

【研究ノート】

# プラダー・ウィリー症候群児の保護者を対象とした ペアレントトレーニングの効果

加藤 美朗\*, 小関 俊祐\*\*, 佐々木 和義\*\*\*

The Effect on Parent Training for Parents of Children with Prader-Willi Syndrome

Yoshiro Kato, Shunsuke Koseki and Kazuyoshi Sasaki

## 要 旨

プラダー・ウィリー症候群（PWS）は遺伝子の変化に起因する疾患（遺伝性疾患）であり、過食や食べ物への執着が特徴とされる。また、行動上の問題が成長に伴って発現する。本研究では、PWSの保護者を対象とした行動療法に基づくペアレントトレーニングを実施し、子どもの行動変容と保護者の不安やストレスの軽減に及ぼす効果について検証を行った。結果は、参加した保護者が家庭で行動療法の技法を用いることで、保護者が選択した子どもの標的行動に改善がみられた。6か月後にフォローアップ調査を行ったところ、この結果は維持されていた。また、保護者の不安やストレスについて軽減がみられたことから、PWSのある子どもをもつ保護者を対象としたペアレントトレーニングの効果が示唆された。しかし、保護者が、今回学んだ技法を新たな標的行動を設定して家庭で単独で行うのは難しいと感じていることが課題となった。

## Abstract

Prader-Willi Syndrome (PWS) is a genetic disorder mainly characterized by hyperphagia and food preoccupations. In addition, behavioral problems may become more prominent along the growth of PWS children. This study examined the effects of a parent training program based on behavioral therapy. Target behaviors of most children were improved in following interventions. These effects were maintained at 6-month follow up. The parental anxiety and stress tended to decrease. It was suggested that parent training is effective for PWS. However, some parents had a tendency to feel difficult to carry out the same way independently without professional helps.

●●○ **Key words** プラダー・ウィリー症候群 Prader-Willi syndrome / ペアレントトレーニング Parent Training / 行動療法 Behavioral Therapy

受付日 2012.9.5 / 受理日 2012.10.24

\* 関西福祉科学大学 健康福祉学部 講師 / \*\* 愛知教育大学 教育学部 助教 / \*\*\* 早稲田大学 人間科学学術院 教授

## I. 問題と目的

### 1. プラダー・ウィリー症候群

プラダー・ウィリー症候群 (Prader-Willi syndrome; 以下 PWS) は知的障害および生命を脅かす可能性のある過食症、性腺機能低下、認知・行動の問題を特徴とする遺伝性疾患であり (Dykens & Roof, 2008)<sup>1)</sup>、発症率は、約 10,000 人に 1 人から 25,000 人に 1 人の範囲内にあるとされる (Whittington, Holland, Webb, Butler, Clarke, & Boer, 2001)<sup>2)</sup>。病因については、父由来の 15 番染色体長腕上の遺伝子群 (q11-13q) のゲノム刷り込み領域における遺伝子の発現欠如が病因である欠失型が約 70%、15 番染色体の母性片親性ダイソミーが約 25% とされ、残り約 5% が刷り込み領域における突然変異あるいは刷り込み異常によるものとされている (Butler, Hanchett, & Thompson, 2006)<sup>3)</sup>。

PWS においてはそのほとんどが中度から軽度の知的障害をもつことから (Butler, et al., 2006)<sup>3)</sup>、過食や体重維持のコントロールを本人に期待するのは容易ではなく、保護者や支援者による管理が不断なく必要とされる (伊藤, 2002)<sup>4)</sup>。また、過食以外にも、成長に伴って現れる多岐にわたる行動問題への対応が困難なことから、子育てのみならず特別支援教育や障害福祉の分野においても支援の難しい障害のひとつとして捉えられ (Kundert, 2008)<sup>5)</sup>、包括的かつ断続的な子育て支援が不可欠である (長谷川, 1992)<sup>6)</sup>。しかしながら、教育や福祉分野における障害特性の理解は十分とはいえ、また、行動問題への対応が困難なことから、保護者は子育てに悩みつつ孤立無援の状態子育てに当たらざるを得ないことが少なくない (Ho, & Dimitropoulos, 2010)<sup>7)</sup>。

#### (1) 身体的症状

PWS の身体的特徴としては、低身長、小さな手足、特徴的な顔貌、性腺機能低下、低色素が挙げられる。また、筋緊張低下および乳幼児期の哺乳力低下等がみられることから 1 歳台後半くらいまでは自力摂食が困難な場合が多く、栄養摂取が子育ての重要な課題となる (藤枝, 2002; Cassidy, 1997)<sup>8,9)</sup>。しかし、自力での摂食が可能となってからは食べ物への異常な執着や過食が現われだし、肥満予防のための食事管理が子育ての主要な課題となる。PWS の過食の原因は、視床下

部における満腹感覚のフィードバック・メカニズムの機能不全と推定され、一生涯続くものとされている (Butler et al., 2006)<sup>3)</sup>。糖尿病、睡眠時無呼吸発作、循環器系疾患等の二次障害発症のリスクも高く、PWS 以外の知的障害群に比べて約 6 倍の早期死亡率を示すという調査結果もみられる (Einfeld, Kavanagh, Smith, Evans, Tonge, & Taffe, 2006)<sup>10)</sup>。このため、保護者はわが子の健やかな成長を願い、継続的な栄養や健康管理に臨むこととなる。

#### (2) 食行動の特徴および過食、肥満について

PWS における食行動の特徴は食べ物への著しい執着と絶え間のない食べ物探索活動にあるとされ、家庭内外での隠れ食べや盗み食べ、路上での残飯あさり、異食や未調理の食材、冷凍食品の盗み食べなどがしばしばみられる (Joseph, Egli, Koppekin, & Thompson, 2002; Dimitropoulos, Feurer, Roof, Stone, Butler, Sutcliffe, & Thompson, 2000)<sup>11,12)</sup>。また、食べ物の万引きや食べ物を買うために家族や他人の金銭を盗む、あるいは虚偽の募金活動をするといった非社会的行動にまで発展することもある (加藤・堤, 2011)<sup>13)</sup>。隠れ食べや盗み食べは 3 歳頃から現われ始め、10 歳代で約 8 割にみられるようになり、それに伴うように 10 代後半から成人期にかけて肥満リスクが高まる傾向がみられる (加藤, 2010)<sup>14)</sup>。

また、食事量に制限が加えられていない状況設定のもとで行われた比較研究の結果、PWS 群は対照群の知的障害と比較して、一回の食事機会でも平均約 3~3.5 倍の量を食べ、かつ、その後に空腹感を感じるまでの時間が非常に短かった (Young, Zarccone, Holsen, Anderson, Hall, Richman, Butler, & Thompson, 2006; Holland, Treasure, Coskeran, & Dallow, 1995)<sup>15,16)</sup>。加えて、食べ物に関する自分の好みよりも量の多さを優先する傾向もみられる (Joseph et al., & 2002; Glover, Maltzman, & Williams, 1996)<sup>11,17)</sup>。そのうえ、砂糖などの甘い食べ物や炭水化物などの高カロリー食への嗜好度が高く (Dimitropoulos & Shults, 2008; Hinton, Holland, Gellatly, Soni, & Owen, 2006)<sup>18,19)</sup>、エネルギー代謝率が低い (Davis & Joughin, 1993)<sup>20)</sup> などの傾向が、体重管理や維持をより一層困難なものとしている。過食や肥満に関する薬物治療や外科的治療も試されてはきたが、効果的な治療は未だみつかってはいない (Ho,

& Dimitropoulos, 2010)<sup>7)</sup>.

