

務とする小児放射線科医はほとんどいないと思われる。PIRを行う機会があっても、実際の手技をしていない時間は通常の小児画像診断業務をしている（しなければならない）というのが現状と思われる。

このような環境のなかで、わが国のPIR（ここでは、中枢神経系と循環器系を除いたPIRとする）の多くは、通常は成人を主な対象として業務を行うIR専門の放射線科医、PIRに興味を持つ臨床家（小児外科医、小児移植外科医、小児泌尿器科医、小児科医）、PIRに興味を持つ小児放射線科医のそれぞれが協調しながら行われている（ときには個々の臨床家が単独で行わなければならない状況もある）と推測される。

上述のようなわが国の現状が想定されるなかで、PIRの手技は施設の規模、人的資源の多寡、使用できる装置の状況などにより、内容もさまざまだと思われる。表1に示した手技のうち、\*印は筆者らが所属する国立成育医療研究センターにおいて、実施に当たりわれわれ放射線科医が深くかかわっている手技である。表4に、国立成育医療研究センター放射線診療部が実施に当たり深く関与している軀幹部PIRの詳細を血管系と非血管系に分けてまとめた。

### III. PIRに関する最近の話題

ここでは、最近の話題として、PIRを行う際に主に使用する血管造影診断装置および器具、米国で発表された小児動脈造影のガイドライン、PIRにおける被曝低減キャンペーンについて解説する。

IRを行う際に使用する装置（主に血管造影撮影装置）は、最新の装置であることが理想的であることはいうまでもない。最近では、フラットパネル検出器（flat panel detector：FPD）を搭載した血管造影撮影装置が広く普及しつつある。さらに、血管造影の際にC-アームを患者の周りで回転させ、多方向からデータを収集し、MSCT同様の立体断面画像を再構成することが可能となった。

このシステムは、FPD搭載C-アーム、画像処理ワークステーション、検査室内の画像モニターと制御用コントローラーで構成される<sup>7)</sup>。FPDに

表4 国立成育医療研究センター放射線診療部が実施に当たり深く関与している軀幹部PIR

血管系インターベンション
・血管塞栓術
肺動静脈瘻
肝動脈（良性・悪性腫瘍）
腎動脈（良性腫瘍、腎機能廃絶）
脾動脈（脾機能亢進）
B-RTO (balloon-occluded retrograde transvenous obliteration)
・血管拡張術
腎動脈狭窄、生体肝移植後の門脈、肝静脈狭窄
・ステント留置術
血管拡張術無効な門脈、肝静脈狭窄
・血栓溶解術
生体肝移植後の門脈
・選択的静脈血サンプリング
腎血管性高血圧における腎静脈およびその近傍
・血管内異物摘出
・経頸静脈的肝生検
非血管系インターベンション
・誤飲消化管異物摘出
・経鼻-空腸チューブ挿入/交換・胃-空腸チューブ挿入/交換
・胆道狭窄に対する経皮経肝胆道ドレナージ
生体肝移植後
鈍的腹部外傷後
・胆道狭窄に対するバルーン拡張術・内外瘻
生体肝移植後
鈍的腹部外傷後
・腹部液体貯留・膿瘍ドレナージ
腹部膿瘍
腸腰筋内膿瘍
虫垂周囲膿瘍
・尿管狭窄に対するバルーン拡張術
尿管皮膚瘻をはじめとする術後の狭窄

補正アルゴリズムを追加することで、軟部組織の密度分解能をもつCT様データセットを得ることが可能になる<sup>7)</sup>。これらの得られたデータは付属のワークステーション上で表示され、C-アームとも相互に連動させることが可能な統合的なIR支援システムを構築することができる<sup>7)</sup>。ワークステーション像の画像は同時に検査室内の画像モニターに表示される。実際には、ワークステーションからC-アームへ角度を反映させることができ、逆にC-アームを回転させることで検査室内のモニター上の画像もリアルタイムに回転でき

る<sup>7)</sup>。

Racadio ら<sup>8)</sup>は、このようなシステムの PIR への応用と有用性について、脊椎をはじめとする骨格系への薬剤注入・造影、殿部からのアプローチによる骨盤膿瘍ドレナージ、腰部からのアプローチによる下大静脈への中心静脈カテーテル留置、腰部交感神経節ブロックを例に報告している。

PIR に使用する器具は、患児の年齢や体重を参考に決めるべきである<sup>9)</sup>。血管系 PIR の際に用いるシースも 4 Fr. に加え、最近では 3 Fr. も使用可能である。マイクロカテーテルシステムにもさまざまな種類があり、先端形状もあらかじめ J 型になっているカテーテルも使用可能である。これらの器具についても新製品に関する最新の情報収集が重要である。

その他、PIR に関する最近の話題としては、米国のインターベンショナルラジオロジー学会 (The Society of Interventional Radiology : SIR) と米小児放射線学会 (The Society for Pediatric Radiology : SPR) が共同で作成・発表した、小児の動脈穿刺ならびに動脈造影に関する質改善のためのガイドラインがあり<sup>10)</sup>、参考になる。このガイドラインには、小児の動脈造影を行ううえでの、血管造影室の環境、血管造影診断装置、放射線被曝防護 (被検患児、検査担当者)、検査前の評価と準備、造影剤、血管造影の適応・禁忌、動脈穿刺・ルート確保・動脈造影の実際、合併症、動脈造影の代替となる他の画像診断検査、について、過去に発表された 130 以上の論文を基にまとめられている<sup>10)</sup>。

また、近年注目を集めている小児 CT 被曝低減の試みである “Image Gently” キャンペーン同様、PIR の被曝低減の試みとして “Step Lightly” キャンペーンが始まっている<sup>11)</sup>。これは、19 の項目を含むチェックリストからなっていて、PIR にかかわる医療者に対して、被曝低減を促す仕組みになっている (注目すべきは、被検患児のみならず検査を行う医療者への被曝低減にも触れている点である)<sup>11)</sup>。また、PIR に関する事項を家族にわかりやすく説明する仕組みも盛り込まれている<sup>11)</sup>。

