

SIDS研究 昭和58年度報告書

疫 学 班 (I)

班 員 山下 文雄 (久留米大小児科)
研究協力者 岩尾總一郎¹、吉村 健清¹、白幡 聡²
田崎 考³、福重淳一郎⁴、永田 武明⁵
橋本 武夫⁶、広畑 富雄⁷

(附属・専門：1 産医大・公衛、衛生学、2 産医大小児科、
3 佐賀医大小児科、4 九州大小児科、5 福大法医、6 聖マ
リア新生児および久大小児科、7 久大公衛)

〔研究目標〕

1. 低出生体重児のSIDS(広義)率と関連要因(全員、とくに橋本)
2. SIDSに対するICUの関与度(田崎)
3. リスク因子の設定と予防への応用(全員)
4. 症例研究
 - (1) 昭和58年度福岡市、田川市での剖検2例(永田)
 - (2) 北九州市産業医大小児科SIDS症例(狭義4、他疾患1)(白幡)
 - (3) 百日咳感染によると思われるSleep Apnea症例(山下)

〔研究方法、成績〕

1. 低出生体重児でのSIDS発生の研究

(1) 頻 度

研究協力者 橋本武夫および全員
(調査者 津未美和子)

1980(昭和55)～82(昭和57)3年間に聖マリア病院新生児ICUを生存退院した2,049名を全員フォローアップし、広義のSIDS 6例の発生を確認した。(表1、2)。死亡年令は、4か月2例、7か月1例、1年2か月2例、1年3か月3例であった。

発生頻度は、6/2,049で、2.9/1,000となり、われわれのアンケート調査による北部九州の広義SIDSの頻度(1979～81年)0.11/1,000(北九州市)、0.02/1,000(福岡市)、0.03/1,000(佐賀県)、0.09/1,000(久留米市)、さらに1982(昭和57)年、北九州で4例(福岡市で1例)の狭義のSIDS(剖検確認)から算出した北九州市、頻度0.26/1,000、これまでの他地区での報告：0.56/1,000(内藤ら、東京、埼玉、川崎、札幌 1973、日本愛育研究

表1 聖マリア病院新生児センター (NICU) 退院後の低出生体重児の SIDS (広義) 発生率
(生存退院児 1,000人対)

年度	全入院新生児数 (低出生体重児+ 正常出生体重児)	退院 児数	全新生児死亡数 (新生児期死亡)*	入院 低出生 体重児数	低出生体重児 死亡数 (新生児期死亡数)*	生存退院 の低出生 体重児数	SIDS 数	出生率
1980	1,590	1,444	146 (112)	818	98 (77)	720	3	4/1,000
1981	1,483	1,344	139 (116)	774	101 (90)	674	1	1.5/1,000
1982	1,428	1,333	95 (78)	728	72 (61)	656	2	3/1,000
合計	4,501	4,121	380 (206)	2,320	271 (228)	2,049	6	2.9/1,000

表2 低出生体重児での SIDS (広義) 例の死亡状況

氏名	(ID 番号)	在胎週数	出生時体重 (未熟児の有無)	性別	入院中の問題点/突然死時の状況
1. J.H.	(StM. 55-0467)	31 ws.	1,350 gr. (未熟児)	M	良性 RDS, 高 Br 血症, 4 ヶ月で軽い hypotonus (いわゆる私生児), 4 ヶ月で突然死亡
2. H.K.	(StM. 55-0162)	36 ws.	2,200 gr. (未熟児)	M	Dysmaturity 1 度, LFD, 高 Ht 血症 2 ヶ月で突然死 (父親かぜ症状) (夜中)
3. T.B.	(StM. 55-0354)	39 ws.	2,000 gr. (未熟児)	F	Dysmaturity, LFD, 低血糖, 肺炎, 慢性呼吸困難, 脳性麻痺あり, 1 年 3 ヶ月時夜 12 時突然死 (4 日前 熱, かぜ, いったん軽快)
4. H.I.	(StM. 56-1239)	31 ws.	1,750 gr. (未熟児)	M	高 Br 血症, 低血糖, 新生児一過性多呼吸, 気管支 炎 1 年 2 ヶ月時, 朝死亡を発見(かぜ・下痢が先行)
5. R.O.	(StM. 57-0906)	32 ws.	2,120 gr. (未熟児)	M	高 Br 血症, 無呼吸発作, (母 HBs +) 4 生月で朝 (5 時半) 突然死 (2 ヶ月前より腹部膨 満あり)
6. M.S.	(StM. 57-0691)	34 ws.	1,900 gr. (未熟児)	F	RDS III 型, 高 Hb 血症, 高 Br 血症, PDA, 小頭症(?) hypertonic baby, 7 生月で突然死亡(1pm)

所紀要、9:31、1973); 0.68/1,000(吉村公一ら、本州、四国、厚生省心身障害研究、SIDSの研究、昭和50年度報告); 0.68/1,000(本州、四国、厚生省心身障害研究、昭和50年度)にくらべ、5~10~30倍高値である。

米国の最近の頻度(1982年 NICH共同研究)黒人 3.8、白人 1.2(米国全体では各々、2.6および1.2)に匹敵する(表3)。米国でも、低出生体重児の SIDS 頻度は、正常出生体重児よりはるかに高く、3~4倍である(表3)。ちなみに NIH 共同研究の疫学検討部会(1982-6-28、Dr. Barnett の好意による)では、日本人はハワイ、日本ともに0.4~0.5/1,000と低く、シカゴでは一般には 4/1,000と高いが、東洋人では非常に低いこと、北欧スエーデンで非常に低く、同じよいケアと保健状態のオランダでは(1970-80)、それにもかかわらず、0.4から 1.26 へと増加しているとのコメントがなされている。

表3 米国NICHのSIDS研究の結果 (May 12, 1982発表)

(1) SIDS 児中の低出生体重児の頻度		
グループ	N	低出生体重児の頻度 (%)
黒 人	SIDS 204	26.5
	コントロール 130	8.5
白 人	SIDS 194	16.5
	コントロール 270	4.8
合 計	SIDS 398	21.6
	コントロール 400	6.0

