

研究と報告

自閉性障害にみられる折れ線現象と
その成因をめぐって*

2組の自閉性障害同胞一致例の比較検討より

小林隆児** 藤山哲男***

【抄録】 2組の自閉性障害同胞一致例について、折れ線現象の発現時期とその後の発達経過を中心に検討し報告した。折れ線現象の発現時期が2歳未満の1例は発達経過が比較的良好であったが、2歳以後の3例はすべて不良であった。この3例は発達経過の中で、ひねくれ反応が顕著に認められた。ひねくれ反応を対象関係の発達病理の視点から検討し、ある種の発達の側面としてとらえる必要性と治療的観点からその意義を主張し、自閉症の成因についても最近の研究の動向を踏まえて言及した。

精神医学
34:45-55
1992

Key words Autistic disorder, Disintegrative disorder, Setback phenomenon, Provocative behavior (Verschrobenheit), Sibblings concordant for autism

はじめに

自閉性障害の中でも折れ線現象を呈する自閉性障害について、我が国では石井⁹⁾と若林³²⁾が折れ線型自閉症と称して早くからその存在に注目し、その特殊性が論じられてきた。栗田^{15,16)}は折れ線型自閉症や崩壊型精神病を非折れ線型自閉症から分離していく妥当性を主張し、その根拠の1つとして発達水準の低さとその後の経過の特異性などを指摘している。小林¹¹⁾は折れ線型自閉症の中でも折れ線現象の発現時期が2歳未満より2歳以後のほうが発達経過は不良であり、その根拠として発達水準の差異を問題にした。こうして折れ線現象を呈する自閉性障害はその成因や下位分類をめぐって注目されるようになってきた^{4,8,17,30)}。

1991年7月26日受理

- * Setback Phenomena and Etiology in Autistic Disorders: two pairs of two siblings concordant for autistic disorders
- ** 大分大学教育学部, Ryuji Kobayashi: Faculty of Education, Oita University
- *** メンタルクリニック藤山医院, Tetsuo Fujiyama: Mental Clinic Fujiyama

過去の諸家の報告をみても折れ線現象を呈する自閉性障害の経過が不良であるとするものが多いが、その根拠は未だ解明されていない。予後が好ましくないことから生物学的要因の強さを指摘する学者も多い^{2,21)}が、脳障害の発生を示唆する既往が多いとは必ずしもいえないことや、折れ線現象の背景に心理学的要因を示唆するものも少なくないため、折れ線現象を呈する自閉性障害の成因を生物学的要因のみに帰することには無理があり、器質因と力動因が複雑にからみ多因子性に発症するものと考えるのが現時点では妥当のようである^{15,33)}。

こうした動きと並行して自閉症に関する国際診断基準において、DSM-III-R¹⁾では従来の幼児自閉症 infantile autism は自閉性障害 autistic disorder と命名が変更され、発症年齢も2歳半未満から3歳未満へと年齢幅が広げられるとともに自閉性障害を呈するものは発症年齢を問わずこの中にすべて含めるようになった。このように診断基準が変更された背景には、発症年齢そのものの同定が母親の陳述による回顧的方法でなされるた

め、その客観的妥当性そのものに疑問がある^{25,31)}ことや、発症年齢の相違にかかわらず自閉性障害としてまとめた上で発症年齢を明記して検討するほうがいまだその病因が不明な現時点ではより建設的であるといった理由が考えられる。今後は発症年齢の差異がどのような要因によって生じるか、成因論的にどのように異なるのかといった問題の検討が必要である。

筆者らが本論で取り上げた症例は全例とも幼児期に折れ線現象を呈し、以後自閉性障害を呈した同胞一致例 2 組の男児 4 例である。全例で発症前の詳細な観察記録が得られ、同胞で類似した環境条件にあったため、わずか 4 例ではあるが、相互に比較検討することは意義のあることと考えた。そこで、4 例における折れ線現象の発現時期、その誘因、発育歴、発達経過を比較検討し、自閉性障害の成因について折れ線現象との関連性でもって論じてみたい。

症例

1. T 兄弟

T 兄弟の乳幼児期について、母が詳細な育児記録を残していた。

家族歴 両親のほかに同胞は T 兄弟のみ。父は兄が 11 歳時死亡。その後は母子の 3 人暮らし。家系内の類縁疾患の発現はない。

〈症例〉 T 兄、現在 18 歳、男性。

発達歴 妊娠 8 カ月まで横位であったが、出産時は頭位になり、満期出産。微弱陣痛で、陣痛促進剤の点滴を受けた。仮死はなかった。生下時体重 3,200 g。哺乳力があり、元気な子どもで夜泣きもなく、おとなしく育てやすい子どもだった。1 歳、ママ、パパなどの発語があった。人見知りやあと追いもみられた。「1 歳 2 カ月、弟が出生したが、このころから次第に呼びかけに対する反応が乏しくなり自発語が減少していった。」(「」部分は折れ線現象)。1 歳 9 カ月、耳が悪いのではないかと親族から指摘され、視聴覚センターで精査を受けたが、聴力は正常だった。「2 歳ころには言葉は消失していった。」3 歳で F 市に転居したころから母へのあと追いがひどくなり、母がトイレに入ると、ドアを開けて中に入ってくるほど分離不安が強ま

った。4 歳、K 大学小児科で自閉症と診断された。以後、某センターにしばらく通い療育を受けた。このころから再び発語がみられ始め、CM で覚えたせりふをその場に合わせて使うようになった。非常に多動であったが、母子で毎日 4 km のジョギングを始めてから急速に落ち着いてきた。

6 歳、小学校特殊学級に入学し、情緒障害学級に通級。1 年後、弟も一緒に通うことになった。弟に比べておとなしく特に問題行動を起こすこともなく、周囲の働きかけに従順であったため、学童期の学校生活の適応状況は良好だった。しかし、言語発達の水準は低く、一問一答でやっと答えられるが反響言語が目立った。