“Step Lightly” キャンペーンに関する詳細は、

<http://www.pedrad.org/associations/5364/ig/index.cfm?page=584>

を参照されたい (上述のチェックリストもダウンロード可能)。

## おわりに

PIR に関する一般的事項、わが国における PIR の現状、PIR に関する最近の話題、について解説した。

## 文 献

- 1) Towbin RB, Ball WS Jr : Pediatric interventional radiology. *Radiol Clin North Am* 26 : 419-440, 1988
- 2) Roebuck D : Paediatric interventional radiology. *Pediatr Radiol* 39 : S491-S495, 2009
- 3) Sidhu MK, James CA, Harned RK II, et al : Pediatric interventional radiology workforce survey summary. *Pediatr Radiol* 37 : 113-115, 2007
- 4) Shlomovitz E, Amaral JG, Chait PG : Image-guided therapy and minimally invasive surgery in children : a merging future. *Pediatr Radiol* 36 : 398-404, 2006
- 5) 第 45 回日本小児放射線学会抄録集. *日小児放線会誌* 25 (suppl), 2009
- 6) 第 38 回日本 IVR 学会総会プログラム集. *IVR 会誌* 24 (suppl), 2009
- 7) 橋本東児, 本田 実, 清野哲孝, 他 : インターベンショナルラジオロジーにおける C-armCT の有用性. *日獨医報* 51 : 271-282, 2006
- 8) Racadio JM, Babic D, Homan R, et al : Live 3D guidance in the interventional radiology suite. *AJR, Am J Roentgenol* 189 : W357-W364, 2007
- 9) 野坂俊介, 宮崎 治, 土田吉弘, 他 : 小児の血管造影. *臨画像* 21 (11 増) : 168-173, 2005
- 10) Heran MK, Marshalleck F, Temple M, et al : Joint quality improvement guidelines for pediatric arterial access and arteriography : from the Societies of Interventional Radiology and Pediatric Radiology. *J Vasc Interv Radiol* 21 : 32-43, 2010
- 11) Sidhu MK, Goske MJ, Coley BJ, et al : Image gently, step lightly : increasing radiation dose awareness in pediatric interventions through an international social marketing campaign. *J Vasc Interv Radiol* 20 : 1115-1119, 2009

\* \* \*

## V. 資 料

## 研究計画書

1. 研究課題名：胎児仙尾部奇形腫の実態把握・治療指針作成に関する研究
2. 研究責任者：北野良博（国立成育医療センター第二専門診療部外科医長）
3. 研究組織：  
【組織構築・倫理委員会準備・データ収集・解析システム構築・研究統括】  
研究責任者 北野良博

### 【調査項目策定・データ解析】

- 分担研究者 田口智章（九州大学小児外科教授）  
白井規朗（大阪大学小児外科准教授）  
金森豊（東京大学小児外科准教授）  
米田光弘（大阪府立母子保健総合医療センター小児外科医師）  
左合治彦（国立成育医療センター周産期診療部部長）  
中村知夫（国立成育医療センター新生児科医長）  
野坂俊介（国立成育医療センター放射線科医長）

### 4. 研究目的：

出生前診断の普及により胎児診断される外科疾患が増加している。母体搬送、計画分娩、出生直後からの治療により治療水準は向上しているが、生命予後が不良、あるいは救命できても長期合併症を免れない重症例も少なくない。

仙尾部奇形腫は新生児の腫瘍で最も頻度の高い腫瘍で、従来予後は良好であるとされてきた。しかし、出生前診断例の予後は生後診断例とは全く異なり、およそ半数が死亡し、生存者にも脳障害など重篤な合併症を伴うことがわかってきた。その理由は、巨大腫瘍が多く、高拍出性心不全や腫瘍内出血から胎児水腫、子宮内・周産期死亡に至ることが多いためである。直視下腫瘍切除術（open fetal surgery）やラジオ波凝固などの胎児治療報告例もあるが、各専門施設がそれぞれ少数の症例に対応しているため、胎児治療の意義や適応も含めて治療方針が確立していない。この研究の目的は、胎児診断された仙尾部奇形腫についての治療実態と自然歴を明らかにし、罹患胎児を合併症なく救命するための集学的治療指針を作成することである。

両親にとって胎内の赤ちゃんに腫瘍が発見されることは非常なストレスである。治療方法や成績を具体的に提示することが望まれるが、稀少疾患であるため各施設がごく少数の経験を元に話しているのが現状である。本研究で明らかにできる本症の自然歴は、両親に提供する貴重な情報となる。また、本症に対しては胎児治療の報告もあるがエビデンスはなく、胎児治療を含めた周産期全般にわたる治療指針作成が望まれており、本研究で得られた情報がその基盤となることが期待される。

5. 研究対象：国内周産期センターにおける 2000 年から 2009 年の症例
6. 被験者数の設定：対象数の把握も研究目的の一つであり、現段階では設定できない。



7. 研究期間：倫理委員会承認から 2010 年 3 月 31 日

8. 研究方法：

1) 一次調査：出生前診断された仙尾部奇形腫について、日本における症例数と予後に関する調査を国内の周産期センターを対象として実施する。

2) 胎児期の画像所見、臨床経過（羊水過多や胎児水腫の進行、母体のミラー症候群の有無など）、治療方法、生命予後、短期・長期合併症について観察研究のプロトコールと調査票を作成する。

3) 二次調査：1) の調査で同意の得られた施設を対象に、2) で作成した調査票を用いた最近10年間の後方視的観察研究を行う。

4) 観察研究の結果から胎児治療を含めた集学的治療指針を作成する。特に、現在の治療で救命できない症例の特徴を抽出し、胎児治療の適応条件を立案する。

なお、調査票の郵送、回収やデータの管理、統計解析については、NPO法人日本臨床研究支援ユニットに委託する。

9. 予測される成果・研究の意義：

胎児診断された仙尾部奇形腫の発生頻度、検査所見、妊娠経過、胎児治療、周産期管理、生後治療、およびその予後を本邦の主要施設から収集・集計することにより、両親に対する適切な情報を提供することが可能になる。

