

討し、遠隔診断支援システムが十分に機能した場合にどの程度の診断精度向上が見込まれるかを検討することである。

B. 研究方法

対象: 2004年1月1日から2006年12月31日までの3年間に、先天性心疾患を疑われて北海道立小児総合保健センターに紹介されるか、他の疾患を疑われて当センターを紹介受診後に始めて先天性心疾患が明らかとなつた6ヶ月未満の112例で、紹介時の年齢は日齢0から5ヶ月（中央値18日）であった。

方法

1. 紹介状および診療録の記載から以下について検討。

患者および紹介医療機関の住所、紹介医の専門領域（一般小児科医、新生児専門医、小児循環器専門医、産科医）、心エコー施行の有無と紹介前の診断。
2. 最終診断から疾患の重症度を以下のように分類。⁸ A群；心エコー上、有意の心疾患無し。B群；血行動態の異常が軽微で外科治療の適応が無い軽症心疾患。C群；有意な血行動態異常をともなう心疾患だが、直ちに治療は必要ないか、地域の医療機関で対応が可能。将来的には外科治療が必要となる可能性がある。D群；直ちに専門医療機関での対応が必要。

3. 最終診断に基づいて紹介医療機関での診断を以下のように分類。True(T群)；主要な診断が正しかったもの。False(F群)；主要な診断に誤りがあったもの。Over(O群)；一部は正しいが重大な過剰診断があったもの。Under(U群)；一部は正しいが重大な見落としがあったもの。Not-confirmed(NC群)；紹介医療機関では心エコーにて確定診断にいたらなかったもの。Not-detected(ND群)；紹介医療機関では心疾患に気づかれていなかったもの。

4. 紹介医療機関での診断と最終診断の違いにより、管理・治療方針に重大な変更が有ったか否を評価。紹介医療機関で心疾患が疑われたが実際は心疾患が無かったもの、診断が不明であったものは変更があったものとした。

以上のデータをもとに、紹介医の専門領域別、心エコー診断の有無別の疾患重症度、紹介元の診断（心エコー未施行例では臨床診断、心エコー施行例では心エコー診断）の精度、診断の違いによる管理・治療方針変更の有無について検討した。

C. 研究結果

I. 全体での検討

1. 患者居住地・紹介医療機関所在地
患者居住地・紹介医療機関所在地は

札幌・石狩圏、小樽・後志圏、空知・上川、胆振、道東、渡島、道北、道外の順に 39・50, 37・34, 10・6, 10・10, 8・6, 1・3, 2・1, 0・1 であった(図1)。札幌・石狩圏、胆振、渡島以外では、患者居住地より紹介医療機関の数が少なく、他の地域へ移動して紹介医療機関を受診したことが伺われる。

逆に、札幌・石狩圏、渡島では他の地域から移動した患者を受け入れていた。

2. 疾患の内訳

心室中隔欠損が最も多く、単心室・心房中隔欠損・肺動脈狭窄などが続いた。異常なし 4 例、生理的肺動脈分岐部狭窄による心雜音が 3 例あり、心疾患を認めたのは 105 例であった(表1)。紹介医の専門分野では一般小児科が 42 例、新生児 23 例、小児循環器 42 例、産科 5 例であった。重症度別の内訳では A, B, C, D の順にそれぞれ 7, 28, 26, 51 であり、一般小児科医は B 群を有意に多く紹介していた($p<0.03$, 表2)。

3. 紹介医の専門分野別心エコー施行の有無

112 例中 82 例は紹介元医療機関で心エコーを行われた後に紹介された。紹介前に心エコーを施行した産科は無かった。小児循環器医は一般小児科医・新生児専門医よりも有意に多く心

エコーを行っていた($p<0.01$, 表3)。

4. 診断精度

一般小児科・新生児・小児循環器は産科に比べて T 群が有意に多かった($p<0.01$)。一般小児科・新生児・小児循環器の 3 者で検討した場合には小児循環器に有意に T 群が多く($p<0.01$), 一般小児科では NC 群が多い傾向があった(表4)。

