

訴訟化されることから、カナダを調査対象国とした。これは、SIDS か窒息かという争点がカナダでの訴訟過程においてどのように取り扱われるかについて、日本の SIDS 訴訟過程と比較するという目的による。次に、前記調査の結果、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 かが訴訟の論点となることから、イギリスを調査対象国とした。これは、日本において SIDS の診断を適正に行う為に、解剖をめぐる法環境の整備が必要であることが提唱されている(2,6)が、イギリスにおける Infanticide Act という法律の存在が SIDS 訴訟の過程にどのように影響を与えているかについてを検討するという目的による。

B. 研究方法

外国判例データベース”Lexis”を用い、カナダ及びイギリスの判例データベースについて、キーワードとして”Sudden Infant Death Syndrome(SIDS)”を用いて裁判例を抽出し、抽出した判例について、刑事・民事の別、担当裁判所の別、原告と被告が誰か、訴えの内容、訴訟の論点、判決とその内容、判決年を中心として解析した。

C. 研究結果

カナダにおける刑事裁判例 7 例・民事裁判例 5 例・Family Law に基づいて児の保護を求める裁判例 13 例、及び、イギリスにおける刑事裁判例 4 例・民事裁判例 5 例・Family Division における裁判例 1 例が抽出された。これらの判例に関する刑事・民事の別、担当裁判所の別、原告と被告が誰か、訴えの内容、訴訟の論点、判決とその内容、判決年を中心とした裁判例の要約を以下に示す。

カナダ刑事裁判例

- (1)Her Majesty Queen が実父を manslaughter として訴えた裁判例。SIDS か性的虐待かが問題となり、父親が乳児をペニスの口内挿入によって窒息死させた。Appeal allowed(Ontario Court of Appeal) 2001
- (2)Her Majesty Queen が実父を manslaughter として訴えた裁判例。Nursing supervisor は SIDS としたが、頭蓋骨折があり、SIDS か虐待かが問われた。Appeal allowed(Newfoundland Court of Appeal) 2000
- (3)Her Majesty Queen が実父を manslaughter として訴えた裁判例。SIDS か窒息か虐待か

(Shaken Baby Syndrome) が問われた。Appeal allowed(Manitoba Court of Appeal) 2000

- (4)Her Majesty Queen が実父を manslaughter として訴えた裁判例。SIDS で死亡した児の親にポリグラフをかけたが実証できなかった。Application dismissed(Saskatchewan Queen’s Bench) 1998

- (5)Her Majesty Queen が実父の criminal negligence を訴えた裁判例。窒息か SIDS かが問われたが、父親は良い父親で一般的にみられるような虐待家庭ではない。剖検により脳浮腫が認められたが、脳浮腫は死亡経過が遷延したことを示すとされた (by Prof.Feris)。Application dismissed(Ontario Court General Division)1997

- (6)Her Majesty Queen が実母を murder として訴えた裁判例。SIDS か asphyxia かが問われた。Pathologist は SIDS と診断したが、柔らかな枕を児の顔におしつけ、肋骨及び四肢骨の骨折が認められた。Application allowed(Ontario Court General Division) 1997

- (7)Her Majesty Queen が実父を manslaughter として訴えた裁判例。医者証言として未熟児に SIDS が多いという発言があった。Appeal allowed(Ontario Court of Appeal) 1989

カナダ民事裁判例

- (1)実父が Her Majesty Queen に先天奇形の子供の家庭での介護費用の支払いを求めた。子供は SIDS であると主張した。Appeal dismissed(Federal Court of Appeal) 2000

- (2)実父母が University Alberta Hospital を Negligence of Standard Care を理由に訴えた。SIDS か虐待かが問われるような事例で、児にはくも膜下出血が認められ shaken baby syndrome が疑われたが、実父の abuse の証拠がなかった。Application dismissed(Alberta Court of Queen’s Bench) 1997

- (3)実父が双生児の一人が SIDS で死亡したことの悲嘆から航空会社を退職したが復職時に降格されたことを不服として、航空会社を訴えた。調停成立(Ontario Court Provincial Division)1996

- (4)SIDS で児をなくした実父が、未熟児であるという SIDS のリスクを明言しなかった為に保険金が得られなかったことを不服として、保険会社に対して訴訟をおこした。Appeal dismissed(British Columbia Supreme Court)1988

- (5)SIDS で児をなくした実父が、保険金の支払いをうけられなかったとして、保険会社に対

して訴訟をおこした。Application dismissed(New Brunswick County Court)1977

カナダ Family law(児の保護を求めるもの)に基づく裁判例

(1)実父が、児を虐待する drug abuse の実母に対して、実父による児の保護を要求した裁判例。裁判において、母親の toxic level と SIDS との関連があることに言及。Application granted(Saskatchewan Court of Queen's Bench Family Law Division) 2001

(2)Children's Aid Society が虐待する実父母から子供を分離し子供を保護することを求めた事例。第1子が SIDS で死亡。Agency による永久的な保護が認められた(Nova Scotia Family Court) 2000

(3)Child and Family Service が薬物投与する等の虐待を行う実父母から児を分離し施設に保護することを求めた事例。他の兄弟の死亡は SIDS でなく undetermined であった。児の保護と Child and Family Service による permanent guardianship が認められた(Minnesota Court of Queen's Bench Family Division) 1998

(4)Children's Aid Society が双生児の一人が SIDS, 一人が虐待という家庭の実父母に対して、子供の保護を求めた事例。児は Society の監督下に両親の元にもどされた。Application allowed(Ontario Court General Division) 1996

(5)Children's Aid Society が、児の一人が first autopsy で SIDS, second autopsy で骨折の存在により non-accidental とされた実父母からの子供の保護を求めた事例。Application allowed(Ontario Court Provincial Division) 1996

(6)実父が cocaine addict の実母を、子供の保護と子供とのアクセスを求めて訴えた事例。児は大伯父と大伯母が保護し、実父は子供への自由なアクセスが認められた。実母の腹違いの兄が SIDS を経験した。(Ontario Court Provincial Division)1995

(7)実母が実父と彼の新しいパートナーに対して子供の保護を求めた事例。兄弟が SIDS で死亡。Application allowed(Ontario Court General Division)1994

(8)実母が実父と Office of Public Trustee に対して子供の保護を求めた事例。祖母が SIDS について知識があったかどうかの問題となった。Application dismissed(British Columbia Supreme Court) 1991

(9)実母が実父に対して子供の保護を求めた事例。継兄弟が SIDS で死亡。父が保護し週に2

5ドル支払うこととなる。Application dismissed(Ontario Provincial Court Family Division) 1986

(10)Children's Aid Society が実母と common law husband に対して子供の保護を要請した事例。Neglect はあるが Physical Abuse の明らかな所見はない。SIDS のリスクは高いとされた。Children's Aid Society の permanent order of guardianship が認められる。Application allowed(Manitoba Court of Queen's Bench Family Division) 1985