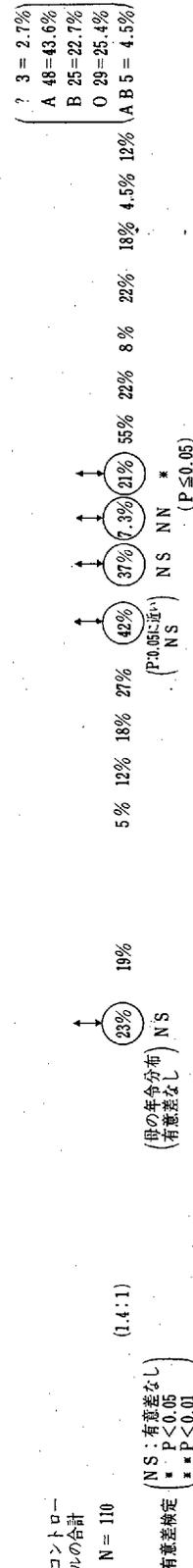
(2) 地区別、人種別のSIDS頻度 (生存出生児1,000人あたり)			
研究センター名	黒 人	白 人	合 計
シカゴ	5.1	1.9	3.7
カリフォルニア	4.3	1.5	1.8
シアトル	3.4	1.9	2.2
ニューヨーク	2.7	0.9	1.5
ニューヨーク州	3.4	0.8	1.1
セント・ルイス	3.8	0.9	1.7
協同研究	3.8	1.2	1.9
米国全体(予報)	2.6	1.2	1.4

表5 低出生体重児でのSIDS（広義）と関連要因

〔A〕低出生体重児での広義のSIDS発生率：1980-82年の3年間の生存退院2,049名中6名(2.9/1,000)

〔B〕要因の比較

在胎週	出生体重	♂:♀	第0子	父の職業	母年齢	分娩時 Anoxic events	仮死	分娩様式	羊膜	胎盤異常	臍帯巻絡	早期破水	新生児期 Anoxic episodes	O ₂ 投与	レスピレータ	高ヒ	低Ca	低血糖	Overfeeding	反復性URI	CP	母乳栄養	血液型
広義のSIDS群 N=6	30-36W 1例は39Wだが Dubowitzは35W	4:2 (2:1)	第1子(4) 2子(2)	さまざま	20以前(0) 21-25(4) 26-30(1) 30~(1)	2 (33%)	I* 1 II* 1 計 2 (33%)	頭位6 (その他0) 自然5 (帯切0) (吸引1)	1 (17%)	0	1	1	5	4	2	4	0	2	2	1	1	2	? 2=33% A 3=50% B 1=17% O 0 AB 0
コントロール群 (前回発表) N=50	30-35W 1例は29Wだが Dubowitzは35W	32:18 (1.7:1.1)	第1子(9) 2子(2) 3子(6) 4子(2) 5子(0) 6子(1)	会社員(4) 農業(5) 自営(7) サービス	20以前(0) 21-25(14) 26-30(25) 30~(11)	15 (30%)	I* 8 II* 6 計 14 (28%) (30%)	頭位43 (帯位5) (横位2) 自然40 (帯切8) (吸引3)	4 (8%)	10	10	20	22	19	1	13	12	6	13	8	3	6	? 2=4% A 24=48% B 7=14% O 13=26% AB 4=8%
コントロール群 (追加) N=60	30-35W 未滿	32:28 (1.14:1.1)	第1子(4) 2子(2) 3子(7) 4子(2) 5子(0) 6子(0)	会社 農業(5) 漁業(2) 職人(6) サービス(4) 調理(4)etc	20以前(3) 21-25(21) 26-30(28) 30~(8)	10 (16%)	I* 4 II* 3 計 7 (12%) (16%)	頭位54 (帯位5) 自然54 (帯切4) (吸引12)	1 (1.7%)	3	10	10	24	22	7	10	12	3	11	12	2	7	? 1=1.7% A 24=40% B 18=30% O 16=27% AB 1=1.7%



※ Control group は、S.55年度入院児のうち在胎週数と出生体重のみあうものを入院番号順にひろうった。
要因のうち APNEA の存在のみが、広義のSIDS児(未熟児)の6名と、対照110名を比較して大であった(P<0.05)。

(2) 発生要因

表4のような調査項目を、上記低出生体重児 ISDS (広義) 6例と、在胎期間および出生体重を揃えた対照 110例につき調査した。

その要約(表5)でわかるように、両群間に有意差のあった要因は、無呼吸で、新生児の anoxic episode の存在も、 $P=0.05$ にかなり近かった。Scheffield Birth Scoring System を算出してみたが、適用できなかった。

2. SIDS に対する ICU の関与度

1982年1月1日より12月31日の1年間に ICU で経験した SIDS 例をアンケートにより調査した。(表6、7、8) ICU ではないが産業医大小児科で SIDS、九大で SIDS 1、未然型 1、福岡こども病院で未然型 1 が経験されている(表9)。

もともと頻度が少く、調査期間が1年との制約があるが、この調査でみたかぎり、ICU の関与は割と少いようである。死亡状態(後)に一般医院、小児科につれてこられることが多いからであろうか。日本の大学 ICU が、1~3次すべての急救を受入れる外国の救急センターとちがった性格をもつためであろうか。

表6 ICUへ発送の調査依頼

アンケートお願い

I. C. U. 部長殿

I. C. U. 婦長殿

拝啓

立春もすぎ、梅もほころび始めていますが、皆様方にはまだまだお忙しいことと推察いたしております。

皆様方もすでに乳幼児突然死症候群 (sudden infant death syndrome S. I. D. S.) についてはご存知のことと思いますが、これの厚生省研究グループの疫学班 (山下文雄班長) の一員として、I. C. U. 施設を中心に実態調査 (特に未熟型 abortive S. I. D. S.) を行うことにしました。つきましては別紙のようなアンケート調査表を作成いたしましたので、お忙しい折誠に申し訳ありませんが、よろしくご協力くださいますようお願いいたします。

