

厚生労働科学研究費補助金（成育疾患克服等次世代育成基盤研究事業）
突然の説明困難な小児死亡事例に関する登録・検証システムの確立に向けた
実現可能性の検証に関する研究
（主任研究者 溝口 史剛）

分担研究 「死後画像診断の CDR への活用に関する文献的研究」

分担研究者 小熊栄二（埼玉県立小児医療センター）

研究要旨 CDR（チャイルド・デス・レビュー）の中で、死後画像診断にどのような役割が期待できるかについて、とくに予測不能乳児突然死での有用性について、公刊されている文献を基に検討を行った。PubMed により 291 文献を検索し、有用性について言及している 8 文献を基に検討し、死後 CT と死後 MRI を主体とする小児の死亡時画像診断は、死亡状況調査や解剖の相補的な検査として、死因の究明、最終的な病態の評価、医療行為の妥当性の評価、そして身体的な虐待や不適切養育の有無を検索する手段としての有用性を期待できることが明らかとなった。

A. 研究目的

死後画像診断（死後画像、死亡時画像診断、オープンイメージング、Ai、postmortem imaging など）は、直接死因・間接死因の究明、病理解剖との対比による最終的な病態の評価、医療行為の妥当性の評価、個人の特定や加害状況の再現などの法医学的利用、など様々な目的のもとに行われる。小児ではこれに加え生前の生活状況を解明する事、すなわち虐待や不適切な養育の有無の検索が死後画像診断を実施する大きな目的となる。とくに CDR の中心的な対象となる予測不能乳児突然死（SUID：sudden unexpected infant death あるいは SUDI：sudden unexpected death in infancy）の中には、無視し得ない数の虐待事例が含まれていると推測されている。死後画像診断を小児とくに予測不能乳児突

然死例の CDR に適用する際に前提となる知識について文献的研究を行った。

B. 研究方法

小児期死亡の死因構成は成人とは異なるものであり、死後画像診断の有用性も成人の場合とは異なることが考えられる。まず新生児・乳児期死亡への死後画像診断の利用の有効性について報告している文献の検索を行った。PubMed にて検索式”Search postmortem imaging OR postmortem CT OR postmortem MRI Filters: published in the last 10 years; English; Infant: birth-23 months”により 291 をリストアップした。

小児期死亡に対する死後画像の有用性を検討した研究はいまだ少数にとどまっていた。乳幼児期の単純 X 線撮影による骨疾患

の診断[1]、胎児・乳幼児期の死後MRの利用については大規模な前方視研究が行われ、その成績が発表されている[2]。

C. 研究結果

小児突然死への死後画像診断の利用

予測不能乳児突然死例に関連する報告は、乳幼児の突然死47例に、全身の死後CT、全身骨撮影を行い、非特異的死後変化、死因に関連する異常所見をとり、剖検所見と照合した研究が行われ、死亡時画像診断と剖検所見の高い一致率が得られている[3]。剖検で18例(38.3%)の死因が明らかになった。4例は虐待、12例は感染性疾患、1例が代謝性疾患、1例は消化管の捻転であった。死後CTは18例中15例(83.3%)で剖検結果に一致。29例(61.7%)では死因不明で、その中の27例は死後CTで異常所見はなかった。虐待4例は、2例は偶発外傷疑い、2例は全く外傷を疑われていなかった。剖検で明らかになる死因は、死後CTでもよく描出されることがわかった。偽陽性は死後CTで肺炎と診断した2例、偽陰性は死後CTで正常判定だが剖検で肺炎とされた3例で、肺炎では解剖と死後CTの乖離が大きい[3]。

わが国での小児突然死への死後画像診断の報告

わが国の小児の突然死の死因究明に対するPMCTの有用性を探った報告[4]では、15例の非外因死の小児の突然死(病院到着時心肺停止例)に死亡診断から2時間以内に死後CT(頭部15例、胸部11例、腹部12例)を施行し、2例は解剖結果と照合、残り13例は臨床的に判断された死因が所

見に現れているか判定を行っている。死後CT単独では死因の推定が困難であったが、臨床経過、臨床情報、検査値、細菌培養と併せると15例中14例で、臨床的に推定された死因に関連した所見が得られ、死後CTと他の情報を併せると死因推定が高頻度に可能であると結論づけていた[4]。

