

先天異常モニタリングの実地調査に 関する研究（鳥取班）

分担研究者 小野 昭雄

研究協力者 牧野禮一郎 前田 一雄 竹下 研三

安東 吾郎 高嶋 幸男 小田 清一

目 的

県単位レベルで行う先天異常発生モニタリングの発生頻度を報告する。

1. 継続調査中の出産児外表奇形頻度を報告する。
2. 昭和52年から55年の4年間に報告された外表奇形児の3歳までの予後調査結果について報告する。

方 法

1. 外表奇形調査について

鳥取県先天異常モニタリング（TOM）に参加している出産施設での妊娠24週以降（週数不明の場合は児体重500g以上）の死産児とすべての生産児を対象とした。外表奇形マーカーは実地調査3班の話あいによって統一した共通マーカーの34項目とした。

調査方法と情報処理については、すでに昭和57、58年度に報告した方法と同じであるので省略する。

2. 外表奇形児の3歳までの予後調査について

昭和52年から55年までの4年間に出生し、奇形ありと報告された児について、3歳児健診記録および死亡個票からその予後を調査した。昭和51年以前に報告された児については3歳児健診記録の不備のためできなかった。検討した内容は、生死の別、死亡児では死亡時年齢、3歳児健診受診の有無、手術をうけた有無、うけた場合はその年齢などを調査した。なお、手術時の年齢については別にアンケート調査した。

結 果

1. 昭和49年2月から59年9月末までの総報告数は、合計38,289名であり、その内容は表1の通りであった。

また、おもな外表奇形の昭和49年より58年までの6ヵ月ごとの発生頻度の変動は図1の通り

表1 TOM における年度別、外表奇形別発生数と発生頻度

	49年2月 56年12月	57年	58年I	58年II	59年I	59年 7~9 月	計	頻度	神奈川	大阪府
無 腦	14	1	1	1	3		20	5.2	6.6	7.5
脳瘤, 脳髄膜瘤	3			1			4	1.0	0.5	1.4
水 頭	7	4		2	2		15	3.9	3.4	3.5
小 頭	12	1	1				14	3.7	1.6	
単前脳胞						1	1	0.3	0.1	0.5
小眼球, 無眼球	1	1		1	1	1	5	1.3	1.4	1.5
白内障	8	1					9	2.4		
小 耳	5	2	3	1	3	3	17	4.4	2.5	
外耳道閉鎖	2	2	3	1		2	10	2.6	1.9	
唇 裂	14	4	1	2	1		22	5.7	6.2	
唇裂口蓋裂	25	3	1	1	2	4	36	9.4	9.0	13.3
口蓋裂	12	3	5	5	3	3	31	8.1	5.0	4.9
その他の顔面裂	2	1	1				4	1.0	0.1	
二分脊椎, 脊髄髄膜瘤	10	2	1	1	1		15	3.9	3.4	3.5
食道閉鎖, 気管食道瘻	2	1			2	1	6	1.6	0.7	1.2
臍帯ヘルニア	1	1				1	3	0.8		2.7
腹壁破裂	1		3	1		1	6	1.6	3.4	
直腸・肛門閉鎖	13		2		6		21	5.5	4.6	3.7
尿道下裂	4	1	1	4			10	5.2*	4.2*	4.1*
膀胱外反									0.2	
性別不分明	4			1	1		6	1.6		
多 指	19	2	5	3	6	3	38	9.9	7.0	7.2
合 指	6	1	3	1	2	1	14	3.7	2.7	3.8
裂 手									0.4	0.5
上肢減数異常	9	1	1	1			12	3.1		2.4
上肢絞扼輪症候群									0.1	0.5
多 趾	12	2	3			3	20	5.2	4.0	4.5
合 趾	12	3	2	2	3	4	26	6.8	5.8	5.4
裂 足	1						1	0.3	0.4	0.1
下肢減数異常	8			1			9	2.4		1.4
下肢絞扼輪症候群									0.2	0.7
ダウン症候群	20	4	1	4	3	1	33	8.6	6.1	6.1
軟骨無形成症	2		1			1	4	1.0	0.5	
結合双生児										0.2
件 数	229	41	39	34	39	30	412			
奇形児数	191	38	32	33	33	22	349			
マーカー複合奇形	2	21	3	7	1	4	6	42		
	3	7	0	0	0	1	1	9		
	4	1	0	0	0	0	0	1		
母 数	21852	4039	3431	3700	3327	1879				
累計母数	21852	25891	29322	33022	36349	38289	38289			
奇形児頻度	87.4	94.1	93.3	89.2	99.2	117.1		91.2		

