

マススクリーニングで発見されたクレチン症の知能予後：第1回調査IQの修正値および第2回全国調査の中間報告（分担研究：現行マススクリーニングにより発見された患児の管理と長期予後に関する研究）

猪股弘明¹⁾ 中島博徳¹⁾ 佐藤浩一²⁾ 大西尚志³⁾

要約：マススクリーニングで発見されたクレチン症の知能予後の全国調査成績(第1回)(既報)を、IQ算出法が修正されたWISC-R知能検査法により修正した。全尺度IQは 88.6 ± 18.2 と報告したものが、 97.5 ± 14.8 となった。スクリーニング以前よりは格段の上昇であるが、一般小児の推定値(105.4 ± 20.69)よりは低値であった。次に、今年度から開始した第2回全国調査の中間集計をした。93例のIQは 99.2 ± 15.0 と前回より上昇したが、一般小児推定値よりはまだ低値であった。初診時のT4, T3, TSH, 日齢, 臨床スコア, 骨成熟度とIQとに相関はなかった。病型別の検討で欠損性が異所性および合成障害性より有意に低値であった。下位項目では「組合せ」が前回同様に低かった。発見年度の新しい症例のIQ値は高い傾向にあった。

見出し語：クレチン症, 長期予後, 知能指数, WISC-R

研究方法

一昨年度までの厚生省「マススクリーニングに関する研究班」にて行なった、マススクリーニングで発見され、6歳以上に達したクレチン症の知能指数(1982年版WISC-R知能検査法)を、1989年尺度修正版に基づいて計算し直した。そして、患児の初診時成績や病型との関係を検討した。

第2回の全国調査は今年度、93の全国主要病院小児科にアンケート調査した。新生児マ

ススクリーニングで発見されたクレチン症で、7歳以上に達しており、日本版WISC-R知能検査法(1989年修正版)で行った成績を集計した。

結果

1. WISC-R 1989年尺度修正版による修正

1) 89年尺度修正版で修正したIQ(Y)と82年版のIQ(X)とは、 $Y = 0.82X + 25.1$ という回帰式となった。その結果、すで

1) 帝京大学市原病院小児科(Dep. of Pediatrics, Teikyo Univ., Ichihara Hospital)

2) 社会保険船橋中央病院小児科(Dep. of Pediatrics, Funabashi-Chuo Hospital)

3) 千葉大学小児科(Dep. of Pediatrics, Chiba Univ.)

に報告した第1回全国調査によるクレチン症の知能指数 88.6 ± 18.2 ($n = 81$)は 97.5 ± 14.8 と修正された。言語性IQと動作性IQとに有意差はなく、初診時成績とは、チェックリストスコアと相関し、大腿骨遠位端骨核の有無で有意差があった。また、欠損性が異所性よりも低値であった(表1)。

2) この値は、一般小児の推定値である 105.4 ± 20.69 ($n = 100$)と比較すると有意に低値であった($p < 0.005$)。しかし、マススクリーニング以前のクレチン症よりは格段の違いで良くなっている(図1)。

2. 第2回全国調査中間成績

1) 第2回全国調査では18施設より男児27例、女児66例計93例の成績が集った。検査実施年齢は 8.4 ± 1.4 歳。全尺度IQは 99.2 ± 15.0 であり、第1回調査成績より有意差はないが上昇していた。しかし、一般小児の推定値よりは有意に低かった($p < 0.02$)(表2)。

2) 言語性と動作性とは第1回同様有意差はなかった。全尺度IQと初診時のT4, T3, TSH, 初診日齢とは前回同様に相関はなかった。前回と異なり、チェックリストスコアとも相関がなく、また大腿骨遠位端骨核の有無でも有意差はなかった。欠損性が異所性および合成障害よりも有意に低値であった(表3)。