以上のように PWS 児の食行動の傾向は PWS に共通の特性であり、本人の意思の弱さや性格に起因するものではない。したがって本人が自分自身でコントロールしていくことは非常に難しく、保護者や支援者による食事や体重管理が絶えず必要となる。

### (3) 行動面の問題

PWS 児においては食行動以外にも、成長に伴って多様な、あるいは激しい行動上の問題が現われていくことが少なくない。行動上の問題の発現は多岐にわたり、反復的行動や発言、頑固さやステレオタイプ行動、自傷行為、スキンプッキング、強迫行動、癇癪の爆発、日中の過剰傾眠、日課の変更に対するネガティブな情動行動、低レベルの身体活動、虚言、盗み、徘徊癖、不服従や反抗、パニック、攻撃行動などがよくみられるものとして挙げられる (Woodcock, Oliver, & Humphreys, 2009; Ogura, Shinohara, Ohno, & Mori, 2008; Kim, Yoo, Cho, Hong, & Kim, 2005; Dykens & Shah, 2003; Dykens & Cassidy, 1999)<sup>21,22,23,24,25)</sup>。以上のような行動問題のうち、反復的行動やスキンプッキングおよび癇癪は3歳になる頃から現れ始め、成長にともなって他の不適応行動が現れ始める (Dykens & Kasari, 1997)<sup>26)</sup>。そして、それらは思春期から成人期前期にかけて増加していく傾向にあり (Dimitropoulos, Feurer, Butler, & Thompson, 2001)<sup>27)</sup>、20歳代以降にピークを迎えるとされる (Dykens, 2004)<sup>28)</sup>。

また、以上のような行動問題の発現と肥満度との関係について検討がなされているが、行動問題の得点と肥満度に正の相関がみられる結果と、負の相関がみられるものとの結果がわかる。それゆえ、行動問題の発現が過食コントロールを困難なものにする可能性と、ダイエットに対するストレスが行動問題の発現に関連するといった2つの観点から今後も検討を加えていく必要があると考えられる (Sinnema, Einfeld, Schrandt-Stumpel, Maaskant, Boer, & Curfs, 2011)<sup>29)</sup>。

### (4) 保護者の心理的ストレスおよび支援ニーズ

これまでに述べてきた食行動および食行動以外の行動問題は、PWS 児の子育てを非常に困難なものとしている。PWS 児の過食や肥満の予防は家族全体にも影響を与え、冷蔵庫の施錠や絶え間のない監視 (用心や寝

ずの番など) が必要なうえ、家族の食事スケジュールにも影響を与える。このような状況が親子関係の悪化に結びつき、子どもの癇癪や家族間の対立に怯えつつ生活するケースも稀ではない。それゆえ、PWS 児の保護者は、PWS 以外の知的障害をもつ子どもの保護者と比べて悲観的な考えに陥りやすい (Hodapp, Dykens, & Masino, 1997)<sup>30)</sup>。また、子どもの症状が徐々に深刻化していく児童期から青年期の子どもの保護者では、将来への不安やストレス、子育て負担感が幼児期の子どもの保護者と比べて高まる傾向にあり、わが子がそろそろ食べ物の万引きをしているのではないかといった不安をおぼえることも稀ではない (高橋・法橋, 2006; Wigren & Hansen, 2003)<sup>31),32)</sup>。PWS 児の保護者面接や親の会などが主催するグループ相談会などでは、保護者がわが子の行動問題に関する学校からの連絡に日常的に怯えたり、わが子が下校時に徘徊して帰らない、あるいは数日行方不明になるなどといった逸話のエピソードがしばしば語られる。また、このようなケースでは保護者は厳しく叱る以外に対処する手段がみつけれず、そのことで本人が余計に家に帰ろうとしないような悪循環が生じていることも少なくない。

このように、PWS 児の保護者は体重管理以外にも行動面での問題に悩まされ、子育てに関する一貫した方針をもつことが難しい (Hodapp et al., 1997)<sup>30)</sup>。そして、多くの保護者は体重管理以外の問題へ目を向ける余裕がもてずにおり、親子関係の改善に焦点を当てた支援が不可欠とされる (Wigren & Hansen, 2003)<sup>31)</sup>。しかし、PWS 児や家族に対する有効な心理社会的支援の確立は容易ではなく (Fidler, Hodapp, & Dykens, 2002)<sup>33)</sup>、包括的かつ継続的な支援方法の確立が重要な課題とされている (Dykens & Shah, 2003)<sup>24)</sup>。そこで、PWS 児の子育てや保護者による行動支援に有効な方法を先行研究から明らかにし、より効果的な支援プログラムを開発していく必要がある。

## 2. PWS 児への行動支援に関する先行研究および ペアレントトレーニング

### (1) 行動支援に関する先行研究から

これまでに、肥満治療のために入院するも病院内での盗み食べが頻繁であったり、治療への抵抗を示

す PWS の入院患者を対象とした行動療法に基づく介入が行われ、効果をあげてきている。例えば Altman ら (Altman, Bondy, & Hirsch, 1978)<sup>34)</sup> は、食べ物盗みが頻繁に生じる入院患者を対象に、本人が食べ物盗み行動をセルフ・モニタリングすることに対して強化を与えるとともに、盗み食べが生じていない時間帯に他の適応的な行動を強化する手続き（他行動の分化強化）を実施した。加えて食べ物盗みに罰を与える手続きを併用することによって、食べ物盗みの低減と体重減少に効果がみられた。Page ら (Page, Finny, Parrish, & Iwata, 1983)<sup>35)</sup> もまた、盗み食べが頻繁にみられた 2名の PWS の入院患者を対象に他行動の分化強化の手続きを実施した。盗み食べ以外の適応的な行動に強化を与える手続きを行った結果、両名ともに盗み食べの頻度が低下した。また、保護者に手続き場面を見学させておいたうえで、退院後に手続き実施者が家庭を訪問して保護者らによる手続きに対する助言を行うことで、家庭でも同様の効果が維持された。Maglieri ら (Maglieri, DeLeon, Rodriguez-Catter, & Sevin, 2000)<sup>36)</sup> は、盗み食べが頻繁にみられた入院患者に対して、禁止を表すシールが貼られた食べ物は食べないという訓練を病院内で実施した結果、頻繁だった盗み食べ行動が減少した。中谷ら (中谷・中川・磯村・大隈, 2004)<sup>37)</sup> は、深刻な身体合併症がみられるにもかかわらず、治療への抵抗感が強いために小児科での入院肥満治療が困難であった 13歳男子に対して、精神科入院治療において行動療法に基づく介入を実施し、減量に効果がみられた。西田ら (西田・岡田・森・廣瀬・谷川・新生・森田・田中, 2006)<sup>38)</sup> も、2名の入院患者を対象とした行動療法に基づく肥満治療を行い、減量に成功している。

入院治療以外では、Silverthorn と Harnak (Silverthorn & Harnak, 1993)<sup>39)</sup> が、激しい行動問題と食べ物盗みが原因で PWS 専用のグループホームへ入居措置された PWS の成人 11名を対象に、トークンエコノミーに基づくウォーキング・プログラムを実施し、有酸素容量の上昇と体重減少に効果がみられたとしている。また、食行動や体重管理を対象とした介入以外では、Stokes と Luiselli (Stokes & Luiselli, 2009)<sup>40)</sup> が、肛門へ指を入れる自傷行動 (rectal picking) に対して機能的アセスメントに基づく介入を行った。機能的アセスメントとは、ある行動、例えば不適切な行動がどのような環境との相互関係において生じているのかを把握

し、その行動の有する機能を特定することによって介入方法を決定していくための手続きである。行動の機能を特定するためには、その行動の生起に関係する先行事象と、その行動が生起した結果として生じる環境上の変化（後続事象）を記述することが必要となる。すなわち、行動の前後の状況を記録することによってアセスメントしていく手続きである。この結果、自傷行動が最も頻繁にみられた入浴時間の短縮、機能的コミュニケーション訓練、他行動の分化強化が介入手続きとして組み合わせられることによって自傷行動に軽減がみられた。介入は専門家が家庭訪問するかたちで行われた。

以上のように、いくつかの事例で行動療法に基づく介入効果が示されており、機能的アセスメントや他行動の分化強化、トークンエコノミー法、視覚的支援などの技法が PWS のある人の支援においても有効であるということが示唆されている。しかしながら、これらの介入は病院や PWS 専用のグループホームでの肥満治療、あるいは専門家の家庭訪問による介入に限られたものである。しかし、前節で述べたように PWS の保護者は日常的な子育てに対する支援や親子間の改善に繋がるプログラムを必要としている。また、PWS は発症率が自閉症やダウン症候群に比べると低く、支援者による障害特性の理解も十分とはいえず、支援が家庭に届く可能性はまだまだ低い。そこで、以上のような行動療法の諸技法に基づくプログラムであって、なおかつ複数の保護者を対象に効率的な実施が可能なプログラムの実施が求められていると考えられる。

