

令和4年度 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(健やか次世代育成総合研究事業))

子どもの死を検証し予防に活かす包括的制度を確立するための研究  
分担研究報告書

予期せぬ乳幼児の突然死(SUID)の診断に関する検討

研究分担者 小保内 俊雅 (地独)東京都立病院機構 東京都立多摩北部医療センター小児科部長  
沼口 敦 国立大学法人東海国立大学機構名古屋大学 医学部附属病院  
小谷 泰一 三重大学大学院 医学系研究科法医学科学分野  
井濱 容子 横浜市立大学大学院 医学研究科法医学講座  
山本 琢磨 兵庫医科大学 法医学講座  
研究協力者 青木 康博 名古屋市立大学 医学研究科法医学分野

乳幼児突然死症候群(SIDS)は、1歳未満乳幼児の主要死亡原因の一つである。剖検、死亡状況調査と家族歴を含む臨床病歴を基に診断されるが、根拠となる所見がないため除外診断に拠らざるをえない。診断は様々な要因に影響される。SIDS の定義が厳格化された後、SIDS は減少し原因不明が増加した。原因不明の増加は公衆衛生を不安定にし、原因究明や予防法確立が滞るなどの弊害がある。そこで、原因不明が増加する要因を究明するため、SUID 剖検率の推移と診断の関係、および、診断に携わる法医病理医へアンケート調査を実施した。

診断内訳をみると、SIDS と窒息の剖検数はほぼ横ばいで非剖検例が減っていた。一方、原因不明は非剖検例も剖検例も増加していた。死後検査の推進は、診断を困難にすることが分かった。その理由として、剖検以外の検査に関する情報の不足や検査体制の不備、DSI 情報および臨床情報が不十分であることが指摘された。効果的な CDR の実施には精度の高い診断と、死因究明情報を検証へ提供する必要がある。しかし、司法解剖の場合は情報の提供が容易ではない。今後 CDR 実施に向けて、情報提供可能な環境を保障する実定法の制定が求められる。

詳細な死後検査は診断制度を向上させるのみならず、予防にも貢献する。また、詳細な診断情報は、遺族のグリーフケアを促すとされている。これらのためにも診断環境の改善が望まれる。

Key words: SUID SIDS CDR 診断 原因不明

## A. 研究目的

乳幼児突然死症候群(SIDS: Sudden Infant Death Syndrome)は「それまでの健康状態および既往歴からその死が予測できず、しかも死亡状況調査及び剖検検査によってもその原因が同定されない、原則として1歳未満の児に死をもたらした症候群」と定義されている<sup>1)</sup>。うつぶせ寝が危険因子とされBack to Sleep Campaign(BSC)が実施されると、世界各国の突然死発生率は顕著に抑制されたが、いまだ主要死亡原因の一つである。日本でも1996年にBSCが実施されると、諸外国同様にSIDSの発生率は顕著に抑制された<sup>2)</sup>。にもかかわらず、2020年の発生率は出生1000に対して0.109で、1歳未満幼児死亡原因の第3位である。

SIDSは原因不明の突然死であるが、原因や機序を明らかにする、また、各地の発生状況など疫学情報を比較検討し予防法を確立するなどを目的に厳格な定義を定め、可能な限り均一な調査研究対象の確立が求められた<sup>3)</sup>。SIDSの診断は中枢神経を含む全身剖検、死亡状況調査、家族歴を含む臨床病歴を総合して決定される。しかし、SIDS診断根拠となる所見が存在しないため除外診断の方法に拠らざるを得ない。このため、様々な要因により診断が影響を受けてしまい、その結果診断はSIDSから原因不明や窒息へ移行していることが指摘されている<sup>4)</sup>。

我が国における診断の変遷は、2005年に定義が改訂され診断に剖検が必須とすると、SIDSの診

断が減少しその分だけ原因不明が増加した。そのことからSIDSと診断されていた非剖検例が、原因不明に移行したと推定された<sup>5)</sup>。原因不明の診断が増加すると、公衆衛生が不安定になる、予防対策策定が困難になることなどから、原因不明の診断を抑制する必要がある。日本には剖検に対して拒否的な社会通念があるなどの背景もあり剖検率が向上しないのではと考えられている。そこで、剖検率の推移と診断の関係を、人口動態統計を用いて明らかにする。さらに、原因不明の診断が増加傾向となる要因に関して、診断に関わる法医病理医及び監察医にアンケート調査を実施した。