10 歳、10 カ月間ほど父が睾丸腫瘍および肺転移のため入院した。母は看病に忙殺され、彼らは母の実家や叔母の家に預けられた。母との分離がしばらく続いたことから、兄に睫毛や髪の毛をハサミで切り刻む自傷行為が出現した。父が死亡し、母子共に暮らすようになってまもなく落ち着き、自傷行為も消失した。

12 歳、中学校特殊学級に入学。性格があまりにもおとなしく、何をされても全く抵抗しないために周囲からいじめの格好の相手にされた。弟からなにかをするように誘われると、母の意にそぐわないと分かっているにもかかわらず、両者の板挟みになって苦しみ、泣きながらも弟に言われるままに従い、弟にさえ反発や抵抗を示さなかった。自己主張することが少ないため兄がどんな状況に置かれているか親でも把握できないことが多かった。ある日、びっこをひいているので、よく見るとひどい靴ずれを起こしていた。このように辛いことがあっても何も言わない。幼児期から現在に至るまで特に若い女性の髪の毛の臭いを嗅ぐことを好む習癖行動が続いている。

中学に入学後は特に問題行動の出現もなく、周囲の働きかけにも素直に応じ、適応性は順調に伸びていった。しかし、弟が不安定になると、兄も動揺し、一時期以前書いた日記を取り出して消しゴムで消しては何度も書き直す強迫症状がひどくなったことがあった。

現在、養護学校高等部 3 年在学中である。過去にけいれん発作の既往はなく、粗大な神経学的検査、脳波、CT スキャンなどで異常は認められない。

〈症例〉 T 弟、現在 17 歳、男性。

発達歴 妊娠中、兄と同じく横位であったので帝王切開の予定だったが、出産直前に頭位になり、満期正

常出産。生下時体重 3,650 g。哺乳力も豊かで元気な子どもだったが、よく泣く子で、夜中に父がよく弟を抱いてあやしていた。物音に極めて敏感ですぐに反応していたが、あやすとよく笑い喜んでいた。誰にでもなついて人見知りを示さない子だった。1歳2カ月から幼稚園に入るまで熱性けいれんが時折起こっていた。1歳から3歳まで言葉は順調に出現。語りかけにもよく反応していた。しかし、今から考えるといくぶん遅れていたようだと言母は述懐する。兄の仕草をよく模倣する子だった。ただし、兄は絵本を見て楽しんでたのに、弟は全然それに興味を示さなかった。1歳10カ月、池に落ちて仮死状態になり、水やプールを極度に怖がるようになった。「3歳、犬に顔面を咬まれ、十針も縫うほどの大怪我をした。そのため今でも犬を極度に恐がっているが、この時以来、言葉が増えなくなった。吃音も出現してきた。用事のある時だけ母を求め、それ以外は関心を示さなくなった。他兄と遊ばない。人の耳に盛んに触り、多動が目立ち始めた」が、兄のように迷子になることはなかった。

4歳、幼稚園に入ると、一人で水遊びばかりし、集団の中に入らないと担任から指摘された。このころからセロテープと紙を用いて紙工作に熱中し始めた。兄が通っていたK大学小児科で自閉症と診断される。以後、二人そろって同センターでの療育を受け始めた。

6歳、兄と同じ小学校特殊学級に入学し、情緒学級にも通った。就学後、何事も兄と一緒に行動するほど兄弟の結びつきは強まった。こうして兄の行動を盛んに取り入れていった。

9歳時、父が癌で入院。兄とともに母の実家に預けられ、母と離れ離れになったため、弟もそれにひどく反応し、数日間遺尿、遺糞が出現（下線部分はひねくれ反応）。吃音もひどくなった。

11歳時、右上腕部に骨嚢腫ができたため手術した。ギブスをしていた半年間は利き手の右手を使えず、活動が制限されて、吃音が悪化した。いつも行動を共にしていた兄が中学に入学したため弟は一人で行動しなくてはいけなくなった。兄の帰宅時間が遅いと兄を捜し求めて近所を徘徊し、たびたび行方不明になった。

12歳、兄とは異なった中学校(特殊学級)に入学した。指導が厳しくなり、兄のいない心細さも手伝って不適応行動が目立ってきた。落ち着きがなくなり、独言、吃音が増強した。頭髮や脛をハサミで切り、6月からは登校を嫌がり、学校の人目に触れる場所で排便

や排便をするようになった。母にべったりくつき依存欲求が高まってきた。指しゃぶりや母の腕をなめるほどになった。しかし、夏休みを経過してから次第に落ち着きを取り戻してきた。病院の面接で母の話や学校での自分の評価に敏感に反応し、自分に注目され関心が持たれている時はよいが、放任されると途端に不安定になる傾向が続いた。1年の冬、骨嚢腫の発生した右上腕を骨折し手術を受けた。すると吃音が再発した。しかし、大きな問題行動はなく比較的順調に回復した。

中学を卒業し、某高等学校の情緒障害児専門クラスに入学した。寮生活のため兄や母との分離を強いられるから再び状態は悪化した。家庭内では閉居し、衣服をハサミで破ったり、壁を破壊したり、母にも乱暴したり、突然徘徊して行方不明になるまでになり、現在まで薬物療法も効果なく不安定な状態が続いている。

なお12歳時、真夜中、起きてトイレに行った直後、突然倒れ、口から泡を噴き上肢の強直性けいれん発作が出現した。しかし、その後は1度もけいれん発作はない。現在まで数回脳波検査を施行したが、発作性異常所見は1度も認められていない。