新生児死亡例への単純X線撮影のルーチン撮影の有効性

小児期の死亡例について、ルーチンに全例死後画像診断を行った場合の有効性についての報告[1]は、新生児・乳幼児期の単一施設の死亡例全員に死後単純X線撮影を実施し、骨異形成、骨折、他の骨の異常の診断と評価を目的として行われた1,027例の研究報告が存在する。結果は異常所見の発見率12.3%で、33の偶発所見、19の意味ある所見、20の診断的所見、2例の偽陽性所見を見出したが、ルーチンに検査をしなければ発見不可能な所見は739例中2例のみ(0.27%)であり、費用対効果を考慮すると全例実施は効率が悪く、合理的な死後画像実施の選択基準を設けるべきであると結論づけられている[1]。

死後MRの診断精度のシステマチックレビュー

小児期死亡に対する死後画像の評価が最も進んでいるのは英国における一連の死後MRの研究である[2、5]。死後MRの正確性、受容性、費用対効果を見定めるためのシステマチックレビュー[5]では、539論文から対象基準を満たした9研究の患者を抽出、胎児146例、小児11例を成人24例と比較して検討している[5]。死後MR

による死因または臨床上もっとも重要な所見を検出する感度と特異性は、胎児ではそれぞれ 69%と 95%、小児では 28%と 64%、成人では 28% と 64%であり、胎児では比較的高い感度と特異性が認められたものの、出生後の小児や成人では高くなかった [5]。

このシステムチェックレビューの結果より、死後 MR について従来公刊されているデータは、少数、多様であり、研究デザインも良くなく、承諾率と経済性のデータは不十分だったことが示された。この結果、死後 MR の価値をより厳密に評価し、最小限の侵襲による限定的な解剖と併せて従来の解剖を代替しうるかを検討する、次の大規模前方視研究が行われた [2]。

死後 MR による大規模前方視研究の成績

ロンドンの 2 つのセンターで 4 年半の期間に対象を限定せず、24 週以前、24 週超の胎児、16 歳未満の小児に、全身の死後 MR を実施し、死後 MR に加えて臨床経過、生前と死後の検体検査、他の画像検査などを合わせて判断した場合、死亡と関連する主要な病的所見の描出が通常解剖とどの程度一致するかを評価している [2]。

胎児が 277 例、小児 123 例の合計 400 例が対象となり、357 例(89.3%, 95% CI 85.8-91.9)で死後 MR が通常解剖と一致した。年齢別に見ると 24 週以下の胎児は 175/185 例 (94.6%, 90.3-97.0) 、24 週超では 88/92 例 (95.7%, 89.3-98.3)、新生児は 34/42 例 (81.0%, 66.7-90.0)、生後 1 ヶ月超の乳児 45/53 例 (84.9%, 72.9-92.1)、1 歳 ~ 16 歳では 15/28 例(53.6%, 35.8-70.5)と、低年齢ほど良好な一致率が得られている [2]。165

例(41%)では、従来法の解剖は不要と判定されたが実際には解剖が行われ、死後 MR と従来法の解剖との一致率は 99.4%と高かった [2]。

死後 MR は臨床経過や検査値などと合わせて判断すると、年長児では正確さが低下するものの、胎児、新生児、乳児の死因と主要な病的所見の描出においては従来法の解剖に匹敵し、また家族からの承諾が得られやすく、症例を選択すれば従来法の解剖の代替手段となりうると結論づけられている [2]。

D. 考察

児童虐待の診断に死後画像は有効か？

児童虐待が疑われている事例で身体損傷の存在を証明するための死後画像診断や、予期せざる小児の突然死例の中から虐待を受けていた事例を発見するための死後画像診断は、かなり以前から行われてきた。すでに 1984 年に米国マサチューセッツ州ウースター、ボストンで、12 例の死因未解明の乳児死亡例に全身骨撮影を行った結果、10 例 34 箇所の骨折を発見し、8 例中 6 例の死因判断と有罪例 5 例中の 4 例の刑事訴追に影響したことが報告されている [6]。

わが国の単一施設での予期せぬ乳幼児死亡 38 例に対する保護者承諾に基づく死後 CT の結果では、3 例に急性硬膜下血腫と混在する頭蓋骨骨折、鎖骨骨折が認められ、臨床的には想定されていなかった児童虐待を疑う契機となったことが報告されている [7]。