(11)Superintendent of Family and Child Service が薬中毒で刑事事件にまきこまれている実母に対して児の一時保護を要請した事例。児は neonatal drug withdrawal syndrome で SIDS のリスクも高い。Family & Child Service による一時保護が認められその後で application dismissed となった(British Columbia County Court)1985

(12)実父が実母に対して4人の子供の宗教コミュニティからの脱出と子供の保護を要請した事例。4人の子供の一人が SIDS で死亡。上の二人の子供が父親と住むことに同意した。Application granted(Ontario Provincial Court Family Division)1983

(13)Children's Aid Society が実父母に対して、最初の子供の死後、他の子供に対する後見を申し出た事例。最初の子供は SIDS か虐待(shaken baby syndrome)か問題視された。一時的保護が認められた。Ontario Court General Division Family Court) 1997

イギリス刑事裁判例

(1)2人の子の死亡により、実母(Sally Clerk)が殺人として起訴、逮捕、後日鑑定が不適切として釈放された。(Court of Appeal) 2000

(2)児が SIDS か asphyxia に続発する肺炎及び気管支肺炎で死亡したか問題視され、another inquest が要請された。(Queen's Bench Division Crown Office List, Coroner's Act)1991

(3)5人の子の一人が気管支肺炎を伴う SIDS でありこの子は生まれて当初から local authority care に入院しており実母が会うことができなかった。児へのアクセスを希望したが認められなかった。(Queen's Bench Division Crown Office List)1988

(4)児の死因が SIDS か殺人か問題視された実父母が London Hospital Medical College を剖検標本が他の患者のものと混じりあったと主張し、訴えた。Appeal dismissed(Queen's Bench

Division)1980

イギリス民事裁判例

(1)児の死亡について SIDS か実母による abuse か問題視された事例。実母が、児の死亡に際して NHS の medical negligence を主張。Appeal allowed(Court of Appeal)1998

(2)実父母が子供を実父母にもどすよう主張した事例。姉妹が SIDS で死亡。Appeal dismissed(Court of Appeal) 1995

(3)実父母が児への nonaccidental injury(rib fracture)の疑いで逮捕、後日父親が parenting を要請。児が SIDS か non accidental death か問題視された。Appeal allowed.(Court of Appeal)1992

(4)児の両親等が DHSS を被告として、ワクチンが脳障害をおこすことに関して訴訟を提起した。DTP ワクチンと SIDS との関係が問題視された。DHSS is protected.(Queen's Bench Division) 1988

(5)両親が another inquest を要請した。1～3番目の子供は全て8週以内に死亡。4番目の子供は6か月まで入院し健康であったが、退院後14日で死亡。この死亡原因について、SIDSと主張する pathologist と suffocation と主張する pathologist が出現した。虐待の後はない。Coroner は open verdict を宣言し、new inquest が要請された (Queen's Bench Division)1986

イギリス Family Division 裁判例

(1)児の一人が SIDS、別の一人が母親による suffocation とされた実母が、カルテの開示請求を行い、認められた(Family division)1991

上記要約を、更に解析したものを以下に示す。カナダにおける刑事裁判例7例においては、上訴例が4例、原告は全例が Her Majesty Queen で被告は実父が6例実母が1例、実父を Manslaughter として訴えた例が5例、実父の criminal negligence を訴えた例が1例、実母を murder として訴えた例が1例であった。

訴訟の論点は、SIDS か虐待かを問われた例が2例でそのうち1例は性的虐待、SIDS か窒息かを問われた例が2例、SIDS か窒息か虐待かを問われた例が1例、SIDS か manslaughter かを問われた例が1例であった。

ここで、SIDS か虐待かを問われた2例及び SIDS か虐待か窒息かを問われた1例、及び SIDS か窒息かを問われた1例においては、明らかに虐待の疑われる家庭であることが明ら

かであったり、肋骨・頭蓋骨・四肢骨の骨折が存在する等の所見によって虐待であることが明らかであった。上訴例4例は全て訴えが認められた。SIDS か虐待かを問われた2例、SIDS か虐待か窒息かを問われた1例、SIDS か窒息かを問われた1例で骨折所見の存在する例は全て、訴えが認められた。窒息か SIDS かを疑われた1例で、父親は一般的にみて良い父親であり明らかな虐待家庭と思われない1例においては、剖検により脳浮腫が存在し、法医病理学者が脳浮腫の存在は死亡経過が遷延することを示す為突然死とはいえない旨を述べているが、訴え(実父の criminal negligence)は退けられた。これらは、1989年の判決が1例、1997年の判決が2例、1998年の判決が1例、2000年の判決が2例、2001年の判決が1例と、1例を除き過去10年以内に判決の得られた裁判例であった。

カナダにおける民事裁判例5例においては、上訴例が2例であった。原告は全例において児の実父あるいは実父母であり、被告は、Her Majesty Queen が一例、University Alberta Hospital が一例、実父の雇用主である航空会社が一例、保険会社が2例であった。訴訟の論点として、児が SIDS であると主張して子供の介護費用の支払いを求めたものが1例、児が SIDS であると主張して保険金の支払いを求めたものが2例があり、これらにおいては全て訴えが退けられたが、実父が児の SIDS による死亡からの悲嘆で休職し復職した際の降格を不服とする1例では調停が成立した。その他に、実父母が病院を Negligence of Standard Care を理由に訴えた一例では、児にくも膜下出血がみとめられ shaken baby syndrome が疑われたにもかかわらず、実父の abuse の証拠はなく、SIDS か虐待かが争点となったが、訴えは退けられた。これら5例の判決年は、1977年・1988年・1996年・1997年・2000年に各1例づつであった。

カナダにおける Family Law に基づき児の保護を求める裁判例13例においては、Family Law Division で行われた例が7例、General Division で行われた例が2例、County Court で行われた例が1例、Provincial Division で行われた例が2例、Supreme Court で行われた例が1例であった。13例の内訳は、Children's Aid Society あるいは Child and Family Service のような組織が、実母あるいは実父母あるいは common law husband に対して、子供を彼等か

ら引き離し保護することを求めた裁判例が7例、実父が実母に対して実母からの子供の分離と保護を求めた裁判例が3例、実母が実父等に対して子供の保護を求めた裁判例が3例である。これら13例には、実母が薬毒物中毒であるものが3例、兄弟あるいはその家系の誰かが SIDS で死亡しているものが7例あるいは SIDS との関連が疑われたものが3例、虐待の関与するものが6例含まれていた。13例の内、このような保護の訴えが認められたものが11例、認められなかったものは2例であり、認められなかったものは実母が実父に対して子供の保護を求めた2例であった。これら13例の判決年は、1983年に1例、1985年に2例、1986年・1994年・1995年に各1例ずつ、1996年に2例、1998年・2000年・2001年に各1例ずつであった。