2. I兄弟

家族歴 両親とも公務員であったが、母は弟の出生後まもなく退職。同胞はI兄弟のほかにも3歳下の妹がいる。家系内に類縁疾患の発現はない。

〈症例〉 I兄、現在18歳、男性。

発達歴 母は過去に流産3回。父30歳、母29歳時に出生。満期、骨盤位で難産、臍帯巻絡3回、帝王切開。生下時体重3,200g。仮死はなく、新生児黄疸も軽度。混合栄養。離乳時、牛乳に切り換えると、牛乳ばかり飲み、離乳が非常に困難だった。初めて食べるものにはなかなかなじめなかった。首のすわり3~4カ月。初歩11カ月。発語、知恵づきともに標準より早かった。乳児期から神経質で夜寝かせようとするとすぐに泣き、寝ても音に敏感ですぐに目を覚まし、寝る時は母がいつも抱かなければならなかった。両親共働きのため、昼間は祖母と二人で過ごした。家のすぐ前が車道で交通量が多かったためほとんど家の中で過ごし、他兄と遊ぶ機会がなかった。歌を好んで歌い、絵本もよく見ていた。排泄習慣も早くから自立していた。

「2歳6カ月、弟が出生。その4カ月後、自家中毒をして以来、だんだん言葉数が少なくなっていった」が、3歳になるまでは「チョコレートちょうだい」「牛乳作

ってちょうだい」と話し、母が第2子出産のため入院していたころも「おにいちゃんだったの」「赤ちゃん生まれたの」と話すほどで、言葉の発達はこのころまでは早かった。しかし、「子どもを嫌がり避けるようになった。親を求めず隣の家に勝手に入って寝ころがってTVを見たり、偏食もひどくなった。」3歳11カ月、近所の幼稚園に入ったが、大規模な幼稚園でなじみず、祖母がそばについていないとすぐに外に出たりしていた。「自宅では無意欲になり、絵本を見てもただ紙をペラペラめくるだけで、好きな歌も歌わなくなり、好きだったTV番組も全く見ず、菓子もほしがらず、外にも出たがらなくなった。」時折、部屋の隅にうずくまり、扇風機や換気扇の回るのを眺めて楽しんでいった。幼稚園のスクールバスの道順が少しでも違うと泣いたり、机に水がこぼれるとすぐに拭いたり、服に水がつくとすぐに脱いだり、口の周囲に食べ物がつくのを嫌がり、排便はパンツを下ろして外でしかしなくなった。言葉も次第に消失していった。

4歳3カ月、Y県精神衛生センターを受診。自閉症と診断。すぐに幼稚園から小規模な保育所に変わると、少しずつ喜んで通うようになった。他児が遊んでいると関心も示し、絵本を見たり、歌も歌うようになった。持っている菓子を弟に取られたら、泣いて母に訴えに来るほど感情反応が豊かになり、動作も活発になった。偏食も保育園での指導で改善した。排便もトイレでできるようになった。徐々に発語がみられてきたが、オーム返しやTVのCMのせりふが多く、発音もはっきりしなかった。その後状況に合った言葉が少しずつ増えてきたが、こちらから何か教えようとすると、全く発語せず気難しい一面は残っていた。5歳4カ月、母への甘えが目立つようになり、何でも母に要求し、理由なく泣いたり、注意されるとひどく怒りっぽくなった。ついでに電気を必ず消さないと気が済まないなどの強迫的こだわりが再び強まってきた。弟が遊んでいるとわざといたづらをしたり、保育園でも他児が作った物を壊したりするようになった。6歳3カ月、夏、自閉症児療育キャンプ¹³⁾に初めて参加した。キャンプ中、2回も無断で帰ろうとし、集団生活が苦痛な様子だった。キャンプ中4日間便秘が続いた。ひねくれ行動が目立つようになり、ことあるごとに保育園の他児と正反対のことをするようになった。睡眠時間も短く、寝つきが特に悪くなった。

6歳11カ月、小学校特殊学級に入学。最初は少し良かったが、1年生の夏休みに入って落ち着きがなくな

り、目を離すとすぐに外に出てしまうようになった。2学期になって担任が病気で代わったのを契機に生活習慣が崩れ、いたづらもひどくなった。近所の家のトイレの窓ガラスに石を投げて割るなど全く目が離せなくなった。注意すると道路に臥せて反抗し、信号が赤なのに道路を渡ろうとしたり、びっこをひいて歩く真似をしたり、字も乱雑になった。犬も怖がりだった。体育の時間に体操帽子を被ろうとしない。暑くもないのに水風呂に入ったり、頬部や頭部を両平手で打ちつける自傷行為まで出現。行方不明になって、夜山道を一人で歩いているのを近所の人に発見されるということも起こった。よほど怖かったのか、以来一人で外に出たがらなくなり、家では母に、学校では担任にくっついて、誰かと一緒にないと家に帰れない状態がしばらく続いた。

2年生になるとこちらの指示には従うが、人の指示がないと全く行動がとれない状態になった。3年生になって担任が交代し、学校での不適応が再びひどくなってきた。学校の屋上に上がって大騒ぎになったり、トイレに頻繁に行き落ち着きなく動き回るようになった。睡眠も不規則。手指をヒラヒラさせる常同行為が出現。夏のキャンプでは、指示がないと動かない状態で感情表出も乏しく、集団模倣を促されてもほとんどしなかったが、集団の中から逃げ出すようなことはなかった。しかし、トイレに1日30数回も行ったり、中途覚醒が毎晩みられた。4日間、自発語は一言も出なかった。

4年生の時のキャンプでは緊張が和らいだためかトイレに行く回数は減少したが、自発的行動はみられず、常同行為が目立ち、全体的に周囲への関心やエネルギーは減少していたが、周囲の指示には受け身的に従順であった。その後ほとんど改善を示すこともなく、中学校(特殊学級)を卒業し、現在は福祉作業センターで単純作業に取り組んでいる。夜間一人で突然徘徊して行方不明になったり、遺糞が月に数回出現するなど、適応面に多くの問題を残している。

16歳11カ月、作業中に大発作出現。以後抗けいれん剤の投与を受けている。発作前後の数回の脳波検査では左側頭部に散発性小棘波を1回だけ認めている。風邪を引きやすく、幼児期からあった喘息、アトピー性皮膚炎もひどくなっている。

