幼児期神経発達症の「スナップ診断」に向けて:ベイズ統計 手法による検討

塩川宏郷

生活文化学科 発達行動小児科学研究室

The "Snap diagnosis" of neurodevelopmental disorders: A Bayesian-network analytic study

Hirosato SHIOKAWA

Department of Human Sciences and Arts, Jissen Women's University

The purpose of this study was to propose the "snap diagnosis" for developmental disorders. 209 patients (173 boys, 36 girls, average age 4.2 years) who visited the Child Development Center were participated in this study. The relationships among their chief complaints and the clinical diagnoses were underwent a "Bayesian network analysis". The posterior probability of the diagnosis of autism spectrum disorder (ASD) was 0.623 for children with "speech delay" and 0.713 for children with "tantrum / violent behavior" respectively. The posterior probability was estimated to be 0.894 when the chief complaint combination of "speech delay + tantrum / violent behavior". It is considered that a snap diagnosis of neurodevelopmental disorders in early childhood can be made by combining the chief complaints. Further clinical investigation is needed for diagnostic accuracy and validity.

Keywords: neurodevelopmental disorders (神経発達症), Snap diagnosis (スナップ診断), Baysian-network analysis (ベイジアンネットワーク分析)

1. はじめに

神経発達症のある子どもが医療・福祉・教育的な支援を受けるため、特に適切な療育を選択するためには「診断」が必要である。乳幼児健診で何らかの発達の問題を指摘された児は、二次健診・医療機関受診という診断プロセスを経由して診断名が付与される。診断プロセスを経た子どもは、診断分類を参考に療育方法(作業療法や言語療法など)が選択され支援がスタートするのが一般的である。

診断プロセスには医師による診察をはじめさまざまな検査・評価が求められるが、診断基準を記した診断のためのマニュアルがあるものの(America Psychiatric Association, 2013a)、一定の診断プロトコルがあるわけではない。神経発達症には診断特異的な生物学的マーカーが未だ確立されていないため、診断プロセスは主として医師による問診と診察(行動観察)による部分が大きい(American Academy of Pediatrics, 2020)。精神症状や行動特性は、定性評価は可能でも定量的な評価は困難である。ADOS や ADI-R など特性を数値化する方法も存

在するが、実施には高度な専門性が求められ、研究目的の使用に限定されているのが現状である。そのため、神経発達症の診断や評価は診療を行う個人の認識や技量による部分が大きく、客観性・妥当性の検証や治療効果の判定を困難にしてきた。神経発達症のある子どもの公的な支援のためには診断名が求められることが多いが、診断分類に合致しないなどの理由から支援が得られない場合もある。さらに近年の患者数の増加と相まって多くの施設では診断を待機している例も報告されている(外岡、2018)。これらのことから診断プロセスの短縮・簡便化が求められる。

「スナップ診断」とは、総合診療や診断機器の整備が十分でない山間部・離島での診療の現場で用いられることがある技法である(野口、2010)。主訴や徴候、検査所見などの複数のキーワード(キーワードのまとまり)に気づくことから「ひらめくように」診断にいたる直観的な診断プロセスを指す(山中・佐藤、2012)。本研究は、神経発達症の診断プロセスに「スナップ診断」を取り入れることの可能性について検討する。

2. 目的

神経発達症の診断プロセスを簡便にし、診断に習熟していない医師あるいは教育・保健領域に従事する者でもおおよその診断分類を可能にすることが本研究のゴールである。本報告では、診断分類と主訴・徴候との関連性を数値で示すための方法論を提案し、神経発達症の「スナップ診断」の根拠の一つになるデータを提供する。

3. 対象および方法

2019 年 4 月~8 月に A 市子ども発達センターを受診した児を対象とした。A 市子ども発達センターは人口約5万人(年間出生数約4,500人)の地方都市にあり、医療・福祉型の児童発達支援センターを併設し、種々の支援事業のほか乳幼児精密健診を行う施設であり診療所を併設している。年間およそ400人前後の初診があり、非常勤医師4名が診察にあたっている。今回は調査に同意が得られた209人(男児173人・女児36人、平均年齢4.2 土標準偏差1.3歳)を対象とした。