本調査は都立多摩北部医療センター倫理委員会の承認を得て実施した(承認番号4-22)。

本調査の実施に関与した、小保内 俊雅、沼口 敦、小谷 泰一、青木 康博は開示すべき利益相反はない。

## B. 研究方法

厚生労働省が公表している人口動態統計から<sup>6)</sup>、各年次の出生数とSIDS(ICD cord: R95)およびSIDSと鑑別に上がる原因不明(ICD cord:R96, R98, R99)、窒息(ICD cord:W75)の発生件数を抽出し、出生1000に対す各年次の診断ごとの発生率を算出した。なお、原因不明の発生件数はICD分類の3カテゴリーの総計とした。また、これらの診断の総計を予期せぬ乳幼児の突然死(SUID)とした。発生率の推移は、ICDコードを用いて診断分類が開始された1995年から2020年までとした。同様に人口動態統計から診断ごとの剖検実施件数を抽出し、剖検率の年次推移を算出した。統計は2001年から2020年までとした。

原因不明が増加する要因を検証するために、突然死症例の診断に主として携わる法医病理医および監察医にアンケートを実施した。全国の医科系大学の法医学教室82施設に、東京、大阪、神戸の監察医施設を加えた計85施設を対象に、書面をもって研究協力を依頼した。アンケート実施に際し、厚生労働科学研究健やか次世代育成事業の一環で実施すること、回答には個人を特定する設問は設けないこと、さらに、結果は研究報告書に公開する旨を明示した。

設問の前に調査に参加することへの承諾と、回答後に参加意思撤回を表明されても回答用紙を特定できないため排除が不可能であることを確認した。

設問は全15問で、2問を除き選択式とした。回答は依頼状に同封した回答用紙を用いる方法と、依頼状に記したQRコードからアンケートサイトにアクセスして回答してもらう方法を併用した。

## C. 研究結果

予期せぬ乳幼児の突然死(SUID)及び診断ごとの発生率の推移を図1に示す。調査を開始した1995年の出生1000に対するSUIDの発生率は0.68で、その後は多少の増減はあったが2004年までは概ね減少傾向を示し2004年の出生1000対比が0.59であった。その後はわずかな増減は認めながら緩徐に減少し2020年は0.31であった。調査期間全体を通しての減少率は54.4%であった。

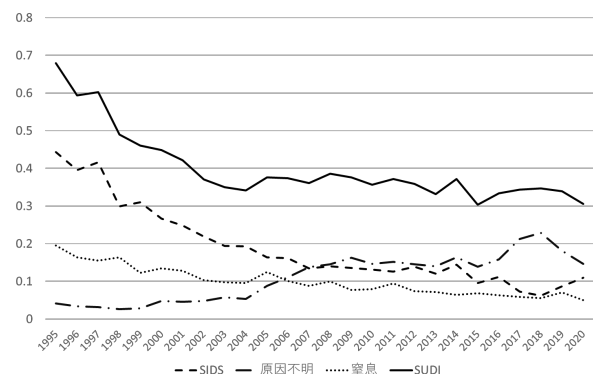


図1 SUID および各診断の出生1000に対する発生率の推移

SIDSは1995年には出生1000に対して0.44であったが、2010年には0.13まで減少している。この16年間の減少率は70.8%と驚異的に減少した。その後の減少率は緩徐になり2020年は0.11であった。発生率の推移を検討すると、BSC実施2年後の1998年に前年比で28.1%と大幅に減少した。その後は順調に減少しているが、2007年以降の推移は横這いである。窒息の死亡率は1995年に0.19であったが、2019年には0.07まで減少し、減少率は63.2%であった。窒息の死亡率の変遷をみると、1999年に前年比で23.5%の減少を認めた。その後は順調に減少していたが、2012年以降はほぼ横ばいであった。原因不明例は他の疾病とは全く異なる様相を呈した。1995年から2004年まで大きな変動

はなく、出生 1000 に対して 0.03 から 0.06 の間で推移していた。2005 年に前年比で 64.8%と顕著に上昇を示し、0.09 となった。その後原因不明例の死亡率は増加傾向を示し 2007 年には SIDS を抜いて SUID の中で最も発生率が高くなった。2018 年には 0.23 とピークを示し、その後は減少傾向であるが 2020 年の発生率は 0.15 であった。

