

ハイリスク児の健全育成のシステム化に関する研究 総括研究報告

主任研究者 前川喜平

要約：ハイリスク児の健全育成のシステムを確立することを目的として、6分担課題について研究を行なった。ハイリスク児の発達支援（早期介入）システムに関する研究ではNICU入院中の介入と退院後の連携、乳幼児期の介入方法・システムとハイリスク児の地域ケアの在り方の研究成果を基にして「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。発達障害の早期発見とケアの体系化に関する研究では、人工内耳埋め込み術によるコミュニケーション能力の発達支援、胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立、胎児・新生児における受傷後の神経修復と可塑性について纏めた。発達の観点から見た療育指導の在り方に関する研究では、障害児の早期発見と療育、療育法の見直し、学童期以降の障害児医療の在り方、重症障害児の医療などを行なった。小児の運動性疾患の介護などに関する研究では、先天性無痛無汗症のガイドラインと療育手帳の作成、骨形成不全症の全国実態調査、レット症候群の実態調査とガイドラインの作成などを行なった。学習障害に関する研究では「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」シンポジウム開催、3歳児健診における学習障害の早期発見、新しいタイプの学習障害例を纏めた。先天異常モニタリングに関する研究では、モニタリングの今後の在り方、妊婦に対する葉酸とビタミンA適量摂取、先天異常に関するマニュアルの作成を行なった。

見出し語：ハイリスク児、発達支援、早期発見、ケアシステム、療育指導、介護、学習障害、先天異常、モニタリング

I. 研究計画

1) 目的：

周産期医療の進歩により、ハイリスク児の広域的ケアシステムが問題となっている。ハイリスク児については保健所、医療機関、市町村、児童相談所など多機関が関与することにより包括的、広域的なケアシステムの構築を図る事が必要である。このため、フォローアップや療育相談の在り方について検討する事により、効果的な発達支援システムを構築すると共に、併せて、早期診断とそのケアの方法について研究を行い、システム化の具体的方法を確立することを目的とする。

2) 実施計画：

6つの課題について6名の分担研究者を中心に研究が行なわれるよう計画された。即ち①ハイリスク児の発達支援（早期介入）システムに関する研究（分担研究者：前川喜平）②発達障害の早期発見とケアの体系化に関する研究（分担研究者：高嶋幸男）③発達の観点からみた療育指導の在り方に関する研究（分担研究者：小西行郎）④小児の運動性疾患の介護等に関する研究—先天性無痛無汗症、骨形成不全症を中心に（分担研究者：二瓶健次）⑤学習障害に関する研究（分担研究者：竹下研三）⑥先天異常のモニタリング等に関する研究（分担研究者：住吉好雄）である。前川班では

NICU入院中の介入と退院後の連携、乳幼児期の介入システム、ハイリスク児の地域ケアの在り方などの研究成果を基にして「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。高嶋班では人工内耳埋め込み手術によるコミュニケーション能力の発達支援、胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立、胎児・新生児における受傷後の神経修復と可塑性などを纏めた。小西班では障害児の早期発見と療育、療育法の見直し、学童期以降の障害児医療の在り方、重症障害児の医療などを行なった。二瓶班では先天性無痛無汗症のガイドラインと療育手帳と歯科的療育の手引きの作成、骨形成不全症の全国実態調査、レット症候群の実態調査とガイドラインの作成などを行なった。竹下班では「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」公開シンポジウムの開催、3歳児健診における学習障害の早期診断、新タイプの学習障害児例などを行なった。住吉班では先天異常モニタリングのこれからの在り方、妊婦に対する葉酸とビタミンA適量摂取、先天異常に関するマニュアルの作成を行なった。

3) 本研究の構成と組織

ハイリスク児の健全育成のシステムを作成するためには広範な分野の研究協力者が必要である。このため、6つの課題について6名の分担研究者に

より研究がおこなわれた。各分担研究課題ごとに研究協力者を委嘱し、分担研究者6名、研究協力者63名、計69名の研究者で組織した。全研究者の氏名、所属、職については、別添の研究人名簿に記載した。この他に各分担研究ごとに共同研究者が多数存在している。

II. 研究経過

本年度は第2年度であるが、厚生省心身障害研究が本年度で終了となるので、ハイリスク児の健全育成のシステム化について、各課題ごとに研究を纏めるよう努力した。どうしてもやり残した事は今後の研究課題として記載した。なお本研究の啓蒙として公開シンポジウム「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」を開催した

III. 研究成績

1. ハイリスク児の発達支援（早期介入）システムに関する研究

（分担研究者：前川喜平）

1) ハイリスク児の発達支援マニュアルの作成
我々が現在までおこなってきたNICU入院中の支援と退院後の連携（カンガルーケア、母親への心理的アプローチ、産褥期の母親への支援、やさしいケア、環境の整備—騒音、光、母親通信、保健婦のNICU訪問、里帰り分娩の主治医紹介など）、乳児期の介入システムの確立とその効果、幼児期の介入システムの確立とその効果、ハイリスク児の地域ケアの在り方の研究成果などをもとにして、次の内容の「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。