イギリスにおける4例の刑事裁判例においては上訴例が1例、Coroner's Inquest が一例含まれていた。上訴例は、弁護士である実母 Sally Clerk を被告とし、実母による殺人として起訴、逮捕、投獄後、後日鑑定が不適切として実母は釈放された。この訴訟例はイギリスにおいて社会的に有名となった SIDS 訴訟であり、SIDS か Infanticide かを論争の争点とするものであり、2000年から2003年にかけて争われた。1991年の Coroner's Inquest においては、児が SIDS か asphyxia に続発する肺炎で死亡したかが争点となり、another inquest が要請された。他の2例は、1988年に実母が local authority care に対して児へのアクセスを希望して認められなかった例と、1980年に実父母が原告として London Hospital Medical College を被告として、児の死因が SIDS か Infanticide かを争点とした裁判で剖検標本が他の患者のものと混じりあったと訴えたもので、訴えは退けられた。

イギリスにおける5例の民事裁判例においては、1992年・1995年・1998年に各1例ずつ、通常の上訴例が3例含まれていた。他の2例は、1986年・1988年に各1例であり、前者は Coroner's Inquest から Queen's Bench Division にあげられたものであった。これら5判例の原告は全て児の実父母であり、被告は National Hospital Society(NHS) あるいは DHSS 等であった。これら5判例の訴訟の争点としては、児の死亡について SIDS か実母による虐待かを争点としたものが1例、両親の parenting を要請したものが2例、DTP

ワクチンと SIDS との関係を争点としたものが1例、SIDS か窒息かが pathologist 間での争点となったものが1例であった。これら5判例の訴訟結果としては、訴えが認められたものが2例、退けられたものが2例、new inquest が要請されたものが1例であった。

イギリスにおける SIDS 関連訴訟で Family Division における1例は、実母が児に関するカルテの開示請求を行い認められたもので、判決は1991年に下った。

D. 考察

日本における SIDS 訴訟においては、児の家族が原告となり、病院や保育関係施設を被告として(特に保育関係施設を被告とする場合が多い)、児の死亡が SIDS によるものかうつぶせ寝による窒息によるものかを訴える形の民事訴訟が多いことが指摘されてきた(2,3,4)。最近では、このような形の刑事訴訟も出現している(2)。特に、近年の SIDS 刑事訴訟例の判旨は原告の訴えを認めるもので、近年の「期待権侵害理論」との近似性を感じさせるという(2)。「期待権侵害理論」とは、仮に死亡の原因が不明であっても、あるいは過失と死亡との間の因果関係は否定されても、十分な管理下での診療あるいは保育を受けることを原告は期待しており、その期待が不適切な診療あるいは保育で裏切られ、これによって精神的打撃を受けた場合、その損害は「期待権」として法的に保護されるべき利益であるとする考え方である(2)。

日本の判例データベース“判例体系”“判例マスター”より抽出された SIDS 訴訟例と類似のものを、今回、外国判例データベースより抽出されたカナダ及びイギリスの SIDS 関連訴訟例からみつけようとして、以下の4つの視点から検討した。即ち、(1)児の実父母を原告とし病院等医療機関を被告として訴えた訴訟例はあるか、(2)児の実父母を原告とし保育関係施設を被告として訴えた訴訟例はあるか、(3)訴訟の争点が SIDS か窒息かにある訴訟例はあるか、(4)訴訟の判決に「期待権侵害理論」を感じさせる訴訟例はあるかの4視点である。

(1)の児の実父母を原告とし病院等医療機関を被告として訴えた訴訟例としては、カナダにおける民事裁判例の(2)、イギリスにおける刑事裁判例の(4)、イギリスにおける民事裁判例の(1)と(4)があげられる。これらの4つの訴訟の争点は、カナダにおける民事裁判例の(2)とイギリスにおける民事判例の(1)においては

SIDS か虐待かであり、イギリスにおける刑事裁判例の(4)においてはSIDSか Infanticideかを問題視され剖検標本が別の患者のものと混じりあったかどうか争点となり、イギリスにおける民事裁判例の(3)においては DTP ワクチンと SIDS との関係が争点となった。児の実父母を原告とし病院等医療機関を被告として訴えた SIDS 訴訟例で、日本のように SIDS か窒息かを論点とする裁判事例は、今回判例データベースから抽出したカナダ及びイギリスの裁判事例の中には存在しなかった。

(1)の児の実父母を原告とし保育関係機関を被告として訴えた訴訟事例としては、カナダにおいてもイギリスにおいても該当事例は認められなかった。

(1)の訴訟の争点が、SIDS か窒息かにある裁判事例としては、カナダの刑事裁判例の(3)・(5)・(6)、イギリスにおける刑事裁判例の(2)、イギリスにおける民事裁判例の(5)があげられる。当初、このような事例の訴訟過程は、原告や被告が異なっても日本の SIDS 訴訟の訴訟過程と一部は比較可能であり、その相違点は、将来の日本の SIDS 訴訟に反映することが可能となるのではないかと思われた。カナダの刑事裁判例の(3)・(6)は SIDS か窒息かを争点としながらも、骨折等虐待を示唆する明らかな所見があった。従って、日本の SIDS 訴訟との比較が有意義であると思われるのは、残る3事例即ちカナダの刑事裁判事例の(5)及びイギリスの刑事裁判例の(2)及びイギリスの民事裁判例の(5)と思われたが、イギリスの2つの事例は何れも Coroner による inquest によって裁判が開始されており、何れも another inquest あるいは new inquest が要請されたところで、判例データベースの記載は終わっている為、詳細な訴訟過程の比較は不可能であった。最終的に残されたカナダの刑事裁判事例の(5)において参考となるのは、剖検により指摘された脳浮腫の存在の取り扱いである。法医病理学者は、脳浮腫は死亡経過が遷延したものを示すので SIDS のような突然死を示唆するものではないと述べたが、この指摘は判決に反映されなかった。現在においても、SIDS 児に、脳浮腫が認められるとする報告がある (7,8)。

(1)の訴訟の判決に「期待権侵害理論」を感じさせる SIDS 訴訟例は、今回判例データベースから抽出したカナダの SIDS 関連訴訟においてもイギリスのそれらにおいてもみあたらなかった。

