

厚生労働科学研究
(子ども家庭総合研究事業)

乳幼児突然死症候群の診断のためのガイドライン
作成およびその予防と発症率軽減に関する研究

平成14年度研究報告書

平成15年3月

主任研究者 坂上正道

坂上正道

目 次

I. 総括研究報告

- 乳幼児突然死症候群の診断のためのガイドライン作成およびその予防と
発症率軽減に関する研究 坂上正道 …… 609

II. 分担研究報告

1. 新生児・乳幼児の突然死に関する臨床法医病理学的研究 齋藤一之 …… 615
2. 新生児・乳幼児の突然死裁判例およびガイドラインに関する国際比較
第一部 SIDS ガイドラインの国際比較 澤口聡子 …… 618
3. 新生児・乳幼児の突然死裁判例およびガイドラインに関する国際比較
第二部 SIDS 訴訟の国際比較 澤口聡子 …… 622
4. 新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究 高嶋幸男 …… 625
5. 新生児・乳幼児の突然死例の鑑別診断に関する法医学的研究 高津光洋 …… 629
6. 新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する病態生理行動学的研究 戸蒔 創 …… 631
7. 新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床病理学的研究
その1-乳幼児突然死の剖検脳における ORP-150 の発現についての
免疫組織学的検討 中山雅弘 …… 640
8. 新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床病理学的研究
その2-突然死-特に新生児突然死の病理学的検討 中山雅弘 …… 642
9. 乳幼児突然死症候群(SIDS)の文献学的研究
-教科書における SIDS の記載の経年的変化の検討- 仁志田博司 …… 644
10. 「家族の会と SIDS 予防活動」に関する研究
-特に世界各国の活動と現状の検討- 仁志田博司 …… 648
11. 乳幼児突然死症候群(SIDS)をめぐる裁判の分析 平林勝政 …… 651
12. 解剖によらない SIDS 診断の特徴についての人口動態調査に基づく
比較研究 藤田利治 …… 654
13. 乳幼児突然死例についての死体検案書(死亡診断書)の記載に関する
実態調査:研究計画 藤田利治 …… 661
(資料) 乳幼児突然死例についての死体検案書(死亡診断書)に
関する実態調査-研究計画書- 案
14. 新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する死亡経過ならびに死因
調査方法についての研究 的場梁次 …… 668
15. 新生児・乳幼児の突然死リスク因子に関する呼吸生理学的研究 宮坂勝之 …… 673
16. 乳幼児突然死症候群における小児科医の診断力向上と突然死例の
家族支援に関する研究 横田俊平 …… 676
(資料) アンケート

厚生労働科学研究費補助金（子ども家庭総合研究事業）
総括研究報告書

乳幼児突然死症候群の診断のためのガイドライン作成
およびその予防と発症率軽減に関する研究

主任研究者 坂上正道 人間総合科学大学学長

研究要旨：「すこやか親子 21」の中でも取り上げられた、乳幼児突然死症候群の発症率軽減は、我が国が進める乳幼児の障害の予防、健康の保持増進対策の重要課題のひとつと位置付けられている。これまでに乳幼児の突然死に対する診断のためのガイドラインが多角的に検討されてきたが、いずれも専門的な見識にたったものであり、一般国民のみならず医療関係者間における本疾患を理解する上での混乱の一因となっている。本研究事業においては小児科医、病理医、法医病理医の協力のもと、乳幼児突然死症候群における診断のためのガイドライン作成を目的とし、さらには乳幼児突然死症候群の発症率の軽減のために新生児・乳幼児の睡眠中における覚醒反応の病態生理を解明するとともに、学術的に覚醒反応の欠如の原因を追求すること、睡眠中の生理学的検討により SIDS 発症のリスク因子を明らかにすることを目的とした。

本年度の研究においては、乳幼児突然死症候群の病態解明を目的とし神経病理学的検討、新生児・乳幼児の突然死の解剖施行例における死亡原因の調査、解剖の有無により比較検討したリスク因子の解明、新生児科医に対するうつぶせ寝に関する意識調査、諸外国でのガイドラインの有無とその内容を調査すること、などにより我が国での現状を把握し診断のためのガイドライン作成のための基礎資料とした。また、我が国における新生児・乳幼児の突然死を巡る問題点を明らかにするために、最近の判例を抽出し、その特徴を解析するとともに、諸外国における裁判事例との比較検討を行った。さらには発症率軽減とその予防対策として、これまで世界各国で展開されてきた啓蒙活動の実態、指導母体、指導方法などについて実態調査し、我が国におけるそれと比較分析を行った。また、乳児期の呼吸中枢の成熟過程を解明することを目的として、無呼吸を呈する新生児や apparent life threatening events (ALTE) の患者に対してパルスオキシメータによる経時的な追跡を行うことにより、新たな予防法を確立するための基礎データとした。さらには各施設における家族支援状況を調査し、子どもを亡くした家族へのサポート・システムの確立に役立てる予定である。

【分担研究者】

坂上正道：人間総合科学大学学長
齋藤一之：埼玉医科大学医学部法医学教授
澤口聡子：東京女子医科大学医学部法医学助教授
高嶋幸男：国際医療福祉大学大学院教授
高津光洋：東京慈恵会医科大学医学部法医学教授
戸莉 創：名古屋市立大学大学院医学研究科・
 先天異常・新生児・小児医学分野教授
中山雅弘：大阪府立母子保健総合医療センター
 検査科部長
仁志田博司：東京女子医科大学母子総合医療
 センター新生児科教授
平林勝政：國學院大学法学部教授
藤田利治：国立保健医療科学院疫学部疫学情報室
 室長
的場梁次：大阪大学医学部法医学教授
宮坂勝之：国立成育医療センター手術集中治療部
 部長
横田俊平：横浜市立大学医学部小児科教授

【研究目的】

乳幼児突然死症候群 (SIDS) の発症率軽減は、「すこやか親子 21」の中でも取り上げられ、我が国が進める乳幼児の障害の予防、健康の保持増進対策の重要課題のひとつと位置付けられている。平成 10 年 6 月 1 日には、厚生省心身障害研究（乳幼児突然死症候群の育児環境因子に関する研究－保健婦による聞き取り調査結果）において明らかになった、うつぶせ寝、人工栄養、喫煙の 3 つの育児環境因子が高いリスクをもつことが発表され、厚生省指導型のキャンペーンが開始されている。キャンペーンは全国で展開され、毎年 11 月を SIDS 防止強化月間とするなど、本疾患名の普及啓蒙に効果を発揮している。一方で、死亡の瞬間が目撃されていないことで窒息や虐待などの事故死との境界が不鮮明であること、剖検を義務付けるなどの法的整備が十分でないこと、そして病因が特定されていないことなど、診断精度上の問題が社会に大きな影響を及ぼし、育児環境に一部混乱を

招いている。

これまでに、旧厚生省研究班、日本 SIDS 学会所属症例検討委員会、旧文部省科学研究などにて、乳幼児の突然死に対する診断のためのガイドラインが多角的に検討されてきたが、いずれも専門的な見識にたったものであり、一般国民のみならず医療関係者間における本疾患を理解する上での混乱の一因となっている。新生児・乳幼児の突然死の診断が全国レベルにおいて統一されていないため、新生児の突然死例の診断、解剖をしていない症例の診断、うつぶせ寝で死亡した新生児・乳幼児の診断、死因にならないまでの何らかの解剖学的所見を認める症例の診断、などにおいて混乱をきたしているのが現状である。これらの見解の相違が SIDS 関連の裁判事例の増加、鑑定・判決等での混乱を招いている。したがって、乳幼児突然死症候群の診断に関する統一されたガイドラインの作成が急務である。