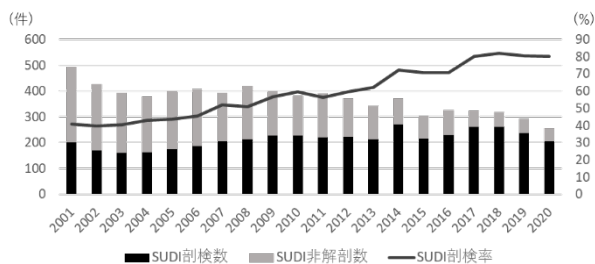


図 2-1 SUID 剖検率の推移

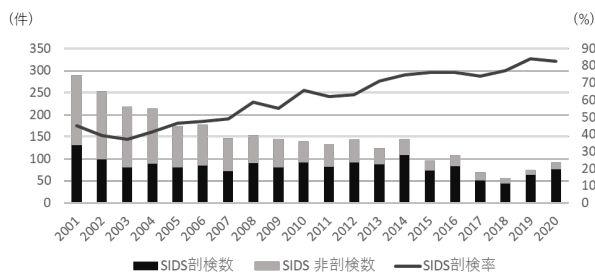


図 2-2 SIDS 剖検率の推移

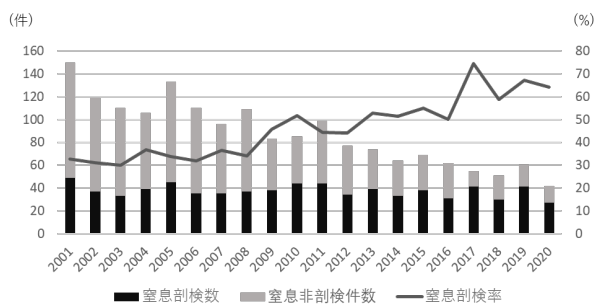


図 2-3 窒息剖検率の推移

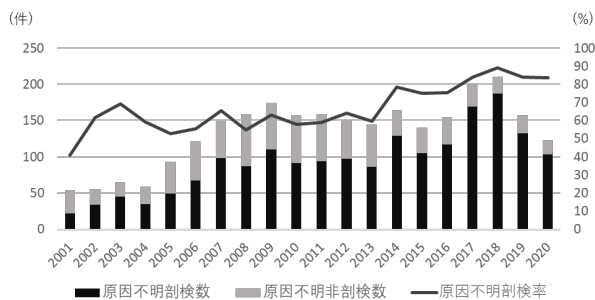


図 2-4 原因不明剖検率の推移

剖検実施件数の推移を図2に示す。SUID 全体の剖検率の年次推移(図 2-1)は 2001 年が 40.9%であった、その後、緩徐ではあるが増加傾向を示した。2005 年に SIDS の定義が改訂されると、増加傾

向は加速し 2020 年には SUID 症例の 80.2%が剖検されるに至り、この 20 年間で剖検率は倍増した。診断ごとの剖検率は、SIDS の剖検率の年次推移(図 2-2)をみると、2001 年が SIDS と診断された症例の 45.2%が剖検されていた、2005 年の定義改訂後の剖検率は上昇し 2020 年には 82.6%となった。内容を見ると、剖検件数は概ね 80~100 件と変動は小幅であった。一方、2005 年以降非剖検例が 2005 年の 93 件から 2020 年には 16 件と 82.8%の減少であった。窒息の剖検率の年次推移(図 2-3)は、2001 年が 32.3%であり、その後 2008 年まではほぼ横ばいであった。2009 年に 45.8%と上昇し、その後は上昇傾向をたどり 2020 年には 64.3%に達している。内訳をみると、剖検例は 35~45 件と概ね横ばいであるが、2009 年以降非剖検症例数が顕著に減少している。原因不明と診断された症例の剖検率の年次推移(図 2-4)は、2002 年で 61.8%と他の診断に比較して高値を示している。2013 年まで 60%前後で横ばいに推移し、2014 年には 78.7%と上昇を示しその後も増加傾向で 2020 年には 83.7%であった。内訳をみると、2005 年の定義改訂後より、剖検例および非剖検例ともに増加していた。2014 年以降は非剖検例が急激に減少していた。

アンケートには 65 件の回答を得たが、1 件は回答者が診断に従事していないため排除した。有効回答件数は 64 件(75.3%)であった。全例で調査参加の同意と回答後の撤回が不可能であることを確認した。