また、今回外国判例データベースから抽出した裁判例についてはカナダにおける SIDS 関連の民事裁判例には、SIDS であることを理由に介護費用や保険金を求める等の日本には全く存在しない裁判事例が含まれ、カナダ及びイギリスにおける SIDS 関連の民事裁判例の訴訟内容は多彩であった。又、カナダにおける Family Law により児の保護を求める裁判例においては、兄弟の SIDS の存在がしばしば虐待の情報として参考とされていることも、日本との相違点であった。先行研究で明らかにされた様に、カナダ及びイギリスにおいては SIDS か虐待かを争点とする SIDS 訴訟がある程度存在するが、殆どの事例は一般的にも容易に納得され得る虐待家庭であり明らかな虐待の所見(骨折・頭蓋内出血等)が存在し、誰がみても虐待が明らかであると言えない場合以外は実父母の罪を問わない傾向にある。一方、SIDS の主張が裁判においてなされその主張が優勢を占めると、被告側に有利に働くことは、日本のみならずカナダ・イギリスにおいても同様の傾向にある。

更に、Infanticide Act の存在が、イギリスの SIDS 訴訟の訴訟過程に及ぼす影響について、当初 Infanticide としての量刑は殺人としての量刑より軽い為、Infanticide が頻りに判決される傾向にあるのではないかと推測したが、この点は今回の調査研究によって十分に明らかとされたとは言えない。日本では、イギリスの infanticide に相当する被告は、量刑の情状酌量を図られることが多く、Infanticide Act が存在しなくとも同様の効果を図ることが可能とも思える。

先行研究において、カナダでは、SIDS か虐待かが主たる争点となる訴訟は存在するが比較的少数であり、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、児をうつぶせ寝にしたかどうか争点となる(5)ことが明らかにされた。しかし、外国判例データベース lexis には、児をうつぶせ寝にしたことが争点となるような SIDS 訴訟事例は1例も抽出されなかった。国内においても国外においても、判例データベースへの掲載基準は明確でなく、特徴的な判例を優先して掲載する傾向があることから、実際には多数存在する傾向の判例は掲載されないことも多いのではないかと推測される。この点に判例データベースのみを用いた研究の限界がある。

将来の SIDS 訴訟における訴訟展開の可能性については、次の2点をあげることができる。

イギリスにおける最近の SIDS 刑事裁判例の(1)において、被告である Sally Clerk という弁護士は、2人の子供に対する Infanticide を問われ刑務所に収容された(5)。最初の子供の死亡は Home Office Pathologist により SIDS と報告され、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鑑定内容を変更した。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鑑定したが、後日この網膜出血を認めた組織切片は別事例のものとして、最初の鑑定結果を取り消した。別の小児科の教授が、二人の子供が SIDS でなくなる確率は非常に低いと報告し、殺人説を支持した鑑定を行った。その後、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(5)。後日、被告である Sally Clerk の家系からは突然死が多く発生していることから、遺伝子検査を行ったところ long QT syndrome の家系であることが明らかにされた(9,10)。このように遺伝子検査が、SIDS 訴訟における病理学的な所見の不足を補うことになる可能性がある。

日本における最近の SIDS 刑事裁判例の判決は、期待権侵害理論との近似性を感じさせるものであった。期待権侵害理論はその一面において no fault compensation につながるものと解釈できる。No fault compensation とは、医療側の過失の有無に関わらず患者側に損害賠償を支払う事を示す。将来の日本の SIDS 訴訟がこのような形にもちこまれる可能性も推測される。

E. 結論

日本の SIDS 訴訟と類似の事例としては、実父母を原告として病院や医療機関を被告とした裁判例がカナダにおける民事裁判例として1例、イギリスにおける刑事及び民事裁判例として各1例づつあったがこの中で訴訟の争点が SIDS か窒息かにあるものはみあたらず、実父母を原告として保育関係施設を被告とする裁判例はなく、SIDS か窒息かを訴訟の争点とする裁判例はカナダの刑事裁判例で3例、イギリスにおける刑事及び民事裁判例で各1

例づつあった。イギリス及びカナダにおいては、SIDS 関連の民事訴訟例の訴訟内容は多彩で日本にみられないものが多く、SIDS か虐待かを争点とする裁判例の多くでは骨折や頭蓋内出血等明らかな虐待所見を有するものが殆どであった。SIDS か窒息かを訴訟の争点とするカナダの刑事裁判例では、脳浮腫の存在は SIDS の可能性を否定する要素が強いという法医病理学者からの主張があったが、判決には反映されなかった。SIDS の主張が裁判においてなされると、被告側に有利に働く点では日本と同様な傾向が認められた。

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) 平林勝政. 乳幼児突然死症候群(SIDS)をめぐる裁判の分析. 平成14年度厚生労働科学研究(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 主任研究者坂上正道 pp.651-653, 2003.
- 3) Sawaguchi T, Nishida H, Kato H, Fukui S, Nishizawa E, Kurihara R, Namiki M, Sawaguchi A. Analysis of SIDS-related civil and criminal court cases in Japan. *Forensic Sci Int.*, 130S:81-87, 2002.
- 4) Sawaguchi T, Nishida H, Kato H, Fukui S, Sawaguchi A. 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.
- 5) Sawaguchi T, Mizuho N, Miki S, Tezuka Y, Okubo E, Ito S, Kahn A, Sawaguchi A. International comparison of SIDS litigation. *Acta Crim. Japon.*, 69:161-164, 2003.
- 6) Sawaguchi A, Sawaguchi T, Matoba R, Togari H, Nakagawa S, Miyauchi J, Nishida H. Study to increase the frequency of autopsies performed for cases of infant deaths-proposed revision of the law on postmortem examination and corpse preservation and other related regulations. *Forensic Sci Int.*, 130S:96-103, 2002.
- 7) O'Kusky JR, Kozuki DE, Norman MG. Sudden infant death syndrome: postnatal changes in the volumes of the pons, medulla and cervical spinal cord. *J Neurophol Exp Neurol*, 54:570-580, 1995.

8) Siebert JR, Haas JE. Organ weights in sudden infant death syndrome. *Pediatr Pathol*, 14:973-985, 1994.
9) Pinholstar G. Multiple 'SIDS' case ruled

murder. *Science*, 268:494, 1995
10) Pinholstar G. SIDS paper triggers a murder charge. *Science*, 264:197-198, 1994

分担研究報告書

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学教室

研究要旨

SIDS において、現在最も考えられている病態は覚醒反応の異常である。HCRT は覚醒レベルの維持、覚醒・睡眠リズムの制御に関わっていると考えられている。HCRT-1, 2 の橋、中脳における発達的变化は睡眠の発達と一致していた。SIDS では、その発生が最も多い2ヶ月頃より HCRT 1 の発現が橋の青斑核において正常に比し早期に増加していた。よって HCRT 1 はノルアドレナリン神経を介して、SIDS の覚醒反応の異常になにかしら関与している可能性が示唆された。HCRT-R に関するさらなる検討が必要である。また、SIDS の病態をできるだけ解明し、よりよいガイドラインとすることが重要である。