(注) 頻度は1万出産あたり。*は男子あたり。

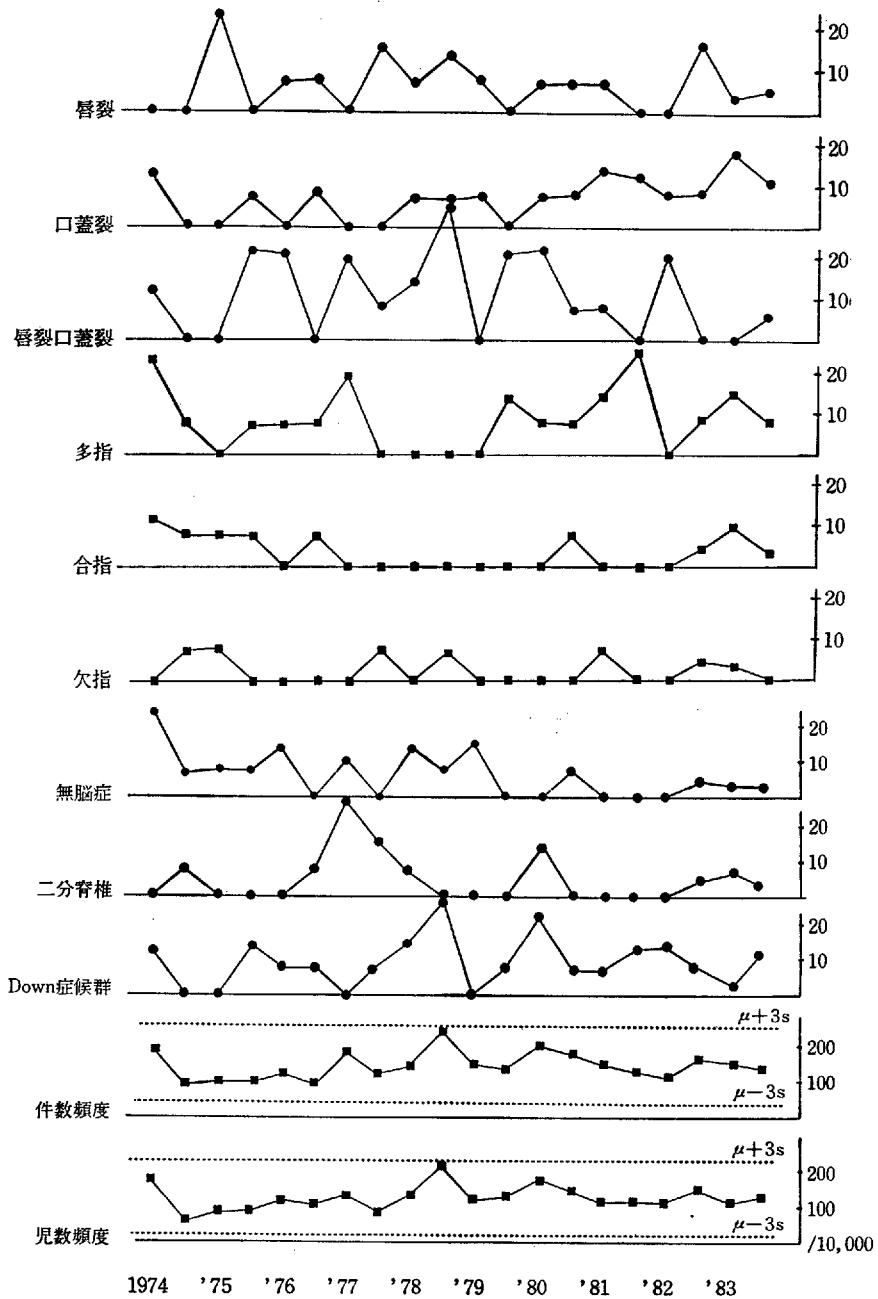


図1 昭和49年より58年までの10年間における6ヵ月ごとのおもな奇形の発生頻度

表2 昭和52～55年出生有奇形児（159例）
の予後と3歳児健診受診状況

死産	14	8.8%
死亡	13	8.2%
県外転出	30	18.9%
3歳児健診対象児	102	64.2%
{ 受診児	53	52%
{ 未受診	49	48%
計	159	100.0%