一方、乳幼児突然死症候群の発症率軽減のためには、新生児・乳幼児の睡眠中における覚醒反応の病態生理を解明するとともに、学術的に覚醒反応の欠如の原因を追及することが必要である。また、本疾患を何らかの原因による呼吸停止に端を発する一連の病態ととらえ、発症のリスク因子を呼吸生理学的に検討することは重要な課題である。以上の点を踏まえて、我が国における新生児・乳幼児の突然死を巡る現状調査を施行し、諸外国との比較検討を行うことで、我が国における問題点を明らかにし最終的には診断のためのガイドラインの作成を目的とするとともに、SIDS 症例における生理学的、神経病理学的検討から病態解明を試みることで新たな予防対策を確立すること、さらには家族に対するサポート・システムを確立することを目的とする。

【研究方法】

本研究は主任研究者を含めて 13 人の研究者からなり、分担研究者はそれぞれの専門分野における研究課題について研究を行った。

主任研究者の坂上は、以下の分担研究の総括を行うとともに、最終的には乳幼児突然死症候群の診断のためのガイドラインを完成させ、乳幼児突然死症候群の発症率の軽減に関しての提言を行うものとする。

分担研究者の齋藤一之は、「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床法医学病理学的研究」を担当した。新生児・乳幼児の突然死例を対象として、死亡状況調査、肉眼的所見、組織学的所見、

生化学的所見などについて綿密な比較検討を行うこととし、特に本年度は死亡発見時の体位が剖検診断上どのような意義があるのかを検討した。分担研究者の澤口聡子は、「新生児・乳幼児の突然死裁判例及びガイドラインについての国際比較に関する研究」を担当した。乳幼児突然死症候群に関連する診断のためのガイドラインの有無、その内容についての国際比較を行うとともに、SIDS に関する訴訟問題の論点についての国際比較を行った。

分担研究者の高嶋幸男は「乳幼児突然死症候群の病態解明のため新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究」を担当した。SIDS における中枢神経系、特に脳幹での発達異常をまとめ、診断に役立つ所見を追求することを目的として、SIDS と診断された剖検例を神経病理学的に検索し、年齢一致の対照例と比較検討した。同様の方法で検索された報告を含めて検討し、SIDS の病態を追求した。

分担研究者の高津光洋は「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究」を担当した。新生児乳幼児の急死例について、死因の種類が外因子か、病死かを法医学的に診断するための具体的資料を得ることを目的として、慈恵医大法医学教室で解剖された新生児・乳幼児の剖検例について剖検所見のみならず、死亡児の病歴、死亡時の状況を含めて retrospective 及び prospective に分析を行ない、鑑別診断に役立つ資料を検索することを目的とした。初年度は剖検記録の中から 1 歳以下の新生児・乳幼児の死亡例の抽出を行った。

分担研究者の戸苅 創は「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する病態生理行動学的研究」を担当した。全国の新生児医療に携わる新生児科医に対して寝かせ方に関するアンケート調査を施行し、うつぶせ寝と SIDS、うつぶせ寝と窒息に関する考え方についての基礎資料の作成を行った。

分担研究者の中山雅弘は、「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床病理学的研究」を担当した。具体的には新生児突然死の病理学的検討と乳幼児突然死の剖検脳における ORP-150 の発現頻度についての免疫組織学的検討を行った。原因不明の早期新生児死亡例の剖検所見を検討することにより、突然死を診断するにあたり重要な因子の推測を行った。また、乳幼児突然死症候群と思われる事例についてストレス蛋白である ORP150 の大脳皮質および延髄における発現の違いを免疫組織学的に検討することで、SIDS 発症の際の低

酸素状態の有無についての検討を行った。

分担研究者の仁志田博司は「新生児・乳幼児の突然死の予防についての啓蒙活動の国際比較に関する研究」を担当した。具体的には、これまで世界各国で展開されてきた啓蒙活動の実態、指導母体、指導方法などについて世界10カ国で実態調査を実施し、我が国におけるそれと比較分析を行った。

分担研究者の平林勝政は「新生児・乳幼児の突然死例の診断についての法的環境の整備に関する研究」を担当した。法的環境整備のための基礎資料の作成を目的として、国内における SIDS 関連裁判事例において最近の動向および争点についての実態調査を行った。

分担研究者の藤田利治は「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する疫学的研究」を担当した。乳幼児の突然死について、人口動態調査を用いて、解剖により SIDS と診断された児と比較し、解剖によらない SIDS 診断の問題について検討を行った。さらに次年度の研究の基礎資料として、SIDS にかかわる診断の実態を解明するため、これまでわが国で実施された乳幼児突然死についての疫学調査を参考にして「乳幼児突然死例についての死体検案書（死亡診断書）の記載に関する実態調査」の研究計画書案を作成した。

分担研究者の的場梁次は「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する死亡経過ならびに死因調査方法についての研究」を担当した。1992 年から 2001 年までに大阪府監察医事務所において検案された 2 歳未満の事例 210 例について種々の統計的検討を行い、死亡時の状況およびその死亡原因を明らかにした。

分担研究者の宮坂勝之は「新生児・乳幼児の突然死リスク因子に関する呼吸生理学的研究」を担当した。新生児期に無呼吸を呈した既往のある児や Apparent Life Threatening Event (ALTE) 児は SIDS のハイリスク群としてみなされていたが、このようなハイリスクの新生児・乳幼児に対するホームモニタリングの方法は、いまだ確立されていない。本研究においては 5 名の SIDS のハイリスクと考えられる乳児に対して、パルスオキシメトリ用い、酸素飽和度の推移を経時的に観察し、フォローアップの指標としての有用性について検討した。

分担研究者の横田俊平は「乳幼児突然死症候群における小児科医の診断力向上と突然死例の家族支援に関する研究」を担当した。乳児突然死症候群は生後 2〜5 ヶ月の乳児に発症することから、

その対応は一般小児科医および小児救急指定機関の医師が行うことになる。また突然子どもを失った家族に対する対応手段についての方法はきわめて乏しい状況にあり、このため対応の遅れ、家族への支援不足からくる無用の混乱が生じている。これらの現状を踏まえて、小児科医に対する医療現場の精神的サポートに関する意識調査、および SIDS で愛児を亡くした家族へのアンケート調査により、精神的サポートの必要性の有無を探り、家族へのサポート・システムを確立していくための基礎資料を作成することを目的とした。

【研究結果】

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床法医病理学的研究」

1 歳未満に自験剖検例 51 例で生前の最終確認体位と死亡発見時の体位とを比較し、死亡前後で体位が異なっていた症例の剖検所見を詳細に検討した結果、体位が変換した症例は 29.4%であったが、いずれも剖検所見上、死因を説明できるような所見が認められなかった。これは未確定の症例においても同様であった。何らかの異常が生じた結果、体位変換が生じるのか、体位変換の結果、異常事態となるのか、病態生理学的な検討を含めた今後の検討が必要と考えられた。

「新生児・乳幼児の突然死裁判例及びガイドラインについての国際比較に関する研究」

SIDS に関して診断の手引き（診断指針）に相当するようなガイドラインを設けている国は少なかった。ガイドラインに変わるものとして、定義と標準化された剖検プロトコールあるいは死亡状況調査プロトコールに沿って診断を行っている国が多かった。これらの診断指針と日本における定義、診断の手引・提言との比較では年齢については国により相違が認められた。解剖施行していない例では SIDS では SIDS の診断をしない国がほとんどであった。うつぶせ寝と窒息との関連では固い寝具では窒息の可能性はないというのが各国での一致した見解であった。吐乳吸引による窒息の可能性については否定的であったが、多量の場合には可能性を否定できないことも考えられていた。SIDS 訴訟論点の国際比較の調査ではアメリカ、ニュージーランドでは SIDS か虐待か、オーストラリア、イギリスでは SIDS か他殺か、日本では SIDS か窒息か、が訴訟の論点となっており、ベルギーでは SIDS に関する訴訟は見られなかった。しかし、日本における SIDS 訴訟の論点