## (2) ペアレントトレーニング

ペアレントトレーニング (Parent Training; 以下 PT) は、さまざまな疾患や障害のある子どもの保護者を対象に、1960年代に米国で始められ発展してきたプログラムである。保護者は、プログラム期間中に子どもの行動問題に対する対応技法に関する講義を専門家から受け、学んだ技法をロールプレイなどで練習したうえで、実際に家庭で実施する。PT は、保護者が、このようなプログラムを受けることで子どもに対する行動変容法を身につけ、わが子の治療者の一員となることを目的としており、複数の保護者を対象としたグループでの実施においても効果が認められている (大隈・伊藤 2005)<sup>41)</sup>。発達障害の子どもをもつ

保護者を対象としたPTとしては、注意欠陥/多動性障害 (Attention-Deficit /Hyperactivity Disorder; ADHD) のある子ども (以下 ADHD 児) をもつ保護者を対象としたグループPTが、ADHD 児の有効な治療法として認められてきている (Chronis, Jones, & Raggi, 2006; Barkley2002)<sup>42,43)</sup>。一般的な実施形態は、講演形式で行われる障害特性や技法の紹介と、実践形式で行われるワークシートを使用したグループワークやロールプレイなどで構成され (Barkley, 1997)<sup>44)</sup>、保護者の知識の増加、子育てストレスの有意な軽減および自己効力感の有意な向上、子どもの症状の改善がみられたとされている (Anastopoulos, Shelton, DuPaul, & Guevremont, 1993)<sup>45)</sup>。

しかしながら、上記のようなプログラムに基づくPTは、子どもの行動変容については効果がみられにくいといった見解もみられる (Weinberg, 1999; 岩坂・清水・飯田・川端・近池・大西・岸本, 2002)<sup>46,47)</sup>。そこで岩坂 (2010)<sup>48)</sup> は、機能的アセスメントに基づく個別の介入をプログラムに組み入れることで、より一層の効果が期待できるとしている。このような機能的アセスメントを取り入れたADHD児へのPTとしては、大隈ら (大隈・伊藤・免田, 2002)<sup>49)</sup> が、ADHD児の保護者を対象に10セッションの親訓練を実施し、子どもの行動変容に効果をあげている。また、免田 (2008)<sup>50)</sup> はこのプログラムに改良を加えてADHD児へのPTを実施し、子どもの行動変容に効果を示している。

嶋崎ら (嶋崎・加藤・宇和川, 2006)<sup>51)</sup> も大隈らのプログラムを参考に5セッションの短期のPTプログラムを作成し、発達障害児の保護者と支援者が共に参加できるプログラムを行っている。手続きとしては、参加した保護者が子どもの標的行動をスモールステップで設定したうえで、子どもの適応的な行動に対する正の強化 (「ほめる」) を家庭で実施し、子どもの行動変容、および親子関係のポジティブな関わりを増やすことをめざす。次いで保護者が家庭で記入した子どもの行動記録に基づいて機能的アセスメントを行い、先行事象および後続事象の操作法を個別に決定し、ホームワークで実践、記録を行い、次回のセッションで評価および修正を行うというものである。プログラムの中核は適応的な行動に対する正の強化と機能的アセスメントである。標的行動のスモールステップの各段階

に対して詳細な機能的アセスメントを行うことで、年齢や性別、あるいは障害種別や行動問題の激しさに関わらず、それぞれの子どもの行動変容に効果をあげている。

以上のことから、機能的アセスメントに基づくグループPTは、子どもの行動問題が多岐にわたり親子関係に悪循環が生じやすいPWS児の保護者にも適用が可能ではないかと考えられる。また、これまでにPWS児の保護者を対象として同様のプログラムを実践したという報告はみられない。そこで、本研究ではPWS児の保護者のみを対象として、適応的な行動に対する正の強化および機能的アセスメントに基づく短期間のグループPTを実施し、効果を検証することとした。保護者にとって最大の課題であるわが子の食行動や、目をつぶらざるを得ないことの多い (Wigren & Hansen, 2003)<sup>31)</sup> 食行動以外の行動問題について、家庭で保護者がマネジメントできる方法を提供していくことが目的である。

## II, 方法

PTは、PWSの専門外来を設置するH小児科医院 (S市) が主催し、その専門外来を受診した患者の保護者のうち、PTへの参加を希望した人を対象に実施した。2年の間隔を隔てて異なる参加者による2グループを対象に実施した。ここでは、それぞれをPT1, PT2と記す。また、どちらのPTにおいても、冒頭に実施および研究の目的、個人情報やデータの取り扱いに関する倫理的配慮等について書面を配布し、口頭で説明を行った。

### 1, PT 1

(1) **対象者**：H小児科医院が、PWSの患者の保護者を対象としたPTに関する事前説明会を実施し、その参加者の中からPTへの参加者をつのった。8家族11名 (この内3家族は夫婦での参加) が参加することとなった。

(2) **トレーナー**：大学院臨床心理学コースで行動療法を学び臨床心理士資格を有する修了生がメイントレーナーを担当し、各回3, 4名の大学院臨床心理学コースの修了生がサブトレーナーを担当した。

(3) 期間:2006年9月～12月の隔週の土曜日に計6セッションで実施し、1セッションは午後2時～4時の2時間であった。

(4) 用具:プログラム、質問紙、講演資料、ワークシート、ホームワーク・シート、保護者用トークン表(毎回の参加、ホームワークを強化)、各種振り返りシート、修了表彰状および参加賞(今後の家庭での支援に活かせる物品)を用いた。

(5) プログラムおよび評価

表1にプログラムの概要を示す。プログラムは6セッションで構成されており、セッション1, 2において参加者は、行動療法の基本、PWSの行動面、行動療法に基づく体重コントロールに関する講義を受け、具体的な標的の行動決定、ベースライン記録の取り方等のグループワークを行いながらワークシートへの記入を行った。そして、セッション2からの2週間をベースライン期と設定して標的行動の頻度と行動の前後の状況の記録をホームワークとした。セッション3では、標的行動の軽減をめざして家庭で保護者がほめる行動とほめ方を決定し、続く2週間を第1介入期と設定して子どもの行動頻度の記録をホームワークとした。セッション4では、機能分析表をもとに家庭での対応策を決定し、続く2週間以降を第2介入期と設定し、セッション5での対応の見直しワークを挟んでセッション6まで2週間ごとの行動記録をホームワークとした。

各回のグループワークは子どもの年齢別にグループ分けを行い、各グループに1名のサブトレーナーがついた。質問紙は、日本版 STAI 状態・特性不安検査のうちの状態検査(State-Form, 以下 STAI-S, 三京房、

1991)を初回および最終回に実施した。PTの参加者はすべてのセッションに参加することを原則としたが、やむを得ず欠席した場合には、そのセッションの内容(内容の概略を記した文書、配布資料、各種シート、質問紙)を送付した。

(6) フォローアップ

PT1の最終セッションを行った6ヶ月後に、参加者がPTで取り組んだ標的行動に対する効果の維持と6ヶ月後のPTへの評価を質問するフォローアップ・アンケートを郵送で実施した。効果の維持については、標的行動が不適応行動の減少をめざすものであった場合には「なくなっている」から「よくみられる」、適応行動の形成であれば「できるようになった」から「たまにしかできない」のそれぞれ5件法で質問した。PTへの評価については、PTで実践した方法が6ヶ月後においても有効であると評価できるかどうかを、「かなり思える」から「思えない」の5件法で質問した。さらに、6ヶ月後の時点で参加者が困っていると感じている行動について、また、6ヶ月間にPTで実践した手続きをPTで標的行動とした行動以外に適用したかどうかについて自由筆記による回答を求めた。

2, PT 2

PT1と同様に、H小児科医院が主催し、PWS専門外来の受診者の中から参加者を新たに募集した。PT1において実施した体重コントロールの講義および問題解決訓練の紹介が簡略化できると判断したこと、および遠隔地からの参加希望がみられたこともあり、プログラムの内容を、発達障害支援のNPOで実施されている5回セッションのペアトレーニング(嶋崎ら、2006)<sup>51)</sup>に、より近いものとし、前回のセッション1, 2の内容を簡略化して5セッションとした。また、質問紙を同ペアトレーニングで使用しているGHQ30に変更し、初回および最終回に実施した。

(1) 対象者: 当小児科医院の患者の保護者7家族が参加した。

(2) トレーナー: 大学院臨床心理学コース修了生で行動療法を学んだ者1名がメイントレーナーを担当し、大学院臨床心理学コース修了生で臨床心理士あるいは学校心理士資格を有する者3, 4名が名回のサブトレーナーを担当した。

