

先天異常モニタリングの実地調査に関する 研究（鳥取フィールドTOM）

三 觜 文 雄* 竹 下 研 三** 安 東 吾 郎***
滝 田 親 友 朗* 岩 宮 緑*** 大 谷 恭 一***

要 約

1. 県単位で行う先天異常モニタリングでの奇形発生頻度（昭和63年6月まで）を実地調査研究班で決定しているマーカー奇形に従って報告した。今年度の奇形発生でとくに目だった増加を示す奇形はなかった。
2. 鳥取県先天異常モニタリングは歴史的にはじめ県下の8公立病院による病院ベースでスタートし、のち県全体でのモニタリングシステムになった。また、このモニタリング調査を行っている関係者は意識して自分たちの属している県立中央病院および大学病院に受診している先天奇形例をチェックしてそれらのデータも参考にしている。今年度はこの3ルートからの結果を比較して、モニタリングの調査方法が結果へ与える影響について検討した。重症の神経系奇形、白内障などは新生児期の報告システム（通常のモニタリングシステム）では低い数値の結果がでてくる傾向が生じ、尿道下裂などは新生児期にやや過大に診断報告されている傾向が見受けられた。

目 的：

- (1) 鳥取先天異常モニタリングの累積および四半期ごとの集計値を報告する。
- (2) 現在わが国で行なわれているいくつかのモニタリングシステムの報告をみると少しずつその発生数値に違いがある。この違いが関係する医療機関の差によって説明されるのか、モニタリング方法の差によって説明されるのか、本当に地域差として説明されるのかは常に気にかかることである。鳥取モニタリングシステムははじめ県下の全公立8病院によるモニタリングシステムとしてスタートした。その後、厚生省の研究調査班としてスタートするとともに県下全域の医療機関にお願いし参加していただくモニタリングシステムをとるようになった。一方、このモニタリングでの調査協力者は県立中央病院と大学病院に所属しているため独自にモニタリング報告に報告されてこない症例にも注意を払ってきた。今回はこの3システムでの結果を比較して、モニタリング方法の差によって結果にどのような影響が出てくるのかについて検討を行ってみた。

方 法：以下の3つの集計法による結果を比較した。

- (1) 病院ベースからスタートし、人口ベースになった歴史をそのまま通して集計した資料

* 鳥取県衛生環境部 ** 鳥取大学医学部 *** 鳥取県立中央病院

(TOM) 1974. 2. 1—1988. 6. 30 (54四半期)

(2) 人口ベースにして今日に至るまでを集計した資料 (TOM-PB) 1982. 10. 1—1988. 6. 30 (23四半期)

(3) TOMに県立中央病院カルテ、大学病院カルテ、死亡小票から得たデータを追加した資料 (ATOM) 1977. 1. 1—1986. 12. 31 (40四半期)。なお、この場合基本ベースは同じ期間の総出産数としている。

結果：

(1) 鳥取モニタリング調査結果

昭和57年10月からの人口ベースで行ってきた四半期ごとの全データを表1に示す。期間は23四半期となる。全集計数36, 019 児中、奇形件数は442件、人数は374人であった。頻度は、件数で122.71/10,000出産、人数で103.83/10,000出産であった。最高報告値は件数で185.05、人数で125.83、最少報告値は件数で79.73、人数で68.34であった。両者とも同じ四半期に一致しており、最高値の時は62年1～3月、最小のそれは58年4～6月の報告であった。いずれもその10か月まえの環境には何ら特異な傾向は見だしえなかった。また、奇形の内容にも特別な傾向はなかった。

表1 基本データ

| | TOM | TOM-PB | ATOM |
|----------------|--------|--------|--------|
| 集計母数 | 60,448 | 36,019 | 81,399 |
| 性比 (M/F) | 1.04 | 1.05 | 1.06 |
| 死産率 | 0.41 | 0.25 | 1.21 |
| 多胎児率 (%) | 1.43 | 1.34 | — |
| 低体重児 (%) | 5.64 | 5.35 | — |
| 高年齢出産 (35歳, %) | 4.54 | 4.97 | — |
| 県外児率 (%) | 21.7 | 20.3 | — |