生後治療で救命できない症例を選別することが可能となれば、本症に対する胎児治療の客観的な適応基準を作成できる。

10. 研究参加のメリット・デメリット：

メリット：後方視的調査研究であり、患者に直接のメリットはない。

デメリット：調査対象とする情報は全て診療録から収集し、患者への直接介入はない。患者の個人情報保護され、デメリットもない。

11. 研究参加の自由と撤回権：

本研究は既存資料のみを用いる観察研究であり、研究対象者に危険・不利益が及ぶ可能性は皆無であると考えられる。

二次調査に関しては、研究者等及び研究協力施設は、研究対象者に対して各施設の外来にてポスターと同様の内容の説明文を配布し、出来る限り同意を確認しカルテに記載をする。しかし、現在通院していない研究対象者等同意の取得が困難な場合には、疫学研究に関する倫理指針第3の1(2)②イ、および第4の3(2)①に基づき、対象患者からの同意を得る予定はない。

研究の意義、目的、方法、研究機関名及び問い合わせ・苦情の窓口に関する情報は、研究代表施設である国立成育医療センターのホームページにて公開する。患者がこの研究の実施を認知し、研究参加の撤回を希望した場合、研究結果公表前であれば、調査票を破棄し、集計結果から除外する。研究協力施設は各施設にある対応表をもとに消去するデータを確認し、研究代表者に連絡することになる。

12. 費用負担：

平成 21 年度厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服事業）を使用する。

13. 個人情報の保護・研究成果の取扱い：

患者の特定ができないよう情報収集は患者番号で行い、対応表は各施設で管理する。結果の個人情報を含まない集計結果だけを公表する。

14. 研究終了後の資料の取扱い：

結果公表後 5 年間研究代表者が保管・管理した後、廃棄する。

15. 資料及び情報の流れ・撤回に関する手続き：

添付図の通り

16. 医療情報の利用：

添付したアンケート用紙を用い、一次調査を行う。

二次調査では添付した調査票を用い、連結可能匿名化した情報を収集する。

17. 研究計画終了届「様式 6」の提出予定日：

平成 22 年 3 月 31 日

18. 参考文献等の添付：

- 1) 対象疾患である胎児仙尾部奇形腫について
- 2) 個人情報の流れ図
- 3) ホームページ掲載用資料
- 4) 一次調査用アンケート用紙
- 5) 二次調査用症例調査票

## 出生前診断された仙尾部奇形腫について

### 1) 疾患概念

仙尾部奇形腫は新生児でもっとも頻度の高い腫瘍で、Hensen's node（胎児の尾骨先端に位置する原始線状の遺残組織）の多分化能を有する細胞から生じると考えられている。年長児では悪性化していることも稀ではないが、新生児の仙尾部奇形腫は基本的に良性腫瘍であり、染色体異常や重篤な合併奇形を伴うことも稀である。従って、新生児の仙尾部奇形腫では、時に認める再発や直腸膀胱障害を除けば、尾骨を含めた腫瘍全摘で良好な予後が期待できる。しかし、胎児例では周産期死亡や子宮内死亡が稀でなく、横隔膜ヘルニアと同じようなhidden mortalityが存在することが知られるようになった。その病態生理が理解されるようになり、周産期死亡や子宮内死亡を回避する目的で胎児治療が導入されつつある。

### 2) 疫学

発生頻度は35000-40000出生に1例と言われており、本邦では年間20-30例の児が誕生する計算になる。男女比は1:3-4で女兒に多い。

### 3) 胎児診断と予後

従来は羊水過多、週数に比して大きな子宮、出血、あるいは子癇をきっかけに胎児診断される場合が多かったが、最近ではスクリーニングで発見されることも多い。画像上充実型、嚢胞型、混合型のどのタイプのこともあり得るが、胎児水腫から子宮内死亡にいたる危険性が高いのは充実型である<sup>1,2</sup>。初診時の腫瘍の大きさ、Altman分類、石灰化の有無などで胎児水腫の予測をすることは難しい。胎児水腫の出現を予測するには経時的な観察しかないので、腫瘍の大きさや性状以外にも、羊水過多・胎児水腫・胎盤肥厚の有無、高拍出量性心不全の指標を細かく追跡することが望ましい。

骨盤腔内への腫瘍の進展を評価するには、骨盤による音響陰影が超音波検査の障害となるため、MRIの方が優れている<sup>3</sup>。胎児手術の適応を判断するためにも、MRIでの評価が望ましい（Altman分類の3型と4型は胎児手術の適応外である）。

胎児診断例の予後は、新生児例からは想像できないほど厳しい。死亡率は30%から50%に達する<sup>2,4,6</sup>。報告による予後の違いは、超音波検査を行った理由にもよると思われる。母体に何らかの異常（羊水過多など）があって検査をする症例には進行例が多く、こういう症例が多く含まれる報告では予後は悪くなる。逆にスクリーニングで偶然見つかるケースが多いと予後は比較的良好となろう。特に胎児水腫を合併した場合の予後は致死的である。ただし、在胎週数が26週以降では出生後の治療で救命された症例も報告されている<sup>7,9</sup>。

### 4) 病態生理

胎児例の予後を不良としている要因は単一ではない。

#### 1. 早産

腫瘍による子宮壁への直接の刺激や合併する羊水過多により、早産となることが多い。

#### 2. 腫瘍破裂・腫瘍内出血

分娩ともなう腫瘍破裂や腫瘍内出血が知られており、腫瘍径が 5 cm 以上の場合には帝王切開による分娩が一般的である。しかし、分娩時以外にも子宮内あるいは生後に生じることもある。

### 3. 高拍出量性心不全

胎児治療を考慮する際にもっとも重要な病態である。腫瘍が動静脈シャントとして機能することにより血流が胎盤から腫瘍へと steal され、心拍出量が増え、心腔や下大静脈の拡大、心拍出量の増加、大動脈の流量増加などが観察されるようになる<sup>6,10</sup>。やがて心臓が代償できなくなると胎児水腫や胎盤肥厚が出現する。さらに病態が進むと母体に高血圧、浮腫、蛋白尿、嘔吐、肺水腫などの症状が見られるようになる。胎児の状態を母体が mirror する、という意味で maternal mirror syndrome と呼ばれているが、詳しい機序はわかっていない。何らかの血管作動性物質が胎盤から母体血中に放出されるのではないかと推測されている。治療は胎児の娩出以外にはない。胎児手術が成功しても母体の mirror syndrome は改善しないという経験から、mirror syndrome を伴う場合には胎児手術の適応外と考えられている<sup>11</sup>。このような病態は血流の多い充実型の腫瘍に多く、嚢胞成分の多い腫瘍では少ない。また、急激な腫瘍の増大が先行することが多いと言われている。ただし、充実型腫瘍であっても心不全・胎児水腫の兆候を示さないことの方が多い<sup>4</sup>ため、細かな観察以外に予後を予測する手段はない<sup>12</sup>。