5. 紹介医の違いによる治療法・予後への影響

当科受診後に管理・治療方針に重大な変更があった、または受診後に始めて方針が確定したのは 75 例であり、小児循環器からの紹介では心エコーを行わなかった例でも方針に大きな違いは無かった($p<0.01$, 表5)。

紹介医で心エコー未施行であり、当科入院時 ductal shock であった大動脈弓離断を 1 例認めたが、この症例は内科治療により回復し、診断の相違が生命予後を決定付けた症例は無かった。

II. 心エコー施行群における検討

1. 疾患重症度の内訳

紹介前に心エコーを施行された 82 例における疾患の重症度は A, B, C, D の順にそれぞれ 4, 20, 19, 39 で、対象全体とほぼ同様の傾向であり、一般小児科は B 群を有意に多く紹介していた($p<0.01$, 表6)。

2. 心エコー診断の精度

一般小児科・小児循環器は有意に T 群が多く ($p<0.01$)、心エコー未施行を含んだ検討に比べ、一般小児科では NC が少ない傾向にあった（表 7）。

3. 紹介医の違いによる管理・治療法への影響

心エコー施行例のうち当科受診後の心エコー診断により管理・治療方針に重大な変更があった、または受診後に始めて方針が確定したのは 68 例であり、小児循環器からの紹介で”影響無し”が多く、一般小児科では”影響有り”が有意に多かった ($p<0.01$ 、表 8)。

III. 心エコー施行の有無による小児循環器以外からの紹介例の検討

1. 疾患重症度の内訳

小児循環器以外から紹介された 70 例のうち、紹介前に心エコーが行われていた 41 例と未施行の 29 例では疾患の重症度分類に有意差を認めなかつた（表 9）。

2. 心エコー施行の有無による診断精度の違い

心エコー施行例では T 群が有意に多く NC 群が有意に少なかった ($p<0.01$ 、表 10)。

3. 心エコー施行の有無による管理・治療法への影響

当科受診前に心エコーを行われた例では、受診後の方針・治療法の変更

が有意に少なかったが ($p<0.01$)、それでもなお 41 例中 14 例 (34%) では、当科受診後に管理・治療方針が変更となつた（表 11）。

D. 考察

1. 北海道立小児総合保健センターの医療圏

北海道立小児総合保健センターの所在地は札幌市と小樽市のほぼ境界線上の小樽側に位置する。完全紹介制をとっており、施設の性格としては三次医療機関であるが、二次医療機関的な役割も果たしている。患者の多くは札幌市を中心とする石狩地方、小樽市を中心とする後志地方からの紹介であるが、道立でただ一つの小児病院であるため、300km を越える道東地方、道北地方からの紹介も、それらの地域の背景人口を考えると決して少なくは無い。札幌圏に居住する札幌圏の医療機関からの紹介患者数は、紹介医療機関の数より少なく、その他の地域ではその逆の傾向を示している。これは、当センターへの紹介前に、札幌圏以外の地域から札幌圏に移動している患者が相当数あることを示している。分娩を扱う産科施設の偏在が主たる原因と考えられるが、地元の医療機関で診断が確定できず、三角搬送の形で当センターを紹介されることもある。

札幌・小樽近郊には、北海道として

は比較的多数の小児循環器医が配置されており、またアクセスも良好である。しかし、それ以外の地域から紹介される場合には搬送にともなうリスク、経済的負担は無視できず、紹介医療機関における正確な診断が必須と考えられる。

1. 紹介患者の全体像

紹介された疾患の最終診断は多岐にわたっていたが、その重症度分類では 112 例中 51 例（46%）は早急に内科治療または外科治療を要する病態であった。一般小児科からは比較的、軽症例も多く紹介されていた。

全紹介患者のうち 42 例（38%）は小児循環器専門からの紹介であり、この群では当然のことながらほとんどが正しいエコー診断を受けており、紹介後に管理・治療方針の変更を要した例は無かった。一方、少数ながら産科からの直接紹介ではエコー診断がまったく行われておらず、また、一般小児科や新生児からの紹介患者にもエコー未施行で診断未確定または心疾患に気づかれないままに紹介された例を相当数認めた。重大な方針変更を要した例は 37 例（33%）で、決定的に生命予後を左右された例は無かつたが、これらの例では、他の要因により当センターへ搬送される機会が無く、診断が遅れた場合には、生命予後