佐賀医大小児科 田 崎 考

用語及び定義

(1)乳幼児突然死症候群 (sudden infant death syndrome, SIDSと略記)

- ①それまでの健康状態および既往歴から、その死亡が予測出来なかった乳幼児に、突然の死をもたらした症候群 (広義)。
- ②それまでの健康状態および既往歴からは、全く予測出来ずしかも剖検によってもその原因が不詳である、乳幼児に突然の死をもたらした症候群 (狭義)。

(2)未熟型乳幼児突然死症候群 (abortive SIDS)

それまでの健康状態および既往歴から、その発生が予測出来なかった乳幼児が、突然の死亡をもたらし得るような徐脈、不整脈、無呼吸、チアノーゼなどの状態で発見され、死に至らなかった症例。

表7 ICUとSIDS調査表(1)

乳幼児突然死アンケート

1. 貴施設で1982.1.1~12.31の1年間に広義のS. I. D. S.と思われる症例のご経験がありますか。

1) なし

2) あり

症 例	死亡月日	年齢	性別	死亡診断名	剖 検 有 無
1					
2					
3					
4					
5					

表8 ICUとSIDS調査表(2)

2. 未熟型と思われる例

(術後、既知疾患の内科的治療目的がなく、救急でとびこみ、
治療軽快退室(院)した例)

のご経験はおありですか。

1) なし

2) あり

症 例	年齢	性別	入室(院)月日	退室(院)月日	退院時診断名
1					
2					
3					
4					
5					
.					
.					
.					
.					

ご協力ありがとうございました。

貴施設名 _____

佐賀医大小児科 田 崎 考
(S. I. D. S. 研究班疫学班)

表9 SIDS に対する ICU の関与度(1982) 1年間

ICU 名	SIDS	未然型 SIDS
1. 北九州市八幡H.	0	0
2. 北九州、産医大 同小児科	0 3	0 0
3. 九州大	1	1
4. 福岡こどもH.	0	1
5. 大分医大	0	0
6. 熊本大	0	0
7. 宮崎医大	0	0
8. 長崎大	0	0
9. 八代総合H.	0	0
10. 鹿 大	0	0
11. 鹿児島市立H.	0	0
11 ICU (1 小児科)	1 (3)	2 (0)
合 計	4	2

3. リスク因子の設定と予防への応用

研究協力者 田崎 孝

これまでに SIDS の疫学およびリスク因子としてあげられているものを要約する(表10、11)。これらを参考に、これまで得られた症例の関係因子の要因分析を行い、予測式又はスコア作製の予定であったが、症例、とくに確定例(狭義の SIDS)がきわめて少く、不可能であった。

表10 SIDS の疫学

- ① 年齢—はじめの1生月にみられず、6ヵ月後まれ
- ② 季節—冬により多い
- ③ 社会経済的—貧困な、非白人種に多い
- ④ 疾病—SIDS 発生前に先だち、軽い症状を示すことが多い
- ⑤ 母親側の因子—未婚の母、妊娠間隔の短い多産の母、タバコを吸う母、医療(健診)機関の利用度が少なく、利用の遅いもの
- ⑥ 児側因子—未熟児、低出生体重児、SFD 児に多い(成長は平均よりスローである)
- ⑦ 睡眠—睡眠中の発生が多い(ただし、死の状況はほとんど観察されておらず、全例が睡眠中でもない)
- ⑧ 栄養—人工栄養児で起こりやすい。しかし母乳栄養児でも起こる
- ⑨ 家族発生—一般の発生頻度よりも高い。ただし1~2%の危険率である。遺伝性はない。
- ⑩ 特殊性—SIDS 発生率は、一般の乳児死亡率と平行している。

The Ten Most Significant Facts in the Epidemiology of SIDS (Guntheroth, W.G., 1982)¹⁾

1) Guntheroth, W.G., Crib Death: The Sudden Infant Death Syndrome, Futura Publication Company, New York, 1982.

表11 SIDS のリスク*

母：20歳未満 未婚 貧困 出産前ケア意図が少ないか、遅い（妊婦検診など） 妊娠間隔が短い 妊娠中の病気 胎児死亡の既往 スモーカー 麻薬中毒者	多回経産母体よりの児 双生児（Cooke and Welch）：双生児で出産順位の後のもの 3つ子（8.3/1,000） 双生児の場合：1卵性、2卵性を問わず同じ日の死亡報告がある（32双生児カップルで、3組が同時死亡） 授乳上トラブルのあった児
	DPT予防接種？（米国NICHの協同研究では否定）
父：20歳未満 貧困、下層階級	睡眠中、夜起こりやすい（体位に関係なく） 1～4ヵ月の児、冬に多い（ただし成因のわかった死亡も冬に多い）
人種：アメリカインディアン（5.93/1,000） 貧困な黒人（5.04/1,000） アラスカ土着住民（5.93/1,000）で高い アジア人種：低（0.51/1,000） デンマーク：低（0.92/1,000） アイルランド：（2.8/1,000） タスマニア（2.98/1,000）	死亡前週に、軽い呼吸器か、消化器症状を示す傾向がある 出生から死亡までの間に、入院治療の既往がある傾向が強い（ただし25～75%では死亡時には、そのような症状はない） 出生後の体重増加不良（否定するレポートあり） 同胞にくらべ、SIDS児は活潑さと反応が少なく泣声異常であった
血液型：O？ } B？ } 人種による血液型の差であろう 差なし（Froggattら）	男児に多い（他の成因による死亡児の男女比とSIDSのそれは差がないとのレポートあり）
未熟児：予定日に不適當な低出生体重児	母乳、人工栄養児間の比較では、発生率の差なし。 両群間に、発生月齢、母乳栄養率の低下に伴うSIDS発生の上昇がない（オランダ）
Apgar スコアの低値：蘇生術（酸素、呼吸補助）をうけたもの	
第2、3子の方が、第1子よりも起こりやすい	

*Shannon, D. C. and Kelly, D. H. : SIDS and near SIDS. New Eng. J. Med., 306; 959-965, 1982.

