでしょうか? 教育と医学 58: 50-6, 2010. 査読無

[学会発表] (計8件)

- ① 川谷正男, 米谷博, 巨田元礼, 大嶋勇成, 友田明美, 平谷美智夫. 焦点性脳波異常は広汎性発達障害や注意欠陥/多動性障害の神経病理学的特徴を反映しうる. 第46回日本てんかん学会. 2012年10月11日~2012年10月12日. 東京
- ② 八ツ賀千穂, 平谷美智夫, 石飛信, 川谷正男, 友田明美. 広汎性発達障害 (PDD) 児の薬物療法における risperidone (RPD) から aripiprazole (ARP) への変更. 第48回中部日本小児科学会. 2012年08月26日. 福井市.
- ③ 川谷正男, 米谷博, 巨田元礼, 大嶋勇成. 発達障害同胞の脳波学的検討. 第53回日本小児神経学会総会. 2012年5月17日~19日. 札幌市.
- ④ 川谷正男. 自閉症スペクトラム障害のきょうだい児に対する支援の試みと小児科医の役割. 第115回日本小児科学会総会.

2012年04月18日~20日 福岡市

- ⑤ 川谷正男, 中井昭夫, 大嶋勇成, 平谷美智夫, 津田明美. 福井県における自閉症のきょうだい支援に関する実態調査. 第53回日本小児神経学会総会. 2011年5月26日~28日. 横浜市.
- ⑥ 中井昭夫, 川谷正男, 三橋美典, 吉澤正尹, Marina M.Schoemaker. Motor Observation Questionnaire for Teachers (MCD-Q) 日本語版の心理測定特性の検討. 第53回日本小児神経学会総会. 2011年5月26日~28日. 横浜市.
- ⑦ 中井昭夫, 川谷正男, 三橋美典, 吉澤正尹, Brenda Wilson. Developmental Coordination Disorder Questionnaire (DCD-Q) 日本語版の心理測定特性の検討. 第53回日本小児神経学会総会. 2011年5月26日~28日. 横浜市.
- ⑧ 川谷正男. 自閉症スペクトラム障害 (ASD) のきょうだい児に対する支援の試み. 第52回日本小児神経学会総会. 2010年5月21日. 福岡市.

[その他]

ホームページ等

自閉症児のきょうだい支援

<http://kyoudai.med.u-fukui.ac.jp/>

6. 研究組織

(1) 研究代表者

川谷 正男 (KAWATANI MASAO)

福井大学・医学部附属病院・講師

研究者番号: 22790560