〈症例〉 I弟、現在16歳、男性。

発達歴 母体は中等度の妊娠中毒症にかかったが、帝王切開により満期分娩。仮死はなかった。生下時体

重 3,050 g。人工栄養。ミルクをよく飲み、よく眠る子で手がかからなかった。首のすわり 3 カ月。初歩 11 カ月。自発的に自分から何でもしたがる子だった。おんぶされたり抱かれるのを好まず、抱かれても自分から降りたがり、寝る時も一人で寝たがった。1 歳 6 カ月、保育園に入ったがなかなかじめなかった。最初は泣きもせず、体を硬くしていた。2 歳半当時は「○○ちゃんね、お地蔵様の所で着物を着て花火したのよ」と話すほど言葉の発達は早いほうであった。「3 歳ころから「お母さん、だっこ」と要求するようになった。幼稚園では一人遊びが目立ち始め、会話ができなくなり、オウム返しが多くなってきた。3 歳 4 カ月、兄の後ばかり追って言うことを聞かず、独言が出現し、言葉も減って吃音が目立つようになった。」幼稚園でも様子がおかしいと指摘された。このころ妹が出生。4 歳、もともと偏食はなかったが、ご飯をあまり食べなくなった。常同行為が目立ち始め、兄の様子を盛んに真似したり、兄に何かと対抗して自己主張するようになった。例えば、食事の時、兄のおかずを自分のと取り換えたり、兄がトイレに行くとき必ずドアを閉めに行ったり、兄がお風呂に入らないと、絶対に自分も入らなかつたり、兄が遊んでいると邪魔したり、母が兄に用事を頼むと弟が飛んできたり、ビールを持ってきて頼まれて兄が先に取ってくると、弟はわざわざ元に戻して自分が持ってきたりした。以前は自分でやっていた衣服の着脱も母にしてもらいたがるようになった。6 歳 3 カ月、Y 県精神衛生センターを受診し、自閉的傾向を指摘された。

6 歳 5 カ月、小学校普通学級に入学。同じ学校にいる兄の教室に行って勝手に窓を開けたり、黒板にわざと絵を書いたり、音楽は皆と一緒に歌わず、勝手に歌詞を並べて口ずさんだり、周囲を意識しながらいたずらをするのが目立ってきた。毎朝、「学校行かんの、学校お休み」と言って登校を嫌がる。学校では緊張が高まり吃音が強まる。思い出し笑いがみられる。唯一好んでやるのは文字の模写で、漢字をよく覚えた。しかし読むことはできなかった。授業中は座ってポーツとすることが多く、食べ物を一度飲み込んで口に出して反芻していた。自転車に乗る時だけは生き生きしていた。人から物を取られると叩いて取り返す。学校で兄が校舎の屋上に上がり大騒ぎになった時には弟まで真似をして屋上に上がった。学校側も特殊学級を勧めるほどだった。

6 歳から 14 歳まで参加した夏の療育キャンプでの

様子は次のような状態だった。担当のトレーナーには甘えるが、他児にはほとんど関心を示さず、物への興味が強く、気に入った物にすぐに固執してしまう状態だった。他者の感情に敏感に反応し、にらまれると怖がったりするが、感情交流はみられず、カーテンが少しでも開いているとすぐに閉めるといったこだわりがみられた。小学生時代はこのような状態が続き、著しい改善はみられなかった。中学生時代になって言葉は以前よりも幼児語が増えたが、構音が不明瞭になってきた。しかし、キャンプ生活での作業には指示されれば以前よりも取り組むことが増えてきた。兄とは違って自発的な行動は多いが、あくまでマイペースで、誰彼となく接近しては人の眼鏡や時計を触ってみるだけだった。多動で物事に集中した取り組みは現在でも困難で、自分でやりたいことを執拗に要求するなど固執性は強く残っている。言葉は兄と違って二語文の発語が認められ、一問一答での会話は可能な状態である。

最近の母の報告によれば、以前は何か指示されると兄にばかりさせるなどずる賢いところが目立っていたが、自分で少しずつやるようになり、我慢強くなってきたという。一人でプールに出かけて水泳を楽しんだり、釣りを楽しむなど、自分なりの楽しみ方を持つようになってきているという。

過去の脳波検査で異常所見は認めず、臨床上もけいれん発作の出現はない。

2. 2 組の同胞の発育歴と病態の比較検討

1) 発達歴の比較検討(表 1)

T 弟は兄の出生の 1 年 2 カ月後、I 弟は 2 年 6 カ月後に生まれている。出生時の母の年齢は 26~31 歳と高齢ではなかったが、I 兄弟の場合は出生前に母は 3 回の自然流産を経験していた。周産期障害は T 兄弟では微弱陣痛(T 兄)のみであったが、I 兄弟では臍帯巻絡(I 兄)、妊娠中毒・難産(I 弟)とより重い周産期障害を受けていた。

身体運動発達の里程標は 4 例とも正常範囲であった。乳児期の精神発達をみると、喃語は T 兄弟では豊かであったが、I 兄弟では比較的少なかった。気質では、T 弟と I 兄が特に音やその他の刺激に順応性が低く敏感で、養育困難な気質を持っていた。3 カ月微笑は 4 例とも豊かであったが、T 兄と I 兄は共に人への関心が乏しく、T 弟と I 弟

表 1 2組の同胞の発育歴の比較

	T兄弟		I兄弟	
	兄	弟	兄	弟
出生年月	X年10月	(X+1)年12月	X年5月	(X+2)年11月
出生時の母の年齢	26歳	27歳	29歳	31歳
母の妊娠回数	1回目	2回目	4回目	5回目
胎生期の異常	骨盤位	骨盤位, 妊娠後期に貧血治療	(-)	妊娠中毒症
周産期の異常				
分娩時	微弱陣痛	(-)	帝王切開, 骨盤位, 臍帯巻絡	難産, 帝王切開
仮死	(-)	(-)	(-)	(-)
黄疸	普通	普通	普通	普通
生下時身長	52 cm	52 cm	52 cm	?
生下時体重	3,200 g	3,620 g	3,200 g	3,050 g
定頸(月)	3	3	3	3
始歩(月)	14	12	11	10
始語(月)	12	11	12	12
栄養	母乳	母乳	人工	人工
喃語	++	++	+	+
音に対する過敏性	-	+++	+++	-
3カ月微笑	++	++	++	++
人見知り	+	++	-	++
人への関心	+-	++ (兄に対して)	+	++ (兄に対して)
身ぶり模倣	+	++	?	++
利き手	右	右	左 (両手利き)	右
多動	++	+-	++	++
発症年齢	1歳2カ月	3歳0カ月	2歳10カ月	3歳4カ月
先行するエピソード	弟の出生	池に落下し仮死 犬にかまれ大怪我	自家中毒 弟の出生	妹の出生 保育園への強制的入所
最初の医療機関受診年齢	4歳	4歳	4歳3カ月	6歳3カ月