と類似の論点を取り上げられることがあることも判明した。

「乳幼児突然死症候群の病態解明のため新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究」

SIDS の脳では、皮質下白質軟化、脳幹のアストログリア増加、橋や延髄での Substance P 増加、延髄呼吸中枢の神経細胞樹状突起シナプスの未発達、延髄腹外側網様体や迷走神経背側核、弧束核における tyrosine hydroxylase (TH) 陽性細胞の減少、中脳中心灰白質における tryptophan hydroxylase (TrH) 陽性細胞の減少、抗セロトニン 1A レセプター (抗 5-HT_{1A}R) および抗セロトニン 2A レセプター (5-HT_{2A}R) 抗体陽性細胞の陽性の程度の増強、延髄腹外側網様体と迷走神経背側核、弧束核において抗 5-HT_{1A}R および 5-HT_{2A}R 抗体陽性細胞の陽性の程度が減弱など、子宮内での形成異常、慢性または反復性低酸素・虚血、呼吸循環調節中枢の発達遅滞、神経伝達の物質・受容体またはネットワークの発達異常、神経伝達の遺伝子の異常、心機能調節遺伝子の関与などを示唆する小さな病変が報告されていた。SIDS 剖検例での素因と外因の解明は必須であり、方法と論理を解決して、SIDS の本質を解明する必要があるとともに、SIDS の微小な異常所見の中から、診断に役立つ因子を追求する必要があると思われた。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究」

本学の剖検記録から 1 歳以下の新生児・乳幼児の死亡例を抽出したところ、現在までに対象として 323 例が抽出された。このうち明らかな外因死は 28% を占めていた。対象例では男児 194 例、女児 129 例で、年齢分布は生後 2 ヶ月にピークがあり 6 ヶ月未満が約 70% を占めていた。1 ヶ月未満は 20 例、1 歳児は 14% であった。次年度からはこれらの対象例および今後増加すると思われる症例に対して、病歴・死亡状況の情報収集、肉眼的所見、病理組織学的検査、ウイルス抗原の検査、血液生化学的検査、細菌学的検査、プロスタグランジン系の分析、DNA 解析の結果について鑑別診断の視点から有用なパラメータを検討する。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する病態生理行動学的研究」

全国の新生児医療に携わる新生児科医に対して寝かせ方に関するアンケート調査を施行した結

果、新生児科医の中で健康な新生児がうつぶせ寝により鼻口腔が閉塞して窒息する可能性があると考えるのは 24.0%、窒息はしないと考えるのが 72.0% であった。新生児科医としての経験年数が増えるほど窒息しないと考える率が高かった。うつぶせ寝による吐乳吸引窒息については 77.4% がその可能性はない、19.0% が可能性がある、遷延性低酸素状態からの窒息については 51.7% が回避できる、12.6% が窒息の可能性があると考えていた。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床病理学的研究」

分担研究者の施設において 1991-2000 年の 10 年間に病理解剖となった原因不明の早期新生児死亡例 21 例の剖検所見を検討した結果、病理解剖により死因の同定や手がかりを得られる症例が多いことがわかった。特に脳を含めた検索と詳細な病歴聴取、X 線検査、胎盤検査、細菌培養、尿検査、凍結検体の保存が診断の手がかりとなった。また、乳幼児突然死症候群と考えられる事例について、強い低酸素によって誘発されるストレス蛋白である ORP150 の発現の違いを免疫組織学的に検討し、低酸素状態の関与の有無をみた結果、乳幼児突然死症候群の多くが低酸素状態にあったことが示唆された。

「新生児・乳幼児の突然死の予防についての啓蒙活動の国際比較に関する研究」

予防キャンペーンはほとんどの国において行政および研究者と家族の会が関与して行われており、その開始はニュージーランドが 1987 年と最も早く、日本が 1995 年と最も遅かった。予防キャンペーンに含まれるリスク因子は、すべての国でうつぶせ寝が含まれているが、その他の因子は国によって異なっていた。何れに国においても、予防キャンペーンによって明らかな SIDS 発生頻度の減少を見る目覚ましい効果を上げていた。効果的な予防活動のためには行政および研究者と家族の会の三者がどのような役割をもって協力体制を作っていくかが重要と考えられた。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断についての法的環境の整備に関する研究」

我が国における乳幼児の突然死例 20 例 (昭和 54 年 - 平成 14 年) の判例を検討した結果、基本的には窒息か SIDS かで議論されていることが判明した。最近の判例では原告が勝訴の例が増えて来

たが、それが正しいかどうかは今後検討していく必要がある。SIDS の診断のガイドラインだけでなく、窒息の診断のガイドラインを明確にすることが必要と思われた。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する疫学的研究」

人口動態調査で把握可能な主な特性という限定はあるものの、1995-1998 年での SIDS の 1859 人においては、解剖の有無による特性には概して顕著な差異は認められなかった。また、これまで解剖割合が低いわが国での臨床診断に基づいた SIDS の関連要因の検討について疑念がもたれることもあったが、今回、わが国で初めて実施された解剖による SIDS 診断に限定した検討においても従来の報告と整合するリスク要因が報告された。また、乳幼児突然死についての死体検案書(死亡診断書)の実態を解明するための研究計画書を作成した。これをもとに SIDS にかかわる診断実態を明らかにし、実態を改善するためのガイドラインの作成が期待される。

「新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する死亡経過ならびに死因調査方法についての研究」

大阪府監察医事務所において 1992-2001 年の 2 歳未満の検案例 210 例について検討した。死因としては肺炎、窒息、SIDS がそれぞれ 3 分の 1 ずつあり、冬季に多く、夜半から朝方にかけて発症し、自宅で母親が起床時に発見することが多かった。体位については死亡時体位が普段の就身体位や最終生存確認時体位と異なり、うつぶせ寝が多く、鼻口腔が圧迫されているものが多いことが判明した。児側の要因としては、出生時に低体重であるものが多いことが認められた。

「新生児・乳幼児の突然死リスク因子に関する呼吸生理学的研究」

5 名の SIDS ハイリスクと考えられる乳児に対してパルスオキシメトリを用い、酸素飽和度の推移を観察した結果、酸素飽和度が 90% 未満を示す時間が全測定時間に占める割合 % desaturation time below 90 (%DT90) は、生後の週数とともに低下する傾向にあり、特に生後 9~10 週を境に著明に低下することがわかった。このことは、呼吸中枢の成熟の過程を考える上で重要であると思われた。

「乳幼児突然死症候群における小児科医の診断

力向上と突然死例の家族支援に関する研究」

救急指定病院などに勤務する小児科医に対して、乳幼児の突然死に遭遇した場合の対応の仕方などについてのアンケート調査を、また、SIDS で子どもを亡くした家族に対しては、児の病後にどう過ごし、どう思ったか、入院時のケア、失意から復帰できるためのサポート、退院時のケア、その後のケアの必要性についてなどのアンケート調査を実施した。その結果、精神的ストレスの始まる早期から精神的サポートを実施することにより家族のストレスの緩和が可能であることが示唆された。また、小児科医の側も小児科医とは別の何らかのサポート・システムの構築を望んでいることが判明した。