「ハイリスク児の発達支援マニュアル」

序論：ハイリスク児の発達フォローと支援の目的（前川）

I ハイリスク児に発達支援が必要な背景

- 1 ハイリスク児の発育・発達（山口）
- 2 ハイリスク児の親の心理（神谷）
- 3 ハイリスク児への発達フォローと支援の現状（松石）

II 発達支援

- 1 アメリカにおける発達支援（早期介入）の動向（庄司）
- 2 発達支援の基本的枠組み（庄司）

III NICU入院中の支援と退院後の連携

- 1 カンガルーケア（堀内） 2 母親への心理的アプローチ（橋本）
- 3 産褥期の母親への支援（南部） 4 しいケア（ソフトハンドリング）宮尾）

5 環境の調整—騒音、光（喜田）

6 退院後への連携（飯田）

IV 発達支援の実践—退院後の支援システムと方法

A 県・市など地域における実践

- 1 県レベル・石川県（飯田） 2 市レベル・久留米、筑後地区（松石、吉永）
- 3 保健所を中心とした実践・川口保健所、鳩ヶ谷保健所（奈良）、大田区（諸岡）
- 4 地域における複数医療機関の連携（神戸大、兵庫こども病院、市民病院（上谷） 5 体制が充分整っていない地域（福井県：小西）
- 6 退院後の母の支援（中農）

B 病院やNICU施設における実践

- 1 自治医大 2 東京女子医大
- 3 日赤医療センター 4 都立母子保健院
- 5 埼玉県小児医療センター
- 6 松戸私立病院 7 聖隷浜松病院
- 8 大阪府立母子保健総合センター

V 発達支援（早期介入）の効果（神谷）

VI 課題と提言（松石、前川）

VII ハイリスク児の発達支援に必要な知識

- 1 発達フォローと支援の方法（山口）
- 2 極低出生体重児の言語発達（秦野）
- 3 発達検査・知能検査（笹）
- 4 アンケート調査（恒次）

2) ハイリスク児の発達フォロー：従来は発達チェックが主であったが、早期介入を行なっているうちに、発達フォローと支援を別々ではなく一緒に考えた方がよい事から、さらにハイリスク児においては発達支援を主として行なうべきで、フォローは生後8ヵ月、18ヵ月、3歳、就学前、3年生など特定な月例でおこなえば充分である。乳児期はNICUの看護婦や心理など顔馴染みの人と一緒に過ごしたほうがよい。

2. 発達障害の早期発見とケアの体系化に関する研究（分担研究者：高嶋幸男）

1) 発達障害児のコミュニケーション能力の開発方策

幼少児難聴の早期発見と人工内耳埋め込み術の応用はコミュニケーション能力の開発に極めて有効であった。小児の難聴の多くは、乳幼児早期診断システムの中で早期発見され、その頻度は2千の出生にたいして1人の割合であり、ハイリスクのNICUにおける難聴のスクリーニングでの頻度では、100人に1人である。難聴の正しい診断には、聴性脳幹反応、耳音響反射、行動反応聴力検査や、条件詮索反射検査が重要であり、治療

として、補聴器による聴能訓練で効果が不良であるときには、人工内耳埋め込み術がすばらしい効果をあげた。早期診断、手術のタイミングと教育訓練の協調が重要であると考えられた。脳発達障害のためのコミュニケーション能力評価の困難な児に対しては視覚課題による受動的事象関連電位(ERP)の有用性が証明された。重度発達障害児に、母親と未知女性の顔のペア等を見せ、mismatch negativity (MMN)出現の有無と潜時を検討した。前例にMMN出現が確認された。潜時には遅れのある例もみられた。受動的視覚性ERPは重度発達障害児の視覚認知コミュニケーション能力の早期の生理過程を他覚的に評価する上で有用であった。早期診断にも応用可能であった。

2) 胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立

胎児および新生児の脳障害の早期診断と早期リハビリテーションによる能力開発のために、前方視的追跡例の検討が行われた。ハイリスク児の新生児頭部MRIは極めて有用であった。画像異常の特徴から、4つのパターンに大別できた。画像異常のない障害は未熟児の脳幹障害とアテトーシスで、新生児期は呼吸障害や哺乳障害などを呈し医療的ケアが必要な児であった。新生児期のMRIはより正確に予後を推測することができ、積極的に取り組むべき検査であると考えられた。さらに早期には、胎児期および出生直後の頭部超音波検査と乳児期のMRI検査の組み合わせにより早期診断が正確となった。発達障害児の早期ケアに関連して、脳性麻痺の摂食指導について検討した。初診時に経管栄養の状態であった重症重複障害児について平均8年間追跡調査して、2歳までに食事指導が開始されることが望ましく、肺炎や難治性てんかんは経口摂取を妨げ、MRIやCTの所見は経口摂取を予測するのに有効であった。

3) 胎児新生児における受傷後の神経修復と可塑性

胎児・新生児脳は障害後には再生能が昂進していることが分かった。脳室周囲白質軟化(PVL)について、受傷後の軸索の可塑性を見る目的で、神経細胞の突起に発現する細胞接着因子(L1およびHNK-1)を用いて、免疫組織化学的に検討した。PVLでは比較的急性期から病変周囲にL1およびHNK-1陽性の軸索が出現し、病変の周囲を取り巻く形になった。両者共に、発現は受傷後2か月程度で消失し、一過性であった。これらの細胞接着因子の発現は受傷後の修復過程における軸索の再生を反映していると考えられた。従って、この時期には再生を促す治療的アプロー

チが可能であり、今後障害予防と能力開発を検討する上で重要である。

3. 発達の観点から見た療育指導の在り方に関する研究(分担研究者:小西行郎)