表1 PT1のプログラムの概要

セッション	内容	ホームワーク
1	PWSの行動面、行動療法による習慣病予防に関する紹介、行動を具体的に捉えるグループワーク(以下GW)	強化子さがし
2	「問題解決訓練」の紹介および例示。標的行動の選定、行動記録の方法	ベースライン記録
3	ほめることに関する紹介。機能分析表作成・ほめ方決定(GW)	行動記録
4	指示の出し方や環境設定、トークンに関する紹介、振り返りと対応策の決定	行動記録
5	環境調整に関する紹介、目標行動の確認・対応策の修正等(GW)	行動記録
6	振り返り、復習、修了式	—

(3) 期間：2008年11月から翌年1月にかけて、隔週の土曜日に計5セッションで実施した。1セッションは午後2時～4時の2時間であった。

(4) 用具：プログラム、質問紙、講演資料、ワークシート、ホームワーク・シート、参加およびHW実施保護者用トークン表、各種振り返しシート、修了表彰状などを用いた。

(5) プログラムおよび評価

プログラムの概要を表2に示す。

表2 PT2のプログラムの概要

セッション	内容	ホームワーク
1	標的行動の選定 行動記録の方法	ベースライン記録
2	ほめることに関する紹介、ほめ方決定 問題解決訓練の紹介、例示	行動記録
3	機能分析表作成、環境調整に関する説明 対応策の決定	行動記録
4	肥満予防に関する紹介 対応策の修正等	行動記録
5	振り返り、復習、修了式	—

(6) フォローアップ

PT1と同様のアンケート調査を最終回の6ヶ月後に実施した。また、PT終了後においても参加者が、新たな標的行動に対してPTの手続きを実施しようとした場合に使用できるように、PTで配布した資料およびワークシートを印刷したもの、およびそれらのパソコン用ファイルをCD-ROMにコピーしたものを配布した。

Ⅲ、結果

1, PT1

(1) 各ケースの経過

参加者の経過をケース別に表3に示した。また、記録を継続的にとることが困難であったケースb, gを除いて標的行動の変化のグラフ化が可能であったものをAppendixに示した。ケースbでは記録の取り方が毎回変わってしまったこと、ケースgは、夫婦が交代で参加し、記録が十分にとれなかったことがその理由であった。

表3 PT1の各ケースの概要 (表中の#は「セッション」を意味する)

属性	ケース	標的行動	ベースライン	対応方法	結果
就学前	a	①幼稚園で他児を叩く	【#2～#3】 保護者の依頼で担任が記録をとった結果、「他児を叩く」行動が4回みられ、家庭では報告を受ける度に子どもを厳しく叱っていた	【#3～#4】 ・保護者が担任に、毎日のルールの指導を依頼 ・叩かなかった日には帰宅後ほめる ・他の適応的な行動をほめる	他児を叩く行動がみられなくなったため、#4以降は新たな標的行動を設定した
		②おもちゃ片づけ	【#4～#5】 何度叱ってもおもちゃを全く片づけられないことが6回みられた	【#5～#6】 ・日課表を予告的に提示し、時間がきたら片づけ開始の声掛けを行い、片づけ始めたらほめる	前半は体調の悪い2日間を除いてスムーズに片づけ始められ、後半は自発的に片づけ始めることができた
	b*	①おやつねだり ②おもちゃ片づけ	【#2～#3】のベースライン期に記録した標的行動は「おやつを食べた後でも何度も要求し、最後は泣き叫ぶ」というものであったが、記録をとってみると、保護者は気さくしや要求の無視などをすでに上手く使って対応しており、【#3～#4】も引き続き同様の手続きを行った結果、保護者としても気になるような行動ではなくなったとのことであり、#4以降は「おもちゃ片づけ」を新たな標的行動とした 【#4～#5】に「おもちゃ片づけ」のベースライン記録をとったところ、声掛けをしながら母親がいっしょに片づけようとしてもほとんど片づけようとしなかったとのことであったが、【#5～#6】に親子で競うように片づけを促し、片づいた時点でほめることを繰り返すことで、本児のほうからも片づけを競うようになり、後半の週では自発的に片づけ始めることが5度みられた		

就学前	c	①早朝のおもらし	<p>【# 2～# 3】 早朝におもらしをし、濡れた服を脱いで裸で遊んでいるのが見つかったら叱られ、最後には泣いて謝るということが6回みられた</p>	<p>【# 3～# 4】 ・就寝前に、「朝起きたらお母さん起こしたら絶対起きるからね」と話し、「わかった」と言えた時に大げさにほめる ・朝先に起きて母親を起こした時には大げさにほめながらトイレに連れていく</p>	最初の週に1度おもらしがあったただけであったため、記録は取りつつも# 4以降は新たな標的行動を設定した
		②おもちゃ片付け	<p>【# 4～# 5】 全く片づけられなかった日が5日あり、自発行動はみられなかった</p>	<p>【# 5～# 6】 ・トークンエコノミー (自発、一度の声掛け、何度かの声掛けで、数に段階を設けて、ほめながら片づけ表にシールを貼る)</p>	最初の週に片づけられない日が一日みられたが、あとは一度の指示でほぼ片づけられるようになり、後半は自発行動が5日みられた
小学校低学年	d	①質問のくり返し	<p>【# 2～# 3】 同じ質問を何度も繰り返すことがあり。母親は2、3度で納得してほしいということであったが、期間中9回みられた</p>	<p>【# 3～# 4】 ・同じ質問をしても叱らずに、母親のほうから質問返して答えられたらほめる</p>	前半に2、3度以上繰り返す機会が2回みられたが、後半はなくなったため、# 4以降は新たな標的行動を設定した
		②朝の着替え	<p>【# 4～# 5】 自発行動はまったく見られず、毎日「何時までに終わるように」との声掛けを何度も繰り返さずを得なかった</p>	<p>【# 5～# 6】 ・トークンエコノミー ・終わりではなく、始める時間を視覚的に示し、着替え終わったらトークンをほめながら手渡す</p>	前半に少なくとも一度の声掛けで始められるようになり、後半にかけて6回の自発行動がみられた
	e	①服へのこだわり	<p>【# 2～# 3】 何日も同じ服や下着を着ることにこだわり、母親の指示に従わず、同じものを何日も着続けたり、何度も母親の選んだ服に何度も文句を言って着ようとしなかったことが80%の確率でみられた</p>	<p>・トークンエコノミー ・朝、時間的余裕をもたせるために起床時間を30分早める ・週に2度好きな服を選べる日を設定する ・母親の指示通りの服を着た場合にほめながらトークンを手渡す</p>	【# 3～# 4】の第1介入期に改善がみられ、# 4以降ほぼ改善された
	f*	①極端な早起きと盗み食べ	<p>両親は以前より子どもの隠れ食べ行動に関する日常的な追いかげごっこの悪循環に消耗していた。また、PTの少し前から、両親の寝ている早朝に排尿のために起きて遊んだり、盗み食べをするパターンができてしまい、両親ともに盗み食べが心配で寝不足になっているとのことであった。早起きしても再度寝ることをほめて促すことで、この問題はほぼ消失していった。だが、他の場面での盗食に関しては全くみられなくなるには至らなかった</p>		
小学校 中学年	g*	①前後を間違えずに服を着替える	<p>参加やホームワークの提出が不規則であったため、保護者からの逸話的報告ではあるが、保護者がまず首にTシャツをかぶせて着替えたほめることで着替えがスムーズになり、次に名前をシャツに縫い付けておくことで最終的には自分で前後を間違えず着替えることができるようになったとのことであった。</p>		
中学生	h	①夕食後の睡眠	<p>夕食後に眠ってしまって何度起こしても起きず着替えや入浴、歯磨きをせずに朝まで寝てしまうことが週のうち半分以上あるとのこと、PTが進むなか、なかなか効果がみられなかった。最初はできている日に、できた行動をほめる方法をとったが改善はみられなかった。# 4以降にホワイトボードにスケジュールを書いて見せておく手続きを加えたが成果はみられず、この間の2週目から母親がトークンエコノミーを使いだしたところ少し効果がみられた。そこで、# 5でトークンエコノミーを練り直して予告や強化のタイミングに改良を加えたところ、最後の2週間では寝てしまった日が1日にまで減少した</p>		

