

自閉スペクトラム症特性を踏まえた食行動支援が 有用であった回避制限性食物摂取症の小児例

荒井 萌子¹⁾ 福山 哲広^{2)*} 萩元 緑朗¹⁾

1) 飯田市立病院小児科

2) 信州大学医学部小児医学教室

A Child with Avoidant/restrictive Food Intake Disorder Derived Benefit from Eating Behavior Intervention Based on Characteristics of Autism Spectrum Disorder

Moeko ARAI¹⁾, Tetsuhiro FUKUYAMA²⁾ and Rokuro HAGIMOTO¹⁾

1) *Department of Pediatrics, Iida Municipal Hospital*

2) *Department of Pediatrics, Shinshu University School of Medicine*

Avoidant and restrictive food intake disorder (ARFID) is an eating disorder characterized by the restriction of both the type and amount of food ingested without any desire to reduce weight or impaired weight/body shape perception. ARFID has garnered attention due to its association with autism spectrum disorder (ASD).

Herein, we report the case of a 9-year-old patient, who was expeditiously admitted to our hospital because of rapid weight loss and hypoglycemia during a short stature follow-up. Poor food intake, consequent to a phobia of abdominal pain and nausea, was observed, and the patient was diagnosed with ARFID. Additionally, a diagnosis of ASD was rendered owing to persistent deficiencies in social communication and interpersonal interactions since early childhood, along with restricted behavior and interests. Dietary guidance predicated on the individual's ASD characteristics, which engendered a forward perspective and reduced anxiety, led to increased food intake, improved nutritional status, and remediation of growth disturbances. ARFID can have serious ramifications in children, including growth disturbances and organ damage due to trace element deficiencies. For children with eating behavior problems, developmental characterization, prompt diagnosis, psychoeducation, and appropriate nutritional counseling are advised. *Shinshu Med J 71 : 277–282, 2023*

(Received for publication April 5, 2023; accepted in revised form May 10, 2023)

Key words: avoidant and restrictive food intake disorder, autism spectrum disorder, growth disturbances
回避制限性食物摂取症, 自閉スペクトラム症, 成長障害

I 緒 言

回避・制限性食物摂取症 (avoidant/restrictive food intake disorder : ARFID) は精神障害の診断・統計マニュアル第5版 (DSM-5) において初めて特定の診断項目として含まれた疾患で, やせ願望や体重や体型に対する感じ方の障害がなく, 摂取する食物の種類または量の制限を行うことを特徴とし, 重大な身体的

または心理社会的障害をもたらす¹⁾。ARFIDの要因として, 食べることもしくは食物への明らかな無関心, 食物の感覚的特徴に基づく回避, 食べた後に嫌悪すべき結果 (窒息や嘔吐など) が生じることへの不安, の3つが挙げられおり, この3つは個人の中で共存し得る²⁾。ARFIDの有病率は報告により様々で, カナダのコホート研究では, 5-18歳の10万人当たり2.02人であった³⁾。ARFIDでは約半数が神経発達症を含めた何らかの精神疾患を併存するとされており⁴⁾, 中でも自閉スペクトラム症 (autism spectrum disorder : ASD) は, 食べ物に対する感覚過敏や興味の偏り, 窒

* Corresponding author : 福山哲広 〒390-8621
松本市旭3-1-1 信州大学医学部小児医学教室
E-mail : fukuyama@shinshu-u.ac.jp