*Kelly, D. K. and Shannon, D. C. : Sudden Infant Death Syndrome and Near Sudden Infant Death Syndrome: A Review of Literature, 1964-82. Pediatr. Clin. North America, 29; 1241-1261, 1982.

4. 症例研究

(1) 昭和58年度(1983)福岡、田川市で発生の SIDS 2 例剖検結果 (福大法医)

研究協力者 永田 武明

剖検例 1. 小○丸良○ (♂)

昭和58年 3 月15日生 (2 箇月)

剖検: 昭和58年 5 月24日

〔経過〕

正常分娩、成熟児、出生時体重2930 g、母親年齢29歳、混合栄養、特記すべき疾患なし。前夜午後5 時頃軽い咳があったという。5 月24日午前2 時頃死亡しているのに気付く。(推定死亡時刻: 23日午後8 時~24日午前1 時頃)

〔剖検所見〕

身体外表に外傷なく、皮膚色正常、瞼球結膜に溢血点なし。内部諸臓器に奇形を認めない。肺やや膨れ、43 g(左)、50 g(右)、胸膜下に溢血点多数、気管支内に小泡沫を含んだ黄色粘稠液少量、全体にうっ血状、諸臓器血量中等以下、胸腺40 g、脳に著変なし。

〔病理組織学所見〕

- 1) 肺に軽度のうっ血と水腫。大喰細胞がやや多い(異物侵入に対する防御反応が存在)。炎症所見なし。
- 2) 腎にうっ血、他の臓器に著変なし。

〔結論〕

肺に大喰細胞の出現があるものの死因と直接結びつく根拠にはなりえず、外傷、病変、異物吸引および奇形らが認められないことと、死亡時の状況を考慮して SIDS と総合判断。

症例 2. 原 美○紀 (♀)

昭和57年 2 月7日生 (1 歳)

剖検: 昭和58年 2 月18日 (於 田川市立病院にて、本学病理学竹林茂夫教授執刀。死因、診断について意見を求められ、データーの供与を受けたもの。)

〔経過〕

正常分娩、成熟児、出生時体重3320 g。母親年齢26歳、2 月17日鼻汁軽度、18日朝、うつ伏せで心停止していたという。救急車で運ばれたが死亡していた。

18日午前8 時55分死亡との病院発表であるが、法医学的には18日午前0 時~4 時頃と推定。

〔剖検所見〕

外傷なし、瞼球結膜に溢血点なし、内部諸臓器に著変なし。うっ血なし、腸間膜リンパ節多数腫張、胸腺40 g、溢血点あり。(hypertrophy あり、Trachea を圧迫した可能性が

がある、との記載あり。) 腕頭動脈が気管の前を横切るように派生 (死因との関係不明)。

〔病理組織学所見〕

各臓器に著変なし。

〔結論〕

剖検時は窒息が疑われたが、肉眼的には窒息をきたしたに相違ないといえる外傷も病変も異物吸引もない。総合的に SIDS とするのが妥当であろうと判断。

(昭和58年9月16日記)

(2) 北九州産業医大小児科 SIDS (狭義4例、他1) の報告

研究協力者 白幡 聡

(本報告は一部、昭和57年度報告でなされているが、ここで詳細を報告する)

はじめに

昭和54年7月の開院以来、産業医科大学病院小児科に搬送された乳児突然死 (sudden infant death 以下 SID) の症例は5例である。わが国ではSIDの剖検率が低く、そのことがSIDの病態解明に対する隘路となっているが、幸い我々の経験した5症例では全例に剖検が許諾され、詳細な検討を加えることができた。

その中で、1例は剖検により死因が明らかにされたが、残りの4例では剖検によっても死因を明らかにすることができなかった。したがってこの4例はいわゆる乳幼児突然死症候群 (sudden infant death syndrome, 以下 SIDS) の範疇に入ると考えられるのでこれらの症例を中心として疫学的臨床的解析を行った。

〔症例〕

1. 症例：宇○ 啓○

臨床経過：昭和54年5月15日生れの男児。妊娠、分娩経過に異常を認めず。在胎40週、3750gにて出生。出生後の経過も順調で、死亡する7日前に近医にて健康診察を受けたが、体重6950g、身長64.8cmであり、身体所見異常なし、精神発達・運動機能いずれも正常と判定されている。9月26日、午前7時半頃、ミルクを与えたあと就寝。母親が9時頃、気がついた時にはうつぶせになりぐったりしていたという。周囲にミルクの吐物を認め、ただちに救急車にて来院したが蘇生せず、午前11時43分死亡を確認した。

主要剖検所見：体重7.8kg、身長67cm、剖検時外表所見には著変なく、とくに頸部、部などにも外傷を示唆する所見なし。両肺の高度の水腫を認め、剖検時剖面より多量の水様液の流行をみた。組織学的にも肺胞内に淡い好酸性の滲出液と少数の macrophage を認め、軽度ながら慢性炎症性細胞浸潤もみられたが、肺炎と言える所見ではなかった。そのほかの所見では大腸に散在性の粘膜下点状出血を認めた以外には奇形をはじめとして諸臓器に異常を認めなかった。

2. 症例：吉○ 誠○

臨床経過：昭和56年7月29日生れの男児。妊娠、分娩経過に異常を認めず。在胎41週、3330gにて出生。出生後の経過は順調であったが、11月9日にゼロゼロ言うので近医受診した。その時点では白血球数14400・CRp(±)と軽度の白血球数増多を認めたが、呼吸困難なく、胸部聴診上も異常なかった。念のため撮影した胸部レ線でも肺腺がやや大きいこと以外には異常ととれる所見なし。しかし、翌日の診察では胸部聴診上、湿性う音が聴取されたため、デモサメサゾンと気管支拡張剤の投与がなされた。11月11日夕刻より喘鳴が増強したため救急病院受診して喘息様気管支炎と診断された。11月12日、早朝の一般状態は前日と特に変わりなかったが、気嫌は悪くなかった。母親が台所に立ってしばらく眼を離したあと、呼吸停止に気がつき急拠来院するも蘇生せず9時17分死亡を確認した。