は兄にのみ関心を示し, 兄の仕草を盛んに模倣していた。

折れ線現象(症例の記載中「」付きの箇所)を呈した年齢とその契機をみると, T兄が1歳2カ月で最も早く, その他はI兄2歳10カ月, T弟3歳0カ月, I弟3歳4カ月で3例とも2歳以後であった。発症に先行するエピソードとしては, T兄とI兄では弟の出生があり, I弟も妹の出生があったが, T弟では, 池に落下したり, 犬にかまれて大怪我をするなどの急激な恐怖をもたらす生活上の出来事があった。

2) 発達経過と病態の比較検討(表2)

詳細な発達経過は先の症例の提示ですでに述べ

たが, 小林¹¹⁾の発達経過の分類でみると, 知能面ではT兄弟が共に停滞群に属し, I兄弟は共に病的退行群に該当した。適応面ではT兄が受動型 passive type (Wing³⁵⁾の分類で良好群に, I兄は病的退行群に, T弟とI弟はともに停滞群の不安定な経過をたどるものに該当した。現在の知能水準はT兄弟が軽度ないし中等度精神遅滞であるのに比して, I兄弟ではI兄が最重度, I弟が重度とより低い水準を示し, 幼児期の発達水準からみると顕著な退行を示していた。

現在の臨床症状をみると, 4例ともに言語障害や対人関係障害は重く, 強迫的こだわりは4例ともに顕著であった。T兄は思春期に達してから以

表 2 2 組の同胞の発達経過と病態の比較

	T 兄弟		I 兄弟	
	兄	弟	兄	弟
発達経過	知能面 停滞 適応面 良好	知能面 停滞 適応面 病的退行	知能面 病的退行 適応面 病的退行	知能面 病的退行 適応面 不安定
現在の知能 知能構造	中等度遅滞 (WISC TIQ54) 言語<<動作	中等度遅滞 (WISC TIQ50) 言語<<動作	最重度遅滞 (田中ビネ IQ 17) 言語<動作	重度遅滞 (田中ビネ IQ 26) 言語<<動作
現在の言語発達水準	2 語文	2 語文	有意語なし	1 語文
現在の臨床症状				
言語障害	++	++	+++	++
対人障害	+	+++	++	+++
強迫的こだわり	++	+++	++	++
多動	-	++	-	++
不安症状	+	+++	++	++
病的退行	±	不安定, 起こしやすい	+++	不安定, 起こしやすい
ストレスに対する反応	自傷行為	遺尿, 遺糞, 吃音	無意欲, 遺尿	吃音, 多動
てんかん発作	(-)	(+)大発作13歳	(+)大発作16歳	(-)
脳波異常	(-)	(-)	左側頭部小棘波	(-)
対人関係の特徴	素直, 受動的	ひねくれ反応, 活動的	(以前はひねくれ反応 顕著)無意欲	ひねくれ反応, 活動的
感情表出	乏しい	豊か, 情緒不安定	乏しい	豊か, 情緒不安定
母への依存	乏しい	強い	乏しい	強い
観察期間	10~18歳	9~17歳	4~18歳	6~16歳

前書いた日記を取り出し何度も消しては書き直す強迫症状が出現していた。多動性は T 弟と I 弟に現在もなおかなり残存していた。ストレスに対する反応は 4 例とも強く、T 兄は自傷行為、T 弟は遺尿、遺糞、吃音など弟のほうがより多彩で強い。I 兄弟でも I 弟のほうがストレスに対する反応は多彩で不安定な状態を示しやすく、吃音が出現したり、多動が増強する。I 兄は学童期多彩な退行現象を示していたが、その後次第に無意欲になり、いまでは遺糞や夜間徘徊がさほどの急激なストレスはないと思われる状況でも出現していることをみると、病的退行が最も強まっている例と考えられた。

てんかん発作は T 弟で 3 歳の時、I 兄では 16 歳の時に出現している。T 弟はその後抗けいれん剤も服用せず経過をみているが、1 回限りでその後 3 年間出現していない。I 兄は 16 歳時の発作出現以来、抗けいれん剤を服用しコントロールは良好である。脳波検査では I 兄のみ 1 回だけ左側頭部に散発性小棘波を認めているが、他の 3 例は未だ

発作性異常波を認めない。

対人関係の特徴をみると、T 兄は他者の指示に従順で、自発性には乏しいが適応は良好であった。他の 3 例は特に幼児期から学童期にかけてひねくれ反応 Verschrobenheit (症例の記載の中でアンダーラインを引いた箇所)が顕著で、対人操作的振る舞いが特徴的であった。ただし、I 兄は思春期に入ってから次第に無気力化している。彼らは自発的な行動を示すが、周囲とのトラブルを起こしては不適応反応を示し、多彩なストレス反応を起こしていた。情緒面でも非常に不安定であった。T 弟と I 弟は兄と比べて母に対して強い依存欲求を示していた。

■ 考察

1. 自閉症同胞一致例について

自閉症の同胞に関する研究は、双生児とそうでない場合に分けて今日まで検討されてきた。双生児での自閉症一致率は一卵性で 30% 台^{5,7)} から 91%²⁰⁾ と高率に認められるが、二卵性はすべて不