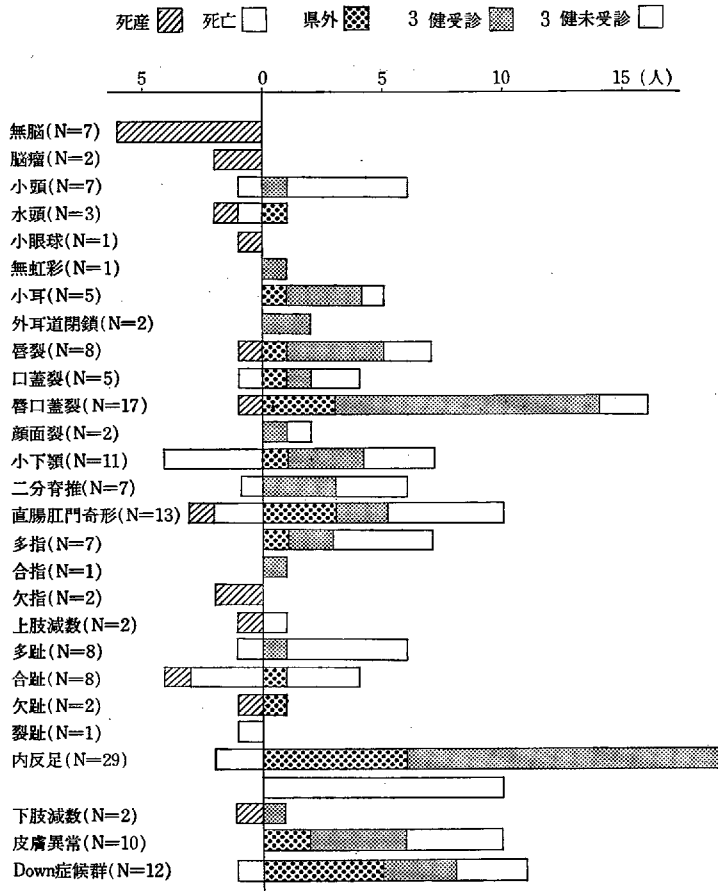


図2 おもな奇形ごとにみた3歳までの予後と3歳児健診受診状況
(中央線より左は死産, 死亡, 右は県外転出, 3歳児健診児,
未受診児)。

となっている。昭和49年からの10年間その変動にとくに目だった傾向はなかった。

なお、有奇形児の性比，死産児率，多胎分娩率，在胎週数別発生率，生下時体重別発生率，母年齢別発生率などについては，昨年度の報告ととくに変わった変化はないので省略する。

