

令和6年度 こども家庭科学研究費補助金
(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))
こどもの死亡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

乳幼児突然死(SUID/SIDS)の死因究明と予防対応策の探索

乳幼児突然死診断基準に関する検討

研究分担者	小保内 俊雅	東京都立多摩北部医療センター 小児科
	小谷 泰一	三重大学医学部 法医法科学教室
	山本 琢磨	兵庫医科大学 法医学
	沼口 敦	名古屋大学医学部附属病院 救急・内科系集中治療部
研究協力者	菊地 洋介	東京都監察医務院
	松岡 健太郎	東京都立病院機構小児総合医療センター 病理診断科
	槇野 陽介	東京大学大学院医学系研究科 法医学
	窪田 満	国立成育医療研究センター 総合診療部

要旨

Child Death Review (CDR) はこどもの死を予防する方法を、死亡例の検証によって抽出し、これを社会実現していくための検証制度である。これを有効に社会実装するためには、正確な死因究明が土台となる。特に1歳未満の乳幼児の主要死亡原因である予期せぬ乳幼児の突然死(SUDI)診断に混乱が存在していることは明らかである。既に実施した調査で様々な要因が指摘されたが、診断手引きの改訂が着手可能な課題と認識された。日本小児突然死予防医学会が2006年に公開した診断手引き改訂第2版を基に、学会と協力して改訂第3版の編集を進めることとなった。この過程で課題となったこと、課題に対するアプローチを纏めることでSUDI診断に対する共通概念の確立を目的として研究を進めた。

A. 緒言

予期せぬ乳幼児の突然死(SUDI: Sudden Unexpected Death in Infant)は1歳未満乳幼児の主要死亡原因の一つである。SUDIの定義は定められていないが、「それまでの病歴から死亡が予測できなかった乳幼児に発生した突然の死亡」として受け入れられている。SUDIには、乳幼児突然死症候群(SIDS: Sudden infant Death Syndrome)を始め外因死や突発的な内因性の死亡など全てを網羅している概念である。SIDSは疾患として受け入れられてはいるが、診断を決定付ける所見がないため診断には不確定要素を含んだものになりかねない。それらを包含した概念としてSUDIが提唱された。

我が国のSUDI診断の内訳をみると、2005年のSIDSの定義改定以降、原因不明が首位を占めている。原因不明が増えることは、公衆衛生の安定や突然死予防に関する研究には不利益となる。また、Child Death Review(CDR)を実装するうえでも困難な要因となりえてしまう。そこで、

本研究事業においても原因不明が首位を占めている背景を調査し、対策や改善点を模索してきた^{1,2}。その結果、診断に当たる法医病理医の要望として、遺伝子検査など最新の検査を実施可能な環境の整備をはじめ、臨床情報や死亡状況調査結果が診断医に伝達されるシステムの構築などいくつかの課題が指摘された。これらは国の取り組みとして検討する必要があるが、直ちに実施可能な要望として、診断の手引きの改訂が挙げられた。診断の手引きは日本小児突然死予防医学会(旧SIDS学会)が2006年に改訂第2版として公開していることから³、同学会理事会に提案し研究事業と協力して、改訂第3版の編纂に着手した。改訂を推進するために、診断基準検討委員会を法病理医、病理医、小児科医を中心に構成して、2023年から改訂に着手した。

B. 方法, および C. 結果

上記を踏まえて、以下のとおり改訂をすすめた。

1. 改訂にあたって

日本小児突然死予防医学会（旧日本 SIDS 学会、旧日本 SIDS・乳幼児突然死予防学会）は、2006 年に「乳幼児突然死症候群（SIDS）診断の手引き改訂第 2 版」を公表し、現在も国内で広く利用されている³。2005 年に SIDS の定義が改訂され、診断には剖検が必須とし、年齢も 1 歳未満とするなど国際的定義に沿った定義になった⁴。しかし、診断を決定付ける所見がないため、SIDS 診断には取扱者の間に混乱が存在していた。第 2 版の編集では、医師や研究者の専門分野が臨床・病理・法医と異なっても、同じ予期せぬ乳幼児突然死（Sudden Unexpected Death in Infant: SUDI）症例ならば、共通の認識に基づいて SIDS 診断が標準化されることを目指した。しかし、わが国では剖検率が低かったこともあり、それまで SIDS および SIDS の疑いと診断されていた症例が「不詳」や「不明」に移行する状況が出現した。一方、日本を含め世界的に SUDI 研究が広く実施され、死後画像検査・遺伝子検査・生化学検査などの新たな診断手法も発展した。その結果、多くの情報が得られるようになったが、それによってさらに診断への道筋が複雑化し「不詳」や「不明」へと診断移行が加速し、診断が不確定になることの懸念が世界的に広がっている。

