

<分担研究報告>

先天異常のモニタリングと対策に関する研究

分担研究者 有馬正高

要約：外表奇形の発生状況を知り、予防および生後の対策の改善に資することを目的として、奇形の発生頻度の地域別、年度別の調査、奇形の発生に関係する可能性のある各種の環境要因の分析、および、奇形児の生命や機能の予後などについて調査を継続してきた。

奇形の発生率については、指定の病院の全出生児に対する外表奇形の陽性率をみる病院ベース、および、県内の出生児の一定の割合について調査する人口ベースの両者を並行して行なってきた。過去3年間の変動としては、都市部における無脳症の出生率の減少があったが、警告を出すような特定奇形の著しい増加は認められなかった。

奇形の発生を増加させる要因を知るために、群間の比較、および、ケースコントロールスタディを用いて有意な差を生ずる因子の解析を行ってきた。現在までのところ、有意に奇形を増加させる可能性のある因子として、母体の高齢出産、喫煙、放射線照射などが指摘された。発熱と神経管閉鎖不全、特定の食品添加物による環境変異原性の危険の増加などについては今後も留意すべきことと考えられる。

奇形は新生児および乳児期の死亡率を高める因子として重要であるが、生命予後は改善している。しかし、特に複合の奇形や多発性小奇形をもつ群にあっては、精神・運動機能などの発達遅滞をとまなう率が高い。したがって、健康管理や奇形に直接関係する治療とともに、総合的な発達援助についても早い時期から立案実施する体制が必要と考えられる。

見出し語：奇形、発生率、催奇形因子

研究目的：奇形は先天異常のなかでもっとも頻度の高いものであり、また、新生児期でも外表奇形は発見できる。奇形の対策をたてるために、以下のリサーチクエスチョンを設定し、それを明らかにすることを目的として研究を立案した。

1) 地域別、年度別にみて、有意に増加または減少した奇形があるか。

2) 日常的に作用している環境のなかで、特定の奇形の頻度を変化させている要因があるかどうか。

3) 奇形の予防に役立つ実行可能な方法は何か。

4) 外表奇形をもって生まれた子供に対する保

健・医療上の対策の向上のために何が必要か。

研究方法：上記の設問に答えるための方法として以下のような手段をとった。

1) 奇形の発生率については指定された病院群において同じ基準で新生児の外表奇形を種類別に集計した。病院群は、東京都、宮崎県の他、全国の指定病院からの報告例を集計した広域からの群に分けられた。対象の出生数は年間およそ13万であった。それとは別に県単位の人口ベースの調査として、神奈川、鳥取、石川、愛知・岐阜・三重の3県（口唇・口蓋裂に限る）からの報告を得た。人口ベースの対象の出生数は年間およそ5万であった。発生率を年度毎に集計し年度間の比較を行った。有意性の検定とし

てZ法、累積和法、回帰分析を用いた。

2) 特定の因子と奇形の増加の関係についての分析は、母親の各年齢群間、因子が陽性と陰性の両群における奇形頻度の差などの有意差検定の他に、一部の地域においてはケースコントロールスタディにより有意差の検討を行った。

3) 死亡調査などの追跡的検討の他に、特別の異常をもつ発達障害児の外表奇形の合併率を調査した。また、剖検によって外表奇形の存在と内臓奇形の存在の関係を検討した。

4) 奇形をもって生まれた子供が数年後にどのような生活を行い発達がどのように偏るか、また、適切な医療を受けているのかどうかの調査は質問紙によるアンケートを主体とした。

結 果

1) 奇形の発生率について

病院ベースの調査においては、一部の病院特に大都市の病院群において無脳症の発生率の継続的低下が認められた。これは出生前診断の普及を反映した成績と推察された。その他の奇形については、病院ベース、人口ベースのいずれにおいてもマーカーとした奇形の発生率に年度間の差は見出し得なかった。また、地域別の差も有意とは考え難かった。以上の結果から、3年間に、特定の時期、または、特定の地域にある種の環境変化が生じて奇形を増加させているという証拠はなかった。この研究によって得られた各地域、各病院の成績は本部における奇形の頻度のベースラインとみなすことが出来よう。

2) 奇形の頻度を高めている環境要因について

近年、近親婚率は一定し、1%以下の低値を維持している。したがって、特定の奇形が特定の時期に有意の増加を示していれば新たな環境要因が働いたと推定される。一方、奇形はほぼ1%程度の率を維持しているので、何らかの催奇形因子が常に働いている可能性は否定できない。日常的な環境物質の他に母体の条件が環境性の奇形の原因となっていないかどうかを検討し、喫煙、X線撮影の既往、母体の高齢出産が発生率の増加に働く有意な因子であった。今回の成績では、飲酒、抗てんかん剤、向精神薬と

奇形の間には有意な関係は認められなかった。

3) 奇形の予防に役立つ実行可能な方法

現時点では、上記の誘因となるような因子を避けることが一義的と考えられた。出生前診断の普及による奇形出生率の減少は無脳症のみに認められた。

4) 生後の保健・医療上の対策の向上に必要な項目

乳児期の死因として重要なことは本研究でも認められた。奇形そのものに対する医療はほぼ実行されていた。一方、単純な奇形合併の発達および適応はほぼ良好と認められたが、複合奇形、中枢神経系の奇形をもつ場合は生命予後または発達の予後に悪影響を示す例が多く認められた。このような例にあっては、奇形そのものに対する治療にとどまらず、早期からの発達に対する対応が必要と考えられた。

先天異常のモニタリングと 対策に関する研究 分担研究

1. 発生頻度の把握

- a. 都立病産院
日赤病産院
特定病院
日本母性保護医協会協力病院
- b. 神奈川県
鳥取県
石川県
愛知・岐阜・三重県
- c. 変動の統計的解析

2. 奇形の評価

- a. 臨床的解析
- b. 剖検
- c. 流産胎児

3. 成因と予防に関する解析

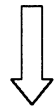
- a. 母体要因
- b. 環境変異原

4. 出生後の予後と対策



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: 外表奇形の発生状況を知り、予防および生後の対策の改善に資することを目的として、奇形の発生頻度の地域別、年度別の調査、奇形の発生に関係する可能性のある各種の環境要因の分析、および、奇形児の生命や機能の予後などについて調査を継続してきた。

奇形の発生率については、指定の病院の全出生児に対する外表奇形の陽性率をみる病院ベース、および、県内の出生児の一定の割合について調査する人口ベースの両者を並行して行なってきた。過去3年間の変動としては、都市部における無脳症の出生率の減少があったが、警告を出すような特定奇形の著しい増加は認められなかった。

奇形の発生を増加させる要因を知るために、群間の比較、および、ケースコントロールスタディを用いて有意な差を生ずる因子の解析を行ってきた。現在までのところ、有意に奇形を増加させる可能性のある因子として、母体の高齢出産、喫煙、放射線照射などが指摘された。発熱と神経管閉鎖不全、特定の食品添加物による環境変異原性の危険の増加などについては今後も留意すべきことと考えられる。

奇形は新生児および乳児期の死亡率を高める因子として重要であるが、生命予後は改善している。しかし、特に複合の奇形や多発性小奇形をもつ群にあっては、精神・運動機能などの発達遅滞をとまなう率が高い。したがって、健康管理や奇形に直接関係する治療とともに、総合的な発達援助についても早い時期から立案実施する体制が必要と考えられる。