## 5) 胎児治療

仙尾部奇形腫に対する胎児治療は、1983年のMintzらの報告が最初である<sup>13</sup>。その治療目標によって、腫瘍破裂などの周産期合併症や泌尿器系への圧迫を回避するための治療と高拍出量性心不全による胎児水腫の進行を回避するための治療に分けられる。

### 1. 嚢胞ドレナージ・シャント

難産予防の目的で嚢胞内容除去を行った報告が最初である<sup>13</sup>。帝王切開によっても腫瘍破裂の危険性は残るとして、分娩直前に嚢胞内容 (115・640 ml) を吸引して経膈分娩に成功した報告もある<sup>14,15</sup>。

特殊なケースとしては、仙尾部奇形腫に合併する両側水腎症に対し、膀胱・尿管の圧迫解除を目的とした胎児治療がある<sup>16-18</sup>。Garciaらは、22-23週時に嚢胞ドレナージとシャント留置を行った症例を報告している<sup>18</sup>。29週で早産となった児の腎機能は正常であったという。Gotoらは両側水腎症を合併した胎児に28週時に膀胱羊水腔シャントを施行した<sup>17</sup>。児は30週で分娩になり、合併した肺低形成で死亡した。

### 2. 直視下腫瘍切除術

胎児水腫の進行を回避する目的で open fetal surgery が導入されたのは 1989 年の Langer らの報告が最初である<sup>19</sup>。22 週の胎児水腫と胎盤腫大を合併した胎児に対する胎児手術は成功裏におわったが、母体に肺水腫と前期破水を合併したために 26 週で分娩に至り、児を救命することはできなかった。最初の救命例は 1997 年に報告された<sup>20</sup>。20 週に診断された後腫瘍が急速に増大し、26 週時には羊水過多、高拍出量性心不全、胎盤肥厚を伴うようになり、胎児手術が施行された。術後 10 日で胎児水腫と胎盤肥厚は消失し、29 週で分娩となった。この症例は退院後 1 歳 4 ヶ月時に AFP の上昇と肺転移が確認されたが、肺切除と化学



療法で治療されている。

open fetal surgeryの適応は、単胎であること、子宮外での生存が望めない週数（28 - 32 週とするのが一般的）であること、高拍出量性心不全の兆候があること、腫瘍の大部分が体外（Altman分類の1型または2型）で腫瘍切除が比較的容易であることである。除外項目は母体が手術に耐えられないと判断される場合、mirror syndrome合併例、高度胎児水腫例、他に重篤な合併奇形を有する場合などである。胎児水腫が完成してからの手術では胎児が手術侵襲に耐えられないと考えられることから、急速な腫瘍増大に伴って心不全兆候が明らかになった段階での手術が推奨されている<sup>4,11</sup>。そのためにはより早期に胎児診断し、細やかな観察を行って時期を逸することなく手術に踏み切る必要がある。

仙尾部奇形腫に対する胎児手術の文献報告例は10例で、6例がサンフランシスコ、4例がフィラデルフィアからである<sup>4,11,19-21</sup>。生存例は5例であるが、不幸にして生後の治療で死亡した例を成功例と考えると胎児手術の救命率は70%となる。しかし、この手術は胎児の循環動態に与える影響が大きく<sup>22</sup>、実際2例で術中に胎児が心停止を起こしていること（症例6と8）、動脈管収縮（症例8）や血管塞栓性病変（症例9）などの合併症もありうること、早産、羊膜剥離、絨毛羊膜炎、前期破水、肺水腫などの母体合併症がほぼ必発であること、30週未満に分娩となることが多いなど、母児に対する侵襲が大きく、広く普及するには至っていない。

### 3. 腫瘍血流遮断術（ラジオ波・レーザー・電気凝固、アルコール注入）

open fetal surgeryの侵襲が無視できないことから、より低侵襲な治療法が試みられている。超音波ガイド下にプローブを穿刺して腫瘍の栄養血管を焼灼する手技である。最初の試みはレーザー治療であったが、腫瘍血管の血流を止めるには至らなかった<sup>23</sup>。もっとも報告数の多いものはラジオ波凝固で5例の報告がある<sup>24,25</sup>。Paekらは、腫瘍組織を広範囲に焼灼すると、後出血や壊死組織からの有害物質が循環血液中へと流入することから、胎児死亡につながるかと推測している。凝固範囲を腫瘍血管周囲に限定することによって生存例を2例得た<sup>25,26</sup>。電気凝固を試みた症例では処置後2日で胎児死亡が確認された<sup>27</sup>。レーザーを用いるものは4例の報告があり、生存1例（25%）で、アルコールを用いる方法は3例で生存なし（0%）であった。

## 6) まとめ

高拍出量性心不全から胎児水腫に陥った本症の予後は厳しい。20週前半に急激な腫瘍の増大に伴う高拍出量性心不全を認めた場合、普遍的で確実な治療とは言い難いが、直視下胎児手術かラジオ波凝固などの腫瘍血流遮断術しか救命手段はない。20週後半に心不全兆候が出現した場合はどうか。未熟児管理の進歩から従来致命的と考えられていた30週未満の救命例が最近数例報告されているし、胎児治療には術後のモニターや治療ができないという限界があることから、胎児治療しか救命できないとも言い切れず、さらなる症例の蓄積が必要である。

近年の胎児治療の方向性として、解剖学的修正よりも病態生理学的修正を低侵襲に行う、という流れがある<sup>28</sup>。本症の胎児治療も母児に対する侵襲が大きいopen fetal surgeryよりも腫瘍血管を選択的に閉塞させる治療が主流となっていくと思われる。