表1に対象児の概要を示す。対象児の保護者に調査について説明と同意の手続きののち、カルテを後方視的に検討した。初診時に保護者が記入するアンケートに記載された「初診時主訴」とカルテの保険病名に記載された「診断分類」について、その関係性をベイジアンネットワーク分析という手法で検討した。

ベイジアンネットワーク分析は、変数間の確率的な依

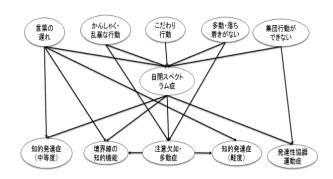
表1:対象の概要

| 主訴 | 人数 (重複あり) |
|-------------------|-----------|
| 言葉の遅れ | 131 |
| 多動・落ち着きがない | 68 |
| 集団行動ができない | 46 |
| やりとりが一方的 | 41 |
| 社会性(場にそぐわない言動・行動) | 36 |
| かんしゃく・乱暴な行動 | 30 |
| こだわり行動 | 22 |
| その他 | 51 |
| 診断分類 | 人数(重複あり) |
| 自閉スペクトラム症 | 105 |
| 知的発達症 (軽度) | 32 |
| 知的発達症(中等度) | 35 |
| 境界線の知的機能 | 16 |
| 発達性協調運動症 | 28 |
| 注意欠如・多動症 | 14 |
| | |

存関係をネットワークで表現したモデルを用いる。分析に先立ち、離散化した事象どうしの依存関係を「構造学習」によってネットワークモデル化し「事前確率」を算出する。その後、得られた既知の情報(エビデンス)をモデルに入力し、確率値を計算することで未知の事象を推論する方法であり、相関係数ではなく確率数値(「事後確率」)を算出する。例えば、「言葉の遅れ」が認められた場合にその子どもが「自閉スペクトラム症(ASD)」と診断される確率がこの場合の事後確率にあたる。構造分析と確率の算出はすべてコンピュータ上のソフトウェアで行った。今回はNTTデータ数理システム社製のソフトウェア"BayolinkS 7.2"を使用した(小木、2018)。なお、今回提示する結果はすべて今回の対象データ限定の試算値であり、対象が1例でも増えれば構造学習結果や確率数値は変動する可能性がある。

4. 結果

図に構造学習結果を示す。最上段が初診時主訴であり、診断分類との関係性を矢印で示している。表1にある「社会性(場にそぐわない言動・行動)」と「やりとりが一方的」はいずれの診断分類とも関係が低い結果となったため図には示されていない。5つの主訴がASDと関係があり、「言葉の遅れ」は知的発達症とも関係していた。また「集団行動ができない」はASDのほか「発達性協調運動症」と関係していた。



このネットワークモデルをもとに、主訴がエビデンス として与えられた場合の事後確率を算出した結果が表 2 である。

この表でいう「事前確率」とは主訴が与えられない場合の診断確率を指し、「主訴がわからない段階でA市子ども発達センターを受診した児がASDと診断される確率は0.3329である」ことを示す。その下段からは「主訴が与えられた場合の各疾患の診断確率」を示しており、網掛けの部分は事前確率よりも主訴が与えられた場合にその確率数値が上昇しているものである。すなわち「言葉の遅れ」が主訴の場合、ASDと診断される確率は0.3329→0.6233と上昇

| | 自閉スペクトラ ム症 | 知的発達症 (中等度) | 知的発達症 (軽度) | 境界線の 知的機能 | 発達性協調運動 症 | 注意欠如・多 動症 |
|-----------------------|---------------|----------------|------------|--------------|--------------|--------------|
| 事前確率 | 0.3329 | 0.1141 | 0.1988 | 0.1769 | 0.1724 | 0.0963 |
| 「言葉の遅 れ」 | 0.6233 | 0.2517 | 0.2471 | 0.1426 | 0.1219 | 0.0863 |
| 「集団行動が できない」 | 0.5038 | 0.1555 | 0.2108 | 0.1532 | 0.2939 | 0.0963 |
| 「かんしゃ く・乱暴な行 動」 | 0.7134 | 0.1925 | 0.2079 | 0.1114 | 0.1663 | 0.2087 |
| 「こだわり行 動」 | 0.7152 | 0.1928 | 0.2079 | 0.1111 | 0.1090 | 0.0786 |
| 「多動・落ち 着きがない」 | 0.5038 | 0.1555 | 0.2108 | 0.1532 | 0.4270 | 0.1323 |