が左右される可能性もあるものと考えられた。

先天性心疾患の診断に関する啓蒙、また疑わしい所見をみた場合には心エコーを行うことへの動機付けを行ってゆく必要があるものと考えられる。

1. 紹介医療機関における心エコー診断の精度

心エコーが行われた後に紹介された 82 例の疾患重症度分類は紹介患者の全体像とほぼ同様であったが、一般小児科からは心エコー施行後も比較的軽症例の紹介があった。一方、管理・治療法の変更があったのは全て小児循環器以外から紹介された 14 例（17%）であり、これらの中には新生児期・乳児期早期に移動する必要はない A, B 群、早急に内科または外科治療を要する D 群が混在した。これらの例では、遠隔診断支援システムにより適切な診断と指導が可能になれば、不要な搬送や遠隔地を受診することによる負担の軽減、重篤な病態に対するより早期の治療方針の確立が可能になるものと考えられた。

1. 小児循環器医以外による心エコー診断の意義

小児循環器医以外から紹介された 70 例のうち、心エコー施行例は 41 例、

未施行例は29例であった。心エコー施行例と未施行例の間で疾患の重症度分類には有意差を認めなかつたが、心エコー施行例では正診例が、未施行例では診断未確定例が有意に多かつた。また、心エコー施行例の方が有意に管理・治療方針の変更が少なかつた。小児循環器医以外であつても、紹介前における心エコー施行の意義は明らかであることを示すと考えられる。しかし、心エコー施行例であつても、17例（41%）には、診断に何らかの不適切な部分が残され、14例（34%）では管理・治療方針の変更が必要であった。

遠隔診断支援システムが有効に機能すれば、これらの例では早期に正確な診断が可能となり、正しい管理・治療方針決定に寄与するものと予測される。

E. 結論

心エコー診断の遠隔支援システムが確立されれば、正確な早期診断、管理・治療方針の決定に寄与することは明らかであるが、その前段階として、一般小児科、産科に対する先天性心疾患の早期診断における心エコーの重要性に関する啓発も必須である。

一方、人口密度や医療機関までの距離に大きなバリエーションがある北海道では、最低限、新生児を扱う産科を含めた全ての二次医療機関をカバ

ーすることが望ましたく、遠隔支援システムとしてはその精度もさることながら、経済効率や利便性のよいシステムであることがのぞまれる。

【参考文献】

1. Kuehl KS, Loffredo CA, Ferencz C. Failure to Diagnose Congenital Heart Disease in Infancy. *Pediatrics* 1999;103:743-747.
2. Meberg A, Otterstad JE, Froland G, Hals J, Sorland SJ. Early clinical screening of neonates for congenital heart defects: the cases we miss. *Cardiol Young* 1999;9:169-174.
3. Stanger P, Silverman NH, Foster E. Diagnostic accuracy of pediatric echocardiograms performed in adult laboratories. *Am J Cardiol* 1999 15;83:908-914.
4. Casey F, Brown D, Craig BG, Rogers J, Mulholland HC. Diagnosis of neonatal congenital heart defects by remote consultation using a low-cost telemedicine link. *J Telemed Telecare* 1996;2:165-169.
5. Randolph GR, Hagler DJ, Khandheria BK, Lunn ER, Cook WJ, Seward JB, O'Leary PW. Remote telemedical interpretation of neonatal echocardiograms: impact on clinical management in a primary care setting.