今年度はリサーチクエストンが変更されたために班員の構成を若干変え、障害児のライフサイクルにあわせた療育の在り方について研究した。

1) 障害児の早期発見と療育

伊藤は滋賀県において小児保健医療センターと保健所および市町村保健センターの連携を中心とした発達療育相談事業の在り方を検討し、それぞれの役割分担、対象児の検討を開始した。白瀧は発達障害児の診断に母子相互作用と自発運動の評価を重要な指標として検討したが、この方法は保健所においても容易に用いることが出来る物で、有効な診断法であるとしている。広川は療育相談の場で、障害児の兄弟の問題に着目したが、いじめや不登校などの心身症などの頻度も高く、障害児の療育指導を考えると重要な問題であることが明らかとなった。保育園における統合保育は今後障害児の療育の重要な課題となると思われるが、松本は統合保育に関するアンケート調査を保母に行った。その結果ほとんどの保母が障害児の受入に不安を持ち、障害児の理解が低いことを明らかにした。保母への教育が重要であることが判明であった。

2) 療育法の見直し

小西は集団療育の実態調査を行っているが、今年度はいくつかの代表的な施設に調査を行い、すべての施設で集団療育が行われており、むしろ理学療法士より作業療法士が中心的に働いている印象を得た。全国調査は今年早々に開始したところである。北原は非麻痺性運動発達遅滞児への運動訓練について検討し、その意義、効果及び限界を明らかにし、運動訓練だけにとどめない長期療育システムの必要性を強調した。その技術論は今後の検討課題である。八木の調査では、親が今まで受けてきた療育指導についてどのように考えているかが明らかになったが、とくに行政と保健所の療育制度などについての情報伝達に不満をもっていること、地域療育システムのなかで保健所が十分に役割を果たしていない事が明確となった。

3) 学童期以降の障害児医療の在り方

富和は障害児に関する意識調査を開業医におこなうために行政や医師会と交渉を行い、アンケートの作成について検討し、今年早々に調査を実施する予定になっている。杉本は大阪の養護学校の実態調査を行い、校医の在り方について検討し、小児神経医を校医にする必要のあることを強調した

。栗原は在宅児の短期入所の実態を報告し、療育指導の有効性を明らかにしたが、この事業に対する経済的問題も重要である。

4) 重症障害児の医療

須貝は重症障害児の人工呼吸器療法の実態について報告した。いままでは一生施設で生活することが当たり前と考えられていた重症障害児が、人工呼吸器を使用することによって、在宅で生活できるようになっていることを報告し、その問題点についても明らかにした。

北住は重症障害児の養護学校における医療ケア実施状況についてアンケート調査を行い、その実態と問題点を明らかにした。

4. 小児の運動性疾患の介護等に関する研究(分担研究者:二瓶健二)

1) 先天性無痛無汗症のガイドラインを作成し、全国の希望される施設等に配布した。また、インターネットを通じて公開している。英文を作成し海外にも公開している。

2) 先天性無痛無汗症の療育手帳を作成した。重篤な合併症が多い疾患であるが、なかでも受診回数が多い整形外科、歯科的な経過、既往歴が一目で理解できるようにした。また、本症の死亡例、麻酔例の検討から、療育の手引きにそれらについての留意点が盛り込まれた。

3) 先天性無痛無汗症の歯科的合併症は乳児期の最も重大な合併症であり、早期のスプリントの装着、自傷行為、う歯や歯肉周囲の予防が重要である。多くの経験を踏まえて歯科的療育の手引きも作成した。

4) 骨形成不全症の全国の患者(32名)と医療施設(230名)からのアンケート調査を行い、実態と問題点を明らかにした。とくに骨折の回数、骨折する原因、風呂やトイレなどの日常生活での骨折の機会についても調査した。これらの調査を基礎に手引書の原案を作成した。本症の歯科的合併症も多彩で、多くの治験が報告された。

5) レット症候群の実態調査とガイドラインを作成した。

6) 無痛症はシャルコー関節が重大な合併症であるが、最近開発された形状記憶素材を用いて各自の関節にフィットする装具を作成する工夫をした。これは無痛症ばかりでなく脊椎損傷、二分脊柱などの装具にも利用され得る。

7) 無痛症は痛みがないために麻酔がどのようになされているかを、全国の麻酔科を対象にアンケート調査を行った。痛みが無くても全身麻酔は必要であり、自律神経的な副作用に注意が必要である。脳性麻痺における早期の股関節軟部組織解離

術を24例32股関節に行い、術後の運動レベルの改善とmigration percentage改善が見られた。

9) 特定疾患登録患者7280人のうち595人の小児例について在宅生活の現状を分析したが、疾患の受容、理解、今後の学校生活、介護に対する不安をもち、疾患の情報、介護のガイドラインの必要性が浮彫りにされた。

5. 学習障害に関する研究(分担研究者:竹下研三)

1) 「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」をテーマに公開シンポジウムを開催した。その中で、学習障害の基底病態として早期産、てんかんや注意欠陥多動性障害が疑われることが報告された。また、学習障害の近縁疾患として高機能型の自閉的障害があり、その認知障害の特徴として言語能力に比し描画能力が劣ることが報告された。