3) 下位項目検査では、動作性検査においてバラツキが大きいこと、「組合せ」が有意に低値で、「符号」「絵画完成」が高値であった(表4)。

4) 発見年度別症例のIQでは、年別の有意差はないが、新しい症例の方がIQが良くになっている傾向にあった(表5)。

考案

WISC-R知能検査法は国際的にも本邦でも頻用されており、すでに報告したマススクリーニングで発見されたクレチン症の知能予後全国調査時もそれを使用した。しかし、82年版WISC-RのIQ値は低く出すぎるのではないかという批判が一部からあった。上野一彦らによって修正作業が行なわれ、1989年に尺度修正版(89年版)として改正された。そこで、第1回全国調査成績も89年版に従って計算し直したところ、数値は上昇した。マススクリーニング以前とは格段の相違で良好な知能予後を示した。一般小児との比較に関しては、89年版による全国的な標準化作業が行なわれていないので、100例のシュミレーションによる推定値(上野一彦私信)と比較した。第1回調査成績は推定値より有意に低値であった。

第2回の全国調査を昨年開始し、今年度に集計した成績を中間報告として解析した。全尺度IQは第1回調査より上昇した。初診時の諸成績とIQとの関係は、前回と若干異なりどの項目とも相関がなかった。今回検討した知能予後に影響する因子は病型だけで、欠損性が異所性および合成障害に比較して有意に低値であった。治療法別の検討は今回できなかった。下位項目検査の間でのプロフィールである。前回同様に「組合せ」すなわち、感覚と運動のフィードバックを利用する能力が、全項目の平均との検定で有意に低値であった。「符号」すなわち、指示に従う能力、「絵画完成」すなわち視覚的敏捷性は有意に優れていた。これはクレチン症の特徴を表していると思えるし、個々の症例の教育指導に有用と思われる。

マススクリーニングでの発見年，すなわち出生年別のIQ値を調べた。有意差はないが，スクリーニング開始当初に比べてIQが良くなっていると思われた。スクリーニングシステムが円滑になり精査日齢が早まったことや，治療法も改善してきたのではないかとと思われる。来年度も調査を追加して第2回の最終報告をする予定である。

第2回全国調査に御協力いただいた下記病院小児科の諸先生方に感謝いたします。北海道大学，大館市立総合病院，自治医科大学，千葉大学，帝京大学市原病院，船橋中央病院，埼玉小児医療センター，慶応大学，東京医科大学歯科大学，東京医科大学，北里大学，金沢大学，名古屋市立大学，大阪大学，大阪市立小児保健センター，兵庫こども病院，広島赤十字・原爆病院，牧山中央病院。

表1

マススクリーニングで発見されたクレチン症、
年長児におけるIQと初診時成績および病型と
の関係

IQ 値	
全尺度IQ	97.5±14.8 (n=81)
言語性IQ	97.3±14.6
動作性IQ	98.2±15.7
(全尺度IQと)	
チェックリストスコア	相関あり (r=0.2577, p<0.05)
TSH	相関なし
T4	相関なし
T3	相関なし
治療開始日令	相関なし
大腸骨遠位端骨核	
出現無し	92.1±10.7 (n=21)
出現有り	99.9±15.3 (n=51)
病型	
欠損性	92.4±13.5 (n=18)
異所性	99.8±13.8 (n=32)
合成障害	96.5±16.5 (n=19)

(IQ値はWISC-R1989年尺度修正版による値)