【考案】

欧米を中心にはじまった、うつ伏せ寝廃止キャンペーンが、疫学的には SIDS の発生頻度を低下させたことが知られている。しかし寝かせ方には様々な文化的社会的背景が関与するうえに、うつ伏せ寝自体の生理学的な検討が十分になされないままの現状で、原因論と混同される傾向もみられる。加えて、明確な病因が示されないことで、情報の正しい提供なしには徒に社会不安が助長されることもあり得る。諸外国においては乳幼児突然死症候群と虐待との異同が社会問題化する傾向を示しているが、現在、我が国においては乳幼児突然死症候群と窒息との異同が問題となっている。将来的には我が国においても SIDS と虐待との鑑別も社会問題化することが予測される。世界的にみても社会問題として共通した重要課題に対して、国内および諸外国の実態を詳細に検討するとともに、その病態に対して科学的学術的に検討することが必要である。このような状況を踏まえて、本研究事業により、現在我が国で発生している乳幼児突然死症候群を巡る混乱の現状を把握し、問題点を明らかにした上で、乳幼児突然死症候群の診断のためのガイドラインが作成されることにより、乳幼児突然死症候群、虐待、窒息をめぐる社会的混乱が解消されることが期待される。

新生児・乳幼児の突然死の発生機序の解明およびその予防を目的とした学術的研究は、世界各国のみならず我が国においても活発に行われている。しかし、未だ病態の解明には至っていない。本研究において、神経病理学的、呼吸循環生理学的研究から SIDS の病態に迫り、SIDS のリスク因子を明らかにすることで SIDS の発症率の軽減、乳児

死亡率の減少が期待され、我が国の将来にとって乳幼児の障害の予防と健康保持増進対策の一助となれば幸いである。

新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する臨床法医病理学的研究

分担研究者 齋藤一之（埼玉医科大学・教授）
研究協力者 高田綾（埼玉医科大学・助手）
小林雅彦（埼玉医科大学・講師）

A. 研究目的

新生児・乳幼児の突然死症例のほとんどは法医学領域の診断に委ねられている。ところで SIDS が死亡状況調査および詳細な剖検を含む除外的過程によって診断されるべきであることには異論がない。しかし、一方で現実の診断過程では、死亡状況調査の評価や剖検所見の判定をめぐって種々の議論があることも事実である。

今回の一連の研究では、新生児・乳幼児の剖検診断過程をより客観的で明快なものとするに資するため、法医学領域で経験され、集積されてきた自験症例について、2002 年時点での視点からあらためて評価をし直し、①除外できる既知の疾患・病態はないか、②診断上意義のある死亡状況調査結果はなにか、③SIDS を診断する上で注意すべき剖検所見はなにか、などを明らかにしたい。

B. 研究方法

本年度は、分担研究者および研究協力者が最近約 4 年間にみずから担当した乳児死亡例について、死亡状況調査、肉眼的所見、組織学的所見、生化学的所見などについて、資料を整理し、綿密な比較検討を行なうこととし、とくに、本年度は、死亡発見時の体位が、剖検診断上どのような意義があるのかを検討した。

検討の対象としたのは、1999 年 1 月 1 日～2002 年 3 月 31 日（3 年 3 ヶ月間）に埼玉医科大学法医学教室および東京都監察医務院で剖検した 1 歳未満の乳児急死例 51 例で、すべて自験例である。乳児月齢の内訳は表 1 に示す。

死因の診断は、原因不明の乳児急死ないし SIDS としたものが 86.3% で、器質的疾患およ

び外因死など explained death は 13.7%（心奇形 2 例、急性脳症 2 例、腸炎にもとづく脱水、扼頸後に浴槽内で溺水、布団をかぶせて押さえつけ各 1 例）であった。SIDS は、日本 SIDS 学会症例検討委員会が提示した「乳幼児突然死症例・診断の手引き」などを参考に除外的に診断した。

上記の対象症例について、①乳児の生前最終確認体位と異常発見時の体位、②仰向けからうつ伏せに体位変換していた乳児の月齢を調査した。

（倫理面での配慮）倫理上問題となるような研究は実施していない。

C. 研究結果

1) 乳児の生前最終確認体位と異常発見時の体位について（表 2）

51 症例のうち、死亡前後の体位が判明した症例は 76.5% で、そのうち、体位が変換していた症例が 29.4%、変換していなかった症例が 47.1% であった。体位が変換していた症例はすべて仰向けからうつ伏せになっていたもので、その逆（うつ伏せ→仰向け）はなかった。

詳細にみると、生前の最終確認体位が仰向けで、異常発見時の体位がうつ伏せとなっていた乳児（仰向け→うつ伏せ）は 15 例（29.4%）、最終確認体位が仰向けで、異常発見時体位も仰向けであった乳児（仰向け→仰向け）は 16 例（31.4%）、最終確認体位がうつ伏せで、異常発見時体位もうつ伏せであった乳児（うつ伏せ→うつ伏せ）は 8 例（15.7%）、その他・不詳が 12 例（23.5%）であった。また、外因死の 2 例は、その他・不詳に含まれている。

2) 仰向けからうつ伏せに体位変換していた乳児の月齢について (表3)

表3に示すように1ヶ月児から9ヶ月児にわたって体位変換がみられるが、5ヶ月以降が3分の2以上を占めている。一方で、3ヶ月未満の未頸定の症例が4例含まれていたほか、前日にはじめて寝返りをうった4ヶ月児1例がみられた。

体位変換例は、いずれも剖検所見上、死因を説明できるような所見がみとめられず、死因は不明であった。3ヶ月未満の未頸定症例についても同様である。

3) 症例提示

仰向け→うつ伏せに体位が変換して発見された症例の一部を提示する。

症例1. 1ヶ月24日, 女児.

正常妊娠. 帝王切開で娩出. 出生時体重2595g. その後の発育は順調で1ヶ月検診でもとくに異常を指摘されていない. 未頸定. 数日前からミルクを飲んだあと嘔吐するようになったが, 飲んだミルクの量は変わらない.

前日午後10時30分ころ, ベビーベッドに仰向けで寝かせた. 前々日からよく寝ていない様子で, 直前にも少しぐずっていたようだった. 午後11時30分ころはとくに変わりはなかった.

午前2時30分ころ, うつ伏せで呼吸をしていなかったため, 病院に救急搬送. CPAOA. 蘇生処置により, 一旦心拍再開したものの数時間後に再び心停止, 死亡確認された.

病院で行った頭部CTで異常なし, 胸部X線で右肋骨に陳旧性の骨折がみられたという.

なお, 数週間前にも仰向けからうつ伏せになっていたことがあったといい, それ以外にもよく反り返ったり, 足を突っ張ったり, 毛布を蹴って落としたりすることがあったらしい. また, 祖母の話では児の父親も生後1ヶ月位のとき, うつ伏せになった状態でベッドから落ちたことがあったという.

剖検所見: 身長55cm, 体重4850g (正常発育). 臍ヘルニアが目立つ. 急性循環不全の所見の所見がみられるほか, 死因となる器質的病変・重篤な奇形はない. 右6・7肋骨背側に仮骨形成を伴う陳旧性の骨折. これ以外には新旧

の外傷はない. 窒息を証明しうる客観的な所見がみられない. 胸腺(17g)の軽度の萎縮と組織学的に軽度のaccidental involution. 肝細胞のびまん性中〜小滴性脂肪変性.

症例2. 1ヶ月22日, 女児.

2卵性双生児の第2子. 帝王切開で娩出. 出生時体重1794g. 出生後約40日間入院していた. 1ヶ月検診時体重1955g. 退院時体重2385g. その後とくに異常はなかった. 未頸定. 寝返りもできない.

午前6時30分ころ, 母乳を与え, その後, ベビーベッドに仰向けに寝かせた. 午前9時30分ころ, 隣接する大人用ベッド(15cm低い)に移動してうつ伏せ状態で発見, 病院へ搬送したがCPAOAで, 蘇生処置に反応せず, 死亡確認された.

剖検所見: 身長48cm, 体重2700g. 軽度の臍ヘルニア. 急性循環不全の所見がみられるほか, 死因となる器質的病変・重篤な奇形はなく, 外傷がない. 窒息を証明しうる客観的な所見がみられない. 胸腺(12g)の萎縮はない.