2) 学習障害の早期診断には、3歳児健診でのスクリーニングには限界があり、就学前の健診(5歳児健診など)が必要であることが報告された。

3) 視覚・聴覚同時刺激法を用いたp300測定が、学習障害の認知障害をより適確に反映する可能性が示唆された。

4) 漢字の読み書きに障害を有する新しいタイプの学習障害例、兄弟での発症例、聴覚性言語障害を呈する学習障害成人例が報告され、言語学的な治療法が有効である可能性が示された。

6. 先手異常モニタリングに関する研究(分担研究者:住吉好雄)

1) 先天異常のモニタリングの在り方について各プログラムの開始以来今日までの成績をまとめ今後如何にあるべきかを検討した。

鳥取班:1974年にスタートした人口ベースの23年間における結果をまとめ報告された。この間、異常な変動を示した奇形はなかった。

石川班:人口ベースで昭和56年から平成8年までの16年間の成績をまとめ報告された。この5年間に小頭症、ダウン症で増加、尿道下裂で増加傾向、無脳症、水頭症で減少傾向がみられた。

神奈川班:1981年より16年間の成績が報告された。無脳症が1/4に減少したほか、他の奇形では有意の増減はみられていない。その他高齢出産の増加、多胎妊娠の増加等が報告された。

日母班:1972年から全国270の病院ベースのモニタリングの報告で過去25年、対象2,983,021人、奇形児27,025人、0.91%、無脳症が有意に減少しているが、198

6年から21週以前に診断し人工妊娠中絶がおこなわれた症例に関し平行して調査が行なわれており、その結果と合わせると無脳症の発生数には変化がみられず、無脳症の届け出数の減少は出生前診断とそれに続いて行なわれている人工妊娠中絶の影響が従来のモニタリングに影響を及ぼしていることが報告された。また1989年よりWHOのcollaborating NGO機関である国際クリアリングハウス先天異常モニタリング機構に加盟し、横浜私立大の先天異常モニタリングセンターを窓口として四半期毎に情報を交換しあっている。

愛知3県の口唇・口蓋裂のみのモニタリングは1981年から始められ現在までに826、155名中患者は1、194名、0.145%で著しい変動は見られていない。薬剤、環境汚染物質を始めとした様々な催奇形因子の存在する現代社会において国民が安心して生活するために、先天異常モニタリングは不可欠の監視機構であることが各研究協力者より強調された。

2) 妊婦に対する葉酸とビタミンA適量摂取の教育方策の確立

昨年妊娠12週未満の妊婦142名の血中葉酸及びビタミンAの測定を行い、いずれも正常範囲の最低値を示した。本年度はビタミンの研究であるお茶ノ水女子大学五十嵐教授を班員として協力を仰ぎ日本人女性及び妊婦の「葉酸」「ビタミンA」の適量が示され、妊娠を希望する女性に対するrecommendationを作成した。「葉酸」の神経管欠損に対する効果の基礎的研究については、昨年同様京都大塩田教授によって行なわれ本年度は明らかに効果があることが証明された。

3) 先天異常に関するマニュアルの作成

産科医、小児科医のための先天奇形及び染色体異常ガイドブックを、鳥取県で作成したものを中心に、神奈川県、日母で作成した同様のガイドブックを補足した約40頁のマニュアルを作成した。

IV. 今後の課題と提言

- 1 ハイリスク児の支援を主とした、発達フォローの方法とシステムの確立が必要である。
- 2 ハイリスク児の支援とフォローを一緒にしたマニュアルの作成が必要である。
- 3 ハイリスク児支援のための保健婦、看護婦、心理、医師などの連携と地域の施設との連携システムの確立が必要である。
- 4 感覚性のコミュニケーション障害では人工内耳など、新しい治療法の開発があり、よりよいケアのシステムを検討する必要がある。
- 5 早期頭部画像診断は急速に進歩しており、発

達障害児の早期ケアにいかに関与するかは重要なことである。頭部画像等を含めた個人情報母子手帳のように携帯する、効果的な情報伝達システムを専門家を加えて検討する必要がある

- 6 発達障害の能力向上のためのケアシステムの開発には、基礎的研究を加えて発展させる必要がある。
- 7 障害児のライフサイクルに合わせた医療、教育、福祉の連携の在り方の検討
- 8 療育マニュアルによる保健婦教育
- 9 小児の運動性疾患には、脳性麻痺、筋ジストロフィーといった疾患と同じように介護をしていくことが出来ない多くの疾患が知られている。これらの疾患は介護をする家庭、園、学校、職場といった現場では殆ど知られておらずか、違った介護が行なわれたり、親に不安を与える要因になっている。今後も難治性てんかん、もやもや病、ミトコンドリア脳筋症等、このような疾患を取り上げてその問題点を明らかにし介護等のガイドラインを作成する。
- 10 ガイドライン、療育手帳などを有効に利用するためのガイドラインを作成する。インターネットの利用も考える。
- 11 介護する人を援助するためのガイドラインについても検討する。
- 12 学習障害LDの早期診断に適切な年齢と効率のよいスクリーニング方法を確立する。
- 13 LDの神経生理学的、生化学的、分子生物学的な研究を進める。
- 14 言語的治療を含めた有効性の高い介入方法を探る。
- 15 先天異常モニタリングは年度毎の研究ではなく、継続(委託)事業として実施されるべきものである。
- 16 感染症サーベイランスと同様に、全国を網羅的に協力病院を指定し、過去17-25年にわたり実施されてきた実績を生かし継続されることを強く要望したい。