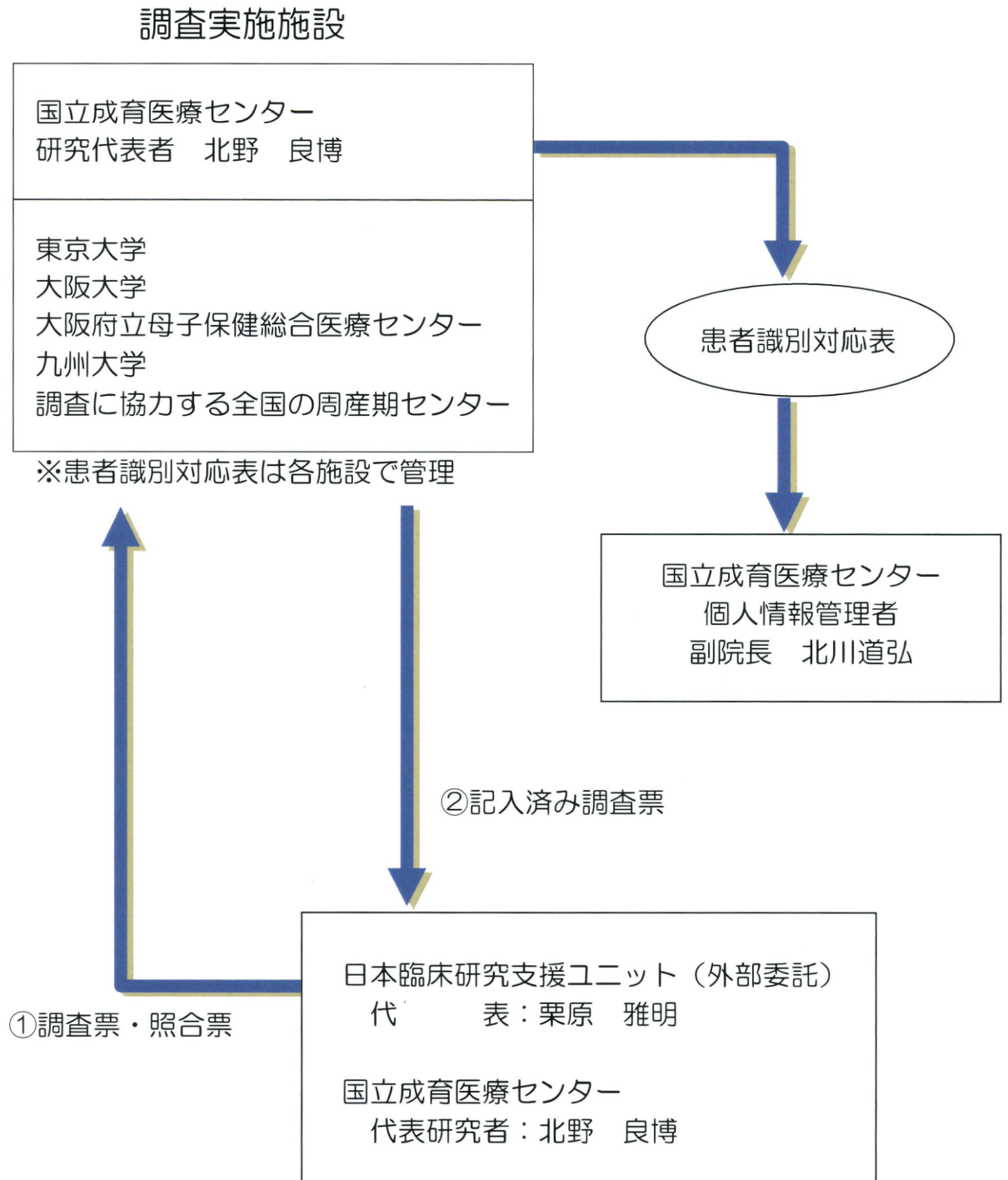
以上より、本邦における胎児仙尾部奇形腫の治療成績をまとめておくことは、胎児治療を臨床応用する前に欠かせないステップであると思われる。