2. 昭和52年から55年までの4年間に報告された有奇形児は，159例であった。この159例について，死産，生後死亡，県外転出（このほとんどは里帰り分娩），3歳児健診受診児，未受診児の実数と割合は表2のごとくになった。死産児と死亡児の割合がほぼ1:1であった。この生後死亡の時期についてみると，60%以上が生後6ヵ月以前に死亡していた。0歳台で死亡した児は死亡児の84.6%になった。したがって，先天異常モニタリングでリストされる有奇形児のほぼ15%が死産あるいは生後1歳までに死亡していることになった。

有奇形児で3歳児健診受診対象児は，死産児，死亡児，県外転出児を除くと159例中102例（64.2%）になった。この102例中，3歳児健診を受診したのは53例（52%）であった。鳥取県全体の3歳児健診受診率は85%から88%であるので，この52%は明らかに低く未受診例が多かった。おもな各奇形ごとに死産，死亡，県外転出，3歳児健診受診，未受診の分布を実数で図2に示す。左側が死産，死亡，右側が生存例である。当然のことながら，無脳，脳瘤，小眼球などは全例死亡している。逆に，小耳，外耳道閉鎖，多指，合指などには死亡例はいない。一

表3 死亡児の死亡時間

< 1週	4	}	61.5%
1週 - 1ヵ月	1		
1ヵ月 - 3ヵ月	1		
3ヵ月 - 6ヵ月	2		
6ヵ月 - 12ヵ月	3	23.1%	
> 1歳	2	15.4%	
計	13	100%	

表4 おもな奇形児の3歳までの手術状況

	3歳までに手術	3歳以降手術	手術なし
水頭症 (N=1)	1 (100%)	0	0
髄膜瘤 (N=6)	5 (83%)	0	1
唇裂 (N=11)	11 (100%)	0	0
唇口蓋裂 (N=28)	26 (93%)	2	0
心奇形 (N=14)	5 (36%)	8	1
Down 症候群 (N=23)	3 (13%)	0	0
Down 症候群+心奇形 (N=8)	3 (38%)	4	1

方，小頭，直腸肛門奇形，多指，多趾などで未受診例が多かった。

おもな奇形について，手術の有無をみると（表4），3歳までに殆どの奇形が手術を終えていた。なお，同じ期間に出生した心臓病について手術の有無をみると36%であった。

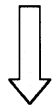
考 察

鳥取県外表奇形モニタリングの調査実数は昭和58年より著しく増加し，県内出生児の80%近くをモニターするようになっている。わが国全体からはわずかの人口であるが，たかい質のモニターが可能となってきた。

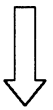
われわれのめざすところは奇形発生のモニターのみでなく，有奇形児のその後の調査も行い，ひろく医療保健や福祉行政への還元，さらに奇形発生の病態解決にまで長期の目標をもっている。日本人における奇形児の生命予後に関する研究は，ダウン症候群などごくわずかの疾患にしかなされていない。有奇形児の母子保健事業への受診状況にかんする調査にいたっては皆無である。発達遅滞をもつ小頭，医療機関に頻回に通わざるをえない直腸肛門奇形などに受診率の低いことは理解できるが，多指，多趾に未受診の多い理由はよく理解できない。このような奇形に関する世間の遺伝的な“ある潜在意識”があるとすれば驚くべきことである。

参 考 文 献

- 1) Takeshita, K., Andou, G. and Makino, R. : Monitoring of congenital malformations in Tottori, 1974~1983. Congenital Anomalies 1984 (in press).
- 2) Takeshita, K., Toyofuku, T. and Arima, M. : Mortality and causes of death of children with Down's syndrome in San-in district, Japan. Jpn. J. Human Genet., **25** : 295~298, 1980.



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



目的

県単位レベルで行う先天異常発生モニタリングの発生頻度を報告する。

- 1, 継続調査中の出産児外表奇形頻度を報告する。
2. 昭和 52 年から 55 年の 4 年間に報告された外表奇形児の 3 歳までの予後調査結果について報告する。