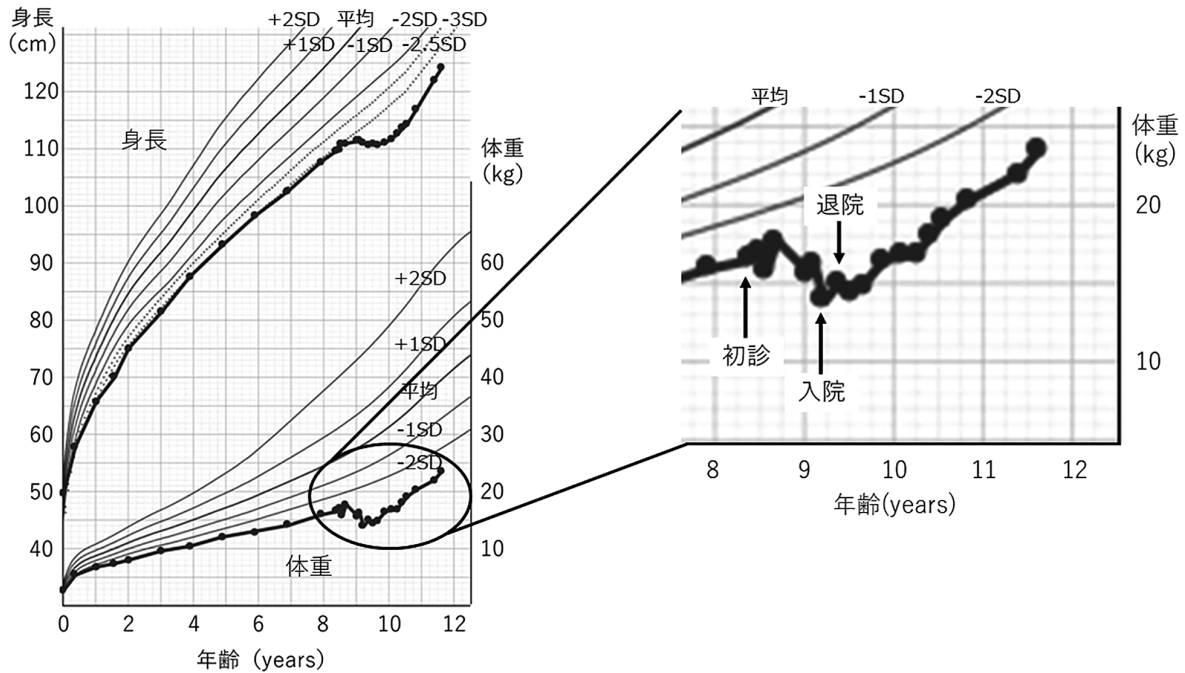


図1 成長曲線

低身長・低体重の経過観察中に成長率低下・体重減少を来し、退院後に改善を来している。

息や腹痛などの食べることに関連する経験をトラウマとして残しやすいことから、その関連が注目されている⁵⁾⁶⁾。日本小児摂食障害予後研究では、ARFID患者のASD有病率は12.5%と報告されている⁷⁾。

脱水、低血糖で緊急入院を来したことを契機にASDと診断され、その特性に応じた食行動支援が有用であったARIFDを経験したので、文献的考察を含めて報告する。

II 症 例

患者：9歳、女児。

主訴：嘔気、摂食不良、活気低下、体重減少。

家族歴：兄が低身長で受診歴あり。

周産期歴：在胎39週3日、出生時身長50.0 cm、体重2,968 gにて出生。新生児仮死なし。

発達発育歴：乳児期後半から受診時まで身長、体重共に-2SD以下で成長していた(図1)。乳児期の運動発達は正常で、言語発達遅滞はなかった。幼児期は一方的な会話、急な予定の変更に対して混乱する、文字への興味が強い、同じビデオを繰り返し見る、痛みに対して敏感といった発達特性があった。集団生活での問題行動はなかったが、自宅ではマイペースに過ごしていた。また、偏食はないものの、食に関する関心が薄く、保育園で給食を食べるのに他児よりも時間

を要していた。そのため、小学校の給食は摂取可能な量に調整されていた。小学校2年生の後半から学校への行き渋りがあり、小学校3年生で不登校になっていた。

現病歴：8歳4か月時に低身長(109.9 cm, -3.02SD)を主訴に当院を受診した。体重は16.8 kgで、標準体重の101%, BMI 13.9, BMI%tile10.5であった。明らかな外表奇形はなかった。学習習得度は学年相応であった。血液検査では、一般血液・生化学所見、甲状腺機能は正常であった。Insulin-like Growth Factor 1は57 ng/ml (-3.8SD)と低値であったが、成長ホルモン負荷試験(アルギニン負荷試験)では成長ホルモン分泌は正常反応だった。頭部MRI検査では異常を認めなかった。原因不明の低身長として経過観察とした。この時点では食事量や食事内容は評価していなかった。