なお, 双生児の兄弟は健存.

症例3. 4ヶ月, 男児.

正常妊娠, 正常分娩. 出生時体重3484g, 身長50cm. 健診(1ヶ月, 3ヶ月)で異常を指摘されていない.

当日, 母親が授乳後, 仰向けに寝かせ, 1時間ほど外出. 帰宅してうつ伏せで死亡状態の本屍を発見した. 病院搬送したがCPAOA, 心拍は再開したものの, 約1日後に死亡. 母の話では急変の前日にはじめて寝返りをうったという(足を交差させながら仰け反るように, 伸びをする感じで仰向けからうつ伏せになったとのこと. ニコニコ笑っているようだったという). 死亡前に感冒様症状なし.

剖検所見: 身長66cm, 体重8750g. 心停止・心拍再開後の所見がみられるほか, 特記すべき所見なし. 心停止の原因となりうる重大な器質的病変・奇形が認められない. 外傷もなく, 窒息を証明しうる客観的な所見もない.

D. 考察

かつて舟山らは, 東京都監察医務院の乳児急死例(1980~1990年)を調査し, SIDSと診

断された 132 例中、うつ伏せで発見された症例が 75 例 (56.8%) あり、そのうち、死亡前後で仰向けからうつ伏せに体位変換していた症例が 11 例 (15%) あることを報告した。また、SIDS 以外の急死例 130 例中にも同様の症例が 9 例みられ、乳児急死症例全体でいえば、約 7.6% が死亡前後に体位変換を生じたことを示し、体位変換例のなかには 3 ヶ月未満の症例が 5 例含まれていることも指摘している (日児誌 1993; 97: 1190-1198)。

今回の自験例の再検討でも、突然死の過程で同様の体位変換が起こりうることを、しかもそのような体位変換は首が据わる前の乳児にさえ起こりうることを確認することができたが、このような症例のすべてを状況調査の誤謬や保護者の詐称のみで片付けるのはきわめて困難であろう。なんらかの異常事態が発生して体位変換が生じるのか、体位変換の結果異常事態となるのか、病態生理学的な検討を含めた今後の

研究が必要と考えられる。

とくに、通常の寝具でうつ伏せによる窒息が生じうるのかはいまだ議論の帰趨が決していないし、そのような症例を剖検上どのようなプロセスで診断していったらよいのかについても意見の対立が大きいことを考えれば、今回のデータは示唆に富むものと思われる。

なお、本年度は、研究開始が年度の後半であり、症例の整理、比較検討が完全には終了しておらず、以上は中間報告的な段階にある。次年度以降さらに詳細な検討を継続する予定である。

G. 研究発表

1. 高田綾, 齋藤一之, 小林雅彦: 最終確認時と異常発見時との睡眠体位が異なっていた乳児急死例の検討. 法医学の実際と研究 2002; 45: 195-199.

表1. 対象症例(51例)の月齢

月齢	0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10
症例数	4	8	11	6	3	5	0	8	2	2	2

表2. 最終確認体位と異常発見時体位

最終確認体位	異常発見時体位	症例数
仰向け	うつ伏せ	15 (29.4%)
仰向け	仰向け	16 (31.4%)
うつ伏せ	うつ伏せ	8 (15.7%)
その他不詳		12 (23.5%)
合計		51 (100%)

表3. 仰向けからうつ伏せに体位変換して発見された乳児(15例)の月齢

月齢	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10
症例数	2	1	1	1	3	0	6	0	1	0

新生児・乳幼児の突然死裁判例およびガイドラインに関する国際比較
第一部 SIDS ガイドラインの国際比較

分担研究者 澤口聡子（東京女子医科大学医学部助教授）
研究協力者 澤口彰子（東京女子医科大学医学部教授）
分担施設 東京女子医科大学医学部法医学教室

研究要旨

各国において、SIDSに関して、診断の手引き（指針）に相当するようなガイドラインを設けている国は少ない。本来の意味でのガイドラインに変えて、定義と標準化された剖検プロトコルあるいは死亡状況調査プロトコルの2者あるいは3者をもって、SIDSの診断をすすめている国が多い。オーストラリアでは地域によって2種類の異なるガイドラインがあるが実際にどの程度使用されているかについては定かでない。フランスではSIDSは診断名ではないという見解から、ガイドラインの対象にならないとしている。実際の診断に関して諸問題が出現する為、ニュージーランドでは the NZ Child and Youth Mortality Review Committee がいつどんな場合にSIDSとラベルするかどうかに関してガイドラインに相当するものを設定中である。SIDSの診断に関するガイドラインは各国とも十分に整備されていないが、各国とも将来検討される可能性は存在する。

A. 研究目的

乳幼児突然死症候群(SIDS)に関する診断が困難な要素をはらんでいること、日本においてSIDSの診断が統一されていないことは、既に専門家間において周知のこととして認識されている。このような認識から、各専門家によって、SIDS診断の手引きあるいは提言がなされ、現在、厚生省研究班による乳幼児突然死症候群(SIDS)の診断の手引き、日本SIDS学会症例検討委員会による乳幼児突然死症例・診断の手引き、日本法医学会高津光洋らによる文部省科学研究費報告書における乳幼児突然死症候群(SIDS)の法医病理学的原則に関する提言の3者がある。これらは本来、SIDS診断の精度を統一化する目的で設けられたものであるが、平成12年度厚生科学研究（子ども家庭総合研究事業）乳幼児死亡率改善の為の研究（主任研究者澤口彰子）(1)において明らかにされたように、3者間に見解の相違が存在する。これらに見解の相違は、今後、SIDS関連の裁判事例の判決・鑑定等に影響

を及ぼし混乱を招くであろうことが予想される。

このような状況から、上記3者の調整作業に先駆けて、SIDSの診断指針あるいはガイドラインが、諸外国においてどのように整備されているかを調査することとなった。従って本調査は、日本におけるSIDSガイドラインを作成する場合の予備調査としての意味を持ち、日本におけるSIDS診断をめぐる見解の相違を調整する目的を持つ。

B. 研究方法

国際SIDS会議と場と時期を同じくして開催されるSIDS Global Strategy Task Force(GSTF)の参加国の各国代表に対して、以下の点に関する質問紙調査を施行した。

- (1) 各国におけるSIDSの診断の手引き・ガイドライン等の有無
- (2) 各国においてSIDSの診断が実際にはどのように行われているか
- (3) 日本における診断の手引き・提言等の間にある4つの相違点（年齢の取

り扱い・解剖の有無・うつぶせ寝における窒息の発生の取り扱い・吐乳吸引による窒息の発生の取り扱い)が各国ガイドラインにおいてどう取り扱われているか

C. 研究結果

カナダ(ケベック)・ニュージーランド・アメリカ(カリフォルニア)・オーストラリア・ベルギー・フランスの6か国の代表から返信があり、それらを要約すると下記の通りである。

(1) カナダ(ケベック)

- 1) SIDSの診断の手引き・ガイドライン等の有無 及び
- 2) SIDSの診断が実際にはどのように行われているか について

ガイドラインはただ一つ存在する。1990年以前には異なる部分のあるガイドラインが幾つか存在したが、現在では標準化されている。剖検はケベック州のいずれの地域においても100%施行されている。剖検は義務化され、剖検に際して両親の承諾は必要ない。ケベック州では、 coroner制度がとられているが、医師を coroner とすることとなっている。 coroner が剖検と死亡状況調査の施行を命令するが、 coroner は医師であるので剖検・死亡状況調査の双方とも信頼するに足る。定義としては NIH による1986年の定義を1歳という年齢制限をしない形で用いている。