一致^{5,7,26)}で、自閉症の病因として遺伝学的に強く規定された 1 群が存在することが示唆されている。しかし、同胞(双生児を除く)での一致例は 2% 前後^{9,33)}で一卵性双生児に比べるとはるかに低率である。それでも一般人口での自閉症の発現率に比べるとはるかに高い。また同胞間で自閉症の一致をみない場合でも自閉症児の同胞にはなんらかの認知障害がかなりの高率に存在する³⁾。これらの研究から、自閉症の発症そのものには遺伝学的要因のみでなく、周産期障害その他の要因も複雑にからみ、状態像や発達経過にいたっては社会的要因も大きく関与するため多様化を示している。これらの事実は自閉症の成因の複雑さをうかがわせる。

今回の報告は、2 組の症例の全例に折れ線現象が認められたが、過去の同胞一致例の報告でも折れ線現象をいずれか一方に認める報告は少ない^{22-24,34)}。しかし、折れ線現象の有無とその意義についてはほとんど言及されていない。

2. 4 例の臨床診断について

DSM-III-R¹⁾を用いて 4 例の臨床診断を行うと、全例とも自閉性障害 autistic disorder の診断基準を満たしている。発症年齢では T 兄と I 兄は 3 歳未満であるが、T 弟と I 弟は 3 歳以降として区別することになる。次に ICD-10 草案³⁶⁾では、発症年齢の相違から T 兄と I 兄の 2 例は小児自閉症、T 弟と I 弟は崩壊性障害 disintegrative disorder となる。4 例を 2 つの診断基準に当てはめると、発症年齢の違いが最も問題となるが、この点をさらに検討してみたい。

3. 折れ線現象の発現時期と病態、発達経過との関連性について

発症年齢の差異は病態や発達経過(予後)とどのような関連性があるのだろうか。まず知能構造をみると、T 兄弟は図に示したように共に言語性知能に比較して動作性知能が相対的に高く、プロフィールは酷似している。I 兄弟も言語発達の水準は低く、I 兄が最重度、I 弟が重度と T 兄弟よりさらに知能障害は重度であった。知能は生物学的要因により大きく規定されていることを考える

と、4 例ともになんらかの脳の機能障害を想定しなくてはならない。4 例とも周産期障害が存在していたことや、4 例のうち半数の 2 例にてんかんの発症を認めていることもそれを裏づけている。

次に 4 例の発達経過を検討してみると、T 兄が適応水準では最も良好であるが、その他の 3 例はいずれも不良であった。T 兄が適応面では受身的ではあるが比較的良好であるのに、T 弟や I 兄弟は対人関係面の特徴として対人操作的でひねくれ反応を生じやすく、ストレスに対する反応性も高く、情緒的に不安定であった。4 例の発症年齢をみると、T 兄が最も早く 2 歳未満、その他の 3 例はいずれも 2 歳以降で、発達経過と発症年齢との間になんらかの関連性が考えられないであろうか。

小林¹¹⁾は 90 例の自閉症児の発達経過の検討から、折れ線型自閉症の中でも発症が 2 歳未満と 2 歳以後のもので比較すると、後者の予後が有意に不良であることを示した。今回の 4 例の折れ線現象の発現時期とその後の発達経過との関連性の検討から、筆者らは発症年齢が 2 歳以後で不良な経過をたどった 3 例に共通して、その経過の中で対人関係面でひねくれ反応が顕著であったことに着目した。

4. ひねくれ反応 Verschrobenheit と自閉症の成因をめぐって

ひねくれ反応は対人関係の発達という側面からみると、対人操作的な内容を持ち対人関係がある程度成立した上での相手の怒りや不安を誘発する行動²⁷⁾で、非現実的振る舞いという意味では精神病的症状と考えられる。小林¹¹⁾は 90 例の自閉症の中でひねくれ反応を 14 例(15.6%)に、さらにその後¹⁴⁾ 187 例の中で 35 例(18.2%)に、杉山²⁷⁾は 206 例の中で 21 例(10.3%)に認めているように、決してまれなものではない。(ただし、杉山はひねくれ行為 provocative behavior と表現しているが、同質の行動を示していると思われる。)

ひねくれ反応を示した自閉症の特徴として、杉山²⁷⁾は、他の人の叱責を引き出すことを目的として行われ、家族背景になんらかの問題を持つものが多かったという。ひねくれ反応が生まれる状況

として、自我の芽生えがみられ対人関係の広がりが見られる時期で強いストレスが生じている場合に、ひねくれ反応がある種のエモーション障害として生じているのではないかとし、自我の発達の一側面としてとらえる治療的配慮の必要性を述べ、自我の発達病理という視点から検討をしている。

ひねくれ反応が顕著に認められた3例の発達経過を詳細に検討すると、彼らの対人関係はいまだ相互補完的とはいえないが、相手の感情を読み取ることでもって相手に様々な反応を引き出しているということが推測される。ストレスの強い環境のもとで彼らなりの情緒的な反応とみなすことはさほど無理な推論ではないように思えるのである。このように考えると、基本的な対人交流が極めて成立困難な他の1例に比べると、対人関係面からとらえれば発達の一側面とみなすことができ、両者の間で自閉性障害の成り立ちが異なっているとみなすことが可能である。どうして3例はこのレベルにまで発達しえたのに他の1例では基本的対人関係さえ成立できなかったか、その背景にどのような生物学的要因がからんでいるかは今回の検討では依然不明であった。

しかし、力動的観点に立って自閉性障害を成因の違いからいくつかに分けようとする考えは過去にもすでにみられ、精神分析家 Mahler¹⁸⁻²⁰⁾にまでさかのぼる。Mahlerは自我発達の観点から幼児精神病を自閉性幼児精神病と共生幼児精神病に分類した。その後同じ精神分析家の Tustin²⁹⁾は幼児精神病の自閉の特徴について論じ、内包化した自閉状態 autistic state of encapsulation と錯乱した自閉状態 confusional autistic state に分けている。前者は母子間の原初的結合 primal bonding がいまだ成立していない精神発達の停止した自我状態を指しているが、後者は不確かながらも母子間で原初的結合関係は成立してはいるがいまだ本来の対人関係には達していない状態という。Tustinの考え方は自閉状態に関する対象関係の発達病理からの検討といえるものである。今回