8歳6か月時に、腹痛、嘔気、食事摂取不良と体重減少を認めた。一時的に体重増加が得られたが、その後も時々腹痛を認め、徐々に体重が減少した(図1)。9歳1か月時に上部消化管内視鏡検査、腹部超音波検査を施行したが異常なく、機能的腹痛と診断された。その後、嘔気が強く、ほとんど食事摂取ができなくなり、1か月で2 kgの体重減少を認めた。車に乗ることで嘔気が出現する恐怖から、しばらく病院受診ができなかったが、食事摂取不良が続き、受診のための移

表1 入院時血液・尿検査所見

<血算>		(基準値)			(基準値)
WBC	5,440	/ μ l	BS	41	mg/dl (71-139)
RBC	4.39×10^6	/ μ l	プレアルブミン	7.3	mg/dl (22-40)
Hb	13.5	g/dl	<内分泌>		
Ht	39.9	%	TSH	0.157	μ IU/ml (0.55-4.78)
Plt	358×10^3	/ μ l	Free-T3	1.04	pg/ml (2.30-4.20)
<生化学>			Free-T4	0.85	ng/dl (0.89-1.76)
TP	7.4	g/dl	IGF-1	<7	ng/ml (133-517)*
Alb	5.3	g/dl	LH	>0.10	mIU/ml
AST	22	U/l	FSH	0.29	mIU/ml
ALT	7	U/l	E2	14	pg/ml
LDH	189	U/l	<尿検査>		
BUN	14.7	mg/dl	比重	1.036	
Cre	0.38	mg/dl	蛋白	1+	
UA	9.1	mg/dl (2.6-5.5)	潜血	-	
Na	137	mmol/l	ケトン体	4+	
K	4.2	mmol/l			
Ca	10.1	mg/dl			
iP	4	mg/dl			

* 9歳女性での正常値

動を拒否できないほどの活気不良となったため、9歳2か月時に当院を緊急受診して入院した。

入院時現症：体温 37.1℃、心拍数 70回/分、血圧 90/59 mmHg。活気なし。問いかけに応答はあり、Glasgow coma scale は E4V5M6であった。心音、呼吸音は正常。腹部は平坦、軟で圧痛を認めなかった。身長 111.2 cm (-3.38SD)、体重 14.2kg (-5.79SD、標準体重の約91.6%、BMI 11.5、BMI%tile0.0)。体重は入院前1か月で2kg、最大体重からは4kg減少し、身長は体重が減少しはじめてからほぼ横ばいで推移していた(図1)。

入院時血液・尿検査所見(表1)：低血糖を認め、尿中ケトン体は陽性であった。プレアルブミンが低値で低栄養の状態であり、甲状腺ホルモン、甲状腺刺激ホルモン、IGF-1は低値であった。

知能検査所見：Wechsler Intelligence Scale for Children-IV：全検査知能指数98、言語理解指標101、知覚推理指標100、ワーキングメモリー指標103、処理速度指標88。

ASDスクリーニング検査所見(表2)(いずれもカットオフ値以上でASDの疑いが強まる)：各スクリーニング検査の得点数は自閉症スクリーニング質問紙日本語版(Autism Screening Questionnaire: ASQ)4点(カットオフ値13点⁸⁾⁹⁾、親面接式自閉スペクト

ラム症評定尺度(Parent interview ASD Rating Scale-Text Revision: PARS-TR)幼児期7点(同9点¹⁰⁾、児童期19点(同13点¹¹⁾、東京自閉行動尺度(Tokyo Autistic Behavior Scale: TABS)13点(同16点¹²⁾であった。