(2) 鳥取モニタリング (TOM)、人口ベースモニタリング (TOM-PB)、その他の情報すべてを含めたモニタリング (ATOM) での比較

3グループの基本データは表2の通りである。ATOMでは当然のことながら死産率が高い。また、ATOMでは多胎児率、低出生体重児率、高年齢出産率、県外児率 (里帰り分娩) は不明である

マーカー奇形全体について3群を比較したのが表3である。当然、ATOMでは発生率は低い。ATOMでは死産児の情報が含まれているため奇形発生率は高くなると考えられるが、死亡小票には中枢神経系奇形を除く奇形の記載は少なく、結果として低い値となった。その他の単胎・多胎、出産時体重、母の出産年齢、県内・外出産などについて検討すると、やはり人口ベースでの結果の方が奇形発生率は高く、モニタリングの質としては高いものをもっていると考えられた。

表 2 TOM-PB四半期別発生頻度(年期は昭和-1,2,3,4)

| 年期 | 集計数 | 果 計 | 件数 | 頻度(件) | 累計 | 累計頻度 | 人数 | 頻度(人) | 累計 | 累計頻度 |
|-------|--------|--------|-----|--------|-----|--------|-----|--------|-----|--------|
| 574 | 1,696 | 1,696 | 19 | 112.03 | 19 | 112.03 | 18 | 106.13 | 18 | 106.13 |
| 581 | 1,663 | 3,359 | 25 | 150.33 | 44 | 130.99 | 20 | 120.26 | 38 | 113.13 |
| 582 | 1,756 | 5,115 | 14 | 79.73 | 58 | 113.39 | 12 | 68.34 | 50 | 97.75 |
| 583 | 1,973 | 7,088 | 23 | 116.57 | 81 | 114.28 | 20 | 101.37 | 70 | 98.76 |
| 584 | 1,712 | 8,800 | 17 | 99.30 | 98 | 111.36 | 17 | 99.30 | 87 | 98.86 |
| 591 | 1,700 | 10,500 | 22 | 129.41 | 120 | 114.29 | 19 | 111.76 | 106 | 100.95 |
| 592 | 1,659 | 12,159 | 19 | 114.53 | 139 | 114.32 | 18 | 108.50 | 124 | 101.98 |
| 593 | 1,887 | 14,046 | 28 | 148.38 | 167 | 118.90 | 23 | 121.89 | 147 | 104.66 |
| 594 | 1,640 | 15,686 | 20 | 121.95 | 187 | 119.21 | 17 | 103.66 | 164 | 104.55 |
| 601 | 1,436 | 17,122 | 18 | 125.35 | 205 | 119.73 | 16 | 111.42 | 180 | 105.13 |
| 602 | 1,569 | 18,691 | 18 | 114.72 | 223 | 119.31 | 16 | 101.98 | 196 | 104.86 |
| 603 | 1,574 | 20,265 | 18 | 114.36 | 241 | 118.92 | 16 | 101.65 | 212 | 104.61 |
| 604 | 1,506 | 21,771 | 19 | 126.16 | 260 | 119.42 | 18 | 119.52 | 230 | 105.65 |
| 611 | 1,475 | 23,246 | 16 | 108.47 | 276 | 118.73 | 11 | 74.58 | 241 | 103.67 |
| 612 | 1,444 | 24,690 | 21 | 145.43 | 297 | 120.29 | 16 | 110.80 | 257 | 104.09 |
| 613 | 1,526 | 26,216 | 17 | 111.40 | 314 | 119.77 | 16 | 104.85 | 273 | 104.13 |
| 614 | 1,417 | 27,633 | 18 | 127.03 | 332 | 120.15 | 16 | 112.91 | 289 | 104.59 |
| 621 | 1,351 | 28,984 | 25 | 185.05 | 357 | 123.17 | 17 | 125.83 | 306 | 105.58 |
| 622 | 1,340 | 30,324 | 14 | 104.48 | 371 | 122.35 | 14 | 104.48 | 320 | 105.53 |
| 623 | 1,492 | 31,816 | 15 | 100.54 | 386 | 121.32 | 13 | 87.13 | 333 | 104.66 |
| 624 | 1,397 | 33,213 | 18 | 128.85 | 404 | 121.64 | 12 | 85.90 | 345 | 103.87 |
| 631 | 1,389 | 34,602 | 20 | 143.99 | 424 | 122.54 | 12 | 86.39 | 357 | 103.17 |
| 632 | 1,417 | 36,019 | 18 | 127.03 | 442 | 122.71 | 17 | 119.97 | 374 | 103.83 |
| 総計 23 | 36,019 | | 442 | | | | 374 | | | |