回答者のプロフィールは 1 名が病理医であったが、その他 63 名は法医病理医であった。専門経験年数が 10 年未満は 3 名(4.7%)であり、61 名(95.3%)が 10 年以上診断に従事しており、なかでも 47 名(73.4%)が 20 年以上従事していた。乳幼児突然死症例(SUID)の取り扱い経験は 20 例未満は 16 名(25.0%)で、うち 6 名(9.4%)は 10 例未満であった。20 例以上の診断経験を有する医師が 48 名(75.0%)で、うち 24 名(37.5%)は 50 例を超える取り扱い経験を有していた。

「SUID 症例を原因不明もしくは原因不詳と診断することがありますか」の質問に 47 名(73.4%)が「ある」と回答した。「ある」と回答した理由を、複数選択を許可して回答を得た(図 3)。最も多かったのは

「死亡状況調査に関する情報が十分でなかった」21名(42.9%)であった。次いで、「他の診断は否定したが、SIDSと診断する根拠がなかった」17例(37.4%)、「剖検以外の検査が実施できなかった」13名(26.5%)、「病歴および家族歴の情報が不十分であった」と「軽微な所見の評価が困難であった」、「臨床情報が不十分であった」11名(22.4%)が上位を占めていた。いずれも、定義に記載された、剖検、死亡状況調査、および家族歴を含む病歴調査と定義に記載された診断のための3項目に関わる課題が指摘された。また、「その他」を選択し自由記載で得られた回答には、「窒息やその他の外因死との鑑別が困難である」、「施設の設備や人手不足などのため死後検査を十分に行えない」、「SIDSの診断基準が不明確」などが見られた。

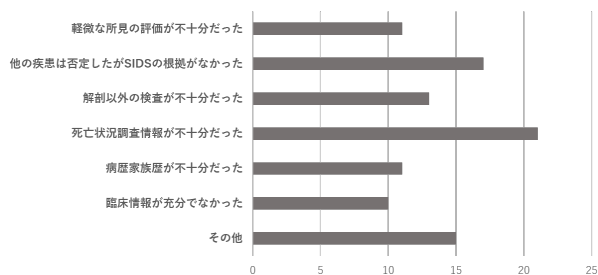


図3 SUIDを原因不明と診断した理由を教えてください

「SUID診断確定率を向上させるために必要な事柄を選んで下さい」の問いに、複数回答を許可する方法で質問をした(図4)。「遺伝子検査などを集約的に実施できるシステムを確立する」38名(59.4%)、「死亡状況調査情報の収集と提供をより詳細にしよう」36名(56.3%)、「臨床情報提供シートを統一し、必要な臨床情報を収集できるようにする」26名(40.2%)、「診断に困ったときにコンサルトをするシステムを構築する」25名(39.1%)、「診断前に死亡状況調査や臨床の担当医とカンファレンスをする機会を設ける」22名(34.4%)などが挙げられた。その他を選んで自由記載された回答では、捜査機関がDSIを行うべきとの回答が見られた。

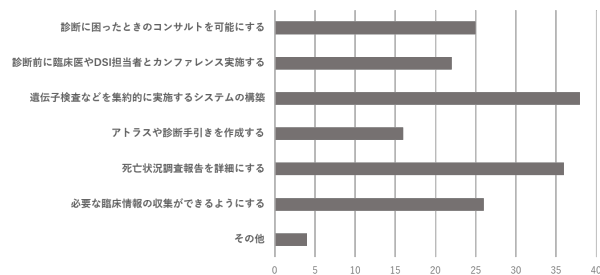


図4 診断精度を向上するために必要な対策を教えてください

「SIDSは診断として妥当だと思いますか」の質問には、34名(53.1%)が「妥当」と回答したが、26名(40.6%)が「妥当ではない」としていた(図5-1)。妥当ではないとした回答者にその理由を、複数回答を許可する方法で質問をした(図5-2)。「死亡機序が明確でないから」15名(55.6%)、「診断の根拠となる明確な所見がない」「鑑別が十分にできないため疑念が残る」がともに14名(51.9%)と、その他を選んだ自由記載では、「厳密に鑑別できない以上診断とできない」、「そのような病気はないと考えている」など、診断根拠が明確でない死亡にあえて疾患概念を確立して診断することへの抵抗が確認された。