することから、主訴が診断に寄与していることがわか

表 3: 主訴の組み合わせによる自閉症スペクトラムの「ス ナップ診断」(試算)

| 「言葉の遅れ」 | 「かんしゃ く・乱暴な行 動」 | 「こだわり行 動」 | 事後確率 |
|---------|-----------------------|--------------|---------|
| + | + | _ | 0.8944 |
| + | + | + | 0.8396 |
| + | - | + | 0. 7500 |
| _ | + | + | 0. 6670 |

表3は主訴の組み合わせにより ASD 診断確率を試算 したものであり、主訴から「スナップ診断」した場合の 確率を示している。「言葉の遅れ」 + 「かんしゃく・乱 暴な行動」の組み合わせの場合、ASD と診断される確 率が 0.8944 と最も高値であった。

5. 考察

5-1. ベイジアンネットワークモデル

今回の検討では、子ども発達センターを受診した幼児 の「主訴」と「診断」の関係を構造学習させネットワー クモデルを構築し分析を行った。「言葉の遅れ」や「か んしゃく・乱暴な行動」など比較的気づかれやすい特定 を示す主訴と診断分類の間にはある程度の関係性が存在 することが示された。すなわち主訴をキーワードとした 「スナップ診断」は可能であると考えられる。一方、「や

りとりが一方的」や「社会性の問題」は神経発達症の 診断に寄与していなかった。ASD の診断基準には「社 会的コミュニケーションの障害」が挙げられているが (American Psychiatric Association, 2013b)、幼児期におい てはその有無にかかわらず ASD の診断がなされてしま う可能性が示唆される。また、「多動・落ち着きがない」 という主訴は、注意欠如・多動症だけでなく ASD とも 関係するなど、複数の主訴と複数の診断がネットワーク を形成している。したがって、主訴から「スナップ診 断」を行うことには一定の制限があると認識すべきであ る。今回の対象は医療機関で診断プロセスを経た例であ るため、保険診療上の病名が必ず記載される。よって、 「健常児」あるいは「正常範囲内」の例は含まれない。 前述のようにベイジアンネットワークモデルは症例が1 例増えただけでも大きく変化する可能性があるため、今 回の結果を一般化することは慎重でなくてはならない。 あくまで1施設を一定期間に受診した限られた症例の検 討であることをふまえ、今後乳幼児健診で問題を指摘さ れなかった例も含めた多施設、長期縦断的な検討を行う ことでさらにこのモデルを洗練していくことが必要であ る。

5-2. 事後確率とスナップ診断

主訴が与えられない場合の「事前確率」と、主訴がエ ビデンスとして与えられた場合の「事後確率」を比較す ることで、これらの主訴が診断に寄与していることが示 された。ここに算出された数値そのものを診断確率と呼 ぶことはできないが、ベイジアンネットワークのおおよ

その構造、すなわち神経発達症の「スナップ診断」の可能性を示す値と考えることが可能である。「言葉の遅れ」「かんしゃく・乱暴な行動」「こだわり行動」の主訴がある場合に、ASDと診断される確率は事前確率の倍近くになっており、これらの主訴が診断に大きく関与していると考えられる。

これらをもとに、ASD に特化し主訴の組み合わせで 事後確率を試算したものが表3である。主訴から ASD を「スナップ診断」するためには主訴を組み合わせるこ とでその確率を高めることが伺われ、「言葉の遅れ」+ 「かんしゃく・乱暴な行動」の組み合わせが最も事後確 率が高いことが示された。