表 3 マーカー奇形全体についてのデータ

| | TOM | TOM-PB | ATOM |
|---------------|--------|--------|--------|
| 母数 | 60,448 | 36,019 | 81,339 |
| 発生数(人) | 581 | 374 | 665 |
| 発生率(1万対) | 96.1 | 103.8 | 80.5 |
| 男子 | 104.7 | 114.8 | 91.3 |
| 女子 | 86.2 | 90.3 | 67.7 |
| 生産児 | 86.5 | 94.6 | 71.8 |
| 死産児 | 2429.1 | 3777.8 | 792.7 |
| 単胎児 | 95.2 | 102.4 | — |
| 多胎児 | 161.3 | 207.5 | — |
| 児体重(>2500g) | 74.2 | 81.1 | — |
| (<2500g) | 459.4 | 503.1 | — |
| 出産年齢(35yrs.>) | 96.3 | 100.5 | — |
| (35yrs.<) | 178.7 | 167.6 | — |
| 県内出産 | 102.1 | 110.0 | — |
| 県外出産 | 76.1 | 82.1 | — |

主なマーカー奇形の発生頻度を3群において比較すると表4のようになった。TOM-PBとATOMとを比較した場合、ATOMで頻度が高くなったものは、無脳、脳ヘルニア、水頭、小頭、白内障、下肢減形成であった。とくに中枢神経系奇形と白内障が目だった。このような中枢神経系奇形は死亡小票にも記載があり、その結果であると考えられた。一方、白内障は明らかに新生児期に見過ごされており、数値の上昇は病院情報からの影響と考えられた。母集団の数から推定して他のマーカー奇形の頻度は当然ATOMにおいて低下すると考えられるが、極端に低い値をとったマーカー奇形があった。外耳道閉鎖、尿道下裂、多指、多趾、合指などであった。外耳道閉鎖と尿道下裂は新生児での診断がややもすれば過大評価されると想像され未報告の症例が少なくなる結果につながると考えられた。一方、多指、多趾、合指の発生率の低下は形成術をできるだけ他人に知られないように希望され処置される傾向があるため、個人の医療機関や県外の

表4 主なマーカー奇形の発生頻度 (per 10,000 births)
(*: TOM-PB から ATOM になった場合での頻度の増加したもの)