A. 研究目的

乳幼児突然死症候群 (SIDS) は1歳以下、特に2~4ヶ月の乳児の睡眠中にお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脳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 [1]。現在、最も考えられている病態は覚醒反応の異常である。

ヒポクレチン (HCRT) またはオレキシンは視床下部外側野に散在する特定のニューロンに特異的に発現する神経ペプチドである。特徴的なのは、モノアミン神経系の起始核である青斑核、縫線核、結節乳頭体核や橋のコリン作動性神経系の起始核（外背側被蓋核、脚傍核）に顕著な投射が認められることである。覚醒時には、モノアミン作動性神経の活性が高まり、コリン作動性神経が抑制される。逆に REM 睡眠時にはモノアミン作動性神経の活性が抑制され、コリン作動性神経の活性が高まっている。ラ

ット脳スライス標本において、HCRT 1 は青斑核のノルアドレナリン神経を脱分極させ、また HCRT 2 にも青斑核のノルアドレナリン神経を脱分極させる作用のあることが報告されている。HCRT の覚醒作用が青斑核のノルアドレナリン神経を介して誘起される可能性がある。また結節乳頭体核のヒスタミン神経を介して覚醒作用がおこる可能性も考えられる。さらに HCRT は、他の睡眠覚醒関連領域である外背側被蓋核、脚傍核のアセチルコリン神経、背側縫線核のセロトニン神経へも投射している。HCRT は覚醒レベルの維持、覚醒・睡眠リズムの制御に関わっていると考えられる。

よって、SIDS 症例と対照の脳幹における HCRT 1, 2 の発達的变化に関して検討をおこなった。

B. 研究方法

対象は在胎 37 週から8ヶ月までの

SIDS20 例と病理学的に異常の認められなかった在胎20週から10歳までのヒト剖検脳19例である。

方法はホルマリンまたはパラホルムアルデヒドで固定後パラフィン包埋された延髄、橋、中脳の切片を抗 HCRT-1, 2 抗体を用いて免疫組織化学的に染色し、その発達の変化を検討した。

C. 研究結果

正常発達：抗 HCRT-1, 2 抗体陽性線維は橋の青斑核、中脳の背側縫線核、中脳中心灰白質において胎児期早期からわずかに認められた。抗 HCRT-1 抗体陽性線維は青斑核、背側縫線核、中脳中心灰白質において乳児期まで発現の変化はなく、乳児期後半より陽性線維の増加が認められ、幼児期以後は変化がなかった。抗 HCRT-2 抗体陽性線維は、青斑核において抗 HCRT-1 抗体陽性線維と同様の変化であったが、背側縫線核、中脳中心灰白質において幼児期に陽性線維の軽度増加を認めるのみであった。延髄においては、抗 HCRT-1 抗体陽性線維は迷走神経背側核、孤束核において胎児期早期から、舌下神経核では胎児期中期からわずかに認められたが、発達による変化は認められなかった。抗 HCRT-2 抗体陽性線維は迷走神経背側核、孤束核、舌下神経核において、新生児期から軽度発現し、発達による変化は認められなかった。

正常例と SIDS 例における抗 HCRT-1, 2 抗体陽性線維の発達に伴う発現の検討では、SIDS 症例の橋の青斑核における抗 HCRT-1 抗体陽性線維の発現が正常例に比し、早期

に2カ月から陽性に認められた。(表1, 2)

D. 考察

睡眠の発達は生後3-4ヶ月頃から昼夜の区別が付き、夜間の睡眠量が昼間より多くなり、nonREM 睡眠が入眠直後に現れ、覚醒時間が増え、睡眠時間に対するREM睡眠時間の割合が減少し、2歳以上の幼児では睡眠周期が完成する。小児期後期には90分周期が完成し、REM睡眠時間の割合が成人の割合(20%)に到達する。抗 HCRT-1, 2 抗体陽性線維の橋、中脳における発達は睡眠の発達と一致していた。青斑核ノルアドレナリン神経および縫線核群セロトニン神経は、脳幹の覚醒系としてあるいは運動ニューロンへの促通系として機能しており、それらに投射するヒポクレチン神経が正常に機能しないと覚醒障害や睡眠中の上気道閉塞などが出現すると考えられた。

HCRT1は青斑核のノルアドレナリン神経を脱分極させる。HCRTの覚醒作用が青斑核のノルアドレナリン神経を介して誘起される可能性がある。覚醒刺激によって興奮するのはノルアドレナリン神経だけである。SIDSの発生が最も多い2ヶ月頃より抗 HCRT1抗体陽性線維の発現が正常に比し早期に増加していたことにより、HCRT1はノルアドレナリン神経を介して、SIDSの覚醒反応の異常になにかしら関与している可能性が示唆された。また、青斑核のノルアドレナリンニューロンにはヒポクレチン1レセプター(HCRT-1R)mRNAの発現は認められているが、HCRT-2R mRNAは認められていない。HCRT-1RはHCRT1に対する親

和性が HCRT2 に対する親和性より 50 倍程高い。HCRT-R に関するさらなる検討が必要である。

E. 結論

HCRT は覚醒レベルの維持、覚醒・睡眠リズムの制御に関わっていると考えられており、抗 HCRT-1, 2 抗体陽性線維の橋、中脳における発達的变化は睡眠の発達と一致していた。SIDS 例と正常例における発現の発達的变化を比較すると、SIDS の橋の青斑核において、SIDS の発生が最も多い 2 ヶ月頃より抗 HCRT1 抗体陽性線維の発現が正常に比し早期に増加していた。よって HCRT 1 はノルアドレナリン神経を介して、SIDS の覚醒反応の異常になにかしら関与している可能性が示唆された。

SIDS の病態をできるだけ解明し、よりよいガイドラインとすることが重要である。

F. 研究発表

1. 論文発表

[1] Ozawa Y, Takashima S, Tada H: Alpha2-Adrenergic receptor subtype alterations in the brainstem in the sudden infant death syndrome. Early hum Dev 75 Suppl: 129-38, 2003

2. 学会発表

1) Hypocretin-1, 2 のヒト脳における発達的变化に関する検討 小沢愉理、高嶋幸男、野中博子、多田裕 第 48 回日本未熟児新生児学会・学術集会 2003. 11. 28-30 群馬

表 1. Developmental changes of hypocretin 1 between SIDS and controls

	Medulla oblongata											
	Solitary		Dorsal vagal		Hypoglossal		Pons		Midbrain		PAG	
	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	LC	Control	DRN	Control	SIDS
20-23GW	+/-	+/-	+/-	-	-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
24-27GW	+/-	+/-	+/-	-	-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
28-31GW	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
32-36GW	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
37-42GW	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
0-1M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
2-5M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
6-11M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
1-5Y	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
6-10Y	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-

