

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 28 年 5 月 13 日現在

機関番号：14101

研究種目：若手研究(B)

研究期間：2014～2015

課題番号：26780355

研究課題名(和文) 18トリソミー児の発達過程の解析

研究課題名(英文) Developmental characteristics of children with trisomy 18: a case study

研究代表者

郷右近 歩 (GOUKON, AYUMU)

三重大学・教育学部・准教授

研究者番号：00452219

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 1,900,000円

研究成果の概要(和文)：18トリソミーはダウン症候群に次ぐ発生頻度の高い染色体異常である。近年、新型出生前診断の対象として、様々な議論があるが、1歳時生存率が約一割といった過去の知見が強調され、発達可能な人間存在である可能性については十分に検討されていなかった。本研究では、就学齢(6歳)に達した18トリソミー児を対象として、その発達過程を画像データと記述データの分析から明らかにした。研究成果については広報用の冊子を制作し、あわせて、書籍としても公開する。

研究成果の概要(英文)：Trisomy 18 is a chromosomal syndrome characterized by a reserved prognosis. Recent findings suggest that there is a chance that children with trisomy 18 may be able to have meaningful interactions with their families. Parents appeared to be positive about caring for their children, and the children seemed to interact with parents and siblings as long as they lived, resulting in quality family time. Neonatal resuscitation guidelines about treatment of newborns with trisomy 18 are not clear. Differences in perspective between prognosis for children with trisomy 18 may be confusing and stressful for parents. Longitudinal research is needed in order to gain a more complete understanding of children with trisomy 18. In this study, we reported the natural developmental history of the individual with trisomy 18. The individual (6 years old) clearly showed smiled responsively, watched his families' face, laughed out loud / giggled, and said sounds.

研究分野：発達神経心理学

キーワード：18トリソミー 発達 教育

1. 研究開始当初の背景

申請者は、「18トリソミー児の発達に関する研究動向とその課題」(特殊教育学研究 47 巻第 2 号, 2009 年) という、国内・国外の先行研究のレビューにおいて、18トリソミー児の発達過程が未だ明らかではないことを示した。その理由は以下の 3 点にまとめられる。

(1) 出生後の 18トリソミー児は NICU におけるケアが必要な場合が殆どであり、医療従事者以外の研究者が直接観察を継続的に行うことは事実上困難である。

(2) 診断や生命予後を伝えられ、精神的なショックを受けている保護者から研究についての同意を得る(インフォームドコンセントを行う)ことは非常に難しい。

(3) 乳児期の 18トリソミー児にとって、感染症等への罹患は致命的な問題となるため、必要以外の第三者との接触が望ましくない場合が多く、研究には細心の注意を要する。

加えて、入院期間中は医療従事者による研究の可能性が残されているが、退院し健康状態の安定した 18トリソミー児については、フォローアップがなされていないケースが殆どである。そのため、申請者が申請時において既に保有する出生直後から約 4 年間にわたる縦断的追跡資料は、国内外を問わず希少なデータであり、分析し公表する意義は極めて高い。

2. 研究の目的

18トリソミー児の発達過程について、縦断的追跡調査により得られたデータを解析する。18トリソミーは、ダウン症候群(21トリソミー)に次ぐ発生頻度の高い染色体異常である。先行研究では、1歳時の生存率が約一割と報告されており、その発達過程や必要な教育的支援についての検討は乏しい。海外の研究を概観しても、18トリソミー児の発達過程を出生直後から縦断的に追跡調査した報告は皆無であった。

18トリソミーに関する研究は、医学的な観点から、生命予後が不良(短命)である点や、重篤な症状に焦点をあてたものが大半である。ゆえに、そもそも発達するという観点が欠けている場合が多い。過去には我が国においても非積極的医療の対象とされてきた。児の診断や保護者への告知に際しては、「生命予後不良」「1歳を迎える前に約 9 割の子が亡くなる」といった内容のみが伝えられ、保護者の多くは養育意欲を保ち難い状況にある。

本研究の意義は、18トリソミー児への発達支援について学術的な知見がほぼ皆無の現状において、当惑している多くの医療従事者や教育関係者に必要な情報をもたらすのみならず、診断告知に直面し希望を失いかけている保護者らを支える上でも一定の寄与を

なしうる点にある。

3. 研究の方法

本研究では、18トリソミー児の発達過程を明らかにすることを目的として、直接観察に基づく観察記録の分析を行う。

平成 26 年度は、データベースの構築に主眼を置いた。記述データのテキストファイル化と出生後約 6 年分の画像データの解析等を行った。加えて、対象児の就学に関する追跡調査を実施した。