- J Am Coll Cardiol 1999 ;34:241-245.
6. Mullholland HC, Casey F, Brown D, Corrigan N, Quinn M, McCord B, Rogers J, Craig BG. Application of a low cost telemedicine link to the diagnosis of neonatal congenital heart defects by remote consultation. Heart 1999;82:217-221.
7. Sable CA, Cummings SD, Pearson GD, Schratz LM, Cross RC, Quivers ES, Rudra H, Martin GR. Impact of telemedicine on the practice of pediatric cardiology in community hospitals. Pediatrics 2002 Jan;109:E3.
8. Widmer S, Ghisla R, Ramelli GP, Taminelli F, Widmer B, Caoduro L, Gallino A. Tele-echocardiography in paediatrics. Eur J Pediatr 2003;162:271-275.
9. Grech V. The impact of information technology on pediatric cardiology: present, past, and future. Pediatr Cardiol 2000;21:324-327.
10. Sable C. Digital echocardiography and telemedicine applications in pediatric cardiology. Pediatr Cardiol 2002;23:358-369.
11. Cloutier A, Finley J. Telepediatric cardiology practice in Canada. Telemed J E Health 2004;10:33-37.
12. Sicotte C, Lehoux P, Van Doesburg N, Cardinal G, Leblanc Y. A cost-effectiveness analysis of interactive paediatric telecardiology. J Telemed Telecare 2004;10:78-83.
13. Woodson KE, Sable CA, Cross RR, Pearson GD, Martin GR. Forward and store telemedicine using Motion Pictures Expert Group: a novel approach to pediatric tele-echocardiography. J Am Soc Echocardiogr 2004;17:1197-1200.