表 2. Developmental changes of hypocretin 2 between SIDS and controls

	Medulla oblongata				Pons				Midbrain			
	Solitary		Dorsal vagal		Hypoglossal		LC		DRN		PAG	
	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	SIDS	Control	SIDS
20-23GW	-	-	-	-	-	-	+/-	-	-	-	-	-
24-27GW	-	-	-	-	-	-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
28-31GW	-	-	-	-	-	-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
32-36GW	-	-	-	-	-	-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
37-42GW	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
0-2M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
3-4M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-
5-11M	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+	+	+/-	+/-	+/-	+/-
1-5Y	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+++	+	+/-	+/-	+/-	+/-
6-10Y	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	+/-	++	++	+/-	+	+	+

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

分担研究者	高津光洋	東京慈恵会医科大学法医学講座 教授
研究協力者	重田聡男	東京慈恵会医科大学法医学講座 助手
	阿部俊太郎	東京慈恵会医科大学法医学講座 助手
	前田 均	大阪市立大学大学院医学研究科法医学講座 教授
	中園一郎	長崎大学大学院医歯薬総合研究科法医学 教授
	佐藤喜宣	杏林大学医学部法医学講座 教授
	西 克治	滋賀医科大学法医学講座 教授

研究要旨

文部省 SIDS 研究班での調査時に全国大学法医学教室から提供された乳幼児死亡剖検例 307 例のうち 122 例が SIDS, あるいはその疑いと診断されていた。この 122 例について著者らが提言した乳幼児突然死症候群 (SIDS) 診断の法医病理学的原則に準拠して検討したところ、提言に準拠しても SIDS と診断せざるを得ないのは 14 例 (全対象例の 4.6%, SIDS 群の 11.5% であった。また、窒息死と SIDS との鑑別に眼瞼結膜下溢血点の有無が問題とされる事が多いので、乳幼児剖検例について検討した。その結果、頸部圧迫や胸腹部圧迫では全例で眼瞼結膜下溢血点を認めしたが、鼻口部閉塞や気道内異物等によるその他の窒息死では 30~40% にしか認められなかった。一方、頭部外傷、先天性心疾患、ウイルス性感染症、気管支肺炎、SIDS 等合計 56 例中 7 例 (12.5%) にも眼瞼結膜下溢血点が認められたことから、眼瞼結膜下溢血点の有無は SIDS と頸部圧迫や胸腹部圧迫以外の原因による急性窒息死との鑑別の根拠となり得ない事は明らかである。

A. 研究目的

新生児・乳幼児に限らず、急死例の日常の法医解剖においては病歴、死亡時の状況、剖検所見等を含めて総合的に検討し、死因や死因の種類を診断している。新生児・乳幼児急死例の場合は更に詳細な妊娠・分娩の異常の有無、発育状態等の情報も加味されなければならない。一方、傷病分類の上で原因不明の病死の一部として乳幼児突然死症候群 (SIDS) が導入され、この診断名が国際的にも定着するに従い、SIDS があたかも単一疾患であるかの印象を与え、わが国では解剖することなく SIDS と診断されるケースが 70% を越えるという。このように SIDS は便宜的な死因として事故死や虐待、殺児等犯罪死の隠れ蓑の役目を果たす事が指摘されている。わが国のこのような状況に対して著者らは安易な SIDS 診断を排除する目的で乳幼児突然死症候群 (SIDS) 診断の法医病理学的原則について提言した (日法医誌 2000; 54 (2): 247-55)。今回、SIDS と剖検診断された症例を提言に従って再検討すると同時に、窒息死と SIDS との鑑別に眼瞼結膜下溢血点の有無が問題とされる事が多いので、この点についても乳幼児剖検例を対象

に検討した。

B. 研究方法

1. 提言に準拠した SIDS 群の検証

本研究は文部科学省研究費「乳幼児突然死症候群 (SIDS) 診断に関する提言の検証と病理組織学的基準の構築」による調査と一部重複している。当教室及び全国大学法医学教室から提供された乳幼児急死剖検例 307 例 (文部省研究班研究成果報告書での対象例) を対象に、提言とアンケート回答用紙とを対比分析して検討した。即ち、307 例中、死因が「SIDS」、あるいは「SIDS の疑い」と診断されていたのは前者が 103 例、後者が 19 例、合計 122 例あり、この SIDS 群が提言に記載されている SIDS 診断の要件、即ち、

- 1) 精度の高い解剖がなされているか?
- 2) 死亡児に関する十分な情報が収集されているか?
- 3) 外因死の可能性が完全に否定されているか?
- 4) 1) ~ 3) を総合的に検討して判断されているか?

の 4 点に準拠しているか否かについて検討し

た。

このうち1)に関しては少なくとも病理組織学的検査がなされている事、2)に関しては少なくとも妊娠、分娩の状況、既往歴、生前の健康状態、死亡時の状況等についての情報を得ている事を、3)に関しては発見時に鼻口部閉塞、胸腹部圧迫、死因となり得る創傷、虐待を示唆する状況等、外因死の可能性を否定できない記載がない事を中心に検討した。

2. 溢血点の有無に関する検討

溢血点有無に関する検討は当教室及び研究協力者の教室での乳幼児剖検例を対象とした。

3. 倫理的配慮

本研究は剖検された乳幼児死亡例の個人情報、剖検診断、病理組織学的所見を統計的に分析するが、連結不可能な匿名化をして処理することによって倫理的に配慮した。

C. 研究結果

1. 提言に準拠したSIDS診断の検証

「SIDS群」122例中14例(11.5%)、307例中14例(4.6%)が提言に従ってもSIDSと診断せざるを得ないと判断された。

平成7年度厚生省人口動態統計によると、1歳未満乳幼児死亡数5054人中SIDSによる死亡は540人(10.7%)である。従って、今回の結果は、提言によってSIDSと診断されれば、単純計算すると、わが国の1歳未満乳幼児死亡数に占めるSIDSの割合は現在より平成7~13年間で57~43%減少すると思われる、この事はわが国のSIDS死亡率が現在の統計よりも半減する事を示唆する。提言の4項目に関する頻度は1)で排除されたもの15例(12%)、2)が75例(61%)、3)が18例(15%)であり、死亡児に関する情報、特に死亡時の状況が不明のままSIDSと診断されていた症例が多かった。15%で外因死の可能性が十分に考えられた点を重要視したい。

提言に準拠しSIDSと診断された14例の傾向は、行政解剖が65%、男女比は4:3、年齢分布は3ヶ月児にピークがあり、5ヶ月児以下が86%を占めていた。発見時の体位は72%がうつぶせであり、あおむけ→うつぶせは3例(22%)に認められた。寝具は65%がベビーベッド、29%に吐乳が認められている。生下時体重の平均は3105g、栄養は93%が人工、あ