主要剖検所見：①巨細胞性肺炎、②脂肪肝、③両側副腎皮質萎縮、④内水頭症、⑤胸腺病的退縮、⑥両側副腎髓質脂肪状着、⑦心筋空泡状変性、⑧脾・両側腎などの臓器うっ血、⑨小腸リンパ濾胞過形成、など多彩な病変が認められたが、病理解剖学的には巨細胞性肺炎が直接の死因と考えられた。

3. 症例：小○ 典○

臨床経過：昭和57年1月14日生れの女児。妊娠、分娩経過に特記すべき異常を認めず。在胎40週、3294gにて出生。早期新生児期の経過は順調であったが、2月2日頃から腹部膨満を認め、さらに少量ではあるが嘔吐もみられるようになったため、Hirschsprung病の疑いにて当科に紹介され入院した。精査を行うもとくに異常所見は認められず2月16日退院。その後も外来にてfollow upされたが、体重増加良好で一般状態にも特に異常はみられなかった。6月29日午前7時半頃に授乳(母乳)。就寝したのを見届けて、母親が9時頃外出し10時に帰宅した時にはうつぶせになってぐったりしていたと言う。ただちに救急車にて当科受診。蘇生を試みるも反応せず11時50分に死亡を確認した。

主要剖検所見：体重6.0kg、身長68cm、体表面に外傷のあとはなく、奇型もみられず、脳を含め全身諸臓器に直接死因となるべき病変は認められなかった。組織所見でも肺炎、心筋炎、脳炎(とくに脳幹部の)などの所見はみられず死因と考えられる組織学的病変はなかった。また、延髄、頸髄など呼吸中枢にも組織奇型はみられなかった。なお、直腸には神経細胞が認められ、Hirschsprung病は否定された。

4. 症例：川○清○郎

臨床経過：昭和57年4月28日生れの男児。妊娠、分娩経過に特記すべきことなし。在胎37週、2588gにて出生。Apgar score 8点、1ヵ月健康診査時に身体所見には異常を認めず、体重増加も良好であったが、神経学的に体の反り返りが強いこと、筋緊張の軽度低下、易刺戟性などの異常が認められたので、6月3日専門医の診察を受けて表12に示したごとき所見が得られている。その後、患児は7月15日に再び近医受診し、軽快しつつあるもな

表12 症例〔4〕川○清○郎の神経学的検査所見

新生児神経学的検査

症候性危険児のサイン

所見	最適状態	左	右
1) 安静時の状態	正常		
2) 他の運動	無し (ジストニックな動き)		
3) 自動運動の型	屈曲・交互性		
4) " 速さ	中等度		
5) " 強さ	"		
6) アテトイド様運動	時々認められる)		
7) 振戦の速さ	なし または 6回以下		
8) " 振巾	なし または 3cm以下		
9) 泉門の膨隆・拡大	無し 正常		
10) 顔面の対称性	正常		
11) 眼位	"		
12) 眼振	無し		
13) 瞳孔反射	はっきり存在		
14) 瞬目反射	はっきり存在		
15) 吸啜反応	中等度で充分		
16) ルーティング反応	正常		
17) 下顎反射	反応あり		
18) 筋肉の固さ	正常 (少し軟)		
19) 上腕二頭筋腱反射	はっきり収縮		
20) 膝蓋腱反射	" やや弱		
21) バヒンスキー反射	はっきり反応		
22) 逃避反射	強い屈曲 (+)		
23) 腹壁反射	はっきり存在 (やや弱)		
24) 手の把握反応	持続する強い反応		
25) ひきおこし反応	頭部を自分で挙上		
26) 坐位での頭部の統御	3秒間垂直 (できず)		
27) モロー反射(頭の落下)	肩の外転 45°まで		
28) " "	肘伸展 135°まで		
29) " 強さ	中等度 (強)		
30) " 調直	強い		
31) 足の把握反応	持続する強い反応 (+)		
32) 磁石反射	長い間脚伸展		
33) 交叉伸展反射	はっきり反応 (+)		
34) 仰臥位懸浮	半屈曲 (やりやりが強い)		
35) 腹臥位懸浮	対称的屈曲 (僅緊張)		
36) ガラン反射	脊柱全体の反応 (+)		
37) 台のせ反応	存在する (+)		
38) 自動歩行	3歩以上		
39) 腹臥位(頭部挙上)	≦ 3秒 (+少し強い)		
40) " (自動俯仰)	上手に這う		
41) 泣き声(型)	正常		
42) 行動	安定 (少し易刺激性)		

頭血腫
産瘤
打傷
斜頸

必音
呼吸音
腹部腫瘍
腸
外陰部
陰囊水腫 (Peiper)
開排便限
クリックサイン (-) ゆる
内反足 (-)

1. 異常姿勢	判定
後弓反張、蛙様肢位、著しい屈曲位	
2. 異常自発運動 運動過多、運動過少	
3. 病的動作 早すぎる運動 (過敏な運動) 振せん、けいれん アテトーゼ様運動	
4. 異常筋緊張 緊張亢進、緊張低下	
5. 異常反応性 易興奮性、無欲状、昏睡	
6. 半側症候群 著明な非対称の姿勢、運動性、反応性	

Vojta シリーズ

月/日	6/2	
Traction	Asymmetric	
Axillar	Hypertonia	
Landau	Rt. inclination	
Collis II	leg ext	
Vojta	A	
Collis V	O.K	

検査年月日

検査者

57.6.3

守持 Dr.