●北海道立小児総合保健センター

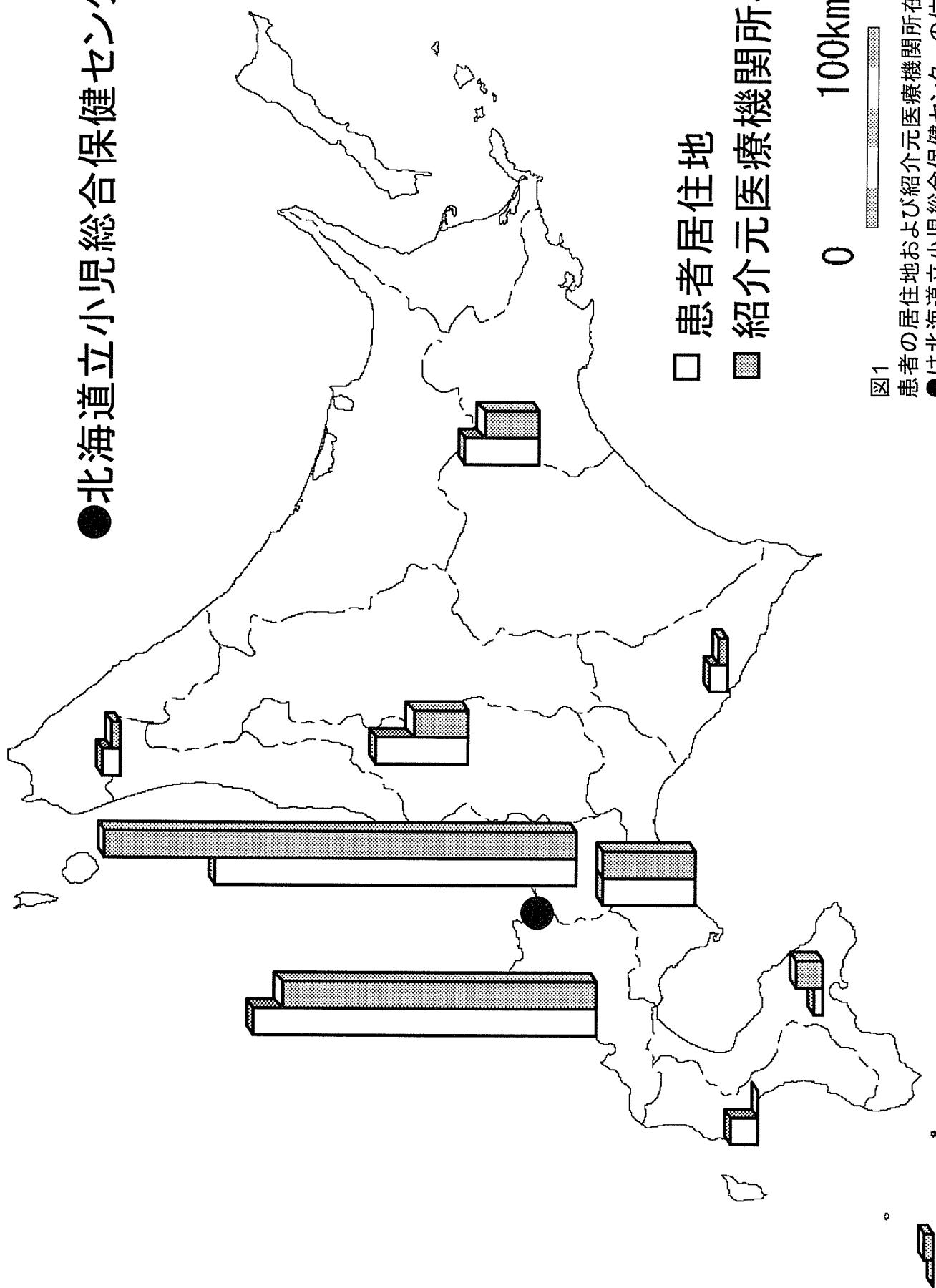


図1
患者の居住地および紹介元医療機関所在地の分布
●は北海道立小児総合保健センターの位置

表1. 疾患の内訳

心室中隔欠損	33
単心室	9
心房中隔欠損	9
肺動脈弁狭窄	9
ファロー四徴(肺動脈閉鎖)	7(4)
動脈管開存	4
総肺靜脈還流異常	4
大動脈縮窄複合	4
大動脈縮窄	3
その他	23
生理的肺動脈狭窄	3
異常なし	4
計	112
入院時の年齢: 0日—5ヶ月 (中央値1ヶ月)	

表2. 紹介医別の疾患重症度分類

	A	B	C	D	計
一般小児科	5	17*	7	13	42
新生児	2	5	5	11	23
小児循環器	0	5	12	25	42
産科	0	1	2	2	5
計	7	28	26	51	112

*p<0.03

表3. 紹介医の専門分野および
紹介医における心エコー施行の有無

	有り	施行せず
一般小児科	26*	16*
新生兒	15*	8*
小兒循環器	41*	1*
産科	0	5
計	82	30

*p<0.01

表4. 紹介医別の診断精度

	T	F	O	U	NC	ND
一般小児科	17*	3	6	2	11	3
新生児	8*	5	3	0	3	4
小児循環器	41*	0	0	0	1	0
産科	0	0	0	0	3	2
計	66	8	9	2	18	9

*p<0.01

表5. 紹介医の違いによる管理. 治療方針への影響

	有り	無し
一般小児科	20	22
新生児	13	10
小児循環器	0	42*
産科	1	4
計	37	75

*p<0.01

表6. 紹介医別の疾患重症度分類
(心エコー診断あり)

	A	B	C	D	
一般小児科	3	13*	4	6	
新生児	1	3	3	8	
小児循環器	0	4	12	25	
計	4	20	19	39	

*p<0.01

表7. 紹介医における心エコー診断の精度

	T	F	O	U	NC	ND
一般小児科	16*	3	3	2	2	0
新生児	8	4	2	0	1	0
小児循環器	40*	0	0	0	1	0
計	64	7	5	2	4	0

*p<0.01

表8. 心エコー施行医の違いによる
管理・治療方針への影響

	有り	無し
一般小児科	8*	18*
新生児	6	9*
小児循環器	0*	41*
計	14	68

*p<0.01

表9. 紹介医（小児循環器疾以外）における
心エコーの有無別重症度分類

	A	B	C	D	
心エコー施行	4	16	7	14	
心エコー未施行	1	6	9	13	
計	5	22	16	27	ns

**表10. 紹介医（小児循環器医以外）における
心エコーの有無別の診断精度**

	T	F	O	U	NC	ND
心エコー施行	24*	7	5	2	3*	0
心エコー未施行	1*	1	4	0	14*	9
計	25	8	9	2	17	9

*p<0.01

表11. 小児循環器医以外による心エコー診断の
有無による管理・治療方針への影響

	有り	無し	
心エコー施行	14	27	
心エコー未施行	23	6	
計	37	33	
			p<0.01

厚生労働科学研究費補助金（医療安全・医療技術評価総合研究事業）
分担報告書

新生児期発症重症心疾患の心エコー診断技術向上に関する研究

分担研究者 富松宏文 東京女子医科大学循環器小児科助手

【研究要旨】

新生児期に発症する重症先天性心疾患の心エコー診断の技術向上および基準化のために、先天性心疾患の基本構築と血行動態の関係をあきらかにするとともに、各疾患別に診断のポイントを解析した。