| | TOM | TOM-PB | ATOM | (KAMP) |
|------------|------|--------|------|--------|
| 無脳 | 4.5 | 3.6 | 4.5* | 6.4 |
| 脳ヘルニア | 1.0 | 0.8 | 1.4* | 0.8 |
| 水頭 | 3.8 | 3.9 | 4.2* | 2.8 |
| 小頭 | 3.3 | 2.8 | 3.2* | 1.3 |
| 単前脳胞 | 0.7 | 1.1 | 0.6 | 0.2 |
| 白内障 | 3.0 | 2.8 | 3.8* | |
| 外耳道閉鎖 | 3.3 | 4.7 | 1.8 | 1.7 |
| 唇裂 | 5.6 | 5.3 | 3.9 | 6.1 |
| 唇口蓋裂 | 8.9 | 8.6 | 7.0 | 8.8 |
| 口蓋裂 | 8.9 | 11.4 | 8.5 | 4.9 |
| 顔面裂 | 1.5 | 1.9 | 0.6 | 0.2 |
| 二分脊椎 | 5.0 | 5.0 | 3.8 | 3.6 |
| 食道閉鎖 | 1.7 | 2.2 | 1.4 | 0.7 |
| 横隔膜ヘルニア | 2.0 | 1.4 | 1.4 | |
| 臍帯ヘルニア | 1.0 | 1.4 | 1.4 | |
| 腹壁破裂 | 1.5 | 2.2 | 1.5 | |
| 鎖肛 | 5.5 | 5.8 | 3.9 | 4.4 |
| 尿道下裂(男子のみ) | 7.9 | 10.3 | 4.5 | |
| 性不分明 | 1.0 | 0.8 | 0.2 | |
| 多指 | 11.7 | 14.2 | 6.3 | 7.4 |
| 合指 | 5.0 | 6.7 | 2.9 | 2.7 |
| 裂手 | 0.7 | 1.1 | 1.0 | 0.4 |
| 上肢減形成 | 3.0 | 2.5 | 1.7 | |
| 多趾 | 5.1 | 4.2 | 2.5 | 4.2 |
| 合趾 | 7.9 | 9.2 | 6.1 | 5.7 |
| 裂足 | 0.2 | 0.2 | 0.2 | 0.4 |
| 下肢減形成 | 2.0 | 1.1 | 1.2* | |
| 四肢減形成(上下肢) | 5.0 | 3.6 | 2.9 | |
| ダウン症候群 | 10.4 | 10.6 | 9.2 | 6.1 |
| 軟骨異栄養 | 1.3 | 1.7 | 1.4 | 0.9 |

医療機関で処置され、われわれの情報から隠される傾向があるためと考えられた。

考 察

先天異常モニタリングが開始されて今日まで鳥取においては幸いにもとくに頻度が高くなったマーカー奇形はなかった。また、われわれの報告値と神奈川、大阪の値と比較した場合、一部の奇形において鳥取データがやや高い値を示しているものがあつたが、明らかな高値を示しているものはなかった。口蓋裂やダウン症候群など一部のやや高い値を示す奇形が存在が何によっているのか、データの集計方法の差なのか、報告される医療機関の差なのか、本当に地域差なのかはまだ不明である。今後これらの奇形については慎重に検討を続けていきたい。

データの集計方法による差を検討するため、われわれの3方法間について比較を行つてみた。白内障、尿道下裂など新生児期の判断がやりにくい奇形ではその報告値は低くなる傾向が生じ、数値の評価をする場合には慎重な態度が求められることにならう。チェルノブイリ原発事故によってわが国においては白内障のチェックが問題になったが、今回の結果をみて白内障は新生児期のみモニターでは不十分であるのかもしれない。また、多指、多趾、合指など一般に他人にあまり知られたくないような奇形は新生児期を逃すとその値は非常に不確実になることも明らかになった。

近年、世界のモニタリング調査では多発奇形の発生への関心が大きくなつてきている。このような奇形での情報収集もモニタリングの質が非常に問われることになる。リジスターシステムを取り入れた方法をとらないとするならば、その信頼性についての検討は十分になされる必要がある。

鳥取モニタリングは今後もこのことに強い関心をもっている数少ない医師の熱意と関係者からの好意ある協力によってシステムの維持を続けていきたいと思っている。



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



要約

1. 県単位で行う先天異常モニタリングでの奇形発生頻度(昭和63年6月まで)を実地調査研究班で決定しているマーカー奇形に従って報告した。今年度の奇形発生でとくに目だった増加を示す奇形はなかった。
2. 鳥取県先天異常モニタリングは歴史的にはじめ県下の8公立病院による病院ベースでスタートし、のち県全体でのモニタリングシステムになった。また、このモニタリング調査を行っている関係者は意識して自分たちの属している県立中央病院および大学病院に受診している先天奇形例をチェックしてそれらのデータも参考にしている。今年度はこの3ルートからの結果を比較して、モニタリングの調査方法が結果へ与える影響について検討した。重症の神経系奇形、白内障などは新生児期の報告システム(通常モニタリングシステム)では低い数値の結果がでてくる傾向が生じ、尿道下裂などは新生児期にやや過大に診断報告されている傾向が見受けられた。