平成 27 年度は、データの分析と並行して研究成果の公表を進めた。医療機関の窓口でも配布できるような冊子を作成した。その際、医学の専門家のみが分かる記述を避け、一般の保護者や、教育・福祉関係者等にも理解可能な表現に努めた。

4. 研究成果

(1) 18トリソミー児の発達について

新潮社刊「a boy with trisomy 18」において、画像データにより約 6 年半にわたる発達過程を時系列に沿った形で明らかにした。

18トリソミー児は、自ら他者に向けて身体接触を伴う働きかけを行ったり、他者からの働きかけに対して笑顔を示すなど、コミュニケーションが可能な存在であることが画像データにより示された。

また、本書では就学(6歳)に達した 18トリソミー児が訪問教育(自宅に特別支援学校の教員が訪れて指導を行う教育の一形態)を受ける様子も掲載した。







(2) 18トリソミー児の養育上の課題

ナカニシヤ出版より刊行予定の「めずらしいひと」において、記述データに基づき 18トリソミー児を養育する上での課題について明らかにした。

18トリソミー児については、発達する（働きかけに対して微笑む、自ら働きかけを行う、就学齢に達して教育を受ける等の例がある）という観点が社会一般に乏しく、医療従事者、保護者、福祉や教育に携わる人々、一般の人々の認識や判断が「生命にかかわる極めて重篤な疾患」という点に強い影響を受けている。そのため、発達の基盤となる適切な支援を受ける機会について、制約が数多く存在していた。

必要な医療的・福祉的・教育的支援を受けることで、前掲した画像のような 18トリソミー児の姿も見られる。一方で、疾患名による医療機関の受診拒否や、福祉制度の利用に関する非協力的な対応、適切な教育的支援を提供することへの阻害要因など、多くの危機的な事態に直面していたことが明らかとなった。

18トリソミー児の発達には、その存在に対する社会の寛容さが影響を及ぼし得るといふ課題が示された。

(3) 成果の位置づけ

近年、新型出生前診断（妊娠中の母親から血液を採取し、胎児の染色体異常を判定する検査。21トリソミー、18トリソミー、13トリソミーなどが主な対象となっている。）について、社会的な議論がある。21トリソミー（ダウン症）については、当事者やその家族が積極的に課題を指摘しており、議論にもバランスが生じうる。他方、18トリソミーや13トリソミーについては、科学的根拠が乏しいまま、その存在を否定しかねない状況が数々の既成事実に基づき進みつつある。

科学や学術研究の役割の一つとして、事実を淡々と積み上げ、その成果を社会に還元することで、意思決定の是正や、既有知識に新たな知見を加えることでより適切な状態へのアップデートを促すこと等がある。

本研究の成果は、18トリソミーという疾患を有する子どもを「発達可能な人間存在」として捉えうる、新たな視座を社会に向けて提起している。18トリソミーという疾患の認知度は低く、社会に対するインパクトは大きくないかもしれない。しかしながら、疾患名のみに基づきその存在を脅かすこと、権利を認めないこと、支援を行わないこと、これらの問題は、他の様々な疾患を念頭に置けば、私たちの社会が過去から現在まで、幾度となく直面してきた課題そのものである。

疾患名のみに基づき、様々な権利を侵害する過ちを私たちの社会がこれ以上繰り返さないためには、一つの生命の発達過程を解析した本研究の成果が、相応に評価されるものと期待している。

(4) 今後の展望

本研究の成果について、広報用の冊子を作成した。今後、地道に医療関係者・教育関係者・行政や福祉の関係者への配布を行う予定である。18トリソミーについては、様々な考え方があり、既成事実があり、事情を知る者ほど手にとることが難しい。そのため、先入観がない（18トリソミーという言葉聞いたことがない）人々に対して、研究成果を伝えて行くことも重要な課題である。その一環として日本特殊教育学会第 53 回大会における発表内容を展開し、若い世代の人々に向けた情報発信を進める予定である。

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）

〔学会発表〕（計 1 件）

- ① 郷右近 歩:ある 18トリソミー児の発達過程の解析 提示されたデータに対する教育学部学生の反応. 日本特殊教育学会第 53 回大会. 2015 年 9 月 19 日. 東北大学（宮城県・仙台市）.

〔図書〕（計 2 件）

- (1) 郷右近 歩, ナカニシヤ出版, めずらしいひと, 印刷中 (2016年4月現在入稿済), 54
- (2) 郷右近 歩, 新潮社, a boy with trisomy 18, 2015, 87

[その他]

研究成果としての図書とは別に、広報用の冊子版 a boy with trisomy 18 を作成した。

6. 研究組織

(1) 研究代表者

郷右近 歩 (GOUKON AYUMU)
三重大学・教育学部・准教授
研究者番号：00452219

(2) 研究分担者

()

研究者番号：

(3) 連携研究者

()

研究者番号：