検索用テキスト OCR(光学的文字認識)ソフト使用

論文の一部ですが、認識率の関係で誤字が含まれる場合があります



平成9年度厚生省心身障書研究

「ハイリスク児の健全育成のシステム化に関する研究」

ハイリスク児の健全育成のシステム化に関する研究

総括研究報告

主任研究者 前川喜平

要約:ハイリスク児の健全育成のシステムを確立することを目的として、6 分担課題について研究を行なった。ハイリスク児の発達支援(早期介入)システムに関する研究では NICT 入院中の介入と退院後の連携、乳幼児期の介入方法・システムとハイリスク児の地域ケアの在り方の研究成果を基にして「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。発達障害の早期発見とケアの体系化に関する研究では、人工内耳埋め込み術によるコミュニケーション能力の発達支援、胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立、胎児・新生児における受傷後の神経修復と可塑性について纏めた。発達の観点から見た療育指導の在り方に関する研究では、障害児の早期発見と療育、療育法の見直し、学童期以降の障害児医療の在り方、重症障害児の医療などを行なった。小児の運動性疾患の介護などに関する研究では、先天性無痛無汗症のガイドラインと療育手帳の作成、骨形成不全症の全国実態調査、レット症候群の実態調査とガイドラインの作成などを行なった。学習障害に関する研究では「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」シンポジウム開催、3 歳児健診における学習障害の早期発見、新しいタイプの学習障害例を纏めた。先天異常モニタリングに関する研究では、モニタリングの今後の在り方、妊婦に対する葉酸とビタミン A 適量摂取、先天異常に関するマニュアルの作成を行なった。

見出し語:ハイリスク児、発達支援、早期発見、ケアシステム、療育指導、介護、学習障害、先天異常、モニタリング

1. 研究計画

1) 目的:

周産期医療の進歩により、ハイリスク児の広域的ケアシステムが問題となっている。ハイリスク児については保健所、医療機関、市町村、児童相談所など多機関が関与することにより包括的、広域的なケアシステムの構築を図る事が必要である。このため、フォローアップや療育相談の在り方について検討する事により、効果的な発達支援システムを構築すると共に、併せて、早期診断とそのケアの方法について研究を行い、システム化の具体的方法を確立することを目的とする。

2) 実施計画:

6 つの課題について 6 名の分担研究者を中心に研究が行なわれるよう計画された。即ちハイリスク児の発達支援(早期介入)システムに関する研究(分担研究者:前川喜平) 発達

障害の早期発見とケアの体系化に関する研究(分担研究者:高嶋幸男) 発達の観点からみた療育指導の在り方に関する研究(分担研究者:小西行郎) 小児の運動性疾患の介護等に関する研究—先天性無痛無汗症、骨形成不全症を中心に(分担研究者:二瓶健次) 学習障害に関する研究(分担研究者:竹下研三) 先天異常のモニタリング等に関する研究(分担研究者:住吉好雄)である。前川班では NICU 入院中の介入と退院後の連携、乳幼児期の介入システム、ハイリスク児の地域ケアの在り方などの研究成果を基にして「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。高嶋班では人工内耳埋め込み手術によるコミュニケーション能力の発達支援、胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立、胎児・新生児における受傷後の神経修復と可塑性などを纏めた。小西班では障害児の早期発見と療育、療育法の見直し、学童期以降の障害児医療の在り方、重症障害児の医療などを行なった。二瓶班では先天性無痛無汗症のガイドラインと療育手帳と歯科的療育の手引きの作成、骨形成不全症の全国実態調査、レット症候群の実態調査とガイドラインの作成などを行なった。竹下班では「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」公開シンポジウムの開催、3 歳児健診における学習障害の早期診断、新タイプの学習障害児例などを行なった。住吉班では先天異常モニタリングのこれからの在り方、妊婦に対する葉酸とビタミン A 適量摂取、先天異常に関するマニュアルの作成を行なった。

3)本研究の構成と組織

ハイリスク児の健全育成のシステムを作成するためには広範な分野の研究協力者が必要である。このため、6つの課題について6名の分担研究者により研究がおこなわれた。各分担研究課題ごとに研究協力者を委嘱し、分担研究者6名、研究協力者63名、計69名の研究者で組織した。全研究者の氏名、所属、職については、別添の研究者名簿に記載した。この他に各分担研究ごとに共同研究者が多数存在している。

.研究経過

本年度は第2年度であるが厚生省心身障害研究が本年度で終了となるので、ハイリスク児の健全育成のシステム化について、各課題ごとに研究を纏めるよう努力した。どうしてもやり残した事は今後の研究課題として記載した。なお本研究の啓蒙として公開シンポジウム「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」を開催した

.研究成績

1.ハイリスク児の発達支援(早期介入)システムに関する研究 (分担研究者:前川喜平)

1)ハイリスク児の発達支援マニュアルの作成

我々が現在までおなってきたNICU入院中の支援と退院後の連携(カンガルーケア、母親への心理的アプローチ、産褥期の母親への支援、やさしいケア、環境の整備 - 騒音、光、母親通信、保健婦のNICU訪問、里帰り分娩の主治医紹介など)、乳児期の介入システムの確立とその効果、幼児期の介入システムの確立とその効果、ハイリスク児の地域ケアの在り方の研究成果などをもとにして、次の内容の「ハイリスク児の発達支援マニュアル」を作成した。

「ハイリスク児の発達支援マニュアル」

序論:ハイリスク児の発達フォローと支援の目的 (前川)