るいは混合栄養であった。15%に生前風邪症状が認められており、50%が第1子であった。

2. 死因と粘膜下溢血点について

乳幼児急死例に関する日常の裁判で、鑑定人によってはSIDSの診断根拠のひとつとして眼瞼結膜下に溢血点を認めないと主張する事がある。顔面うっ血症状を伴う頸部圧迫や胸腹部圧迫以外の原因(酸素欠乏、鼻口部圧迫、異物による気道閉塞等)による急性窒息死では、乳幼児、成人を問わず、眼瞼眼球結膜下に溢血点が認められない症例の多い事は法医解剖では日常的に経験している。今回この点を具体的に示すために、当教室及び研究協力者の教室での乳幼児剖検例を中心に、死因と粘膜下溢血点との関係を調査し表1に示した。調査はまだ継続中であるので今後症例数は増加するが、中間的な結果として、頸部圧迫や胸腹部圧迫(殆どが他殺例)では全例で眼瞼結膜下に溢血点を認めたが、その他の窒息死では30~40%にしか認められなかった。一方、窒息死以外の死因(頭部外傷、先天性心疾患、ウイルス感染症、気管支肺炎、SIDS等)においては56例中7例(12.5%)に眼瞼結膜下溢血点が認められた。

この結果から、眼瞼結膜下溢血点の有無はSIDSと急性窒息死との鑑別の根拠とはなり得ない事が明らかになった。

D. 考察

わが国の人口動態統計における死因統計では、最近1歳未満乳幼児死亡数自体が減少してはいるものの、SIDSの頻度も減少している。しかし、本研究班藤田利治氏の分析から明らかのように、75%弱が解剖されずにSIDSと診断されている。著者らの提言に準拠してSIDSと剖検診断された症例を検証してみると、SIDSといわざるを得ない症例は10%強であった。死亡時の状況等を考慮しないSIDS診断や、法医学的にむしろ外因死の可能性が強いにもかかわらずSIDSと診断されている症例の少ない点に注目すべきである。藤田氏の人口動態調査による分析では、限られた情報ではあるものの、解剖の有無によってSIDS診断された症例の特性に顕著な差異は認められなかったが、今回の研究は解剖されてもSIDS診断の精度を再検討する事が不可欠と思われる事を示唆している。藤田氏の貴重な分析の

対象例 1859 例, 解剖された SIDS 対象例 506 例に提言による SIDS 診断を単純に当てはめると, SIDS と診断せざるを得ないのは 59 例であり, 1859 例中 86 人という事になる. これは勿論極端な数字であろうが, このような問題を解決するためには乳幼児急死例の解剖率を高めると共に, 死亡児の情報をより正確に把握しこれを剖検診断に反映させる認識の共有が急務と思われる.

E. 結論

SIDS と剖検診断された症例について著者らの提言に従って再検討した結果から, 乳幼児急死例の解剖率を高めると共に, 死亡児の情報をより正確に把握しこれを剖検診断に反映させる認識の共有がわが国における乳幼児急死例のより正確な死因究明に急務と思われる.

また, 眼瞼結膜下出血点の有無は SIDS と急性窒息死との鑑別の根拠とはなり得ない事を示した.

F. 参考論文

1. 高津光洋他. 乳幼児突然死症候群 (SIDS) 診断の法医病理学的原則に関する提言. 日法医誌 2000; 54: 247-55.
2. 高津光洋. ナースのための法医学. 死から生をみる (8) 突然死の主な原因疾患について. 臨床看護 2003; 29: 269-73.
3. 高津光洋. ナースのための法医学. 死から生をみる (9) 赤ちゃんの急死. 臨床看護 2003; 29: 558-62.

G. 学会発表

1. 高津光洋. 乳幼児の突然死. 第 50 回日本法医学会近畿地方会 (市民公開講座) 2003.
2. 高津光洋. 突然死をめぐる法医学的諸問題 - 異状死体, 死体検案を中心に -. 長野県医師会臨床法医病理学会 (特別講演) 2003.

表1. 死因と粘膜下出血点との関係

死 因	症例数	溢 血 点 (程度と例数)																											
		頭皮下				眼瞼結膜下				口腔粘膜下				胸腺性膜下				肺動脈下				心外膜下				腎盂粘膜下			
		0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+	0	1+	2+	3+
窒息死	54																												
溺死	10	10				7	3			10				4	3	1	2		2	7	1		7	3		8	2		
鼻口閉塞	22	21			1	14	8			21	1			2	11	5	5		8	7	6		10	6	5	18	3		
吐乳吸引	5	3	1	1		3	2			5				2	1	2			1	2	2	1		2	2	5			
頸部圧迫	10		3	6	1		1	3	6	1	7	2			2	4	4		1	5	4		2	6	2	6	3		
胸腺部圧迫	7	2	3	2			6	1		5	2				1	4	2		2	2	3		3	1	3	5	2		
顔部外傷	3	3				2	1			3				2	1			1	2			1	2			3			
先天性心疾患	5	5				4	1			5				2	1	2			2	1	2	1	2	1	1	5			
ウイルス性感染症	32																												
肺炎	26	26				23	3			26				11	11	2	2	5	16	2	3	7	11	4	4	24	2		
心筋炎	5	5				5				5					5			3	2			3	1		4	1			
髄膜炎	1	1				1				1					1			1				1			1				
気管支肺炎	10	10				9	1			10				6	3		1	5	4			1	4	3	1	2	10		
SIDS	6	6				5	1			6				1	2	1	2		2	1	3		2	1	3	5	1		
計	110	92	7	9	2	73	27	4	6	98	10	2	0	28	41	20	20	15	42	27	25	14	46	26	22	94	13	2	0

新生児・乳幼児の突然死の診断に関する病態生理行動学的研究

分担研究者 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）
研究協力者 加藤稲子（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）

研究要旨：乳幼児突然死症候群(SIDS)の病態として脳幹部機能異常に起因する呼吸パターンの異常、化学受容器の感受性低下、自律神経機能異常などが指摘されており、これに覚醒反応の欠如、中枢神経抑制などが作用して無呼吸が遷延しSIDSが発症するのではないかと考えられている。SIDS死亡例では睡眠中の閉塞性無呼吸の頻度が高く、持続時間が長いことが報告されており、その原因として睡眠中の覚醒反応の異常が示唆されている。睡眠中の覚醒反応については皮質下（脳幹部）に限局するタイプ（subcortical activation）と皮質下から起こり皮質へ到達するタイプ（cortical arousal）に分類されている。今回、ブリュッセル自由大学附属小児病院との共同研究により、各タイプの覚醒反応の定義に基づいてSIDS死亡例と健康乳児例における覚醒反応の発現頻度、持続時間等について検討した。その結果、SIDS死亡例では覚醒反応の発現過程に異常があることが明らかになった。今後さらにSIDSリスク因子と覚醒反応の関連などについて検討していく予定である。