ケースの後の\*は夫婦参加を示す

(2) 機能分析表および対応策ワークシート

PT で使用した機能分析表および対応策ワークシートの例として、ケース d の標的行動②「朝の着替え」のものをそれぞれ図1、図2に示す。機能分析表は、参加者が2週間家庭でとった行動の前後の記録表に基づいて、サブトレーナーとともに作成した。対応策ワークシートは、機能分析表をもとに、グループワークで参加者が作成した。機能分析の結果、「○時○分までに着替え終わる」という指示では本人が時間の見通しをもちにくいこと、および適応的な行動に対して強化子が提示されていないことが仮説され、「着替えはじめ」の指示、環境調整とトークンエコノミーが手続きとして併用された。

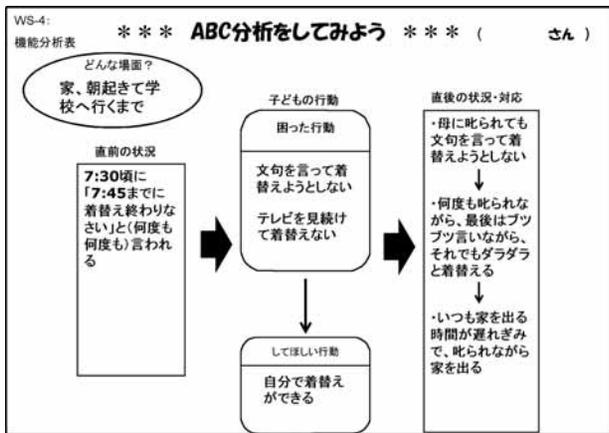


図1 ケース d の機能分析表

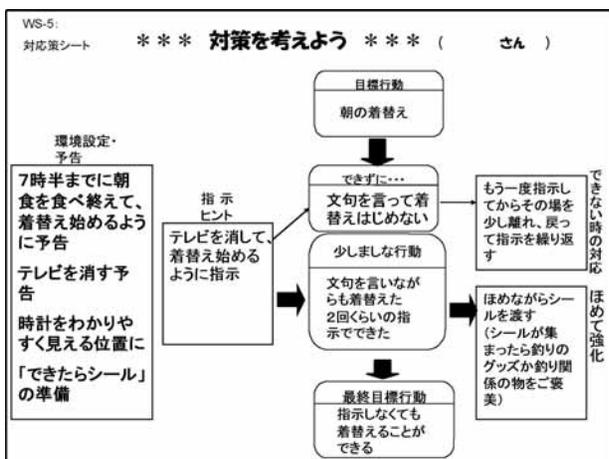


図2 ケース d の対応策ワークシート

(2) STAI-S の結果

また初回と最終回に実施した STAI-S の変化を図3

に示す。平均値の変化は初回が51.86 (SD=11.96) で最終回のセッション終了後は39.43 (SD=7.41) となった。Wilcoxon 符号順位和検定を行った結果、Z=-2.384 で、終了後の得点が開始前に比べて有意に (p=.017) 低かった。

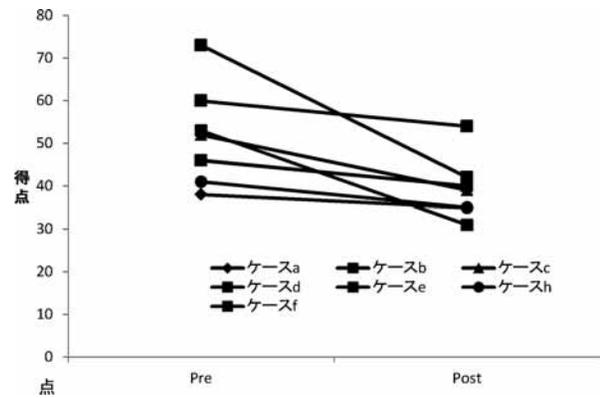


図3 参加者ごとの STAI-S の得点変化

(3) フォローアップ

6ヶ月の郵送によるフォローアップの結果、返送のあった6家族中5家族が「なくなってる」あるいは「できるようになった」、1家族が「ほぼできるようになった」で、PT 期間中に取り組んだ標的行動に関する PT の効果が維持されていた。また、PT の有効性の評価については、4家族が「有効だと思える」、2家族が「ほぼ思える」であった。また、自由筆記からは、子どもの学年進級に伴う環境変化にともなって新たな行動上の問題が発生したため、あるいは肥満の問題が出てきつつあることから、参加した PT の手法を使って取り組みたいと思うが、家族単独での実施にはまだまだ自信がないとの記述がみられた。

2, PT2

参加予定者7家族のうち5家族が就学前の PWS 児の保護者であった。そのうち2家族では、セッション開始前後に当初参加を予定していた母親の妊娠が判明し、体調不良等で欠席が続いた。他の1家族は父親のみが参加予定であったが、仕事の都合がつかなくなり参加困難となった。最終的に継続できたのは4家族(小6が1家族、就学前3家族)であった。ケース j では父

親が参加したが、仕事の都合ですべての参加はできなかった。また、このケースではセッション2まで保育所の担当者が参加し、保育所でも標的行動を設定して保護者をとおして記録用紙を提出された。

(1) 各ケースの経過

各ケースの概要を表4に示した。また、PTの期間中に保護者自身の仕事が多忙となり、なおかつ幼稚園での担任が替わったため、子どもの状況が悪化したと

表4 PT2の各ケースの概要 (表中の#は「セッション」を意味する)

属性	ケース	標的行動	ベースライン	対応方法	結果
就学前	i	①保育園降園時にトイレをすませてバスに乗る	【#1～#2】 降園時にトイレへ行く指示を拒み、降園途中にバスを止めさせ、コンビニや草むらで用を足すことが期間中5日間みられた(降園途中でトイレを伝えたことを、運転手や介助員がほめて強化していることが仮説された)	【#2～#3】 ・保育士に、降園前にトイレへ行くことをしっかり指導、行けたら大きさにほめてもらい、帰宅後保護者がほめる ・運転手と介助員に、降園途中にトイレを伝えることをほめないよう保護者から伝える	保育士の指導と大きさにほめること、および帰宅後保護者がほめることでターゲット行動がみられなくなったため、#4以降は新たな標的行動を設定した
		②姉とのけんか	【#3～#4】 姉と遊んでいてちょっとしたことで怒って癇癪を起す、あるいは姉を叩く行動が毎日みられた	【#4～#5】 ・きょうだいが仲良く遊ぶアニメを見せながら「仲良く遊ぶことはほめられる行動だ」ということを何度も伝える ・仲良く遊んでいることをほめて強化する ・癇癪が起こった時には訳を聞いたり、治まった時にほめる	前半の1週間に癇癪が1度生じただけで、後半は一度もみられなかった
	J*	①他者への攻撃行動	家庭でも保育園でも意にそわないことがあると近くの人を叩いたり蹴ったりする行動がみられた。#1～#2にかけて保護者とともに参加した保育士による行動観察によれば、保育園では他の子がケンカをしていたり、泣いている子どもを見たら叩くこと、お店ごっこ遊びなどで自分の行動が妨げられると周りの子どもや大人を叩くこと、自分の気持ちをうまく伝えられない時によく生じていることが想定された。そこで、家庭と保育園の両方で介入を行うこととした。起こる前に気持ちを代弁して、叩かないことをほめるなどで、園では一時期にほとんどみられなくなった。家庭では1週間くらい生じないことが2度ほどあったが、保護者自身の仕事上のストレスや、ほめるタイミングが取りづらくなってしまったりして復活してしまうことがあった。#4の始まる前に保育園の担当者が交代することとなるなど環境が大きく変わったため改善されていた行動に後戻りがみられた		
小学校高学年	l	①登校前の反復的な確認	【#1～#2】 朝の登園前の準備や着替えが、何度促がされたり叱られたりしても始められなかった	・視覚的支援 ・ご褒美シール (保護者は、何も着ていない子どもの絵を書いた用紙を用意し、色画用紙で服や歯ブラシなど朝の準備に必要な物の模型を作り、本人ができれば用紙に貼っていき全部できたらご褒美のシールをほめながら渡した)	#2～#3の期間にほぼ毎日、自発的に始められるようになったが、この取り組みが最後まで母子ともに続けられるかを保護者自身が確認したいということで、新たな標的行動は設定せず、PT終了後まで取り組むこととした
		②脱いだ上着のハンガー掛け	#4～#5にかけて、帰宅後に服を床に脱ぎ捨てたままにしている行動を標的行動として追加した。声掛けして一緒に掛け、できたらほめたところ。6日目からは記録の最終日まで連続8日間自発的にハンガーにかけられるようになった。		