#### 文献

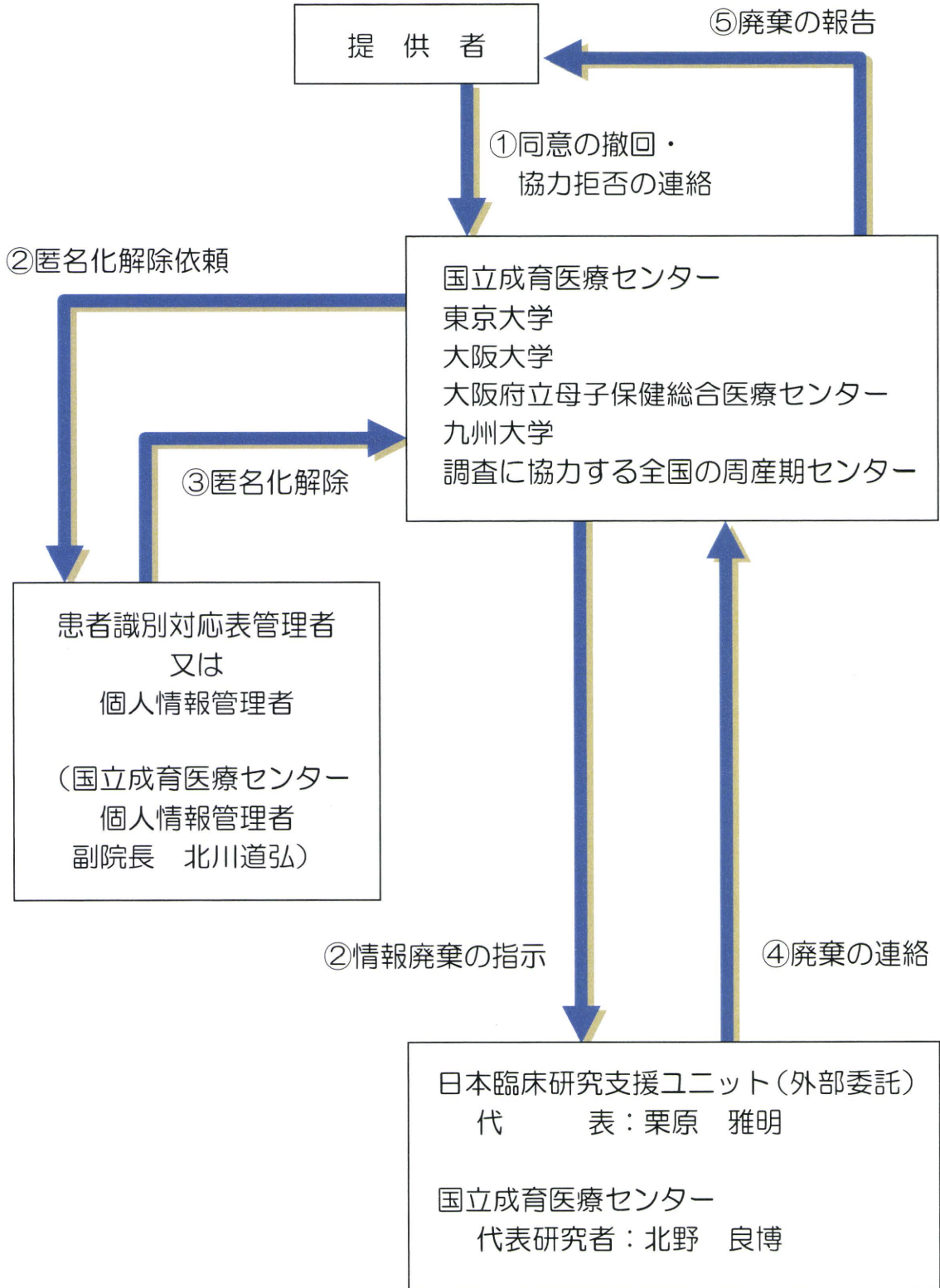
1. Westerburg B, Feldstein VA, Sandberg PL, et al Sonographic prognostic factors in fetuses with sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 35: 322-325; discussion 325-326, 2000
2. Holterman AX, Filiatrault D, Lallier M, et al The natural history of sacrococcygeal teratomas diagnosed through routine obstetric sonogram: a single institution experience. *J Pediatr Surg* 33: 899-903, 1998
3. Kirkinen P, Partanen K, Merikanto J, et al Ultrasonic and magnetic resonance imaging of fetal sacrococcygeal teratoma. *Acta Obstet Gynecol Scand* 76: 917-922, 1997
4. Hedrick HL, Flake AW, Crombleholme TM, et al Sacrococcygeal teratoma: prenatal assessment, fetal intervention, and outcome. *J Pediatr Surg* 39: 430-438; discussion 430-438, 2004
5. Flake AW Fetal sacrococcygeal teratoma. *Semin Pediatr Surg* 2: 113-120, 1993
6. Bond SJ, Harrison MR, Schmidt KG, et al Death due to high-output cardiac failure in fetal sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 25: 1287-1291, 1990
7. 吉野浩之、横森欣司、尾花和子、他：胎児水腫を合併した巨大仙尾部奇形腫の治療戦略。 *小児外科* 34：1442-1446, 2002
8. Robertson FM, Crombleholme TM, Frantz ID, 3rd, et al Devascularization and staged resection of giant sacrococcygeal teratoma in the premature infant. *J Pediatr Surg* 30: 309-311, 1995
9. Nakayama DK, Killian A, Hill LM, et al The newborn with hydrops and sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 26: 1435-1438, 1991
10. Schmidt KG, Silverman NH, Harison MR, et al High-output cardiac failure in fetuses with large sacrococcygeal teratoma: diagnosis by echocardiography and Doppler ultrasound. *J Pediatr* 114: 1023-1028, 1989
11. Graf JL, Albanese CT, Jennings RW, et al Successful fetal sacrococcygeal teratoma resection in a hydropic fetus. *J Pediatr Surg* 35: 1489-1491, 2000
12. Neubert S, Trautmann K, Tanner B, et al Sonographic prognostic factors in prenatal diagnosis of SCT. *Fetal Diagn Ther* 19: 319-326, 2004
13. Mintz MC, Mennuti M, Fishman M Prenatal aspiration of sacrococcygeal teratoma. *AJR Am J Roentgenol* 141: 367-368, 1983
14. Kay S, Khalife S, Laberge JM, et al Prenatal percutaneous needle drainage of cystic sacrococcygeal teratomas. *J Pediatr Surg* 34: 1148-1151, 1999
15. Weston MJ, Andrews H Case report: in-utero aspiration of sacrococcygeal cyst. *Clin Radiol* 44: 119-120, 1991

16. Jouannic JM, Dommergues M, Auber F, et al Successful intrauterine shunting of a sacrococcygeal teratoma (SCT) causing fetal bladder obstruction. *Prenat Diagn* 21: 824-826, 2001
17. Goto M, Makino Y, Tamura R, et al Sacrococcygeal teratoma with hydrops fetalis and bilateral hydronephrosis. *J Perinat Med* 28: 414-418, 2000
18. Garcia AM, Morgan WM, III, Bruner JP In utero decompression of a cystic grade IV sacrococcygeal teratoma. *Fetal Diagn Ther* 13: 305-308, 1998
19. Langer JC, Harrison MR, Schmidt KG, et al Fetal hydrops and death from sacrococcygeal teratoma: rationale for fetal surgery. *Am J Obstet Gynecol* 160: 1145-1150, 1989
20. Adzick NS, Crombleholme TM, Morgan MA, et al A rapidly growing fetal teratoma. *Lancet* 349: 538, 1997
21. Chiba T, Albanese CT, Jennings RW, et al In utero repair of rectal atresia after complete resection of a sacrococcygeal teratoma. *Fetal Diagn Ther* 15: 187-190, 2000
22. Rychik J, Tian Z, Cohen MS, et al Acute cardiovascular effects of fetal surgery in the human. *Circulation* 110: 1549-1556, 2004
23. Hecher K, Hackeloer BJ Intrauterine endoscopic laser surgery for fetal sacrococcygeal teratoma. *Lancet* 347: 470, 1996
24. Hirose S, Farmer DL Fetal surgery for sacrococcygeal teratoma. *Clin Perinatol* 30: 493-506, 2003
25. Paek BW, Jennings RW, Harrison MR, et al Radiofrequency ablation of human fetal sacrococcygeal teratoma. *Am J Obstet Gynecol* 184: 503-507, 2001
26. Ibrahim D, Ho E, Scherl SA, et al Newborn with an open posterior hip dislocation and sciatic nerve injury after intrauterine radiofrequency ablation of a sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 38: 248-250, 2003
27. Lam YH, Tang MH, Shek TW Thermocoagulation of fetal sacrococcygeal teratoma. *Prenat Diagn* 22: 99-101, 2002
28. Harrison MR Fetal surgery: trials, tribulations, and turf. *J Pediatr Surg* 38: 275-282, 2003

