

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業）
研究分担報告書

乳児期発症難治性てんかんにおける入浴、水泳に関する研究

分担研究者 伊藤 進 東京女子医科大学小児科 准講師

研究要旨

てんかんのある患者において溺死は主要な死因のひとつであり、小児患者においても入浴中や水泳中の適切な監視が溺死の予防に重要となるが、本邦におけるその実態についてはいまだに明確となっていない。我々はてんかん患者家族会と共同で、乳児期発症難治性てんかんにおける、家庭での入浴、保育・療育・教育機関での水泳について、溺水事故の予防啓発を兼ねて実態調査を実施した。2020年12月1日～31日に、ドラベ症候群患者家族会、ウエスト症候群患者家族会に所属する患者保護者を対象に、てんかんと入浴、水泳に関する無記名形式のインターネット・アンケート調査を実施した。家庭での入浴に関する調査においては、Dravet症候群（DS）96名、West症候群（WS）90名の計186名より回答を得た。入浴による発作誘発はDS92.7%、WS10.0%（ $p < 0.0001$ ）に認めた。DS9名（9.4%）、WS4名（4.4%）の計13名（7.0%）に溺水の経験があり、うち12名は浴室内で家族同伴中にあった。溺水のリスクについては35.1%、入浴時の見守りについては31.5%の保護者のみが、主治医からの説明があった・ややあったと回答した。保育・療育・教育機関での水泳に関する調査においては、DS79名、WS37名の計116名より回答を得た。84.5%が水泳に参加していた。水泳による発作誘発はDS24.7%、WS0.0%（ $p < 0.001$ ）に認めた。DS5名（6.4%）、WS1名（2.7%）の計6名（5.2%）に溺水の経験があり、うち5名（1名不詳）はプール内で監視者同伴中があった。主治医からの水泳の参加や見守りについての説明があった・ややあったと回答した保護者は36.0%のみであった。乳児期発症難治性てんかんのある小児患者においては、約20人に1人以上に溺水の経験があること、監視者が同伴していても溺水の可能性があること、溺水の予防のためには主治医から家族および施設への一層の説明と指導、指示が必要である。

研究協力者

西川愛子 東京女子医科大学 小児科助教

A. 研究目的

てんかんのある患者においては、溺死は主要な死因のひとつであり、その死亡率は0.43/1,000 観察人年、標準化死亡比は18.0と報告されている。また、小児患者を含むコホートにおける標準化死亡比は7.76と、小児患者を含まないコホートにおける標準化死亡比の20.04と比較して0.39倍となることから、監視者の存在により死亡率が低下すると推察

されている¹⁾。また、様々な慢性疾患のあり溺死した小児患者のコホートにおいては、18.9%が浴槽、32.1%がプールで溺死しており、唯一、てんかんのある小児患者のみで溺死のリスクが上昇しており、他方、適切な監視がなされていて溺死した小児患者はいなかったと報告されている²⁾。

よって、てんかんのある小児患者においては、入浴中や水泳中の適切な監視が溺死の予防に重要となるが、本邦におけるその実態についてはいまだに明確となっておらず、ガイドライン等も策定されていない。そこで、我々

はてんかん患者家族会と共同で、乳児期発症難治性てんかんにおける、家庭での入浴、保育・療育・教育機関での水泳について、溺水事故の予防啓発を兼ねて実態調査を実施した。

B. 研究方法

2020年12月1日～31日に、本邦における主要な乳児期発症難治性てんかんの患者家族会である、ドラベ症候群患者家族会、ウエスト症候群患者家族会に所属する患者保護者を対象に、てんかんと入浴、水泳に関する無記名形式のインターネット・アンケート調査 (SurveyMonkey, San Mateo, CA, U.S.A., <https://jp.surveymonkey.com/>) を実施した (資料 II-7-1)。なお、本調査は、本学倫理審査委員会 (承認番号 2020-0004)、各患者家族会理事会の承認の上で患者保護者より同意を得た。