ケースの後の\*は夫婦参加を示す

のことで記録がとれなくなったケースjを除き、標的行動の変化をグラフ化したものを Appendix に示した。

**(2) GHQ30の結果**

GHQ30に関しては、毎回出席できた4名のうち、就学前の子ども i, j, k の保護者は、プレの時点で6点以下の健康域にあった。ケースjで得点が上昇した理由に関しては、仕事が多忙になったことにあるとの保護者の発言が得られた。ケース1の小6女兒の保護者は実施前が11点と比較的高かったが、実施後では0点に下がっていた(図4)。

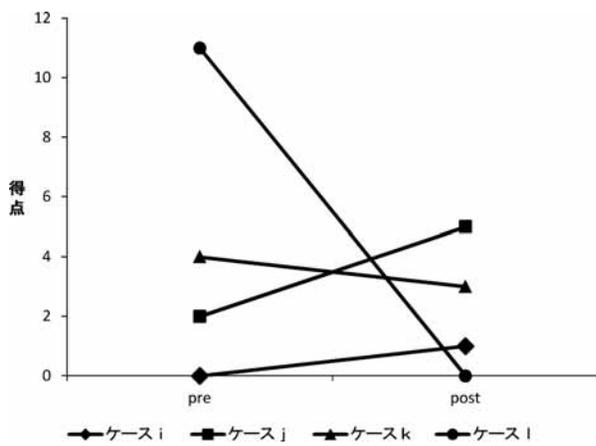


図4 GHQ30の参加者ごとのPT前後の得点変化

**(3) フォローアップ**

6ヶ月後に郵送によるフォローアップを実施した。返送のあった4家族すべてが標的行動について「なくなっている」あるいは「できるようになった」と回答し、PT期間中に取り組んだ標的行動に関するPTの効果が維持されていた。また、PTの有効性の評価については、すべてが「有効だと思える」と回答していた。

**3. PT1およびPT2における機能的アセスメントの結果から**

機能的アセスメントの結果の例としては、例えばケースaやケースjでは、「他児を叩く」という不適切な行動をとることで、好きな活動が妨げられる、他児が泣いているといった嫌悪的な状況を回避することができ、また、「他児を叩く」に替わる適切な行動が形成されていないことが仮説された。ケースcの標的行動「朝のおもらし」やケースiの「通園バスを止め

て用を足す」では、それらの行動に替わる「トイレのために親を起こす」や、予防となる「降園前にトイレへ行く」行動が形成されていなかったことに加えて、保護者あるいは介助員が意図せずに、あるいは不適切な注目を与えていることが仮説された。また、「おもちゃを片づけない」や「着替えない」などのケースでは、子どもが時間的な見通しをうまく持てていないことや、行動を開始するタイミングがつかめていないこと、および少しでも適切な行動ができた場合であっても強化が与えられていないことが仮説された。

**4. PT1およびPT2における振り返りアンケートの結果から**

それぞれのPTの最終回の終了間近に振り返りアンケートを行った。4件法で答える質問紙欄と自由筆記欄で構成した。「全体を通して、講義はわかりやすかったですか」、「ワークシートは使いやすかったですか」といった6問の質問に、「とてもそう思う」、「ややそう思う」、「そうはあまり思わない」、「とてもそうは思わない」の4件法で解答を求めた。それぞれのPTの各項目において、総合得点に対する参加者の合計点数の割合を図5に示す。「講義のわかりやすさ」、「グループの話し合い」、「プログラムの満足度」はPT1、PT2ともに90%以上の結果となった。また、どの項目においてもPT1に比べ結果として、プログラムに改良を加え簡素化したPT2の得点のほうが若干高くなった。

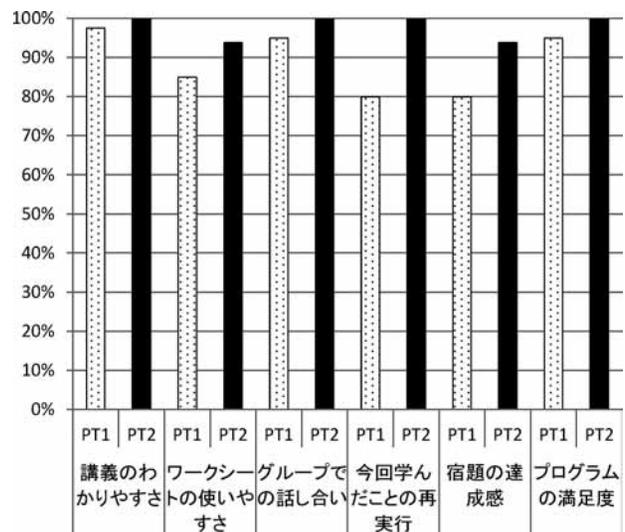


図5 振り返りアンケートの結果 (PT1およびPT2) —項目ごとの満点に対する参加者の回答総得点の占める割合—

表5は、自由筆記の参加者の感想の抜粋である。自由筆記では、叱る中心からほめる中心への関わり方の転換による効果とその実感が多数述べられていた。また、PWSは発症率が低いことから、孤立しがちな保護者同士が、PTへの参加を通して同じ境遇にある他の保護者と交流できたことの喜びや意義が述べられていた。

表5 アンケートの自由筆記による感想の抜粋(文体は改変)

- ・問題を行動に具体化することで、娘がどこまでできるかが明確になった。
- ・いろいろなお家の話が参考になり、講義内容もとてもわかりやすかった。
- ・自分一人ではない、仲間がいるという安心感が出席するごとに増していった。
- ・厳しくすることが子どものためと思っていたが誉めることの大切さを知った。
- ・誉めることで子どもにも笑顔が出、問題行動がなくなってきたことが凄く良かった。
- ・見方、接し方がとても変化した。ほめて伸ばす、長い目で見ることを心がけた。
- ・最後になって子供が前向きに取り組んでくれ、怒ることが少なく誉めること増えた。
- ・スタッフのアドバイスで、手伝いなしでも一人で片づけができるようになった。
- ・日常的に利用できそうな具体例等を教えてもらえ、今後も活用させていきたい。
- ・今度は学習面に関してやってみようと思います。
- ・食べ物についての悩みが少し解消されたように思った。

#### IV, 考察

本研究ではPWS児の保護者を対象に、行動療法に基づくグループPTを、それぞれ異なる保護者を対象として2回実施した。参加家族の総数は12で、標的行動は総数18が介入の対象となった。その結果、ほとんどすべての家族において、子どもの標的行動に改善が認められた。STAI-Sの結果からは保護者の状態不安に、GHQ30の結果からは保護者のストレスに軽減がみられた。また、振り返りアンケートの結果からは、PT1, PT2ともにプログラムに対する保護者の満足度が高かった。フォローアップ・アンケートからは、PT終了後もプログラム実施期間に標的行動として取り組んだ子どもの行動変容が維持されていた。これらのことから、行動療法に基づくグループPTが、PWS児の保護者にとって効果的な子育てプログラムであることが示唆されたと考えられる。

本研究で実施したPTでは、標的行動を決定した後、ベースライン期、第1介入期、第2介入期を設定した。第1介入期(PT1ではセッション3からセッション4にかけて、PT2ではセッション2からセッション3にかけて)には、保護者は、正の強化(ほめる)による子どもの行動変容、および親子関係のポジティブな関わりを増やすことを目標とした。第2介入期には、機能

分析表に基づいて個々のケースに応じた対応を家庭で実施し標的行動のさらなる変容を図った。その結果、PT1, PT2の参加者12名中の7名において、第1介入期に子どもの標的行動が改善し始めた。これら7名中4名では、第1介入期に標的行動が家庭で問題となくなると保護者自身が判断し、新たな標的行動を設定した。その結果、第2介入期期間にそれらの標的行動にも改善がみられた。7名中3名は、第1介入期に子どもの行動に改善がみられ、短期間での子どもの行動変容に驚きを表した。しかし、後戻りへの不安を抱いていたため、改善した行動への介入を継続することとし、その効果はPT終了時まで維持された。12名中2名に関しては第1介入期にみられた効果が不十分、あるいは効果がみられなかったため、不十分であったケースでは手続きが継続され、効果がみられなかったケースでは第2介入期以降に手続きが見直された。その結果、どちらのケースにおいても改善がみられた。12名中1名では、ベースライン期においてすでに保護者自身が有効な手続きを行い始めていた。第1介入期でも手続きを継続したがそれ以上の変化はみられず、保護者にとってそれほど気になる行動ではないとの気づきもあり、第2介入期以降は新たに標的行動を設定して取り組んだ結果、改善がみられた。12名中2名は参加が不規則で記録が十分に取れなかったもの、および、保護者の仕事上のストレスと幼稚園の担任の急な変更などでPT期間中には十分に効果がみられなかったものであった。