経過：有意な体重減少、腹痛・嘔気への不安から食事摂取を拒否し、やせ願望は見られず、体重増加への恐怖も認めないことから、ARFIDと診断した。また、3種類のASDスクリーニング検査では、PARS-TRの児童期以外でカットオフ値を下回っていたが、PARS-TR、TABSで幼児期からの行動・興味の限定および感覚過敏の存在が示唆されており(表2)、言語コミュニケーションの問題が乏しいASDが疑われる結果であった。そこで、幼児期の対人関係・社会性の問題に注視したところ、TABSで、ASQ、PARSでは検出にくい保護者との関係性におけるASD特性を確認でき、DSM-5の診断基準¹⁾のA)複数の状況で社会的コミュニケーションおよび対人的相互反応における持続的な欠陥、B)行動、興味、または活動の限定された反復的な様式、C)症状は発達早期に存在する、を満たすと判断し、ASDと診断した。

輸液による脱水と低血糖の補正後、リフィーディング症候群のリスクと食物摂取時の腹痛・嘔気の軽減を考慮して1日600kcalの少量から食事を開始した。腹

表2 自閉スペクトラム症スクリーニング所見

自閉症スクリーニング質問紙 日本語版 (ASQ) カットオフ値 計13点	4～5歳頃 0点	幼児期から児童期 4点
社会的関係因子	0/18	0/2
コミュニケーション因子	0/4	1/2
異常言語因子	0/5	0/0
お決まり行動因子	0/0	3/8
親面接式自閉スペクトラム症評価尺度 (PARS) カットオフ値 幼児期9点, 児童期13点	幼児期 7点	児童期 19点
社会的コミュニケーション	1/16	6/40
感覚性/困難性	3/20	8/24
常同行動	0/16	2/20
興味の限局	3/16	3/24
東京自閉行動尺度 (TABS) カットオフ値 計16点	過去 9点	児童期 4点
対人関係・社会性の問題	5/10	1/10
言語・コミュニケーションの問題	0/11	1/11
くせ・きまりについて	2/7	1/7
その他	2/11	1/11

カットオフ値および各質問項目の尺度は既報告を参考とした⁸⁾⁻¹²⁾。

ASQ: Autism Screening Questionnaire, PARS-TR: Parent interview ASD Rating Scale-Text Revision, TABS: Tokyo Autistic Behavior Scale

痛・嘔気に対する恐怖心が強く、全量摂取はできなかったが、提供量を徐々に1日1,300-1,400 kcalに増量しても、腹痛・嘔気の出現なく8割程度の摂取は可能であり、体重が維持できるようになった(図1)。しかし、入院中はそれ以上に摂取カロリーを増量することができず、体重増加は得られなかった。在宅治療に切り替えた場合、食事摂取量が低下して入院時と同様に低血糖など危険な状態に陥る可能性が懸念されたが、自宅の方が不安なく食事が摂取できる可能性を考慮し、再入院基準(体重が14.5 kg以下、尿検査でケトン体が陽性、脱水や低血糖所見を認める)を決めたうえで、在宅での治療に切り替える方針に変更した。外泊の際には自宅での食事の写真を撮影し、栄養士により摂取カロリーを評価し、プリントにして家族および本人にフィードバックを行った。自宅でも病院と同等の食事は摂取できることを確認したうえで退院し、外来治療に移行後は1～2週に1回の頻度で、30分-1時間の診察時間で診療を行った。外来で筆談でのコミュニケーションを導入したところ、本人の希望や不安の表出が増加し、本人の不安軽減への対策が立てやすくなった。また、自宅では本人に見通しを持たせて不安感を軽減させるために、食事の時間をあらかじめ決める、本人が選んだ食材を献立に取り入れ、本人が

納得できる調理方法で提供するといった方法を取り、徐々に摂取できる食材や食事量を増やした。これらの対策の結果、退院後に食事量は増え、体重は増加し、同時に身長も伸びてきている(図1)。また、退院直後は、腹痛・嘔気への恐怖が強く、外出を拒否していたが、自分の食べられそうな食品を選ぶという目的で、買い物での外出が可能になった。その後、学校も本人が受け入れられる範囲で登校できるようになり、少しずつ活動の場を広げられている。