診断プロセスはあくまで医師の診察が中心であるが、 神経発達症診療においてはその主訴からおおよその傾向 を推定することが可能であることが今回の検討で示され た。しかしながら、これをもって神経発達症のスナップ 診断と短絡的に結び付けることはできない。本研究の限 界として、対象が1施設の一定期間のみに限定されて いること、症例数が少ないこと、「主訴」を検討してい るが、診断の信頼性・妥当性については長期の経過観察 によらないと分析ができないことなど多くの課題が存在 する。今後検討すべきは、主訴ではなく「観察可能な子 どもの徴候」「検査所見」「心理社会的な環境」と診断分 類の関係性を分析することが必須であり、それらをあら ゆる年齢層で横断的、縦断的に分析することも必要であ る。一方で、神経発達症の症状(主訴)・徴候(観察可 能な行動特性)のビッグデータベースを構築し、診断分 類と療育内容および経過と予後を含めて機械学習を行う ことにより、それらの関係性を示すネットワークモデル がより洗練され、確率数値の変動が一定の幅で収束して いくことが期待される。これにより神経発達症の診断プ ロセスを簡略化することが可能であり、神経発達症「ス ナップ診断」をある程度の信頼性・妥当性をもって行う ことも可能になると考えられる。本報告はその端緒とな るものであり、今後さらなる症例の積み重ねと多施設で の検討を行う予定である。

6. まとめ

神経発達症について主訴と診断分類の関係性をベイジアンネットワーク分析により検討した。「言葉の遅れ」のある児が「自閉スペクトラム症」と診断される確率は0.6233であった。「言葉の遅れ」と「乱暴な行動・かんしゃく」のある児が自閉スペクトラム症と診断される確

率は 0.8944 であった。主訴と診断分類の間には一定の 関係性があることから、主訴から神経発達症を「スナップ診断」することは不可能ではない。しかしながらその 信頼性・妥当性について課題も多く、適応は慎重になさ れるべきであり、今後さらに検証が必要である。

COI、謝辞

本研究の実施・論文の発表について、開示すべき COI はありません。今回の調査にご協力いただいた A 市子 ども発達センターのスタッフのみなさんに心より感謝申 し上げます。

参考文献

- American Academy of Pediatrics : Identification, Evaluation, and Management of Children With Autism Spectrum Disorder. PEDIATRICS 145(1):e20193447, DOI: https://doi.org/10.1542/peds.2019-3447 (2020)
- American Psychiatric Association: Neurodevelopmental Disorders, In Diagnostic Statistical Manual of Mental Disorders 5th ed. (DSM-5), American Psychiatric Press, Arlington, pp31-86 (2013a)
- American Psychiatric Association (2013b): Autism Spectrum Disorder, In Diagnostic Statistical Manual of Mental Disorders 5th ed. (DSM-5), American Psychiatric Press, Arlington, pp50-59 (2013b)
- 4) 野口 善令: スナップ診断で切り抜ける! 救急外来(新連載・第1回)総論: スナップ診断とは?-- 効率的に診断にたどり着くためのアプローチ. レジデントノート12(1): 110-115 (2010)
- 5) 小木しのぶ:ベイジアンネットワークがより便利に! BayoLink S. 日本計算機統計学会シンポジウム 論文集 32(0):113-114 (2018)
- 6) 外岡資朗:療育および特別支援教育の早期対応のための地域拠点医療機関の取組(特集発達障害者支援における包括的かつ連携した多領域支援:医療・教育・福祉の垣根を超えるために).発達障害研究40(4-1):281-292 (2018)
- 7) 山中克郎、佐藤泰吾: ダ・ヴィンチのカルテ Snap Diagnosis を鍛える 99 症例. 株式会社シービーアール, 東京, pp ii iii (2012)

(2020年12月28日受理)

和文抄録

幼児期の神経発達症における主訴と診断名の関係を「スナップ診断」のための統計学的な根拠として提案することを目的とした検討を行った。発達・行動の問題で子ども発達センターを受診した 209 例(男児 173、女児 36、平均年齢 4.2 歳)を対象とし、特定の主訴が見られた場合の診断確率(事後確率)をベイズ統計手法(ベイジアンネットワーク分析)により算出した。その結果、「言葉の遅れ」がある児が自閉スペクトラム症(ASD)と診断される事後確率は 0.623、「かんしゃく・乱暴な行動」が主訴の場合はその確率は 0.713 であった。「言葉の遅れ+かんしゃく・乱暴な行動」が組み合わせ主訴の場合事後確率は 0.894 と試算された。また ASD と診断された児が注意欠如・多動症を併存する確率は 0.062 と算出された。臨床場面において、主訴の組み合わせによって幼児期の神経発達症のスナップ診断を行うことが可能であると考えられるが、診断精度や妥当性など検討すべき課題も多い。