以上のように12名中7名で第1介入期の短期間での改善がみられた要因として、保護者自身が具体的な標的行動を設定し、家庭で記録を取りながら目の前の行動に対して正の強化(「ほめる」)を中心とした手続きを行ったことが挙げられる。ほめ方をワークシートに記入するグループワークでは、保護者どうして情報交換、あるいはトレーナーからの助言をもとに、保護者らは正の強化に加えてルールの提示や視覚的支援、直前の指示のタイミングなどの工夫を加え、効果をあげていた。7名のうち5名の子どもは就学前児であり、標的行動の不応度度は激しくはなく、さらに年齢も低いことから、行動変容が比較的容易であったとも考えられる。しかし、就学前児の全ての保護者にとって同様の結果は得られなかった。この要因としては、子どもの行動における個人差や、参加者によるホームワーク

の実行に関するスキルの有無、トレーナーによる助言が適切ではなかったことが考えられる。PWSの特性を十分に理解したトレーナーの養成が今後の課題のひとつとして挙げられる。

子どもの行動や保護者のスキルを考慮した個別の対応を行うには機能的アセスメントが有効である(Stokes & Luiselli, 2009; 中谷ら, 2004)<sup>40,37)</sup>。第2介入期以降は機能的アセスメントに基づく手続きが加えられた結果、おもちゃの片づけや登校前の身支度、および姉とのけんかといった新たな標的行動に対して、効果的な対応を行うことができた。また、第2介入期以降、継続的に取り組まれた標的行動に関しても、対応の見直しや変更を加えることで効果がみられた。さらに、第2介入期以降に4ケースでトークンエコノミーが実施され、子どもの標的行動に改善がみられた。トークンエコノミーは、事前の教示や直前の指示、および直後の対応を系統的に設定できるという点で、保護者にとって扱いやすい技法であったと考えられる。以上のように、適応行動を正の強化を用いて生起させる手続き、および機能的アセスメントに基づいて不適切な行動を維持させている周囲の対応を変える手続きが、PWS児の行動変容にも有効な技法であることが示唆されたと考えられる。

PWSでは過食や食べ物への異常な執着が主な特徴であり、3歳前後から過食がみられるとされるが(加藤, 2010; Young et al., 2006; Dimitropoulos et al., 2000)<sup>14,15,12)</sup>、本研究では、食行動を標的行動として設定したものは2ケースであった。本研究の参加者はPWS専門外来に通院し、成長ホルモン治療や栄養指導を受けている。また、参加者の子どもの半数が就学前児であるなど、家庭での食事管理が効果的に機能していたと考えられる。したがって、今回のPTで保護者は、食行動以外の多くの行動問題を標的行動として挙げた。PTの最初のセッションで、保護者が家庭で困ると感じている子どもの行動を記入するワークシートを課したところ、すべての参加者が、頑固や不服従、癇癪、反復的な質問、虚言などの行動を記入しており、先行研究(Woodcock et al., 2009, Ogura et al., 2008; Dykens & Shah, 2003; Dykens & Cassidy, 1999)<sup>21,22,24,25)</sup>で挙げられている行動問題が生じていることが確認された。今回のPTにおいて頑固や不服従、癇癪や攻撃、反復的な質問などに効果が

みられたことから、本研究の結果は、PWSの行動問題に対して行動療法に基づく介入が有効であろうとする見解(Ho, & Dimitropoulos, 2010; Whitman & Jackson, 2006)<sup>7,52)</sup>を支持するものであると考えられる。

グループセッションで交わされた会話の記録や振り返りアンケートからは、PTに参加する以前は、参加者が日常的に子どもの行動に苛立ち、ついつい叱ってしまう傾向が高く、親子関係の悪循環が生じがちであることが読み取れた。そのため、子どもの行動問題に悩み、過食を含めた将来に対する不安を抱えていることから、子育ての技法を学ぶためにPTの参加したものと考えられる。今回、保護者はPTに参加することをおして、子どもに対し、どの行動を強化し、あるいは強化せずにおくべきか、あるいは指示や強化のタイミングを、実際に試みることによって実感できたと考えられる。また、本PTでは食行動以外の標的行動が主であったが、フォローアップ時のアンケートでは、中学生の保護者から、肥満傾向が始まったため、PTで学習した技法を家庭で用いて肥満予防を考えているという回答が得られている。また、子どもの行動問題への対応法を学ぶことが、PWSの保護者において比較的高いとされる不安や子育てストレス(高橋・法橋, 2006; Hodapp et al., 1999)<sup>32,30)</sup>の軽減にも効果を及ぼす可能性が示唆された。

一方、参加した保護者からは、再度取り組みたいと考えた時に、単独ではなかなか自信がなくて取り組みないとの感想がフォローアップ時に得られた。PWSでは、子どもの行動マネジメントに関する有効な支援が、まだまだ専門家からは得られにくい現状にある。今後は、専門家からの直接支援が得られなくても地域の支援機関や家庭等での実施が可能なワークブックの作成、および効果的な実施システムの開発が課題である。

## 謝辞

本研究におけるプログラムを実施する機会を賜りました、はらだ小児科医院長 原田徳蔵先生に心より感謝申し上げますとともに、参加された皆様にも感謝申し上げます。

## 文献表

- 1) Dykens, E. M., & Roof, E. (2008). Behavior in Prader-Willi syndrome: Relationship to genetic subtypes and age. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 49(9), 1001-1008
- 2) Whittington, J. E., Holland, A. J., Webb, T., Butler, J., Clarke, D., & Boer, H. (2001). Population prevalence and estimated birth incidence and mortality rate for people with Prader-Willi syndrome in one UK health region. *Journal of Medical Genetics*, 38, 792-798
- 3) Butler, M. G., Hanchett, J. M., & Thompson, T. (2006). Clinical findings and natural history of Prader-Willi syndrome. In M. G. Butler, P. D. K. Lee and B. Y. Whitman (eds.), *Management of Prader-Willi Syndrome Third Edition*: Springer, 317-343
- 4) 伊藤善也 (2002). Prader-Willi症候群の臨床的特徴 藤枝憲二(編著) Prader-Willi症候群, 診断と治療社, p97-103
- 5) Kundert, K., K. (2008). Prader-Willi Syndrome. *School Psychology*, 23(2), 246-257
- 6) 長谷川知子 (1992). Prader-Willi症候群をめぐって 小児治療, 29, 417-422
- 7) Ho, A. Y., & Dimitropoulos, A. (2010). Clinical management of behavioral characteristic of Prader-Willi syndrome. *Neuropsychiatric Disease and Treatment*, 6, 107-118
- 8) 藤枝憲二 (2002). Prader-Willi症候群: 研究の歴史と今後の課題 藤枝憲二(編著) Prader-Willi症候群, 診断と治療社, 東京, p1-4
- 9) Cassidy, S. (1997). Prader-Willi syndrome. *Journal of Medical Genetics*, 34, 917-23
- 10) Einfeld, S. L., Kavanagh, S. J., Smith, A., Evans, E. J., Tonge, B. J., & Taffe, J. (2006). Mortality in Prader-Willi Syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, 111(3), 193-198
- 11) Joseph, B., Egli, M., Koppekin, A., & Thompson, T. (2002). Food Choice in People with Prader-Willi Syndrome: Quantity and Relative Preference. *American Journal on Mental Retardation*, 107(2), 128-135
- 12) Dimitropoulos, A., Feurer, I. D., Roof, E., Stone, W., Butler, M. G., Sutcliffe, J., & Thompson, T. (2000). Appetitive Behavior, Compulsivity, and Neurochemistry in Prader-Willi Syndrome. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 6, 125-130
- 13) 加藤美朗・堤俊彦 (2011). プラダウイリー症候群の発達支援ニーズ把握のためのフォーカスグループディスカッションによる質的研究, 日本心理学会第75大会発表論文集, p365
- 14) 加藤美朗 (2010). Prader-Willi症候群の肥満・盗食に対する心理社会的介入に関する考察. 人文論究, 60(3), 97-112
- 15) Young, J., Zarcone J., Holsen, L., Anderson, M. C., Hall, S., Richman, D., Butler, M. G., & Thompson, T. (2006). A measure of food seeking in individuals with Prader-Willi syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(1), 18-24
- 16) Holland, A. J., Treasure, J., Coskeran, P., & Dallow, J. (1995). Characteristics of the eating disorder in Prader-Willi syndrome: implications for treatment. *Journal of Intellectual Disability Research*, 39(5), 373-381
- 17) Glover, D., Maltzman, I., & Williams, C. (1996). Food Preference among Individuals with and without Prader-Willi Syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, 101(2), 195-205
- 18) Dimitropoulos, A., & Schultz, R. T. (2008). Food-related Neural Circuitry in Prader-Willi Syndrome: Response to High- Versus Low-calorie Foods. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 38, 1642-1653
- 19) Hinton, E. C., Holland, A. J., Gellatly, M. S. N., Soni, S., & Owen, A. M. (2006). An investigation into food preferences and the neural basis of food-related incentive motivation in Prader-Willi syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(9), 633-642
- 20) Davis, P. S. E. & Joughin, C. (1993). Using Stable Isotopes to Assess Reduced Physical Activity of Individuals With Prader-Willi Syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, 98(3), 349-353
- 21) Woodcock, K. A., Oliver, C., & Humphreys, G. W. (2009). Task-switching deficits and repetitive behavior in genetic neurodevelopmental disorders: Data from children with Prader-Willi syndrome chromosome 15 q11-q13 deletion and boys with Fragile X syndrome. *Cognitive Neuropsychology*, 26(2), 172-194
- 22) Ogura, K., Shinohara, M., Ohno, K., & Mori, E. (2008). Frontal behavioral syndrome in Prader-Willi syndrome. *Development*, 30(7), 469-476
- 23) Kim, J., Yoo, H., Cho, S., Hong, K. M., & Kim, B. (2005). Behavioral Characteristics of Prader-willi Syndrome in Korea: Comparison With Children With Mental Retardation and Normal Controls. *Journal of Child Neurology*, 20(2), 134-138
- 24) Dykens, E., & Shah, B. (2003). Psychiatric Disorders in Prader-Willi Syndrome. *CSN Drugs*, 17(3), 167-178
- 25) Dykens, E. M., Cassidy, S. B., & King, B. H. (1999). Maladaptive Behavior Differences in Prader-Willi Syndrome Due to Paternal Deletion Versus Maternal Uniparental Disomy. *American Journal on Mental Retardation*, 104(1), 67-77
- 26) Dykens, E. M., & Kasari, C. (1997). Maladaptive Behavior