井

スコアサイン (+)

お同様の異常を指摘されている。また、死亡する数日前から時々吐乳を認めたが、機嫌が良いので自宅にて経過をみていたという。7月28日午前9時頃ミルクを与え、添寝をしていて母親が気がついた時には呼吸が停止していた。急拠来院したが、蘇生術に反応せず12時50分死亡を確認した。

主要剖検所見：体重5.5kg、身長61cm。外傷の跡や喉頭浮腫、気管内異物などはなく、また肺炎、心筋炎、中枢神経系の病変など直接死因となる所見は認められなかった。両肺に浮腫と、主として胸膜下に点状出血斑があり、胸腺にも点状出血斑が認められた。また、両副腎、両腎、クモ膜にうっ血と軽度の小出血巣がみられた。これらの所見は蘇生術による可能性も考えられるが、死線期の anoxic な変化も否定はできない。

5. 症例：河○ 英○

臨床経過：昭和57年9月29日生れの男児。妊娠経過異常なし。在胎43週、吸引分娩にて出生。出生時体重は3600g、新生児期を含めて特記すべき異常を認めなかったが、12月20日午前8時頃から母親が添寝をして授乳している間に母親が眠ってしまい、気がついた時には患児の呼吸がとまりぐったりしていた。直ちに救急車にて来院したが、種々な蘇生術に反応せず、11時45分死亡を確認した。

主要剖検所見：有意な病的所見は肺のみに見られた。肺は70/80gと両側とも緊満し、暗赤色を呈しており、多量の泡沫状液の圧出が見られた。組織学的にはうっ血と浮腫が著明かつびまん性に認められ、巣状に円形細胞浸潤や macrophage の集簇が見られた。気管支周囲等にリンパ濾胞の形成も認められた。しかし全体としては炎症所見は軽く、うっ血水腫が主たる組織像であった。腎には生理的よりもやや多いと思われる糸球体の脱落がみられた。また、胸膜下の点状出血と声門浮腫が認められた。

6. 症例のまとめ

上記の5症例に関して、疫学的ならびに臨床的に重要と考えられていくつかの項目を表13にまとめた。

表13 狭義のSIDS 4例(症例1、3、4、5)、否定1例(症例2)の要因

	症例1 (宇○啓○、男)	症例2 (吉○誠○、男)	症例3 (小○典○、女)	症例4 (川○清○、男)	症例5 (河○英○、男)
死亡年度	1971	1981	1982	1982	1982
死亡月	9月	11月	6月	7月	12月
死亡時刻(気づいた)	午前9時頃	午前8時頃	午前10時頃	午前10時頃	午前9時頃
月令	4ヵ月	3ヵ月	4ヵ月	3ヵ月	2ヵ月
母親の年齢	27才		29才	21才	21才
同胞の有無	姉1名	無	兄1名	無	無
家族歴の異常	無	無	無	無	無
妊娠の異常	無	無	無	無	無
分娩の異常	無	無	無	無	無
在胎週数	41週	40週	40週	37週	43週
出生時体重	3750g	3330g	3294g	2588g	3600g
早期新生児期の異常	無	無	無	無	無
栄養法	人工栄養	混合栄養	母乳栄養	混合栄養	母乳栄養
体重増加	良好	不良	良好	良好	良好
剖検上の直接死因	不明	巨細胞性肺炎	不明	不明	不明

考 按

我々の経験した乳児の突然死の5症例のうち1例については剖検により巨細胞性肺炎が死因と組織学的に診断された。臨床経過からも呼吸器疾患が死亡に関与した可能性は十分に考えられるが、少なくともそれまでの健康状態からは突然死の予測は困難であった。本例に関しては肺炎の所見のほかにも既に述べたごとく脂肪肝をはじめとする多彩な異常所見が見出されている。これらの副病変が、いかなる形で突然死にかかわっているかは不明であるが、今後、突然死の検索には形態学的検索のみでなく、機能面からの検討、例えば非ホルマリン固定凍結標本を用いての臓器内酵素活性の測定などの重要性が示唆される。

症例2を除く残りの4例については臨床経過からも剖検所見からも死因を明らかにすることができなかった。従ってこの4例は、SIDSの定義に該当すると考えられる。そこで以下この4例についてこれまで主として欧米で言われているSIDSの特徴と対比してみた。

発生率に関して特記すべきことは昭和57年度に北九州市の八幡西区で3例の発症をみていることで、これは八幡西区の出生児1000人対0.87にあたる。他院でのSIDSの発生に関して調査ができていないが、我々の経験例のみをとりあげてもこれまでの日本の調査（北九州市1000人対0.21、福岡市同0.11、佐賀県同0.03、東京、埼玉、川崎、札幌 同0.56）に比べてかなり高い数字である。発生年令、時間、状況に関してはこれまでの報告と一致している。すなわち年令は全例が6ヵ月未満であり、急変に気がつかれた時間は午前8時20分から10時の間、また呼吸停止時の状況は睡眠中と推定された。そのほかSIDSは、男児に多いこと、若い母親の子供に多いことが指摘されているが、我々の経験例でも男児が4例中3例を占め、また、4例中2例の母親は21才であった。同胞については4例中2例が第1子で、残りの2例は第2子であったが、これらの同胞を含めて家族歴では特記すべき点は見い出されなかった。一方、欧米の分析で頻度が高いとされている妊娠・分娩の異常、新生児期の異常、未熟児、人工栄養児などのリスク要因については一定の傾向を認めなかった。注目すべき点として早期新生児期を過ぎてから突然死をする間に2例において異常がみられたことで、1例は一過性の吐乳と腹部膨満であり、他の1例は軽度の神経学的異常であった。とくに症例4では筋緊張の低下があり、このことが突然死に何らかの役割りを果たした可能性は十分に考えられよう。

剖検所見については、これまで報告されてきた所見と同様であった。中枢神経とくに脳幹部の詳細な検討は今後、実施する予定である。

結 語

我々の経験した乳児突然死の5症例について、各症例の臨床経過の概略と主要剖検所見を述べた。その中でSIDSと考えられる4例に関してこれまで報告されている特徴と対比して調査結果をまとめた。今後、SIDSは乳幼児保健の中で大きなウエイトを占めると考えられることから1つ1つの症例を慎重に取り扱い、その経験を十分に生かしていかなければ