1 ハイリスク児に発達支援が必要な背景

1 ハイリスク児の発育・発達(山口) 2 ハイリスク児の親の心理(神谷) 3 ハイリスク児への発達フォローと支援の現状(松石)

発達支援

1 アメリカにおける発達支援(早期介入)の動向(庄司) 2 発達支援の基本的枠組み(庄司)

NICU 入院中の支援と退院後の連携

1 カンガルーケア(堀内) 2 母親への心理的アプローチ(橋本) 3 産褥期の母親への支援(南部) 4 しいケア(ソフトハンドリング)宮尾) 5 環境の調整 - 騒音、光(喜田) 6 退院後への連携(飯田)

発達支援の実践 - 退院後の支援システムと方法

A 県・市など地域における実践

1 県レベル・・・石川県(飯田) 2 市レベル・・・久留米、筑後地区(松石、吉永) 3 保健所を中心とした実践・・・川口保健所、鳩ヶ谷保健所(奈良)、大田区(諸岡) 4 地域における複数医療機関の連携(神戸大、兵庫こども病院、市民病院(上谷) 5 体制が充分整っていない地域(福井県:小西) 6 退院後の母の支援(中農)

B 病院や NICU 施設における実践

1 自治医大 2 東京女子医大 3 日赤医療センター 4 都立母子保健院 5 埼玉県小児医療センター 6 松戸私立病院 7 聖隷浜松病院 8 大阪府立母子保健総合センター

発達支援(早期介入)の効果(神谷)

課題と提言(松石、前川)

ハイリスク児の発達支援に必要な知識

1 発達フォローと支援の方法(山口) 2 極低出生体重児の言語発達(秦野) 3 発達検査・知能検査(童) 4 アンケート調査(恒次)

2)ハイリスク児の発達フォロー:従来は発達チェックが主であったが、早期介入を行なっているうちに、発達フォローと支援を別々ではなく一緒に考えた方がよい事から、さらにハイリスク児においては発達支援を主として行なうべきで、フォローは生後 8 ヶ月、18 ヶ月、3 歳、就学前、3 年生など特定の月例でおこなえば充分である。乳児期は NICU の看護婦や心理など顔馴染みの人と一緒に過ごしたほうがよい。

2.発達障害の早期発見とケアの体系化に関する研究(分担研究者:高嶋幸男)

1)発達障害児のコミュニケーション能力の開発方策

幼少児難聴の早期発見と人工内耳埋め込み術の応用はコミュニケーション能力の開発に極めて有効であった。小児の難聴の多くは、乳幼児早期診断システムの中で早期発見され、

その頻度は2千の出生にたいして1人の割合であり、ハイリスクのNICUにおける難聴のスクリーニングでの頻度では、100人に1人である。難聴の正しい診断には、聴性脳幹反応、耳音響反射、行動反応聴力検査や、条件詮索反射検査が重要であり、治療として、補聴器による聴能訓練で効果が不良であるときには、人工内耳埋め込み術がすばらしい効果をあげた。早期診断、手術のタイミングと教育訓練の協調が重要であると考えられた。脳発達障害のためのコミュニケーション能力評価の困難な児に対しては視覚課題による受動的事象関連電位(ERP)の有用性が証明された。重度発達障害児に、母親と未知女性の顔のペア等を見せ、mismatch negativity (MMN)出現の有無と潜時を検討した。前例にMMN出現が確認された。潜時には遅れのある例もみられた。受動的視覚性EPRは重度発達障害児の視覚認知コミュニケーション能力の早期の生理過程を他覚的に評価する上で有用であった。早期診断にも応用可能であった。

2)胎児および新生児の頭部画像診断に続くケア指針の確立

胎児および新生児の脳障害の早期診断と早期リハビリテーションによる能力開発のために、前方視的追跡例の検討が行われた。ハイリスク児の新生児頭部MRIは極めて有用であった。画像異常の特徴から、4つのパターンに大別できた。画像異常のない障害は未熟児の脳幹障害とアテトーシスで、新生児期は呼吸障害や哺乳障害などを呈し医療的ケアが必要な児であった。新生児期のMRIはより正確に予後を推測することができ、積極的に取り組むべき検査であると考えられた。さらに早期には、胎児期および出生直後の頭部超音波検査と乳児期のMRI検査の組み合わせにより早期診断が正確となった。発達障害児の早期ケアに関連して、脳性麻痺の摂食指導について検討した。初診時に経管栄養の状態であった重症重複障害児について平均8年間追跡調査して、2歳までに食事指導が開始されることが望ましく、肺炎や難治性てんかんは経口摂取を妨げ、MRIやCTの所見は経口摂取を予測するのに有効であった。

3)胎児新生児における受傷後の神経修復と可塑性

胎児・新生児脳は障害後には再生能が昂進していることが分かった。脳室周囲白質軟化(PVL)について、受傷後の軸索の可塑性を見る目的で、神経細胞の突起に発現する細胞接着因子(L1およびHNK-1)を用いて、免疫組織科学的に検討した。PVLでは比較的急性期から病変周囲にL1およびHNK-1陽性の軸索が出現し、病変の周囲を取り巻く形になった。両者共に、発現は受傷後2か月程度で消失し、一過性であった。これらの細胞接着因子の発現は受傷後の修復過程における軸索の再生を反映していると考えられた。従って、この時期には再生を促す治療的アプローチが可能であり、今後障害予防と能力開発を検討する上で重要である。