- 3) 日本における診断の手引き・提言等の間にある4つの相違点(年齢の取り扱い・解剖の有無・うつぶせ寝における窒息の発生の取り扱い・吐乳吸引による窒息の発生の取り扱い)が各国ガイドラインにおいてどう取り扱われているか

年齢の取り扱いについては、新生児 SIDS に関しては1週未満を除く形で容認し、1歳以上2歳未満を含む。剖検率はほぼ100%であるので、解剖の有無は殆ど問題にならないが、解剖しない場合には絶対に

SIDS と診断しない。うつ伏せ寝は窒息の原因とならないが、柔らかい寝具で顔が埋もれた場合にはなり得る。吐乳吸引による窒息の発生の取り扱いについては、ミルクがいつどのように気道に入ったかによつてされ、死亡直前にミルクを吸引したのを目撃した者がいないかぎり吐乳吸引を窒息の原因とすることは無い。

(2) ニュージーランド

- 1) SIDSの診断の手引き・ガイドライン等の有無

現在は無し。The NZ Child and Youth Mortality Review Committee が、児がうつぶせ寝でみつかった時や成人と同じベッドにいた時等にはいつ SIDS と診断すべきかについてガイドラインを作成中である。

- 2) SIDSの診断が実際にはどのように行われているか

定義としては Standard ICD10 か WHO の定義を用いているが、 coroner により様々な解釈がある。ニュージーランドでは、 Bed sharing していた場合に accidental asphyxia と診断する、あるいは、十分な死亡状況調査や剖検がなされなかった場合に不詳と診断する等、 SIDS の診断をめぐる、 coroner や法医学病理学者間で極端なばらつきがある。2002年のフィレンツェにおける国際 SIDS 会議の後、 chief child health advisor から coroner に対して、適切な診断に関する勧告を行うことが計画されている。

- 3) 日本における診断の手引き・提言等の間にある4つの相違点(年齢の取り扱い・解剖の有無・うつぶせ寝における窒息の発生の取り扱い・吐乳吸引による窒息の発生の取り扱い)についてどう考えるか

年齢の取り扱いについては、新生児 SIDS 及び1歳以上2歳未満の SIDS を容認すべきである。剖検なしの場合 SIDS と診断すべきではない。うつ伏せ寝は他の因子と共に窒息の発生に関連するが、うつ伏せ寝単独で窒息の十分条件となることはない。柔

らかい寝具にうつ伏せ寝した場合においても何らかの換気の異常がある場合のみ窒息をおこし得る。吐乳吸引が窒息の原因となることはない。リスクファクターと原因とを混同すべきでないが、現時点では、リスクファクターの作用機作に関する十分な知識が得られていない。

(3) アメリカ (カリフォルニア)

1) SIDS の診断の手引き・ガイドライン等の有無

カリフォルニア州では、SIDS の診断には、解剖プロトコールと死亡状況調査プロトコールが使われていて、診断の手引き・ガイドラインに相当するものはない。

2) SIDS の診断が実際にはどのように行われているか

アメリカ全体としては、殆どの州で解剖が義務づけられているが、死亡状況調査について調和がとれているとは言い難く様々な論議がある。SIDS の定義 (Willinger 1991) については一般的に受け入れられているし、解剖プロトコールや死亡状況調査プロトコールも次第に使われるようになってきたが、診断の為にこれらをどのように生かしていくかについてのガイドラインはない。SIDS と疑われる事例に遭遇した場合、何を尋ねればいいのか、どの臓器の組織をとればいいのかは示されているが、何時 SIDS と診断すればいいのか、不詳・間質性肺炎・positional asphyxia など他の診断とどう鑑別するかについては何ら指示を与えるものではない。例えば、成人が赤ちゃんと一緒にベッドで眠っていた場合に、SIDS と判断するか overlaying と判断するか等の基準についてコンセンサスは得られていない。

3) 日本における診断の手引き・提言等の間にある 4 つの相違点 (年齢の取り扱い・解剖の有無・うつぶせ寝における窒息の発生の取り扱い・吐乳吸引による窒息の発生の取り扱い) についてどう考えるか

年齢の取り扱いについては、neonatal SIDS は容認するが、1 歳以上 2 歳未満については除外する。剖検していない場合は SIDS と診断しない。うつ伏せ寝における窒息の発生については、hard bedding の場合窒息にならないが、soft bedding の場合 10% で起こり得る。吐乳吸引による窒息の発生の取り扱いについては、その量の多い場合には窒息の原因となり得る。

(4) オーストラリア

1) SIDS の診断の手引き・ガイドライン等の有無

ガイドラインは 2 つ (South Australia のものと National Protocol) あるが、実際に使用されているかどうか、どのように使用されているかには疑問がある。National Protocol は、1992 年に Victorian Institute of Forensic Medicine により施行された。

2) SIDS の診断が実際にはどのように行われているか

定義としては、1991 年の NICHD の Willinger によるものが South Australia で用いられ、その他の地域では 1969 年の Beckwith によるものが用いられている。地方及び周辺地域では予期せぬ乳幼児突然死の解剖率は 65% 程度であり、剖検と死亡状況調査が適切に行われない事例もある。又、小児法医学病理学に関する専門家も不足している。

3) 日本における診断の手引き・提言等の間にある 4 つの相違点 (年齢の取り扱い・解剖の有無・うつぶせ寝における窒息の発生の取り扱い・吐乳吸引による窒息の発生の取り扱い) がガイドラインにおいてどう取り扱われているか

年齢の取り扱いについては、1 週以上 1 歳までとする。1 歳～2 歳は除外する。剖検なしに SIDS と診断することは認めない。うつ伏せ寝における窒息の発生については、固い寝具においては起こり得ないが、柔らかい寝具においては時々起こり得るとする。吐乳吸引におこる窒息の可能性については

否定的だが、その量が多い場合は可能性があるとするとする。

(4) ベルギー

ガイドラインは存在しない。定義としては、1991年のNICHDのWillingerによるものとする。

(5) フランス

ガイドラインは存在しない。SIDSは存在せず、診断の為の用語でもないので、ガイドラインの対象とならない。実際の診断に当たっては、剖検および死亡状況調査の双方について国際標準化プロトコールが用いられている。

D. 考察

各国において、SIDSに関して、診断の手引き（指針）に相当するようなガイドラインを設けている国は少ない。本来の意味でのガイドラインに変えて、定義と標準化された剖検プロトコールあるいは死亡状況調査プロトコールの2者あるいは3者をもって、SIDSの診断をすすめている国が多い。しかし、これらのみでは、実際の診断に際しての問題点に対処できないことから診断の手引きに相当するようなガイドラインの設定を望む傾向もある。この場合のガイドラインは、日本において既に設けられた診断の手引き・手引き等に比較し、死亡状況調査における内容を多く考慮したものである。日本においては、死亡状況調査に関する標準化は手つかずの状態にある。

日本において既に設けられた診断の手引き・提言間の相違については、以下の通りに考察する。年齢の取り扱いについては各国間で若干の相違がある。解剖の有無については、解剖なしの場合はSIDSと診断されないことで統一された。うつ伏せ寝と窒息との関連についてはやはり取り扱い及び意見の相違があるが、固い寝具では窒息の可能性はなく柔らかい寝具での可能性は否定できないとすることでほぼ調整できる。

又、日本におけるこの議論に関しては、リスクファクターとして把握すべきものを、原因として把握する議論設定に問題があるとする声もある。吐乳吸引と窒息との関連についても、若干の意見の相違があるが、多量の場合には可能性を否定できないということで調整可能のように思われる。

E. 結論

SIDSの診断に関するガイドラインは各国とも十分に整備されていないが、各国とも将来検討される可能性は存在する。

文献

- (1) Sawaguchi T, Sawaguchi A, Matoba R. Comparative evaluation of diagnostic guidelines for sudden infant death syndrome (SIDS) in Japan. *Forensic Sci Int.* 130S:65-70,2002.

