

分担研究報告書

1. 乳幼児突然死症候群の内分泌、代謝病態に関する研究

分担研究者 諏訪 琢 三 (神奈川県立こども医療センター小児科)

研究協力者 北川 照 男 (日大駿河台病院小児科)

中島 博 徳 (千葉大小児科)

松尾 宣 武 (都立清瀬小児病院小児科)

多田 裕 (都立築地産院小児科)

1. 研究計画

- 1) SIDSないしは未然型 SIDSで、剖検後ないしは救命後に内分泌、代謝疾患ないしは内分泌、代謝異常の存在した新しい症例があるか否かを調査、研究する。
- 2) SIDSの血清トリヨードサイロニン (T_3) 高値の報告がアメリカであり、当研究班としてもこの点について検討を加えることとした。
- 3) 未然型 SIDS の病因説としてミトコンドリア異常病態について研究をすすめることとした。

2. 研究経過

全国大学病院、大病院などの小児科、小児専門病院を対象とし、128施設に「内分泌、代謝疾患の突然死に関するアンケート調査」を行った。調査様式は別表の通りで、二次調査は58年度に行う予定とした。SIDSと診断され、剖検にて副腎萎縮を認めた1例(千葉大小児科)、未然型 SIDS と考えられた1例で SIADH を認めた1例(神奈川県立こども医療センター)について詳細な検討を行った。SIDS の高 T_3 血症の追試は不能であったので、低体重児を対象として血中甲状腺ホルモン、Cu、Zn などの変動を追求(築地産院)、SIDS 以外の呼吸不全児の甲状腺ホルモン測定や T_3 抑制試験で高 T_3 血症を起こさせたときの臨床症状の検討(千葉大小児科)などを行った。未然型 SIDS の筋生検所見について電顕的検討を行った(清瀬小児病院)。ホモチスチン尿症で突然死の頻度の高い点につき検討した(日大駿河台病院)。

3. 研究結果

アンケート調査結果(中間報告)は次の通りであった。58年2月20日までに回答してきたのは128施設中70施設(54.7%)で、症例なしは60施設、症例ありは10施設(18例)で

(別 表)

内分泌、代謝疾患の突然死に関するアンケート調査

昭和47年1月1日以降の出生児について

- (1) 突然死（広義）、ないし abortive 突然死と臨床的に診断された例で、後日（剖検または救命後の精査で）内分泌または代謝疾患と判明した症例

なし

あり（死亡後判明 _____ 名；救命後判明 _____ 名）

疾 患 名	例 数

- (2) 内分泌、代謝疾患と診断されて follow 中に突然死または abortive 突然死した例

なし

あり（死亡 _____ 名；救命 _____ 名）

疾 患 名	例 数

施設名

住所

氏名

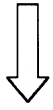
あった。症例ありの内容をみると、(1)広義 DIDS と臨床診断され、後日に内分泌、代謝疾患と判明したものは10例（クレチン症3、高乳酸低血糖症1、Waterhouse-Friedrichsen 症候群1、SIADH1、副腎萎縮1、不明4）、(2)内分泌、代謝疾患と診断され follow 中突然死ないし未然型 SIDS を示したもの7例（副腎皮質過形成5、クレチン症2）であった。

中島は、SIDS と診断された症例で剖検にて副腎皮質の zona fasciculata 萎縮を認めた1例を報告し、この様な例が SIDS を詳細に検討すれば存在する可能性があるとした。諏

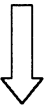
訪は、未熟型 SIDS と考えられた 1 乳児例の詳細な病歴と血中、尿中電解質、滲透圧、ADH などを測定し、SIADH による呼吸停止、心停止の可能性を指摘した。すなわち SIDS とされるなかには詳細な検討を加えると内分泌疾患の存在し得る可能性を先年度にひき続き実証した。北川はホモチスチン尿症で突然死する率の高いことを報告し、わが国の 4 例の本症中 2 例が突然死していること、それは血栓によるものであること、治療中でも凝固能は必ずしもすべて正常化していないことなどを報告した。

多田は低出生体重児を在胎週数別に分け、生後 2 週間の血清 T_4 値をみると、早産では T_4 が低く、在胎週数増加と共に T_4 は正常化していることを示し、SIDS が低体重児に多いとの報告から考え、そのホルモン値を判断するには在胎週数を考慮に入れる必要性のあることを示した。また低出生体重児では出生後次第に血清 Cu、Zn が低下することを示し、これらと SIDS との関連も今後追求すべきであるとした。中島は SIDS 以外で呼吸障害を起こした例の甲状腺ホルモンは正常であったとし、 T_3 による甲状腺機能抑制テストを行った小児で、血中 T_3 は著高を示したが臨床的には何ら症状を示さなかったと報告、SIDS での高 T_3 血症説には疑問があると推測した。

松尾は未熟型 SIDS 6 例（対照は他疾患呼吸不全）の筋生検を行い、電顕で全例にミトコンドリア数増加と形態異常（大小不同、不整）を認め（対照にはみられず）、ミトコンドリア機能異常説をおしすすめる結果を報告した。しかし、このミトコンドリア異常が SIDS の原因か結果かは更に検討を要すること、未熟型 SIDS と SIDS が同一病因によるものであるかどうかの検討課題が残されている。



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



1 研究計画

1)SIDS ないしは未然型 SIDS で、剖検後ないしは救命後に内分泌、代謝疾患ないしは内分泌、代謝異常の存在した新しい症例があるか否かを調査、研究する。

2)SIDS の血清トリヨードサイロニン(T3)高値の報告がアメリカであり、当研究班としてもこの点について検討を加えることとした。

3)未然型 SIDS の病因説としてミトコンドリア異常病態について研究をすすめることとした。