3. 発達の観点から見た療育指導の在り方に関する研究(分担研究者：小西行朗)

今年度はリサーチクエストンが変更されたために班員の構成を若干変え、障害児のライフサイクルにあわせた療育の在り方について研究した。

1)障害児の早期発見と療育

伊藤は滋賀県において小児保健医療センターと保健所および市町村保健センターの連携を中心とした発達療育相談事業の在り方を検討し、それぞれの役割分担、対象児の検討を開始した。白瀧は発達障害児の診断に母子相互作用と自発運動の評価を重要な指標として検討したが、この方法は保健所においても容易に用いることが出来る物で、有効な診断法であるとしている。広川は療育相談の場で、障害児の兄弟の問題に着目したが、いじめや不登校などの心身症などの頻度も高く、障害児の療育指導を考えると重要な問題であることが明らかとなった。保育園における統合保育は今後障害児の療育の重要な課題となると思われるが、松本は統合保育に関するアンケート調査を保母に行った。その結果ほとんどの保母が障害児の受入に不安を持ち、障害児の理解が低いことを明らかにした。保母への教育が重要であることが判明あいた。

2)療育法の見直し

小西は集団療育の実態調査を行っているが、今年度はいくつかの代表的な施設に調査を行い、すべての施設で集団療育が行われており、むしろ理学療法士より作業療法士が中心的に働いている印象を得た。全国調査は今年早々に開始したところである。北原は非麻痺性運動発達遅滞児への運動訓練について検討し、その意義、効果及び限界を明らかにし、運動訓練だけにとどめない長期療育システムの必要性を強調した。その技術論は今後の検討課題である。八木の調査では、親が今まで受けてきた療育指導についてどのように考えているかが明らかになったが、とくに行政と保健所の療育制度などについての情報伝達に不満をもっていること、地域療育システムのなかで保健所が十分に役割を果たしていない事が明確になった。

3)学童期以降の障害児医療の在り方

富和は障害児に関する意識調査を開業医におこなうために行政や医師会と交渉を行い、アンケートの作成について検討し、今年早々に調査を実施する予定になっている。杉本は大阪の養護学校の実態調査を行い、校医の在り方について検討し、小児神経医を校医にする必要のあることを強調した。栗原は在宅児の短期入所の実態を報告し、療育指導の有効性を明らかにしたが、この事業に対する経済的問題も重要である。

4)重症障害児の医療

須貝は重症障害児の人工呼吸器療法の実態について報告した。いままでは一生施設で生活することが当たり前と考えられていた重症障害児が人工呼吸器を使用することによって、在宅で生活できるようになっていることを報告し、その問題点についても明らかにした。北住は重症障害児の養護学校における医療ケア実施状況についてアンケート調査を行い、その実態と問題点を明らかにした。

4. 小児の運動性疾患の介護等に関する研究(分担研究者:二瓶健二)

1)先天性無痛無汗症のガイドラインを作成し、全国の希望される施設等に配布した。また、インターネットを通じて公開している。英文を作成し海外にも公開している。

2)先天性無痛無汗症の療育手帳を作成した。重篤な合併症が多い疾患であるが、なかでも

受診回数が多い整形外科、歯科的な経過、既往歴が一目で理解できるようにした。また、本症の死亡例、麻酔例の検討から、療育の手引きにそれらについての留意点が盛り込まれた。

3) 先天性無痛無汗症の歯科的合併症は乳児期の最も重大な合併症であり、早期のスプリントの装着、自傷行為、う歯や歯肉周囲の予防が重要である。多くの経験を踏まえて歯科的療育の手引きも作成した。

4) 骨形成不全症の全国の患者(32名)と医療施設(230名)からのアンケート調査を行い、実態と問題点を明らかにした。とくに骨折の回数、骨折する原因、風呂やトイレなどの日常生活での骨折の機会についても調査した。これらの調査を基礎に手引書の原案を作成した。本症の歯科的合併症も多彩で、多くの治験が報告された。

5) レット症候群の実態調査とガイドラインを作成した。

6) 無痛症はシャルコー関節が重大な合併症であるが、最近開発された形状記憶素材を用いて各自の関節にフィットする装具を作成する工夫をした。これは無痛症ばかりでなく脊椎損傷、二分脊柱などの装具にも利用され得る。

7) 無痛症は痛みがないために麻酔がどのようになされているかを、全国の麻酔科を対象にアンケート調査を行った。痛みが無くても全身麻酔は必要であり、自律神経的な副作用に注意が必要である。脳性麻痺における早期の股関節軟部組織解離術を24例32例股関節に行い、術後の運動レベルの改善と migration percentage 改善が見られた。

9) 特定疾患登録患者7280人のうち595人の小児例について在宅生活の現状を分析したが、疾患の受容、理解、今後の学校生活、介護に対する不安をもち、疾患の情報、介護のガイドラインの必要性が浮彫りにされた。

5. 学習障害に関する研究(分担研究：竹下研三)

1) 「学習障害の基底病態と症状理解のための学際的アプローチ」をテーマに公開シンポジウムを開催した。その中で、学習障害の基底病態として早期産、てんかんや注意欠陥多動性障害が疑われることが報告された。また、学習障害の近縁疾患として高機能型の自閉的障害があり、その認知障害の特徴として言語能力に比して描画能力が劣ることが報告された。