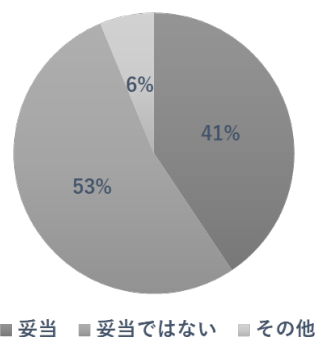


図5-1 SIDSは診断として妥当だと思いますか

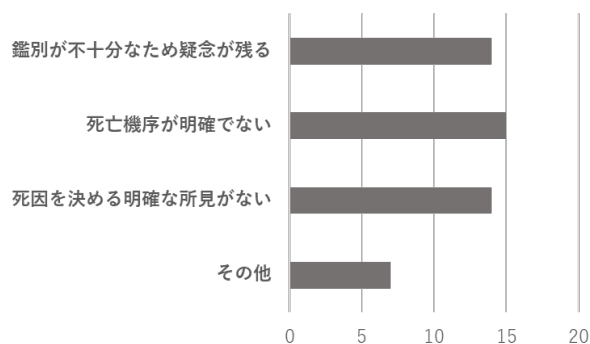


図5-2 SIDSが診断として妥当ではないと思う理由

予防のためのこどもの死亡検証制度(CDR)に関しても併せて質問をした。「CDRを知っていますか」の質問には、61名(95.3%)が知っていると回答した。「死因究明に関わる情報をCDRに提供すべきだと思いますか」の質問には(図6)、「提供すべき」としたのは25名(39.1%)、「一定の条件を守って提供すべき」20名(31.3%)、「提供すべきとは思いますが困難である」16名(25%)と、提供に前向きな回答が61名(95.3%)であった。提供するべきではないと回答した医師に、その理由について複数回答を許可する方法で質問をした。「司法剖検や行政剖検の場合、犯罪との関連が否定できないため」3名(100%)で、証拠取り扱いの課題を挙げていた。

また、CDRに関する意見を自由記載してもらった。「CDRに死因究明の結果を提供できる法整備が必要」、「国全体で取り組む課題であり法整備が必要」、「承諾を前提とするCDRは実効性がないと考えられる」など、CDR実施に向けた法的根拠の必要性や個人情報の課題が述べられていた。

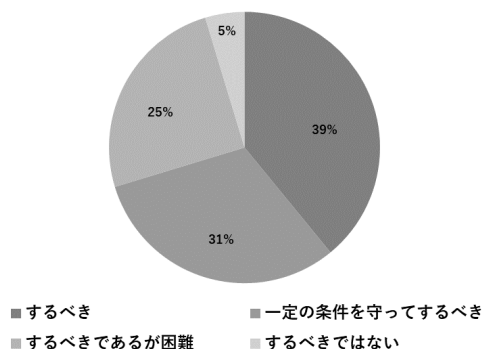


図6 CDRに死因究明の情報を提供すべきだと思いますか

#### D. 考察

今回のアンケート調査は、2005年のSIDS定義改訂後から原因不明の診断が増えた要因を解析するために実施した。

今回の我が国の診断別の剖検症例数の推移を見ると、定義改訂後にSIDSは非剖検症例数のみ減少し、剖検症例数は大きな変動がなかった。従って、SIDSの減少は非剖検症例が他の診断に移行した結果と考えられる。一方、原因不明は定義改訂前より剖検率は50%を越えており、他の診断より高値を示していた。さらに、定義改訂後は非剖検実施例および剖検実施例ともに増加しており、非剖検症例がSIDSからシフトしたのみならず、死後検査を

実施しても診断が確定し難いことを反映したものと思われる。窒息に関しては、調査期間内の剖検実施症例数は概ね横這いであったが、非剖検症例が顕著に減少した。剖検を実施して窒息の所見が確認できる症例数は一定数存在しているとともに、剖検せずに窒息としていた症例が他の診断にシフトした可能性が示唆された。今回の調査の結果、2005年の診断定義の改訂後、剖検せずにSIDSまたは窒息と診断していた症例が原因不明に移行したのみならず、検査を厳密に実施すると診断確定が困難であることが明らかになった。

SUIDの死後検査を取り巻く状況を、実際に診断に携わる法医病理医からの意見を基に考察する。

今回の調査は、SUID診断に携わる施設の75%から回答を得ており、また、回答者の専門経験年数および症例数、経験数ともに十分であり、現在のSUID診断の現状を把握するために信頼できる情報であると評価できる。