C. 研究成果

a. 家庭での入浴に関する調査

Dravet 症候群 (DS) 96 名、West 症候群 (WS) 90 名の計 186 名より回答を得た。年齢は 0～15 歳 (中央値 6 歳)、うち男児 47.3% であった。発作頻度は毎日 27.4%、週 1 回以上 10.8%、月 1 回以上 19.4%、月 1 回未満 22.0%、年 1 回未満 5.9%、2 年以上抑制 14.5%、また、抗てんかん薬内服数は 0～7 剤 (中央値 3 剤) であった。入浴による発作誘発は DS92.7%、WS10.0% (カイ二乗検定、 $p<0.0001$) に認めた。入浴中の発作頻度は毎日 4.3%、週 1 回以上 5.4%、月 1 回以上 9.7%、月 1 回未満 23.2%、年 1 回未満 8.6%、2 年以上なし 23.8%、既往なし 24.9% であった。DS9 名 (9.4%)、WS 4 名 (4.4%) の計 13 名 (7.0%) に溺水の経験 (1～20 回、中央値 3 回) があった。12 名は浴室内で家族同伴中、1 名は浴室外から家族見守り中にあり、うち 3 名は病院受診 (1 名 1 回、2 名 2 回、い

ずれも入院なし) を必要とした。てんかんによる溺死のリスクについて 84.9%の保護者が 2 倍以上との知識があったが、溺水のリスクについては 35.1%、入浴時の見守りについては 31.5%の保護者のみが、主治医からの説明があった・ややあったと回答した。

b. 保育・療育・教育機関での水泳に関する調査

DS79名、WS37名の計116名より回答を得た。年齢は0～14歳(中央値6歳)、うち男児47.4%であった。発作頻度は毎日12.1%、週1回以上21.7%、月1回以上30.4%、月1回未満6.1%、年1回未満20.0%、2年以上抑制9.6%、また、抗てんかん薬内服数は0～6剤(中央値3剤)であった。84.5%が水泳に参加していた。監視体制は、24.5%が通常、16.3%がプールサイドから監視者加配、67.3%がプール内に同伴者加配、13.3%が水泳帽色変更(重複あり)していた。水泳による発作誘発はDS24.7%、WS0.0%(カイ二乗検定、 $p<0.001$)に認めた。水泳中の発作頻度は毎日4.1%、週1回以上11.2%、月1回以上9.2%、月1回未満8.2%、年1回未満8.2%、2年以上なし11.2%、既往なし48.0%であった。DS5名(6.4%)、WS1名(2.7%)の計6名(5.2%)に溺水の経験(1～8回、中央値2.5回)があった。5名(1名不詳)はプール内で監視者同伴中にあり、うち1名は病院受診(2回、入院なし)を必要とした。主治医からの水泳の参加や見守りについての説明があった・ややあったと回答した保護者は36.0%のみであった。また、主治医から施設への指示方法は書面40.0%、口頭42.7%、なし17.3%であった。

D. 考察

本調査の結果から、主要な乳児期発症難治性てんかんであるDravet症候群およびWest症候

群のある小児患者においては、本邦においても、入浴中には7%、水泳中には約5%と、約20人に1人以上に1回以上の溺水の経験があることが明確となった。また、入浴中には浴室内で家族同伴下においても、水泳中にはプール内で監視者同伴下においても、溺水のリスクがあることが明確となった。さらに、Dravet症候群においては、既知である入浴による発作誘発のみならず、水泳によっても発作が誘発されることが示唆された。よって、さらなる溺水の予防のためには、発作の頻度、発作型等により個別化した対応と、監視中における一層の注意が必要と考えられる。

また、溺水のリスクについて、8割以上の保護者に適切な知識があると考えられたが、一方、6割以上の保護者が主治医からの説明が十分にはなかったと感じており、主治医から施設への書面による指示も4割に留まることから、さらなる溺水の予防のためには、主治医から家族および施設への一層の説明と指導、書面による指示が必要であると考えられる。

ただし、今回の調査は、てんかんのある患者のうち乳児期発症難治性てんかんのある小児患者の一部のみを対象としていることから、本邦における実態をさらに明確とし、ガイドラインを策定していくためには、様々なてんかんのある小児患者を対象とした全国規模の実態調査が必要と考えられる。

E. 結論

乳児期発症難治性てんかんのある小児患者においては、約20人に1人以上に溺水の経験があること、監視者が同伴していても溺水の可能性があること、溺水の予防のためには主治医から家族および施設への一層の説明と指導、指示が必要である。

文献

1) Bell GS, Gaitatzis A, Bell CL, Johnson AL, Sander JW. Drowning in people with epilepsy: how great is the risk? *Neurology* 2008;71:578-582.