III 考 察

本症例は食事量が元々少ないことを起因とした成長障害がベースにあり、機能的腹痛になったことを契機に食物摂取恐怖が出現したことで食事摂取がほぼ不能となり、低血糖に至った。本人のASD特性を踏まえて、見通しを持たせて不安を軽減させる食事指導をすることで食事量が増え、栄養状態および成長障害の改善につながった。ARFIDの小児患者では併存する神経発達症を評価し、本人の特性に合わせた治療を考慮することが必要である。

ARFIDの治療は摂食を正常化することを目的に、食事時の不安の軽減、栄養の確保、機能的摂食パターンの確立を行う。ARFIDの認知行動療法は10歳以上

が対象とされ、心理教育や栄養指導、感覚過敏および食物摂取恐怖に対する段階的な脱感作などを行う¹³⁾。Thomasら¹⁴⁾は小児・青年で認知行動療法を行い、治療終了時に85%が改善したと評価している。ASDを併存しているARFIDに特化した治療についての研究は少ないが、家族療法と児童・青年の情動障害に対する診断横断的な認知行動療法統一プロトコルの併用が有用とする症例報告がある¹⁵⁾。本症例は構造化された認知行動療法は行っていないが、本人の嘔気・腹痛への恐怖および見通しがたたないことへの不安軽減や食材へのこだわりを焦点を当てた指導を行うことで食行動の改善が見られた。更に、外来診療で筆談を導入したことで、不安の言語的表出が可能になったことも状態の改善につながった。ARFIDの小児では、食べることの困難さの原因となっているものに照準を合わせ、本人が受け入れやすい食行動支援を行うことが重要である。

本症例は、成長障害を来している段階で栄養摂取量および神経発達症の評価を行い、ASD特性を踏まえた食事指導を行っていれば、緊急入院を防げた可能性がある。本症例がARFID発症前にASDの診断に至

らなかった理由は、対人関係・社会性の問題が目立たなかったためであるが、感覚過敏や食事量の少なさは幼児期から存在していた。ASDの小児では、食物に対する感覚過敏、特定の食習慣や嗜好への固執から、偏食を中心とした食行動の問題をしばしば認める¹⁶⁾。Sharpら¹⁷⁾は、中等度の偏食を有する小児ASDに対する行動介入と栄養教育を組み合わせた集学的な親教育プログラムが食行動の改善に有用であることを報告している。小児では摂取できる食事が極端に少ない場合は成長障害に陥る可能性があり¹⁸⁾、食行動に起因する恐怖による急性食物拒否では急速な体重減少や栄養不良状態を来しやすい¹⁹⁾。食行動の問題がある小児では、発達特性の評価を行い、ARFIDの発症を防ぐために、児が安心して食物摂取ができる環境の調整および親支援が必要である。

小児のARFIDは稀な疾患ではなく、成長障害や微量元素欠乏による臓器障害などの重篤な影響を与える。ARFIDの発達上の危険因子を把握することで、臨床医の意識を高め、早期診断、心理教育、適切な栄養指導を行うことが望まれる。

文 献

- 1) American Psychiatric Association: Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 5th ed (DSM-5). American Psychiatric Publishing, Arlington, 2013 (日本精神神経学会日本語版用語監修, 高橋三郎, 大野 裕 (監訳): DSM-5 精神疾患の診断・統計マニュアル. 医学書院, 東京, 2014)
- 2) Thomas JJ, Lawson EA, Micali N, Misra M, Deckersbach T, Eddy KT: Avoidant/Restrictive Food Intake Disorder: a Three-Dimensional Model of Neurobiology with Implications for Etiology and Treatment. *Curr Psychiatry Rep* 19: 54, 2017
- 3) Katzman DK, Spettigue W, Agostino H, et al: Incidence and Age- and Sex-Specific Differences in the Clinical Presentation of Children and Adolescents With Avoidant Restrictive Food Intake Disorder. *JAMA Pediatr* 175: e213861, 2021
- 4) Kambanis PE, Kuhnle MC, Wons OB, et al: Prevalence and Correlates of Psychiatric Comorbidities in Children and Adolescents with Full and Subthreshold Avoidant/restrictive Food Intake Disorder. *Int J Eat Disord* 53: 256-265, 2020
- 5) Bourne L, Mandy W, Bryant-Waugh R: Avoidant/restrictive Food Intake Disorder and Severe Food Selectivity in Children and Young People with Autism: A Scoping Review. *Dev Med Child Neurol* 64: 691-700, 2022
- 6) Farag F, Sims A, Strudwick K, et al: Avoidant/restrictive Food Intake Disorder and Autism Spectrum Disorder: clinical implications for assessment and management. *Dev Med Child Neurol* 64: 176-182, 2022
- 7) Inoue T, Otani R, Iguchi T, et al: Prevalence of autism spectrum disorder and autistic traits in children with anorexia nervosa and avoidant/restrictive food intake disorder. *Biopsychosoc Med* 15: 9, 2021
- 8) Berument SK, Rutter M, Lord C, Pickles A, Bailey A: Autism screening questionnaire: diagnostic validity. *Br J Psychiatry* 175: 444-451, 1999
- 9) 大六一志, 千住 淳, 林恵津子, 東條吉那, 市川宏伸: 自閉症スクリーニング質問紙 (ASQ) 日本語版の作成. 東條