A. 研究目的

新生児期に発症する重症先天性心疾患の心エコー検査による診断技術の向上のために、検査方法の基準化とその診断におけるポイントを明らかにすることを目的とする。

B. 研究方法

東京女子医科大学で過去に経験した重症先天性心疾患患者の心エコー画像をもとにして、基本的検査方法、診断にいたる考え方、疾患別の診断ポイントをまとめた。

(倫理面への配慮)

実際の心エコー画像からは患者名、ID番号、生年月日などを消去し、患者個人を特定できないようにする。

C. 研究結果

(はじめに)

新生児のなかで先天性心疾患を有するのは生産児の約1%といわれている。しかし、新生児期に管理や治療を必要とする疾患は完全大血管転換症、大動脈縮窄あるいは離断複合、総肺静脈還流異常症、右室低形成、左室低形成、の5つの疾患でほぼ3分の2を占める。残りは、無脾症候群や多脾症候群およびその他である。これらの疾患を早期に診断し適切な管理、治療を行うことは非常に重要であり、これが迅速適切に行われるか否かが患児の予後を左右する。

一方、先天性心疾患の診断に心エコー検査が果たす役割は重要である。しかし、心エコー検査の手技や読影に習熟することは必ずしも容易ではない。そこで、本稿では新生児期に遭遇し、

危急的に適切な診断がなされなければならない疾患について心エコーによる診断のポイントを述べる。

1. 新生児期の代表的心疾患の特徴

新生児期に発症し、危急的状況になる病態は、〔1〕体循環が確立できないもの、〔2〕肺循環が確立できないもの、〔3〕体循環と肺循環の間の交通に障害があるもの、の3つに大別される。それぞれ〔1〕大動脈縮窄・離断複合、左心低形成症候群、〔2〕右室低形成（純型肺動脈閉鎖、狭窄）、種々の疾患に合併する肺動脈閉鎖、〔3〕完全大血管転換、総肺静脈還流異常、が代表的疾患である。これらの病態には動脈管、卵円孔の挙動が重要となる。

2. 先天性心疾患の診断方法について

先天性心疾患を正しく診断するためには、(1)形態診断 (2)血行動態診断の二つの観点から診断をすすめ、これら二方面からの診断が矛盾なく一致することにより正確な診断に到達することができる。

1). 形態診断

正しく、見落としのないように形態診断を行うためには、系統的な診断手順に沿って診断をすすめることが合理的であり、その方法として、区分診断法 (segmental approach) が有用である。

区分診断法は心臓の構築物を心房、心室、大血管の3つの区分に分けてそ

れぞれの位置を診断し、続いて心房一心室、心室一大血管の関係をそれぞれ順番に決定してゆく方法である。このような考え方で心臓の構築を診断すれば、様々な心奇形を順序よく診断することができ、尚かつ見落としもなくなる。

区分診断法を正しく行うためには、各構造物の形態学的（解剖学的）特徴を心エコーで正しく捉えることが重要である。

つぎに区分診断法に沿って診断を進めるときの要点について述べる。

(1) Step 1、心房位

原則的には下大静脈が流入している心房を右房とする。したがって季肋部から矢状断面を描出し、心房に接続する下大静脈が椎体の右側に存在すれば、心房位は正位 (*situs solitus*) となり、逆に左側にあれば逆位 (*situs inversus*) となる。この時、肝静脈を下大静脈と誤認しないようにしなければならない。

また、大きな心房が一つしかない場合や下大静脈が存在しない場合には不定位 (*situs ambiguous*) とすることもある。このようなときには奇（半奇）静脈結合などを考慮する必要がある。