死後検査に求められている、剖検、死亡状況調査(DSI)及び家族歴を含む臨床情報それぞれに関して考察する。

剖検に関しては、SIDS学会診断検討委員会が2006年にSIDS診断の手引を提示している<sup>7)</sup>。この手引きには、所見を取るべき部位やその所見について詳述されているが、解剖の方法と所見についての記載が主となっている。一方、The international standardized autopsy protocolでは<sup>8)</sup>、病理組織検査以外にも、免疫組織化学等を用いた特殊組織検査、画像検査、微生物学検査、毒物薬物検査、代謝検査、血液生化学検査や遺伝子検査など多様な検査が網羅的に記されている。最近では日本でもこれらの検査項目を実施する施設もあるが、標準剖検プロトコルが存在しないため、検査項目の選択などに関して診断医の間で混乱があることが今回のアンケートで明らかになった。これらを解消するために、標準的診断プロトコル策定の必要性が明らかになった。米国において、プロトコルに記載されている検査項目の実施状況調査が行われた<sup>9)</sup>。組織病理検査、特殊組織検査、薬物毒物検査および微生物検査は概ね実施されていたが、代謝検査、遺伝子検査や血液生化学検査に関しては州ごとに実施率は不揃いであり、項目によって

は実施されていない州も見られた。これは、州ごとの監察体制の相違が影響していると結論されていた。今回のアンケートでは、施設によっては検査機能に課題があることが明らかになった。施設間格差を是正するためにも、検体を集約して検査が実施できる体制の構築が求められている。

死亡状況調査(DSI)は、内因死と外因死の鑑別に欠かせない検査とされている。そして、正確で可能な限り多くの DSI 情報によって、診断精度の向上が期待できるとされている<sup>10)</sup> 窒息や高体温などで死亡した場合は、DSI の情報が充分でなければ剖検では診断が決定できない。DSI は世界各地で実施されているが、DSI に関する標準的プロトコルが策定されている地域や国は少ない<sup>11)</sup>。DSI は写真や動画を用いて記録する、人形などを用いて再現を記録する、発見者や保護者から直接インタビューを記録する方法が推奨されている。特に、人形を用いて再現をすることで環境内の潜在的危険因子を明らかにすることが可能になると指摘されている<sup>12)</sup>。診断医からは DSI の情報が不十分である、また、事件性がないと捜査機関が DSI を実施しないなど、DSI の質や実施に関する課題が指摘された。一律に DSI のプロトコルを策定しても容易に改善するとは考え難いが、DSI 実施ガイドラインやチェックリストを策定し、標準化や診断医が知りたい情報の収集を促進することが必要と思われた。また、自ら見分できないため、児の気道閉塞などのイメージが掴みにくいとの意見もあった。イギリスでは、DSI に小児科医が警察とともに臨場しているとの報告もあるが<sup>13)</sup>、原因究明や予防にではなく、虐待など犯罪の摘発に軸足を下ろす我が国の死因究明制度では実現は困難であろう。

臨床情報に関しても、質的にも量的にも不十分と指摘された。SUID 症例は三次救急医療機関に搬送される。一般に乳幼児が三次医療機関を受診するのは稀であり、通常病歴はかかりつけのクリニックに保管されている。このクリニックからの情報が診断医にわたることは限定的である。また、搬送された医療機関では救命治療に全力を傾け、保護者からの話を聞き取る余裕は少ない。保護者も突然のことに動転し、的確に応答することが困難な場合もある。また、近年 SUID 発生件数が激減し、臨床経験のな

い医師も少なくない。これらのために、診断に役立つ臨床情報が充分に収集されない課題が指摘されている<sup>14)</sup>。効率的にかつ適切に臨床情報を収集するために、厚生労働省はホームページに SIDS 診断ガイドライン(第 2 版)を公開しているが利用も進んでいない。臨床情報集約のためには、研修医教育などの機会をとらえて死因究明や予防のための子どもの死亡検証(CDR)に関する教育の必要性が示された。また、診断医からは診断のために、担当した臨床医や DSI 実施者とカンファレンスをする機会の必要性が提示されたが、SUID 診断に司法の関与が大きい現状では実現困難と思われる。