A. 研究目的

乳幼児突然死症候群(SIDS)の病態として覚醒反応の異常あるいは欠如が示唆されている。SIDS死亡例と健康乳児例でのポリグラフ検査を用いた生理学的検討から覚醒反応の発現過程を比較することにより、覚醒反応がSIDS発症に関与しているかどうか、SIDS例では覚醒反応の発現にどのような特徴があるかを明らかにすることを目的とした。

B. 研究方法

ブリュッセル自由大学附属小児病院との共同研究にて、同病院においてポリグラフ検査を受けた乳児のうち、検査後、数週から

数ヶ月でSIDSを発症した症例と1歳まで生存を確認した健康乳児を対象に、検査時の年齢、性別、普段の寝かせ方を一致させた16ペアを対象とした。（表1）

覚醒反応についてはPediatric Wake Up Clubの2003年の定義（表2）に基づいて、脳波に変化が表れるCortical Arousalおよび脳波に変化がみられないSubcortical Activationに分類し、それぞれの頻度、持続時間などについて検討を行った。

C. 研究成果

Cortical Arousal および Subcortical Activationの頻度を表3に示す。Cortical Arousalはcontrol群で頻度が高く、Subcortical ActivationはSIDS群で頻度

が高い傾向があった。特に REM sleep では Cortical Arousal は control 群で有意に頻度が高く、Subcortical Activation は SIDS 群で有意に頻度が高かった (図 1)。

Cortical Arousal および Subcortical Activation の持続時間を表 4 に示す。Cortical Arousal の持続時間は SIDS 群と control 群で差を認めなかったが、Subcortical Activation は REM, non-REM のいずれでも SIDS 群で有意に持続時間が長かった。

D. 考察

今回の検討から SIDS では健康乳児に比較して覚醒反応の発現頻度が低く、さらに覚醒反応が皮質下 (脳幹部) で起こるものの皮質にまで到達しない可能性が考えられた。これまでに SIDS の病態と関連して、病理組織学的研究から脳幹部のグリオーシス、低形成、apoptosis などが報告されており、またノルアドレナリン、セロトニン、ドパミン、コリン、ヒスタミンなどの神経伝達物質およびレセプターの機能異常なども示唆されており、これらの異常が覚醒反応異常に関与することが示唆されている。また、妊娠中の喫煙 (ニコチン暴露) によっても覚醒反応が減弱することが報告されている。このような変化が乳児における覚醒反応の発達異常あるいは機能異常を引き起こし、SIDS を発症する可能性が考えられている。今回の結果は SIDS の原因を明らかにするものではないが、SIDS 例では健康乳児に比較して覚醒反応が不完全であり、このことが SIDS の病態に関与している可能性が示

唆された。

E. 参考文献

1. Hunt CE, Brouillette RT. 1987 Sudden infant death syndrome: 1987 perspective. *J Pediatr.* 110:669-678
2. McNamara F, Wulbrand H, Thach BT. 1998. Characteristics of the infant arousal response. *J. Appl. Physiol.* 85:2314-2321.
3. McNamara F, Lijowska A, Thach BT. 2002 Spontaneous arousal activity in infants during NREM and REM sleep. *J Physiol* 538. 1:263-269
4. Kato I, Groswasser J, Franco P, Scaillet S, Kelmanon I, Togari H, Kahn A. 2001. Developmental characteristics of apnea in infants who succumb to sudden infant death syndrome. *Am. J. Respir. Crit. Care Med.* 164:1464-1469.
5. Franco P, Groswasser J, Hassid S, Lanquart JP, Scaillet S, Kahn A. 1999. Prenatal exposure to cigarettes is associated with decreased arousal propensity in infants. *J. Pediatr.* 135:34-8.
6. Kato I, Franco P, Groswasser J, Scaillet S, Kelmanson I, Togari H, Kahn A. 2003. Incomplete arousal processes in infants who were victims of sudden death. *Am J Respir Crit Care Med* 168:1298-1303

F. 研究発表

1. Kato I, Franco P, Groswasser J,

Scaillet S, Kelmanson I, Togari H, Kahn A. 2003. Incomplete arousal processes in infants who were victims of sudden death. Am J Respir Crit Care Med 168:1298-1303

表 1

	対 象		P
	SIDS	Control	
症例数(女児/男児)	16 (6/10)	16 (6/10)	
生後週数(検査時)	11.1(6.9-18.4)	10.8(6.9-19.2)	NS
通常の寝かせ方 (あおむけ/うつぶせ)	9/7	9/7	
睡眠持続時間(分)	380.5(311.0-474.0)	395.0(358.0-539.0)	NS
Sleep Stage(%)			
REM sleep	56.4(46.2-69.0)	55.4(35.2-66.2)	NS
Non-REM sleep	43.7(31.0-53.6)	44.6(33.8-64.8)	NS

表 2 乳児におけるpolygraph検査上の覚醒反応の定義

International Pediatric Wake Up Club (Jan.2002)

	Subcortical Activation	Cortical Arousal
NREM	*体動	*体動
	*心拍数変化(最低10%増加)	*心拍数変化(最低10%増加)
	*呼吸の変化	*呼吸の変化
	脳波変化なし	脳波変化(最低1Hz)
REM	*体動	*体動
	*心拍数変化(最低10%増加)	*心拍数変化(最低10%増加)
	脳波変化なし	脳波変化(最低1Hz)
AW	Cortical arousalが分以上継続	

*は2項目以上必要
それぞれの変化の持続は3秒以上必要
覚醒反応の間隔は10秒間以上

表 3 覚醒反応の頻度 (/hr sleep)

	SIDS	Control	p
Total sleep			
Cortical Arousal	9.8(4.6-14.5)	13.4(8.2-18.4)	0.028
Subcortical Activation	3.0(1.0-4.7)	1.5(0.8-4.8)	0.039
REM sleep			
Cortical Arousal	14.3(5.8-23.4)	23.1(11.3-33.0)	0.039
Subcortical Activation	4.0(0.8-5.4)	1.4(0.5-6.0)	0.017
Non-REM sleep			
Cortical Arousal	3.1(0.5-6.1)	3.6(1.4-8.5)	0.039
Subcortical Activation	1.8(0.0-5.3)	1.7(0.3-4.8)	NS

表 4

覚醒反応の持続時間 (秒)

	SIDS	Control	p
Cortical Arousal			
REM sleep	13.0(3.0-53.0)	12.0(3.0-58.0)	NS
Non-REM sleep	11.5(3.0-54.0)	12.0(3.0-52.0)	NS
Subcortical Activation			
REM sleep	7.0(3.0-46.0)	5.0(3.0-24.5)	0.005
Non-REM sleep	5.0(3.0-26.0)	4.0(3.0-20.0)	0.045