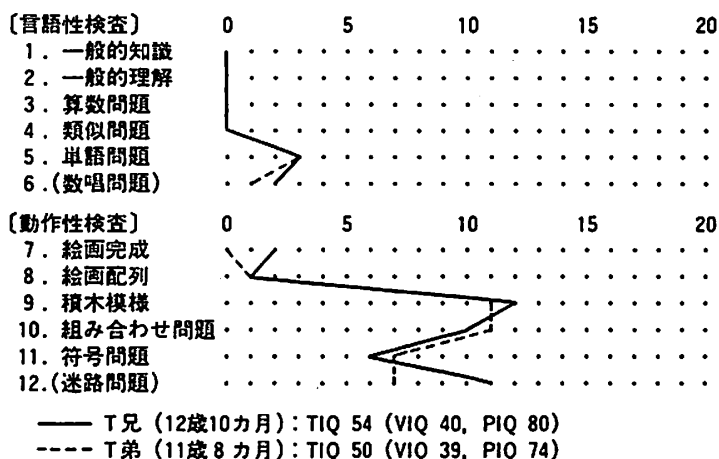


図 T兄弟のWISCのプロフィール

の4例を対象関係の発達病理の差異から論じるさいに Tustinの主張は注目に値する。

自閉症の心因論ないし力動的論は過去のものとして昨今は取り上げられない傾向にあるが、Hobson⁹⁾は自閉症の精神分析的接近に関する総説の中で、Klein, Mahler, Tustin, Meltzerらの考えを紹介しながら自閉症の認知の発達と社会性の発達の関連を検討するさいにこうした対象関係論的考え方の意義について論じている。その中で内的(精神内界での)対人関係と外的(外界での)対人関係のあり方を理解していくことが自閉症の対人認知の特徴を探る上でも大切であるとし、自閉症に関する力動的な研究と非力動的(認知的)研究の再接近の必要性を述べている。

小林¹¹⁾は2歳以後に折れ線現象を呈した自閉症の予後が不良な理由として、対象関係の発達面から幼児期早期までの発達は比較的良好であったために母子関係の中で対象イメージがかなり形成されていたにもかかわらず、その後の折れ線現象によって分離個体化の発達段階での固着が生じ、母子の対象関係が不安定な状態で終始するために容易に病的退行を起こしやすくなったのではないかと推論を試みた。すなわち、自閉症児の対象関係の発達病理という視点から折れ線型自閉症の予後不良性を論じた。

今回の4例は小林¹¹⁾の先の90例の対象児には含まれていないが、折れ線現象の発現時期(発症時期)と病態の特徴との関連をみると、自我発達ない

し対象関係の発達病理としてとらえて検討することは、とりわけ治療戦略を考える上で意義あるものと思われる。自閉症児も現実生活への適応を試みるが、生来のハンディキャップのためにストレスに対して様々な反応を起こしやすい¹²⁾。特にひねくれ反応を示すような例は、ややもすると療育現場ではただ問題行動としてのみとらえられがちである。しかし、今回の報告でみられたように、このような反応は兄弟葛藤や養育者との別離に直面したり、学校で適応困難な状態に陥るなどのストレス状況に対する行動であるとみなせる。自閉性障害というラベリングによって彼らに対する力動的立場からの理解が妨げられないためにも、このような行動は彼らの対人関係に対するなんらかの情緒的反応として理解し、その社会的背景や対象関係の発達の観点からの検討を忘れてはならない。

折れ線現象は従来器質的要因を中心に検討され論じられることが多かったが、いまだ一致した意見はみられていないのが現状である。今回の我々の報告は自閉症の成因を単に脳の機能障害としてのみとらえるのではなく、それを基盤にしながらも精神発達の特徴からより力動的観点で自閉性障害を呈する子どもたちを理解していこうとする試論である。治療が難渋しやすい折れ線現象を呈した自閉性障害への治療教育的接近を考える際に、彼らの自己評価の傷つきやすさやストレスに対する反応のしやすさを念頭に入れた精神療法的工夫が必要であることを主張したが、自閉症の成因を考える上でも、自我発達や対象関係の発達論的立場からの検討が今後もっと注目される必要がある。

まとめ

2組の自閉性障害同胞一致例について、折れ線現象の発現時期とその後の発達経過を中心に検討し報告した。折れ線現象の発現時期が2歳未満の1例は発達経過が比較的良好であったが、2歳以後の3例はすべて不良であった。そしてこの3例は発達経過の中でひねくれ反応が顕著に認められ

た。このひねくれ反応を対象関係の発達病理の視点から検討し、ひねくれ反応はなんらかのストレスに対する反応としてとらえ、治療に際して精神療法的配慮の必要性を主張した。さらに自閉症の成因についても最近の研究動向を踏まえて言及した。

本論は第27回児童青年精神医学会総会(1986年11月、福島市)にて発表した原稿をその後の経過を踏まえて再検討し、加筆修正したものである。本研究の一部は福岡県による福岡大学医学部自閉症治療研究助成金(班長:村田豊久)によった。