SUID は原因究明もさることながら、予防法の確立が求められている。2007 年以降 SUID 発生率は横這いであり、BSC 効果は飽和していると考えられる。BSC に取って代わる予防策を策定するためには、死後検査の徹底と症例を集約した検証が必須である。成育基本法が制定され、我が国でも予防のためのこどもの死亡検証制度が社会実装に向けて動き始めた。我が国の CDR は「予防のための」が冠されているところが重要なポイントである。SUID はまさに予防のための検証対象である。しかし、SUID には不慮の事故や虐待死などが含まれるため、死後検査に司法の管理は外せない。この管理が診断や予防法検討の足枷になるようでは、死因究明制度自体を改善しなくてはならない。

## E. 結論

診断に関わる多くの法医病理医は、より効果的な CDR にするために実定法の制定が必要としている。そして、死後検査の精度向上も CDR を効果的にするには必須である。詳細な死後検査は SUID の診断精度を向上させるのみならず、予防戦略向上に貢献することが示されている<sup>9)</sup>。さらに、死に関わる詳細な情報は遺族が死を受け入る一助となるとされている<sup>15)</sup>。予防法の確立のみならず、遺族のグリーフケアのためにも診断環境を改善することが求められている。

## 引用文献



1. 厚生労働省研究班:乳幼児突然死症候群 (SIDS)に関するガイドライン、子ども家庭総合研究事業「乳幼児突然死症候群(SIDS)のためのガイドライン作成および予防と発生率軽減に関する研究」平成 14～16 年総合研究報告書 2005、23-26
2. 小保内俊雅 五島弘樹 仁志田博司 我が国における乳幼児突然死症候群発生率の変遷 日児誌 2017;121:1344～1348
3. Krous HF, Beckwith JB, Byard RW, Rognum TO, Bajanowski T, Corey T, et al. Sudden infant death syndrome and unclassified sudden infant deaths: A definitional and diagnostic approach. *Pediatrics*. 2004;114:234-8.
4. Henry F. Krous. Sudden Unexpected Death in Infancy and the Dilemma of Defining the Sudden Infant Death Syndrome current *Pediatric Review* 2010; 6: 5-12
5. 小保内俊雅 伊藤雅之 市川光太郎 他 乳幼児突然死の死後検査をめぐる課題 日児誌 2019;123:1041～1047
6. <https://www.e-stat.go.jp/stat-search/files?page=e-stat> 統計でみる日本 人口動態調査
7. 山中雅弘 他 乳幼児突然死症候群 (SIDS) 診断の手引き 改訂第 2 班 J.Jap. SIDS Res. Suc. 2006;2:73-97
8. Krous HF. The International Standardised Autopsy Protocol for sudden unexpected infant death. In: Sudden infant death syndrome. New trends in the nineties. Ed Rognum TO. Oslo: Scandinavian University Press, 1995. p. 81-95.
9. Alexa B. Erck Lambert, Sharyn E. Parks, Lena Camperlengo, Carri Cottengim, Rebecca L. Anderson, Theresa M. Covington, Carrie K. Shapiro-Mendoza, Death Scene Investigation and Autopsy Practices in Sudden Unexpected Infant Deaths. *J Pediatr*. 2016; 174: 84-90.e1
10. Thomas Bajanowski<sup>1</sup>, Ashild Vege, Roger W Byard, Henry F Krous et al. Sudden infant death syndrome (SIDS)--standardised investigations and classification: recommendations. *Forensic Sci Int* 2007;165:129-43
11. Tracy Bennett, Lorna J. Martin, Laura J. Heathfield. Global trends in the extent of death scene investigation performed for sudden and unexpected death of infant (SUID) cases: A systematic *Forensic Science International* 2019; 301: 435-444
12. Erin K Sauber-Schatz, William M Sappenfield, Carrie K Shapiro-Mendoza. Comprehensive review of sleep-related sudden unexpected infant deaths and their investigations: Florida 2008 *Matern Child Health J* . 2015; 19: 381-90.
13. Peter J Fleming, Peter S Blair, Peter Sidebotham, Tracy Hayler Investigating sudden unexpected deaths in infancy and childhood and caring for bereaved families an integrated multiagency approach. *BMJ* 2004; 328; 331-334
14. 小保内俊雅、伊藤雅之、仁志田博司 死後検査に対する医療者の意識 日児誌 2020;124: 568-574
15. Murraray-Parkesm C, Bereavement: studies of grief in adult life. 3<sup>rd</sup> edn. London: Routledge, 1996