図1

新生児マススクリーニング前と後のクレチン症
患児の知能指数分布の比較

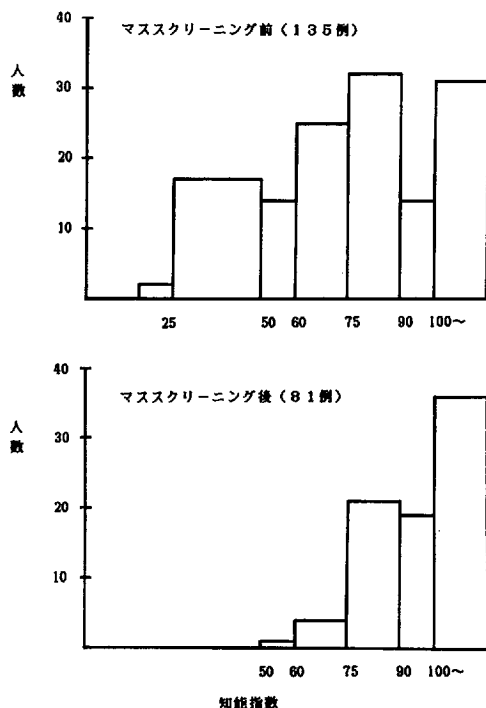


表3

クレチン症病型と知能予後

IQ 値	
①欠損性	86.6±16.1 (n=12)
②異所性	102.1±15.7 (n=39)
③合成障害	102.0±12.7 (n=8)
① VS ② p<0.005	
① VS ③ p<0.025	

表2

マスキングで発見された クレチン症の知能指数（第2回全国調査中間成績）

対象症例： 93例（男児；27例 女児；66例）

方法： 日本版WISC-R知能検査法（1989年尺度修正版）

知能検査実施時期： 1987.6～1990.9.

実施時の年齢： 8.4 ± 1.4 歳

全尺度IQ 99.2 ± 15.0 ($n = 93$) ※
(46～133)

言語性IQ 98.9 ± 15.1

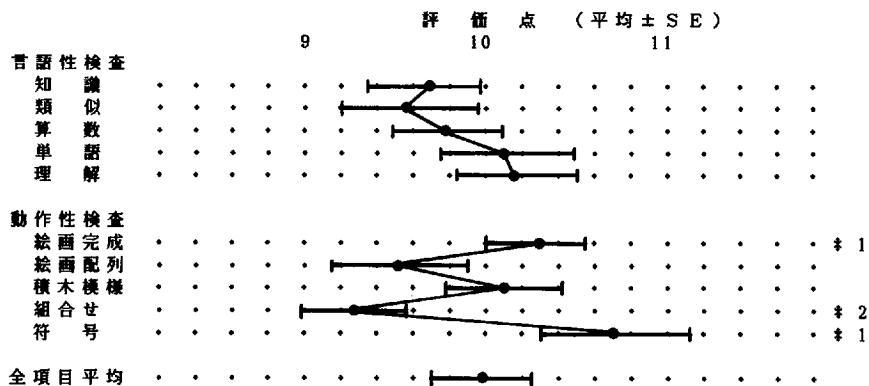
動作性IQ 99.6 ± 15.5

一般小児の

全尺度IQ推定値 105.4 ± 20.69 ※ ($p < 0.02$)

表4

下位項目の検定



全項目平均に比し *1：有意に高値 *2：有意に低値

表5 発見年別症例のIQ（第1回成績を含めて）

1977年： 98.4 ± 13.5 ($n = 5$)

1978年： 96.9 ± 19.7 (18)

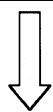
1979年： 96.0 ± 11.7 (25)

1980年： 99.3 ± 15.0 (53)

1981年： 96.9 ± 15.1 (36)

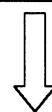
1982年： 101.9 ± 12.7 (18)

1983年： 101.2 ± 15.8 (17)



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



要約: マスクリーニングで発見されたクレチン症の知能予後の全国調査成績(第1回)(既報)を, IQ 算出法が修正された WISC-R 知能検査法により修正した。全尺度 Q は 88.6 ± 18.2 と報告したものが, 97.5 ± 14.8 となった。スクリーニング以前よりは格段の上昇であるが, 一般小児の推定値(105.4 ± 20.69)よりは低値であった。次に, 今年度から開始した第2回全国調査の中間集計をした。93 例の IQ は 99.2 ± 15.0 と前回より上昇したが, 一般小児推定値よりはまだ低値であった。初診時の T4, T3, TSH, 日齢, 臨床スコア, 骨成熟度と IQ とに相関はなかった。病型別の検討で欠損性が異所性および合成障害性より有意に低値であった。下位項目では「組合せ」が前回同様に低かった。発見年度の新しい症例の IQ 値は高い傾向にあった。