新生児・乳幼児の突然死裁判例およびガイドラインに関する国際比較
第二部 SIDS 訴訟の国際比較

分担研究者 澤口聡子
研究協力者 澤口彰子
分担施設 東京女子医科大学医学部法医学教室

研究要旨

日本の SIDS 訴訟に類似した論点が、カナダではしばしば訴訟化され、アメリカにおいても民事訴訟として類似の論点がとりあげられることがあることが判明した。又、諸外国において、SIDS か虐待（殺人）かを問う裁判であっても、最終的な論点が SIDS か窒息かに収束する裁判例も相当数存在することが推測された。

A. 研究目的

日本における乳幼児突然死症候群(SIDS)の訴訟の展開は、欧米に比較して特殊であるのではないかという指摘がある。これは、日本における SIDS 訴訟事例の多くは欧米でみることのできないものであり、日本においては特に窒息と SIDS との異動をめぐって社会問題に発展する事例が急増しつつあることを憂慮する意見である(1)。この意見を受けて、1999年度の厚生科学研究（子ども家庭総合研究事業）乳幼児死亡率改善のための研究（主任研究者澤口彰子）において、SIDS 訴訟の日米比較が行われた(2)。その結果、日米における SIDS 訴訟の傾向には明らかな差があり、日本では保育所や病院において SIDS か窒息かを争点とし、家族が原告となり保育所や病院を被告とする事例が殆どであるのに対し、アメリカでは州が原告となり家族やベビーシッターを被告として家庭での虐待か SIDS かを争点とする事例が殆どであった(3)。

本研究においては、日米に焦点をあてた上記の調査の対象を更に拡大し、アメリカのみならず複数の世界各国の SIDS 訴訟の論点を把握することを目的とした。

B. 研究方法

外国判例データベース”Lexis”日本の判例データベース”判例体系””判例マスター”を用い、キーワードとして”SIDS”を利用して

判例を抽出し、抽出した判例について、国別に訴訟の論点を抽出した。

世界各国（国際 SIDS 学会における Global Strategy Task Force 参加国）の代表に対して、SIDS 訴訟の論点に関するアンケートを行い、国別に訴訟の論点を抽出した。

C. 研究結果

調査の結果、各国における SIDS 訴訟における論点は、下記の通りであった。

(1) 日本においては、SIDS か窒息かを論点とする SIDS 訴訟が大半であった。この場合、窒息と法的に判断された場合には、病院・保育機関における業務上過失致死が問われることになる。

(2) アメリカにおいては、判例データベースから抽出された裁判例については、SIDS か虐待かを論点とする SIDS 訴訟が大半であった。この場合、虐待と法的に判断された場合には、家族やベビーシッターの殺人罪が問われることになる。しかし、判例データベースに登録されない裁判例を考慮すると、アメリカにおける SIDS 訴訟は、次の4つに大別されるという。1) コロナーが家族が誤っていると疑うような死因を与えた場合で、コロナーは診断を変えるように訴えられる。この場合民事訴訟となり、家族が原告であり、コロナ

一が被告となる。このような裁判例では、家族は SIDS についてよく教育されており、自分の子供は SIDS で死亡したと信じている。2) 両親は通常児を背臥位で保育管理しているにも関わらず、ベビーシッターやナースリーの保育関係者がうつ伏せ寝にしたような事例で、民事訴訟となり、家族が原告、保育者が被告となる。3) 医師の過失が問われる場合で、家族は医師がなすべき治療を怠った為に児が死亡したと考え、家族が民事訴訟の原告に、小児科医が被告となる。このような裁判例では、児がコロナーによって SIDS と診断されると、家族は他の原因によるのではないかと考え、児が SIDS でないと診断されると医師は SIDS であると考えられる場合が多い。4) 児が虐待により死亡したと診断された事例で、家族が死因は SIDS であるとして訴訟をおこす場合で、通常刑事訴訟となり、両親に対して Infanticide が問われる。このような事例では、州の検察官に対して、家族が被告となる。判例データベースに登録されているのはこの型の事例である。

- (3) ニュージーランドにおいては、アメリカの判例データベース上の裁判例と同様に、SIDS か虐待かを論点とする SIDS 訴訟が大半である。
- (4) オーストラリアにおいては、SIDS か殺人かを論点とする場合、訴訟化する。
- (5) イギリスにおいては、Infanticide Act が存在する為、SIDS 訴訟においては SIDS か Infanticide が訴訟の論点となり、虐待が関与する場合もある。
- (6) ベルギーにおいては、最近 10 年間 SIDS 訴訟は行われていない。
- (7) カナダにおいては、SIDS か虐待かが主たる論点となる訴訟は存在するが、少数である。殆どの SIDS 訴訟において、児の保育管理の上で、通常の睡眠体位と異なるにもかかわらず

ず、児をうつぶせ寝にしたかどうか、論点となる。

D. 考察

本調査を 1999 年に初めて施行した時点では、判例データベースに登録された日米の裁判例のみに頼って解析を行い比較した。この為、日本では SIDS と窒息、アメリカでは SIDS と虐待と、訴訟の論点が異なり、日本の SIDS 訴訟が特殊な傾向を示しているのではないかと危惧された(3)。

今回は、判例データベースの解析と平行して、各国の SIDS の専門家に対する質問調査を施行したところ、日本の SIDS 訴訟に類似した論点が、カナダではしばしば訴訟化され、アメリカにおいても民事訴訟として類似の論点がとりあげられることがあることが判明した。しかし、アメリカにおいて医師や児の保育管理者の過失を問う訴訟は民事訴訟に限られているのに対し、日本においてはそれらが刑事訴訟化する事があり、この点に相違と問題とがある。また、SIDS 訴訟の論点が、SIDS か殺人あるいは Infanticide かにあるオーストラリア・ニュージーランド・イギリスでは刑事訴訟が大半を占めることが推測される。次年度以降の調査において、各国の SIDS 訴訟における民事訴訟と刑事訴訟の割合とその各々に対する論点を把握することが必要と思われる。また、訴訟展開において、類似の論点でありながら、若干の相違があるように思われ、この点も次年度以降の課題としたい。

最近、イギリスにおいて社会的に有名となった SIDS 訴訟がある。3 年前 2 人の子供に対する殺人の罪を問われ刑務所に収容された Sally Clark という弁護士が上告判決によって釈放されたのである。最初の子供の死亡は内務省に登録された病理医によって SIDS と報告された。2 年後 2 番目の子供が死亡した時、この病理医は虐待の可能性があると、最初の子供も 2 番目の子供も窒息であるとした。ある法医学の教授が、この事例では網膜出血が認められるので虐待の可能性が高いとしたが、後日この網膜出血は別事例のスライドに発見されたとして最初の報告を取り消した。別の小児科の教授は、二人の子供が SIDS でなくな

る確率は、73000000分の1と報告し、殺人説を支持した。最近、やはり弁護士である被告の夫が、最初の病理医が2番目の子供の髄液及び他の組織に、*Staphylococcus Aureus*が存在するという微生物学の報告書を隠していたことをつきとめ、被告は釈放された。この事例におけるように、諸外国において、SIDSか虐待（殺人）かを問う裁判であっても、最終的な論点がSIDSか窒息かに収束する裁判例も相当数存在することが推測される。

E. 結論

日本におけるSIDS訴訟の論点が、他外国においてもSIDS訴訟の論点となることはあるが、その訴訟形態や訴訟展開における相違を今後解析すべきである。

文献

- 1) 戸苅創、加藤稲子、斎藤紀子. SIDS近縁疾患：ALTE, SAS, 窒息. 小児科診療、3:347-351,2000.
- 2) 澤口聡子、仁志田博司、加藤久雄、福井ステファニー. SIDS関連裁判の日米比較—アメリカにおける判例の動向. 平成11年度厚生科学研究（子ども家庭総合研究事業）報告書. 主任研究者澤口彰子“乳幼児死亡率改善のための研究” pp.470-472.
- 3) T.Sawaguchi, H.Nishida, H.Kato, S.Fukui, A.Sawaguchi. Comparison between SIDS-related court cases in the United States and Japan—a trend seen in legal precedents in the United States. *Forensic Sci Int* 130S:104-108,2002.