2) 学習障害の早期診断には、3歳児健診でのスクリーニングには限界があり、就学前の健診(5歳児健診など)が必要であることが報告された。

3) 視覚・聴覚同時刺激法を用いた p300 測定が、学習障害の認知障害をより適確に反映する可能性が示唆された。

4) 漢字の読み書きに障害を有する新しいタイプの学習障害例、兄弟での発症例、聴覚性言語障害を呈する学習障害成人例が報告され、言語学的な治療法が有効である可能性が示唆された。

6. 先手異常モニタリングに関する研究(分担研究者：住吉好雄)

1) 先天異常のモニタリングの在り方について各プログラムの開始以来今日までの成績をま

とめ今後如何にあるべきかを検討した。

鳥取班：1974年にスタートした人口ベースの23年間における結果をまとめ報告された。この間、異常な変動を示した奇形はなかった。

石川班：人口ベースで昭和56年から平成8年までの16年間の成績をまとめ報告された。この5年間に小頭症、ダウン症で増加、尿道下裂で増加傾向、無脳症、水頭症で減少傾向がみられた。

神奈川班：1981年より16年間の成績が報告された。無脳症が1/4に減少したほか、他の奇形では有意の増減はみられていない。その他高齢出産の増加、多胎妊娠の増加等が報告された。

日母班：1972年からも全国270の病院ベースのモニタリングの報告で過去25年、対象2,983,021人、奇形27,025人、0.91%、無脳症が有意に減少しているが1986年から21週以前に診断し人工妊娠中絶がおこなわれた症例に関し平行して調査が行なわれており、その結果と合わせると無脳症の発生数には変化がみられず、無脳症の届け出数の減少は出生前診断とそれに続いて行なわれている人工妊娠中絶の影響が従来のモニタリングに影響を及ぼしていることが報告された。また1989年よりWHOのcollaborating NGO機関である国際クリアリングハウス先天異常モニタリング機構に加盟し、横浜私立大の先天異常モニタリングセンターを窓口として四半期毎に情報を交換しあっている。

愛知3県の口唇・口蓋裂のみのモニタリングは1981年から始められ現在までに826,155名中患者は1,194名、0.145%で著しい変動は見られていない。薬剤、環境汚染物質を始めとした様々な催奇形因子の存在する現代社会において国民が安心して生活するために、先天異常モニタリングは不可欠の監視機構であることが各研究協力者より強調された。

2) 妊婦に対する葉酸とビタミンA適量摂取の教育方策の確立

昨年妊娠12週未満の妊婦142名の血中葉酸及びビタミンAの測定を行い、いずれも正常範囲の最低値を示した。本年度はビタミンの研究であるお茶ノ水女子大学五十嵐教授を斑員として協力を仰ぎ日本人女性及び妊婦の「葉酸」「ビタミンA」の適量が示され、妊娠を希望する女性に対するrecommendationを作成した。「葉酸」の神経管欠損に対する効果の基礎的研究については、昨年同様京都大塩田教授によって行なわれ本年度は明らかに効果があることが証明された。

3) 先天異常に関するマニュアルの作成

産科医、小児科医のための先天奇形及び染色体異常ガイドブックを、鳥取県で作成したものを中心に、神奈川県、日母で作成した同様のガイドブックを補足した約40頁のマニュアルを作成した。

今後の課題と提言

- 1 ハイリスク児の支援を主とした、発達フォローの方法とシステムの確立が必要である。
- 2 ハイリスク児の支援とフォローを一緒にしたマニュアルの作成が必要である。
- 3 ハイリスク児支援のための保健婦、看護婦、心理、医師などの連携と地域の施設との

連携システムの確立が必要である。

4 感覚性のコミュニケーション障害では人工内耳など、新しい治療法の開発があり、よりよいケアのシステムを検討する必要がある。

5 早期頭部画像診断は急速に進歩しており、発達障害児の早期ケアにいかに関与するかは重要なことである。頭部画像等を含めた個人情報を母子手帳のように携帯する、効果的な情報伝達システムを専門家を加えて検討する必要がある。

6 発達障害の能力向上のためのケアシステムの開発には、基礎的研究を加えて発展させる必要がある。

7 障害児のライフサイクルに合わせた医療、教育、福祉の連携の在り方の検討

8 療育マニュアルによる保健婦教育

9 小児の運動性疾患には、脳性麻痺、筋ジストロフィーといった疾患と同じように介護をしていくことが出来ない多くの疾患が知られている。これらの疾患は介護をする家庭、園、学校、職場といった現場では殆ど知られておらずか、違った介護が行なわれり、親に不安を与える要因になっている。今後も難治性てんかん、もやもや病、ミトコンドリア脳筋症等、このような疾患を取り上げてその問題点を明らかにし介護等のガイドラインを作成する。

10 ガイドライン、療育手帳などを有効に利用するためのガイドラインを作成する。インターネットの利用も考える。

11 介護する人を援助するためのガイドラインについても検討する。

12 学習障害 LD の早期診断に適切な年齢と効率のよいスクリーニング方法を確立する。

13 LD の神経生理学的、生化学的、分子生物学的な研究を進める。

14 言語的治療を含めた有効性の高い介入方法を探る。

15 先天異常モニタリングは年度毎の研究ではなく、継続(委託)事業として実施されるべきものである。

16 感染症サーベイランスと同様に、全国を網羅的に協力病院を指定し、過去 17-25 年にわたり実施されてきた実績を生かし継続されることを強く要望したい。