ればならないことをとくに強調したい。

稿を終るにあたり、貴重な資料を御提供いただきました井上浩先生に厚くお礼申し上げます。

(3) 百日咳感染によると思われる Sleep Apnea 症例 (H. I. 女、51生日、北九州市立八幡病院小児科 #83-11111)

山下 文雄 調査者 山下 祐二、市川光太郎

〔主 訴〕 咳嗽に伴うチアノーゼ発作

〔家族歴〕 近親者に突然死なし

〔既往歴〕 在胎38週、出生体重2935 g。妊娠中とくに異常なし。分娩時、母親に子宮頸管裂傷および多量出血あるも児に異常なし。

〔現病歴〕 40生日頃より咳嗽が出現し、次第に増強。咳嗽時にチアノーゼを認めるようになったため急患センターを受診。紹介により当科入院となる。

入院時現症：体重4900 g、体温35.8℃、呼吸数 48/min、脈拍 148/min、一般状態良好で、母乳の飲みも良く、心肺の理学所見はとくに問題なし。

〔入院時検査〕 RBC：404×10⁴/mm³、Hb：12.2g/dl、Ht：36.2%、Platelet：33.0×10⁴/mm³、WBC：13600 (St 0、Seg 22、Mo 7、Ly 69)、CRP(-)、ESR：8 mm/hr

胸写にて肺野の軽度含気量増加および右下肺野肺門にそって斑点状の軽度陰影を認めた。心電図はとくに異常はなかった。

〔経 過〕 入院後、PIPC 160mg/kg/day iv. および γ -gl 150mg/kg/day 3日連続 ivd、およびベネトリン、ピソルボンの吸入療法を行なった。

入院当初チアノーゼ発作は咳嗽と共に出現していたが、咳嗽の軽減と共にチアノーゼ発作も軽減したように思われた。しかし入院10日目頃より睡眠中咳嗽もないのにチアノーゼ発作が出現することがわかり心拍・呼吸モニター記録を開始したところ入眠1時間前後に心拍低下を伴う apnea attack が記録された。(図1、2)

また、これと平行して fiberscope による耳鼻科的検査、終夜脳波検査、頭部 CT-scan、聴性脳幹反応検査を行ったがとくに異常を認めなかった。

入院中の血清化学的データでは血糖 (58mg/dl) 血清電解質などの異常はなかったが血液ガスで軽度の代謝性アシドーシスと PaO₂ の低値 (68mmHg) が認められ、アシドーシスに関しては anion gap が5回中2回に異常値を示し、ピルビン酸、乳酸値は2回中1回が高値を示した。

一方、血清百日咳凝集素価の上昇が証明された。また、患児とよく接触があったいとと近所の子供が咳を出し百日咳の診断を受けたことがわかった。

尚、本児は入院34日頃より再び病初のように咳嗽が出現し、入院当初ほどではないが咳嗽に伴うチアノーゼ発作が認められるようになったが sleep apnea は減少し、入院45日頃には咳嗽および sleep apnea はほぼ完全に消失した。

図1 Sleep Apnea 症例

H.I. (51生日) No.8311111

	(1/2)	(1/6)	(1/21)	(1/24)	(2/2)	(2/7)	(2/9)	(2/14)	(2/16)
WBC	13600	9100			6200		8600		
RBC	404	385			363		546		
Hb	12.2	11.4			9.8		15.1		
Ht	36.2	33.0			29.1		43.9		
Plat	33.0	41.6			35.2		25.5		
CRP	(-)	(-)			(-)		(0.5+)		
ESR	8	5							
百日咳凝集反応		20X			10X		40X		
Na			138		142	140		147	140
K			4.8		4.1	4.8		8.4	5.1
Ca			4.8		4.6	4.8		4.9	5.0
Cl			110		110	109		117	116
			(M)	(A)	(M)	(M)		(A)	(M)
pH			7.31	7.31	7.27	7.27		7.34	7.23
PCO ₂			48	37	41	43		25	49
PO ₂			20	68	44	27		109	34
HCO ₃			24	19	19	20		13	20
BE			-2	-6	-7	-7		-10	-7
Anion gap			4		14	11		17	4
乳酸					29.9	13.7			
ピルビン酸					1.48	0.8			