新生児・乳幼児の突然死例の診断に関する神経病理学的研究

分担研究者 高嶋幸男 国際医療福祉大学大学院教授
研究協力者 小沢愉理 東邦大学医学部新生児科

研究要旨

SIDS 例には微小な異常として、子宮内での形成異常、慢性又は反復性低酸素・虚血、呼吸循環調節中枢の発達遅滞、神経伝達の物質・受容体又はネットワークの発達異常、神経伝達の遺伝子の異常、心機能調節遺伝子の関与などが報告されている。SIDS 剖検例での素因と外因の解明は必須であり、方法と倫理を解決して、SIDS の本質を解明する必要があると共に、SIDS の微小な異常所見の中から、診断に役立つ因子を追求する必要がある。

A. 研究目的

乳幼児突然死症候群 (SIDS) は 6 ヶ月以下、特に 2-4 カ月の乳児の睡眠中に起こることが多いという特徴をもっている。このことは睡眠中の呼吸循環の調節にかかわる中枢の発達機構に決定的な発生機序があることを示唆している。SIDS の中枢神経系、特に脳幹を発達的に検索した研究は多く、SIDS における発達異常をまとめ、診断に役立つ所見を追求する。

B. 研究対象と方法

SIDS と診断された剖検例を神経病理学的に検索し、年齢一致の対照例と比較検討した。同様の方法で検索された報告を含めて検討し、SIDS の病態を追求した。

C. 結果と考察

SIDS の脳には、小さな病変が認められることがある。肉眼的には皮質下白質軟化が重要である。皮質下白質軟化とは髄鞘形成過程にある生後数ヶ月の脳の大脳皮質直下の白質に生じる限局性の軟化巣である。主要大脳動脈の灌流境界領域に認められる。この病巣の組織反応や好発部位は死亡前に生じたものであり、死亡前に脳低灌流があ

ったことを示唆する[1]。

SIDS では脳幹にアストログリアの増加を認め、とくに延髄網様体、迷走神経背側核および弧束核に強く認められ[2]、その成因は慢性あるいは反復性低灌流による結果と考えられるが、一方呼吸循環中枢の機能にも影響している可能性がある。また、うつ伏せ寝と仰向け寝ともに 50% の SIDS 例がグリオーシスを認め、体位による差は認められなかった。

サブスタンス P (SP) は呼吸神経細胞の膜を脱分極させ、低酸素で増加する。SP は SIDS の橋や延髄で増加しており[3, 4]、橋における SP の増加とグリオーシスは上位の呼吸調節中枢の機能異常に関係している。

胎児期から乳児期にかけて延髄呼吸中枢のニューロンの正常発達と SIDS 例とを比較すると、正常対照例において延髄呼吸中枢の神経樹状突起が生後急速に減少したのに対し、SIDS の大部分ではスパイン数の減少が少なかった[5]。SIDS 延髄呼吸中枢の神経細胞樹状突起シナプスが未発達であり、呼吸神経調節の発達遅延が示唆されている。慢性低酸素症の結果か原因かは不明であるが、突然死の発生機転となんらかの

かわりがあると考えられる。一方、頸髄前核および後核ニューロンの樹状突起に関して、正常発達と SIDS 例とを比較すると差は認められなかった。以上のことから考えると、SIDS では呼吸中枢の遠心側より求心側に異常があると考えられる。

カテコラミンの合成酵素である tyrosine hydroxylase (TH) を免疫組織化学的に染色すると、胎生 20 週頃までにカテコラミンニューロンが形成され、延髄では延髄腹外側網様体から迷走神経弧束核、背側核にかけてカテコラミンニューロンが分布しているのが認められる。これは延髄腹外側中枢性化学受容器から迷走神経弧束核、背側核への神経伝達の役割を果たしていると考えられる。SIDS では延髄腹外側網様体や迷走神経背側核、弧束核において陽性細胞が少なく、陽性の程度が軽い例が多かった[6]。うつ伏せ寝と仰向け寝ともに 70-80% の SIDS 例の TH 陽性度が低下しており、有意差は認められなかった。また、2ヶ月以後の SIDS の基底核において TH 陽性線維の発現が減少していたという報告もあり、より上位中枢の異常も示唆された[7]。

延髄腹外側網様体のカテコラミンニューロンの樹状突起スパイン数を、正常発達と SIDS 例とで比較すると、SIDS では多くの例で減少が小さく、未熟さが持続していた[8]。この部のニューロンの発達遅滞は SIDS の神経性呼吸支配、呼吸調節および覚醒反応などの睡眠覚醒機構と関連していると考えられ、SIDS 脳幹の神経伝達機構の発達と関連し、突然死の発生機構に関与していると思われる。

セロトニンは各種の生理機能に影響を与えているが、発達期のシナプス形成や維持機能、呼吸循環調節や睡眠覚醒反応等に大きく関与している[9]。セロトニンの合成酵素である tryptophan hydroxylase (TrH) は免疫組織化学では、脳幹の縫線核を中心に胎児早期から染色される。SIDS では、中脳を中心灰白質において tryptophane hydroxylase 陽性細胞が減少している例が有意に多かった[10]。

セロトニンの活動はレセプターを介して行われ、抗セロトニン 1A レセプター (5-HT1AR)、抗セロトニン 2A レセプター (5-HT2AR) は重要なレセプターと考えられている。5-HT1AR は autoreceptor としてセロトニン神経に対して抑制的に作用するほか、抗セロトニン 2A レセプター (5-HT2AR) と相互的に呼吸循環調節、他の神経伝達物質の調節、睡眠覚醒反応、体温調節等に作用する[11]。免疫組織化学的には、抗 5-HT1AR および 5-HT2AR 抗体陽性細胞は、胎児期に中脳中心灰白質や延髄腹外側網様体等に最も強く認められ、発達と共に陽性の程度が低下した。出生後、抗 5-HT1AR および 5-HT2AR 抗体陽性細胞の陽性度に変化は認められなかった。SIDS の中脳中心灰白質では、抗 5-HT1AR および 5-HT2AR 抗体陽性細胞の陽性の程度の強い例が有意に多かった[12]。中脳中心灰白質も延髄呼吸調節の上位中枢として関連するとともに防御反応として重要であり、SIDS の死亡前の自律神経異常と関連している可能性がある。また、SIDS の延髄腹外側網様体と迷走神経背側核、弧束核において、抗 5-HT1AR および 5-HT2AR 抗体陽性細胞の陽性の程度の弱い例が有意に多かった[12]。慢性的低酸素または虚血性変化の結果であるとともに、呼吸循環中枢機能に影響していると考えられた。SIDS では、延髄呼吸循環中枢では機能低下であるのに対し、中脳中心灰白質では機能亢進の状態にある例が多く、より上位中枢からの調節機構に異常があると考えられた。しかし、5-HT1AR、5-HT2AR の発達に伴う変化を考慮すると、中脳中心灰白質における染色性の増加は未熟性を示唆する所見とも考えられた。

これらの他に、神経伝達受容体や遺伝子、心機能調節遺伝子の関与が報告されている(表1)。

D. 結論

SIDS 剖検例での素因と外因の解明は必須であり、方法と倫理を解決して、SIDS の