2 歳以下の虐待 8 例に対して、死亡から 24 時間以内の死後 MR を施行し、解剖所見と比較した結果では、脳浮腫、脳挫傷、

剪断損傷、虚血、梗塞がMRIで良好に示された。くも膜下血腫、縫合離開、頭蓋外損傷、非常に小さな硬膜下血腫の検出には、解剖の方が優れていた。死後MRIは異常の局在をわかりやすく示し、解剖時の断面の選択に有効であり、半数で死後MRの併用で追加的な情報が得られた[8]。

E. 結論

死後CTと死後MRIを主体とする小児の死亡時画像診断は、死亡状況調査や解剖の相補的な検査として、死因の究明、最終的な病態の評価、医療行為の妥当性の評価、そして身体的な虐待や不適切養育の有無を検索する手段としての有用性を期待できることが明らかとなった。

参考文献：

文献 1-5 については検索式 Search postmortem imaging OR postmortem CT OR postmortem MRI Filters: published in the last 10 years; English; Infant: birth-23 months”で291文献をリストアップし5文献を選択。

文献 6-8 については期間指定をおかず、検索式 Search child abuse AND (postmortem imaging OR postmortem ct OR postmortem mr OR postmortem radiographs)で55文献をリストアップし3文献を選択。

1. Arthurs OJ, Calder AD, Kiho L, Taylor AM, Sebire NJ. Routine perinatal and paediatric post-mortem radiography: detection rates and implications for practice. *Pediatr Radiol* 8,2013

2. Thayyil S, Sebire NJ, Chitty LS,

Wade A, Chong W, Olsen O, Gunny RS, Offiah AC, Owens CM, Saunders DE, Scott RJ, Jones R, Norman W, Addison S, Bainbridge A, Cady EB, Vita ED, Robertson NJ, Taylor AM; MARIAS collaborative group. Post-mortem MRI versus conventional autopsy in fetuses and children: a prospective validation study. *Lancet* 20;382(9888):223-33,2013

3. Proisy M, Marchand AJ, Loget P, Bouvet R, Roussey M, Pel F, Rozel C, Treguier C, Darnault P, Bruneau B. Whole-body post-mortem computed tomography compared with autopsy in the investigation of unexpected death in infants and children. *Eur Radiol*. 23(6):1711-9,2013

4. Oyake Y, Aoki T, Shiotani S, Kohno M, Ohashi N, Akutsu H, Yamazaki K.

Postmortem computed tomography for detecting causes of sudden death in infants and children: retrospective review of cases. *Radiat Med* 24(7):493-502,2006

5. Thayyil S, Chandrasekaran M, Chitty LS, Wade A, Skordis-Worrall J, Bennett-Britton I, Cohen M, Withby E, Sebire NJ, Robertson NJ, Taylor AM. Diagnostic accuracy of post-mortem magnetic resonance imaging in fetuses, children and adults: a systematic review. *Eur J Radiol* 75(1):e142-8,2010

6. Kleinman PK, Blackbourne BD, Marks SC, Karellas A, Belanger PL. Radiologic contributions to the investigation and prosecution of cases of

fatal infant abuse. N Engl J Med 23;320(8):507-11,1989

7. Noda Y, Yoshimura K, Tsuji S, Ohashi A, Kawasaki H, Kaneko K, Ikeda S, Kurokawa H, Tanigawa N. Postmortem computed tomography imaging in the investigation of nontraumatic death in infants and children. Biomed Res Int 327903.2013

8. Hart BL, Dudley MH, Zumwalt RE. Postmortem cranial MRI and autopsy correlation in suspected child abuse. Am J Forensic Med Pathol 17(3):217-24,1996

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

学会発表

1) 小熊栄二 小児画像診断 オートプシーイメージング学会学術総会 2016年8月28日 新潟市

誌上発表

1) 小熊栄二 児童虐待と小児Ai (オートプシーイメージング、死後画像)

画像診断別冊 KEY BOOK シリーズ 小児の画像診断 改訂第2版 秀潤社 2016年

学会・シンポジウム発表
なし

書籍発刊

なし

H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む)

なし