吉那（編）平成14年度科学研究費補助金（基盤研究(B)2）（課題番号：13410042）報告書「自閉症とADHDの子どもたちへの教育支援とアセスメント」。国立特殊教育総合研究所：神奈川，pp 33-38, 2003

- 10) 辻井正次, 行廣隆次, 安達 潤, 市川宏伸, 井上雅彦, 内山登紀夫：日本自閉症協会広汎性発達障害評価尺度（PARS）幼児期尺度の信頼性・妥当性の検討。臨床精神医学 35：1119-1126, 2006
- 11) 安達 潤, 行廣隆次, 井上雅彦, 内山登紀夫, 神尾陽子, 栗田 広：日本自閉症協会広汎性発達障害評価尺度（PARS）・児童期尺度の信頼性と妥当性の検討。臨床精神医学 35：1591-1599, 2006
- 12) 立森久照, 高橋美紀, 長田洋和, 渡邊友香, 長沼洋一, 瀬戸屋雄太郎：東京自閉行動尺度（Tokyo Autism Behavior Scale：TABS）の広汎性発達障害の診断補助尺度としての有用性。臨床精神医学 29：529-536, 2000
- 13) Kambanis PE, Thomas JJ: Assessment and Treatment of Avoidant/Restrictive Food Intake. Disorder. Curr Psychiatry Rep 25:53-64, 2023
- 14) Thomas JJ, Becker KR, Kuhnle MC, et al: Cognitive-Behavioral Therapy for Avoidant/restrictive Food Intake Disorder: Feasibility, Acceptability, and Proof-of-Concept for Children and Adolescents. Int J Eat Disord 53:1636-1646, 2020
- 15) Burton C, Allan E, Eckhardt S, et al: Case Presentations Combining Family-Based Treatment with the Unified Protocols for Transdiagnostic Treatment of Emotional Disorders in Children and Adolescents for Comorbid Avoidant Restrictive Food Intake Disorder and Autism Spectrum Disorder. J Can Acad Child Adolesc Psychiatry 30:280-291, 2021
- 16) Sharp WG, Postorino V, McCracken CE, et al: Dietary Intake, Nutrient Status, and Growth Parameters in Children with Autism Spectrum Disorder and Severe Food Selectivity: An Electronic Medical Record Review. J Acad Nutr Diet 118:1943-1950, 2018
- 17) Sharp WG, Burrell TL, Berry RC, et al: The Autism Managing Eating Aversions and Limited Variety Plan vs Parent Education: A Randomized Clinical Trial. J Pediatr 211:185-192.e1, 2019
- 18) Bryant-Waugh R, Markham L, Kreipe RE, Walsh BT: Feeding and eating disorders in childhood. Inter J Eat Disord 43:98-111, 2010
- 19) Nicely TA, Lane-Loney S, Masciulli E, Hollenbeak CS, Orstein RM: Prevalence and characteristics of avoidant/restrictive food intake disorder in a cohort of young patients in day treatment for eating disorders. J Eat Disord 2:21, 2014

（R 5. 4. 5 受稿；R 5. 5. 10 受理）