# 個人情報の流れ図



# 撤回に関する手続き



# 当院は下記の研究に協力しています

記

## 「胎児仙尾部奇形腫の実態把握・治療指針作成に関する研究」

### 研究の目的・意義

新生児に多い仙尾部奇形腫の予後は良好であると従来考えられてきました。しかし、出生前診断例の予後は生後診断例とは全く異なり、およそ半数が死亡し、生存者にも脳障害など重篤な合併症を伴うことがわかってきました。その理由は、腫瘍が大きく、心不全や腫瘍内出血から胎児水腫、子宮内・周産期死亡に至ることが多いためです。胎児手術やラジオ波凝固などの胎児治療報告例もありますが、各専門施設がそれぞれ少数の症例に対応しているため、胎児治療の意義や適応も含めて治療方針が確立していません。この研究の目的は、胎児診断された仙尾部奇形腫についての治療実態と治療成績を明らかにし、罹患胎児を合併症なく救命するための集学的治療指針を作成することです。本研究で明らかにできる日本における治療成績は、両親に提供する貴重な情報となると考えています。

### 研究の方法

- 1) 出生前診断された仙尾部奇形腫について、日本における症例数と予後に関する調査を国内の周産期センターを対象として実施します。
  - 2) 胎児期の画像所見、臨床経過（羊水過多や胎児水腫の進行、母体のミラー症候群の有無など）、治療方法、生命予後、短期・長期合併症について観察研究のプロトコールと調査票を作成します。
  - 3) 1) の調査で同意の得られた施設を対象に、調査票を用いた最近10年間の後方視的観察研究を行います。
  - 4) 観察研究の結果から胎児治療を含めた集学的治療指針を作成します。
- なお、調査票の郵送、回収やデータの管理、統計解析については、NPO法人日本臨床研究支援ユニットに委託します。

### 研究実施機関

研究施設：国立成育医療センター、東京大学、大阪大学、大阪府立母子保健総合医療センター、九州大学

※本研究は各研究施設の倫理委員会で承認を得た上で実施しています。

研究協力施設：全国の周産期センター

国立成育医療センター（HPにて概要を掲載 <http://www.ncchd.go.jp/>）

※同意の撤回または、研究へご参加を拒否される場合には、お手数ですが、主治医へご連絡下さい。



添付書類3) ホームページ掲載用資料

疫学研究実施についてのお知らせ

第二専門診療部外科では以下の疫学研究を、厚生労働省難治性疾患克服研究事業の一環として実施しております。

平成 21 年\*\*月\*\*日

**【研究課題名】**

胎児仙尾部奇形腫の実態把握・治療指針作成に関する研究

**【研究期間】**

倫理委員会承認から平成 22 年 3 月 31 日

**【研究の目的・意義】**

新生児に多い仙尾部奇形腫の予後は良好であると従来考えられてきました。しかし、出生前診断例の予後は生後診断例とは全く異なり、およそ半数が死亡し、生存者にも脳障害など重篤な合併症を伴うことがわかってきました。その理由は、腫瘍が大きく、心不全や腫瘍内出血から胎児水腫、子宮内・周産期死亡に至ることが多いためです。胎児手術やラジオ波凝固などの胎児治療報告例もありますが、各専門施設がそれぞれ少数の症例に対応しているため、胎児治療の意義や適応も含めて治療方針が確立していません。

この研究の目的は、胎児診断された仙尾部奇形腫についての治療実態と治療成績を明らかにし、罹患胎児を合併症なく救命するための集学的治療指針を作成することです。本研究で明らかにできる日本における治療成績は、両親に提供する貴重な情報となると考えています。

**【研究方法】**

1) 出生前診断された仙尾部奇形腫について、日本における症例数と予後に関する調査を国内の周産期センターを対象として実施します。

2) 胎児期の画像所見、臨床経過（羊水過多や胎児水腫の進行、母体のミラー症候群の有無など）、治療方法、生命予後、短期・長期合併症について観察研究のプロトコールと調査票を作成します。

3) 1) の調査で同意の得られた施設を対象に、調査票を用いた最近10年間の後方視的観察研究を行います。

4) 観察研究の結果から胎児治療を含めた集学的治療指針を作成します。

なお、調査票の郵送、回収やデータの管理、統計解析については、NPO法人日本臨床研究支援ユニットに委託します。

**【個人情報の保護について】**

個人情報を含まない集計結果のみを公表するため、個人情報は保護されます。  
患者さん個人を特定できるような情報は収集しません。

**【研究機関名】**

研究施設：国立成育医療センター、東京大学、大阪大学、大阪府立母子保健総合医療センター、九州大学

研究協力施設：全国の周産期センター

**【結果の公表】**

個人情報を含まない集計結果のみを国内外の学術集会・学術雑誌に公表します。

**【本研究に関する問い合わせ先】**

研究代表者：北野良博

〒157-8535

東京都世田谷区大蔵 2-10-1

国立成育医療センター 第二専門診療部 外科

電話：03-3416-0181

FAX：03-3416-2222

Email: [kitano-y@ncchd.go.jp](mailto:kitano-y@ncchd.go.jp)