2) Franklin RC, Pearn JH, Peden AE. Drowning fatalities in childhood: the role of pre-existing medical conditions. *Arch Dis Child* 2017;102:888-893.

研究により得られた成果の今後の活用・提供：てんかんにおける溺水に関する全国規模の実態調査の基礎資料として活用していく。また、学会、患者向け公開講座等においててんかんと溺水の啓発活動に活用していく。

F. 健康危険情報

なし。

G. 研究発表

論文発表

1) Shimomura R, Ito S*, Kurotaki N, Saito K, Nagata S. Psychogenic seizures in a child with infantile convulsions and choreoathetosis. *Pediatr Int* 2021 Mar 1 [accepted]

2) Suzuki Y, Ito S*, Otani Y, Nishikawa A, Eto K, Hara K, Oguni H, Nagata S. Unexpected elevation in valproic acid concentration and agranulocytosis in a patient with short-chain acyl-CoA dehydrogenase deficiency. *Brain Dev* 2021 Feb 3 [in press]

3) Ito S, Nagumo K, Nishikawa A, Oguni H, Nagata S. Low-dose phenobarbital for epilepsy with myoclonic absences: A case report. *Brain Dev* 2021 Jan 15 [in press]

4) Korematsu S, Miyamoto Y, Muramatsu K,

- Yamanaka G, Hoshide M, Miyata R, Ito S, Shimokawa S, Mimaki M, Yamanouchi H. A fact-finding survey of the recommendation on sedation during physiological examinations such as electroencephalogram in Japan. *Brain Dev* 43:208-213, 2021.
- 5) 伊藤進. 小児・思春期てんかんの薬物治療. てんかん専門医ガイドブック (第2版). 日本てんかん学会 (編). 診断と治療社. 東京. p.168-170, 2020.
- 6) 伊藤進. ミオクロニー脱力発作を伴うてんかん. てんかん専門医ガイドブック (第2版). 日本てんかん学会 (編). 診断と治療社. 東京. p.253-256, 2020.
- 7) 小川優里子, 伊藤進*, 宮本卓哉, 西川愛子, 小國弘量, 永田智. バルプロ酸ナトリウムにより軽微な点状出血を伴うフィブリノゲン低下を呈したミオクロニー脱力発作を伴うてんかんの一例. *東女医大誌* 2020;90:132-136, 2020
- 8) 山田紗也子, 伊藤進*, 永田智. 「小児の鎮静」の将来. *小児科診療* 83:1802-1804, 2020.
- 9) 伊藤進, 西川愛子. てんかん児の就園をめぐる問題. *Epilepsy* 14:34-36, 2020.
- 10) Nishikawa A, Otani Y, Ito S, Nagata S, Shiota M, Takanashi J, Nakashima M, Saitsu H, Matsumoto N, Oguni H. A de novo GABRB2 variant associated with myoclonic status epilepticus and rhythmic high-amplitude delta with superimposed (poly) spikes (RHADS). *Epileptic Disord* 22:476-481, 2020
- 11) 伊藤進. てんかんとケトン食. *Nutrition Care* 13:10-16, 2020.

* Corresponding author

学会発表

- 1) 西川愛子, 伊藤進, 柳下友映, 大谷ゆい, 永田智. West症候群の断薬例に対する臨床像についての検討. 第62回日本小児神経学会学術集会. 2020年8月19日
- 2) Ito S. Burden of developmental and epileptic encephalopathy (DEE) -affected children on families, nursery schooling, and employment in Japan. *International Symposium of the Pathophysiology of Developmental and Epileptic Encephalopathy (ISDEE2020)*. Jun 21 2021.

教育・啓発事業にかかる実績：

- 1) 伊藤進. ドラベ症候群の遺伝子 (学的) 検査と最新治療. DFK2020 (ドラベ症候群患者家族会). 2020年9月6日
- 2) 伊藤進. 乳幼児てんかんの治療と日常生活—ケトン食療法から保育所通園まで—. 赤ちゃんのてんかんファミリーサポートセミナー (日本てんかん協会東京都支部). 2021年3月6日

H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得
なし
2. 実用新案登録
なし
3. その他
なし