最後に今日まで終始懇切丁寧なご指導をいただき、今回の報告にあたり貴重なご助言をいただきました村田豊久院長(村田クリニック)に感謝申し上げます。

文献

- 1) American Psychiatric Association: Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, third revised ed (DSM-III-R), 1987
- 2) Anthony J: An experimental approach to the psychopathology of childhood: Autism. Br J Psychiatry 31: 211, 1958
- 3) August GJ, Stewart MA, Tsai L: The incidence of cognitive disabilities in the siblings of autistic children. Br J Psychiatry 138: 416, 1981
- 4) Burd L, Fisher W, Kerbeshian J: Childhood onset pervasive developmental disorder. J Child Psychol Psychiatry 29: 155, 1988
- 5) Folstein S, Rutter M: Infantile autism: A genetic study of 21 twin pairs. J Child Psychol Psychiatry 18: 297, 1977
- 6) Hobson PR: On psychoanalytic approaches to autism. Am J Orthopsychiatry 60: 324, 1990
- 7) 本城秀次, 若林慎一郎: 双生児自閉症の臨床的研究。児童精神医学とその近接領域 22: 91, 1981
- 8) 星野仁彦, 渡部康, 横山富士男, 他: 折れ線型経過をたどる自閉症児の臨床的特徴。精神医学 28: 629, 1986
- 9) 石井高明: 幼児自閉症の診断と治療。日本医事新報 2459: 27, 1971
- 10) Kanner L: Childhood psychosis: Initial studies and new insights. John Wiley & Sons, New York, 1973(十亀史郎, 斎藤聡明, 岩本憲訳: 幼児自閉症の研究。黎明書房, 1978)
- 11) 小林隆児: 自閉症児の精神発達と経過に関する臨床的研究。精神経誌 87: 546, 1985
- 12) 小林隆児, 井上登生, 村田豊久: 小児自閉症に併発する心身症。発達障害研究 11: 32, 1989
- 13) 小林隆児, 村田豊久: 自閉症児療育キャンプの効果に関する一考察。児童精神医学とその近接領域 18: 221, 1977

- 14) 小林隆児, 村田豊久: 201 例の自閉症児追跡調査からみた青年期・成人期自閉症の問題. 発達心理学と医学 1: 523, 1990
- 15) 栗田広: ヘラー症候群概念の現代的意義について. 内沼幸雄編: 分裂病の精神病理 14. 東京大学出版会, p 237, 1985
- 16) 栗田広: 幼児自閉症の臨床的類型について. 山崎晃資, 栗田広編: 自閉症の研究と展望. 東京大学出版会, p 293, 1987
- 17) 川崎葉子, 清水康夫, 太田昌孝: 自閉症の経過中にみられる発話消失現象について. 児童青年精神医学とその近接領域 26: 201, 1985
- 18) Mahler MS: On child psychosis and schizophrenia-autistic and symbiotic infantile psychoses. Psychoanal Study Child 7: 286, 1952
- 19) Mahler MS, Gosliner BJ: On symbiotic child psychosis: Genetic, dynamic and restitutive aspects. Psychoanal Study Child 10: 195, 1955
- 20) Mahler MS, Pine F, Bergman A: The psychological birth of the human infant. Basic Books, New York, 1975 (高橋雅士, 織田正美, 浜畑紀訳: 乳幼児の心理的誕生—母子共生と個体化. 黎明書房, 1981)
- 21) Rutter M, Lockyer L: A five to fifteen year follow-up study of infantile psychosis I. description of sample. Br J Psychiatry 113: 1169, 1967
- 22) Seidel UP, Graf KA: Autism in two brothers. Medical Officer 115: 227, 1966
- 23) Shell J, Campion JF, Minton J, et al: A study of three brothers with infantile autism: A case report with follow-up. J Am Child Adolesc Psychiatry 23: 498, 1984
- 24) 白橋宏一郎, 畠山博, 木村成道: 自閉性障害の同胞出現. 医療 31: 32, 1977
- 25) Short AB, Schopler E: Factors relating to age of onset in autism. J Autism Dev Disord 18: 207, 1988
- 26) Steffenburg S, Gillberg C, Hellgren L, et al: A twin study of autism in Denmark, Finland, Iceland, Norway and Sweden. J Child Psychol Psychiatry 30: 405, 1989
- 27) 杉山登志郎: 自閉症—最近の研究の進歩. 精神科治療学 5: 1505, 1990
- 28) Tustin F: Autistic states in children. Routledge & Kegan Paul, London, 1981
- 29) Verhees B: A pair of classically early infantile autistic siblings. J Autism Child Schizophr 6: 53, 1976
- 30) Volkmar FR, Cohen DJ: Disintegrative disorder or "late onset" autism. J Child Psychol Psychiatry 30: 717, 1989
- 31) Volkmar FR, Stier DM, Cohen DJ: Age of recognition of pervasive developmental disorder. Am J Psychiatry 142: 1450, 1985
- 32) 若林慎一郎: 幼児自閉症の折れ線型経過について. 児童精神医学とその近接領域 15: 215, 1974
- 33) 若林慎一郎: 自閉症児の発達. 岩崎学術出版, 1983
- 34) 若林慎一郎, 水野真由美: 同胞自閉症についての研究. 児童精神医学とその近接領域 17: 154, 1976
- 35) Wing L: Social and interpersonal needs. In: Autism in adolescents and adults, edited by Schopler E, Mesibov GB, Plenum Press, New York, p 337, 1983
- 36) World Health Organization: International Classification of Diseases 10th ed 1988 draft of Chapter V Mental, Behavioral and Developmental Disorders. "Clinical descriptions and diagnostic guidelines" "short glossary", Geneva, 1988 (高橋良, 小見山実, 中根允文, 監訳: ICD-10 第 V 章 F 00—F 99 カテゴリー, 精神, 行動および発達障害「臨床的記述と診断ガイドライン」[小用語集])

学会告知板

第 7 回国際双生児研究会議

The 7th International Congress on Twin Studies

双生児に関する医学・生物・心理・教育・社会・育児など広汎な課題についての研究発表・討論が行われます。

会長 井上英二 (国際双生児研究協会会長, 東京大学名誉教授)

開催時期 1992 年 6 月 22 日(月)～6 月 25 日(木) (4 日間)

開催場所 東京医科大学病院 (東京都新宿区西新宿 6-7-1)

主催 双生児研究会, (財)難病医学研究財団

演題締切 1992 年 2 月末日

事務局 第 7 回国際双生児研究会議係

(財)日本学会事務センター 学術講演開催業務部門内

〒113 東京都文京区本郷 3-23-1

☎ 03-3817-5831 Fax 03-3817-5836