平成 21 年度厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業）

胎児仙尾部奇形腫の実態把握・治療指針作成に関する研究

胎児仙尾部奇形腫患者の全国実態調査のお願い

産科診療責任者殿

拝啓

厳寒の候、ますますご清祥のこととお慶び申し上げます。

この度厚生労働科学研究費補助金の事業として、胎児期に診断された仙尾部奇形腫の全国実態調査を行うことになりました。仙尾部奇形腫は新生児に最も多い腫瘍で従来は予後良好と考えられていましたが、胎児診断例の予後はより厳しいものであることが知られています。今回の研究では、胎児診断された仙尾部奇形腫の日本の治療実態を調査することを目的としております。そのために、日本周産期・新生児医学会母体・胎児研修施設の基幹施設・指定施設を対象に、症例数と生命予後の調査を行うことになりました。さらに、ご協力いただける施設を対象として調査票を用いた二次調査を行う予定です。ご多忙中誠に恐縮ですが、2000年1月1日から2009年12月31日の期間に胎児診断された症例について、次ページのアンケートにお答えいただき、平成22年1月25日までに返信用封筒でご郵送いただきますようお願い申し上げます。

今回の一次調査には患者の個人情報に含まれませんので必ずしも患者の同意が必要ではなく、各施設の倫理委員会への申請も不要です（「疫学研究に関する倫理指針」第3.1(2)②イ）。尚、この研究については国立成育医療センターの倫理委員会の承認を得ておりますが、ご不明な点がございましたら研究代表者までお問い合わせください。

敬具

2010年1月

研究代表者（問い合わせ先）

国立成育医療センター 第二専門診療部 外科

北野良博

電話：03-5494-8305（直通）

email: [kitano-y@ncchd.go.jp](mailto:kitano-y@ncchd.go.jp)

胎児仙尾部奇形腫に関する全国実態調査

貴施設名 ( )

回答者ご氏名 ( )

Q1: 2000年1月1日から2009年12月31日までの間に、貴施設で胎児診断された仙尾部奇形腫の症例はございましたか？ あった場合には症例数もご記入ください。

なかった あった ( ) 例

Q2: 症例の予後を教えてください。

人工流産 ( ) 例

子宮内胎児死亡 ( ) 例

分娩 ( ) 例

生存 ( ) 例

死亡 ( ) 例

不明 ( ) 例

妊娠継続中 ( ) 例

Q3: 胎児期に母体または胎児に治療行為を行った症例はありましたか？ あった場合には症例数もご記入ください。

なかった あった ( ) 例

Q4: より詳細な調査票を用いた二次調査にご協力いただけますでしょうか？

協力できる 協力できない

今回の調査項目は以上です。貴重なお時間をいただきありがとうございました。

## 胎児仙尾部奇形腫患者の全国実態調査

### 症例調査票

施設名	病院
施設内管理番号	(内容の照会時に用います。貴施設内で患者様を特定できる様な番号の記載をお願い致します。また外部から患者様を特定できるようなものはご遠慮下さい(例: 成育①))
調査票作成日	20      年      月      日
調査票記載者	科
	科

#### \*\*\* 調査票記入上の注意事項 \*\*\*

1. 記入後は、必ずコピーをとり、施設で保管してください。
2. 以下の対象者についてご記入ください。  
**2000年1月1日から2009年12月31日までの期間に仙尾部奇形腫と胎児診断された症例**
3. 全般的な注意点
  - 1) 記入: 黒または青のペンまたはボールペンで記入してください。
  - 2) 該当する項目の口に✓を付けてください。
  - 3) 複数選択と記載していない場合は1つだけ選択してください。
  - 4) データが不明の場合には、斜線を引いてください。
  - 5) 患者の氏名など個人を特定できる情報は記載しないでください。

## 出生前の情報

### ・出生前診断

最初に仙尾部奇形腫と診断された週数	週	分娩予定日	20	年	月	日
-------------------	---	-------	----	---	---	---

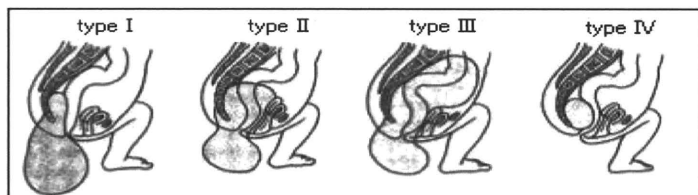
### ・母体情報

母体の年齢 (診断時)	歳	単胎または多胎 (今回の妊娠)	<input type="checkbox"/> <sup>1</sup> 単胎	<input type="checkbox"/> <sup>2</sup> 多胎
妊娠分娩歴	<input type="checkbox"/> <sup>1</sup> 初産 <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> 経産	今回の妊娠における 不妊治療の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり →	<input type="checkbox"/> <sup>1</sup> 排卵誘発 <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> AIH <input type="checkbox"/> <sup>3</sup> IVF <input type="checkbox"/> <sup>4</sup> ICSI <input type="checkbox"/> <sup>5</sup> その他( )

### ・初回診断時 超音波検査

初回診断時 超音波検査実施日	20	年	月	日
病型*1	<input type="checkbox"/> <sup>1</sup> Altman I型 <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> Altman II型 <input type="checkbox"/> <sup>3</sup> Altman III型 <input type="checkbox"/> <sup>4</sup> Altman IV型			
腫瘍の性状*2	<input type="checkbox"/> <sup>1</sup> 嚢胞型 <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> 充実型 <input type="checkbox"/> <sup>3</sup> 混合型(嚢胞成分優位) <input type="checkbox"/> <sup>4</sup> 混合型(充実成分優位)			
腫瘍最大径	cm	胎児皮下浮腫の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり	
胎児胸水の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり		胎児腹水の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり
心拡大の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> 不明 <small>(目安は CTR 35%以上。正確に計測していなくても明らかに心拡大が認められていれば「あり」として下さい)</small>		水腎症の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり
羊水過多の有無	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> あり(最大羊水深度: _____ cm )			
児頭大横径(BPD)	cm	胎児計測による推定体重	g	
腫瘍栄養血管の同定	<input type="checkbox"/> <sup>0</sup> 同定なし <input type="checkbox"/> <sup>1</sup> 同定あり <input type="checkbox"/> <sup>2</sup> 不明			

\*1: Altman病型分類



\*2: 腫瘍の性状の定義

嚢胞型は腫瘍の90%以上を嚢胞が占めるもの。充実型は腫瘍の90%以上を充実成分がしめるもの。それ以外は混合型にするが、嚢胞成分と充実成分のどちらが優位かにより、二つに分類する。