- in Children With Prader-Willi Syndrome, and Nonspecific Mental Retardation. *American Journal on Mental Retardation*, 102(3), 228-237
- 27) Dimitropoulos, A., Feurer, I. D., W., Butler, M. G., & Thompson, T. (2001). Emergence of Compulsive Behavior and Tantrums in Children with Prader-Willi Syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, 106(1), 39-51
- 28) Dykens, E. M. (2004). Maladaptive and Compulsive Behavior in Prader-Willi Syndrome: New Insights From Older Adults. *American Journal on Mental Retardation*, 109(2), 142-153
- 29) Sinnema, M., Einfeld, S. L., Schrandt-Stumpel, C. T. R. M., Maaskant, M. A., Boer, H., & Curfs, L. M. G. (2011). Behavioral phenotype in adults with Prader-Willi syndrome. *Research in Developmental Disabilities*, 32, 604-612
- 30) Hodapp, R. M., Dykens, E. M., & Masino, L. L. (1997). Families of Children with Prader-Willi Syndrome: Stress-Support and Relations to Child Characteristics. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 27(1), 11-24
- 31) 高橋亜希子・法橋尚宏 (2006). Prader-Willi症候群児の食事療法とその母親のQOLとの関係 日本小児看護学会誌, 15(2), 15-21
- 32) Wigren, M. & Hansen, S. (2003). Prader-Willi syndrome: clinical picture, psychosocial support and current management, *Child; Care, Health & Development*, 29(6), 449-456
- 33) Fidler, D. J., Hodapp, R. M., & Dykens, E. M. (2002). Behavioral Phenotype and Special Education: Parent Report of Educational Issues for Children with Down Syndrome, Prader-Willi Syndrome, and Williams Syndrome. *Journal of Special Education*, 36(2), 80-88
- 34) Altman, K., Bondy, A., & Hirsch, G. (1978). Behavioral Treatment of Obesity in Patients with Prader-Willi Syndrome. *Journal of Behavioral Medicine*, 1(4), 403-412
- 35) Page, T. J., Finney, J. W., Parrish, J. M., & Iwata, B. A. (1983). Assessment and Reduction of Food Stealing in Prader-Willi Children. *Applied research in Mental Retardation*, 4, 219-228
- 36) Maglieri, K. A., DeLeon, I. G., Rodrigues-Catter, V., & Sevin, B. M. (2000). Treatment of Covert Food Stealing in an Individual with Prader-Willi Syndrome, *Journal of Applied Behavior Analysis*, 33, 615-618
- 37) 中谷江利子・中川彰子・磯村香代子・大隈紘子 (2004). 行動療法が奏功した激しい問題行動を伴うPrader-Willi症候群の肥満治療. 行動療法研究, 30(1), 29-40
- 38) 西田・岡田・森・廣瀬・谷川・新生・森田・田中 (2006). 行動療法と環境整備により著名な減量とその後の体重維持を成し得たPrader-Willi症候群の2例 産業医科大学雑誌, 28(1), 65-73
- 39) Silverthorn, K. H., & Hornak, J. E., (1993). Beneficial Effects of Exercise on Aerobic Capacity and Body Composition in Adults With Prader-Willi Syndrome. *American Journal on Mental Retardation*, 97(6), 654-658
- 40) Stokes, J. V., & Luiselli, J. K. (2009). Applied Behavior Analysis Assessment and Intervention for Health : Threatening Self-Injury (Rectal Picking) in an Adult with Prader-Willi Syndrome. *Clinical Case Studies*, 8(1), 38-47
- 41) 大隈紘子・伊藤啓介監修 (2005). 肥前方式親訓練プログラム:AD/HDをもつ子どものお母さんの学習室 肥前精神医療センター情動行動障害センター編, 二瓶社
- 42) Chronis, A. M., Jones, H. A., & Raggi, V. L. (2006). Evidence-based psychosocial treatment for children and adolescents with attention-deficit/hyperactivity disorder. *Clinical Psychology Review*, 26, 486-502
- 43) Barkley, R. A. (2002). Psychosocial Treatments for Attention-Deficit/Hyperactivity Disorder in Children. *Journal of Clinical Psychiatry*, 63, 36-43
- 44) Barkley, R. A. (1997). ADHD and the Nature of Self-Control. Guilford Press.
- 45) Anastopoulos, A. D., Shelton, T. L., DuPaul, G. J. & Guevremont, D. C. (1993). Parent Training for Attention-Deficit Hyperactivity Disorder: Its Impact on Parent Functioning. *Journal of Abnormal Child Psychology*, 21(5), 581-596
- 46) Weinberg, H. A. (1999). Parent Training for Attention-Deficit Hyperactivity Disorder: Parent and Child Outcome. *Journal of Clinical Psychology*, 55(7), 907-913
- 47) 岩坂英巳・清水千弘・飯田順三・川端洋子・近池操・大西貴子・岸本年史 (2002). 注意欠陥/多動性障害(AD/HD)児の親訓練プログラムの効果について. 児童青年精神医学とその近接領域, 43(5), 483-497
- 48) 岩坂英巳 (2010). ペアレントトレーニングの現状と今後の展開について, 児童青年精神医学とその近接領域, 51(4), 11-18
- 49) 大隈紘子・伊藤啓介・免田賢 (2002). AD/HDの心理社会的治療: 行動療法・親指導. 精神治療科学, 17(1), 43-50
- 50) 免田賢 (2007) AD/HDに対する親訓練プログラムの効果について, 教育学部論集, 18, 123-136
- 51) 嶋崎まゆみ・加藤美朗・宇和川美保 (2006). 発達障害児の親と担任を対象としたペアトレーニングの試み. 日本行動分析学会第24回年次大会発表論文集, P37
- 52) Whitman, B. Y., & Jackson, K. (2006). Tools for Psychological and Behavioral Management. In M. G. Butler, P. D. K. Lee and B. Y. Whitman (eds.), *Management of Prader-Willi Syndrome Third Edition* Springer

Appendix 各ケースの標的行動の変化