HR monitoring 

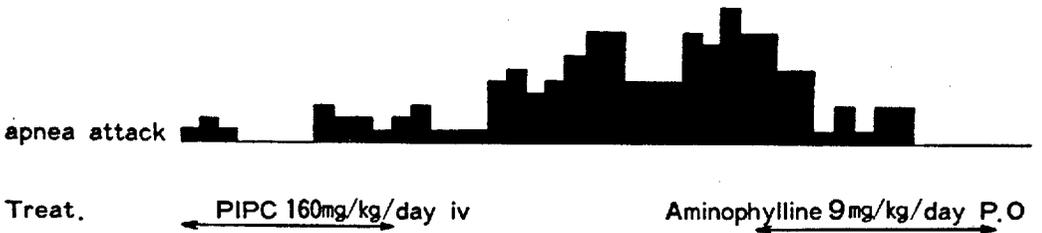
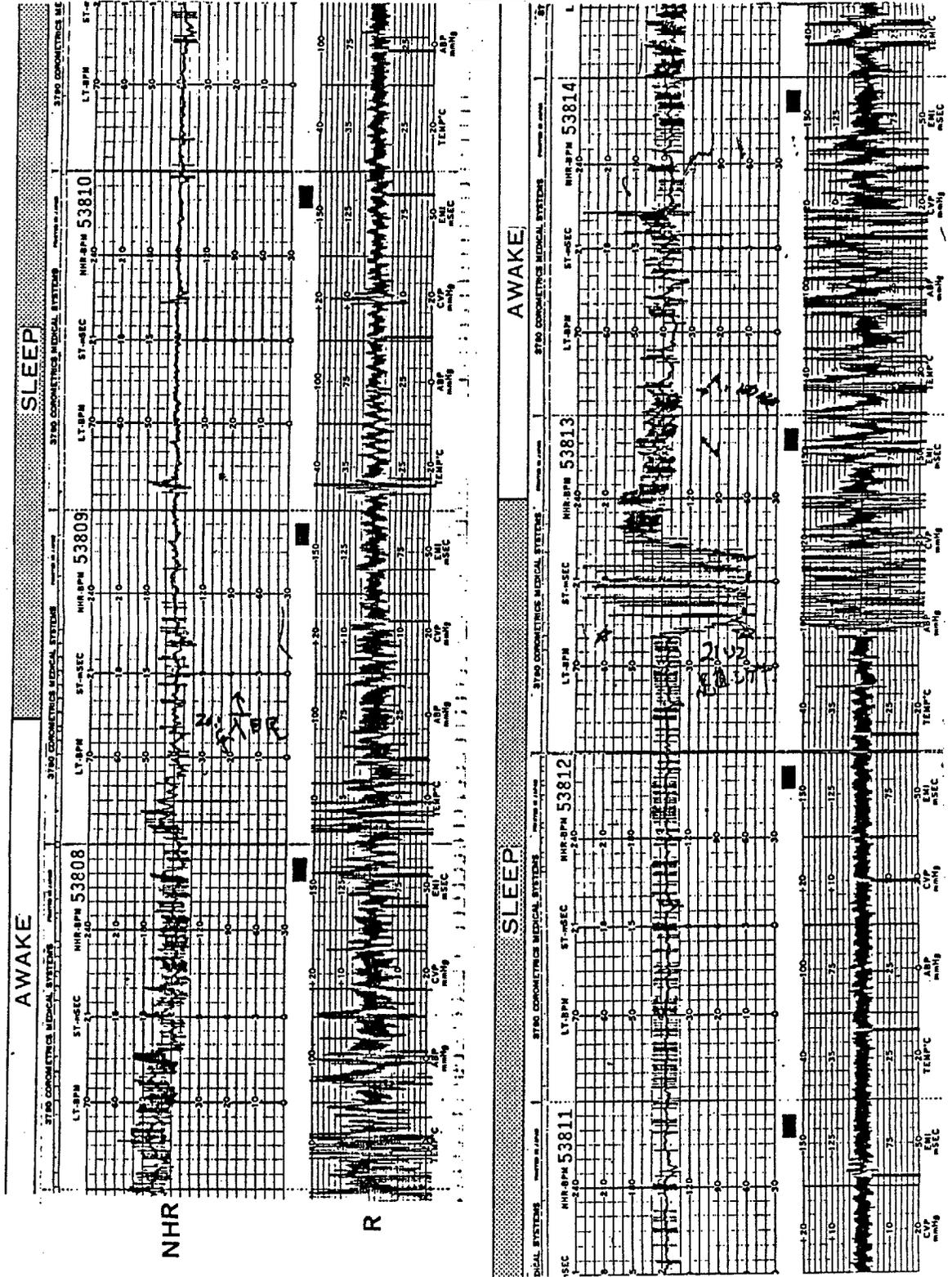


图 2 Sleep Apnea 症例



〔考 察〕

(1) pH: 7.21、BE: -7 という metabolic acidosis があつたにもかかわらず、sleep apnea が激しかった時には代償性の PCO₂ の低下がみられなかったように見えるが、検体が動脈血 2 回の他は静脈血である点断定しにくい。

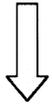
(2) L/P 比が 2 回とも高値であることと、metabolic acidosis および発作があつた頃の血清乳酸高値から組織 hypoxia の存在が考えられる。apnea 急性期の PaO₂ 68mmHg はそれを裏付けている。

(3) 百日咳が脳症を起こすことはよく知られているが sleep apnea の記載は少く、百日咳菌毒素が呼吸中枢の PCO₂ 感受性を変えた可能性がある。

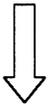
5. ま と め

- 1- (1) 低出生体重児の SIDS (広義) 発生頻度は、2.9/1,000 (6/2,049) で、日本の一般頻度(0.11~0.68)にくらべて著しく高い。
- 1- (2) 低出生体重児 SIDS を対照群と比較すると、新生児期で無呼吸頻度(有意差)が高く、anoxic episode の頻度もそれに近い。
2. SIDS は ICU にはあまり来ていないようである。
3. リスク因子、予測式の設定はできなかった。
4. 症例研究では
 - 4- (1) 福岡、田川市の各々 1 割検例が報告され、頻度は少いとはいえ、確実に狭義 SIDS が発生していることがわかった。これはつぎの産業医大小児科の経験例からもいえる。
 - 4- (2) 北九州産業医大で 5 例の SIDS がはこび込まれ、全例剖検され、1 例が巨細胞性肺炎で狭義の SIDS を否定されたが、他 4 例はすべて相当死因なく狭義 SIDS であった。80% の診断適中率である。
 - 4- (3) 百日咳菌抗体の上昇により、百日咳菌感染が成因と考えられた約 40 日間つづいた Sleep Apnea 例が経験された。Sleep Apnea の一成因として百日咳菌毒素の関与をものがたる。Sleep Apnea の持続期間には、咳が出ていないこと、apnoe のない時でも組織 hypoxia の存在を思わせる L/P (Lactate 対 Pyruvate) 上昇と軽い代謝性アシドーシスがあつた点、成因上注目される。

以 上



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



〔研究目標〕

1. 低出生体重児の SIDS(広義)率と関連要因(全員、とくに橋本)
2. SIDS に対する ICU の関与度 1(田崎)
3. リスク因子の設定と予防への応用(全員)
4. 症例研究
 - (1) 昭和 58 年度福岡市、. 田川市での剖検 2 例(永田)
 - (2) 北九州市産業医大小児科 SIDS 症例(狭義 4、他疾患 1)(白幡)
 - (3) 百日咳感染によると思われる Sleep Apnea 症例(山下)