そこで、本学会診断基準検討委員会は新たな検査に関する記載も加えた改訂第 3 版を作成することにした。まず、死亡状況調査や新たな検査に詳しい SUDI の専門家からなる委員会を設置し、下記の基本方針および具体的検討内容を議論により策定した。次に、各検査の専門家からなる小グループを編成することで各検査の指針案を作成した。そして、最後に、各グループの代表が会合し、総合的に検討することで新たな手引きを作成した。なお、編集にあたっては日本における診断体制の標準化も念頭に置き、SUDI を取り扱うときの手引きとしても利用できることを目指した。

改訂の基本方針

- 予期せぬ乳幼児の突然死（Sudden Unexpected Death in Infant）とは、それまでの病歴や家族歴から死亡が予測できなかった乳幼児が突然に死亡したものを指す
- 診断手引きは医学的分類、医学研究、グリーンケア、チャイルド・デス・レビューへの貢献を目的とする

- 個々の医師による診断の支援となる分類手順・検査を提示する
- SIDS 以外の死因診断（推定）は客観的所見を基盤とする
- SIDS の定義に記されている剖検・死亡状況調査（DSI：Death Scene Investigation）・病歴調査（以下、必須検査）を実施したうえで死を説明しうる所見が認められない場合に、診断医の判断によって SIDS と診断する
- 必須検査を実施したうえで死因を説明しうる所見が認められない症例でも、他の要因による死亡の可能性が完全に否定できないとの疑いが残る場合は、死亡診断書（死体検案書）に「乳幼児突然死」と記載する。その際、必要に応じて可能ならば「その他特に付言すべきことがら」の欄にその理由などを付記する
- 「乳幼児突然死」とした症例の死亡診断書（死体検案書）における死因の種類については、「病死及び自然死」とであると判断（推定）される場合は死因の種類（1）を、外因死も否定できない場合は（12）を選択する
- 必須検査を実施したうえで、本手引きにおいて紹介する補充検査を追加実施するか否かの判断は診断医の裁量に委ねる。なお、補充検査を実施しても死因を説明しうる所見が確認されなかった場合も、必須検査を基にした場合と同様に取り扱う

本手引き作成過程における具体的検討内容

- 手引きの構成は、事案発生から死亡確認、死後検査と時間的経過に沿って編集する
- 手引きは実際の診断場面で活用される実用編と、それに関する解説を記した解説編に分別して編集する。
- 死亡状況調査のプロトコル（DSI チェックリスト）の作成
- 臨床問診事項や家族歴を含む病歴調査シート（SIDS チェックリスト）の改訂
- 救命措置実施時にでも必要に応じて実施が推奨される検査（補充検査）
- 必須検査及び補充検査の検体採取（実施）方法・保管方法・解釈・実施困難施設を対象にした検査依頼方法
- 必須検査を利活用した際の SUDI 分類フローチャート
- 必須検査に追加し補充検査を実施した場合の SUDI 分類フローチャート

2. 背景

乳幼児が突然に命を落とすことは家族、社会にとって大きな悲しみであり、その悲しみに寄り添い、繰り返さないためには、死に至る過程を検証し予防策を講じる必要がある。

1990年代には疫学調査によってうつ伏せ寝が乳児突然死の危険因子と認識され、あおむけ寝キャンペーン（Back to sleep campaign: BSC）が世界各地で実施された。その結果、SUDIの発症は顕著に抑制された。わが国でも1996年にBSCが開始されると2005年にはBSC開始時の約半数までSUDIが減少した（図1）。しかし、その後は件数および率ともに横這いであり、BSCに留まらない予防策の発見・周知が求められている⁵。

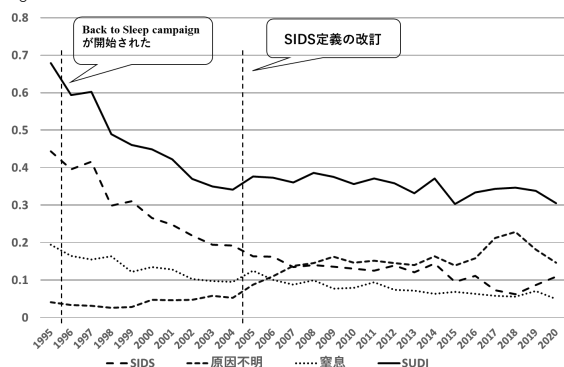


図1. SUDI発生率および死因内訳の年次推移。
SUDIに含まれる主要死因であるSIDS、窒息、原因不明を示した。

また、SUDI自体は横這いである一方、その死因分類の内訳に注目すると、「SIDS」の割合が減少し「不詳」が増加している（図1）。そして、この「不詳」を可能な限り減少させることが国際的に推奨されている。その理由としては、1）公衆衛生の安定を推進する、2）医学の進歩発展に寄与する、3）社会正義の実現、4）遺族を含む関係者の悲嘆の癒しに資する、の4点が挙げられる。

公衆衛生学的には、死因分類は疾病・事故・犯罪の予防に資する必要があるが、原因がわからない「不詳」を手掛かりに予防法などを検討することは難しい。また、原因が「不詳」のままでは市民に安心を届けられない。医学研究においては研究対象を絞り込む必要があり、抽出や追跡が可能な「不詳」に代わる分類名/診断名が求められる。また、社会秩序を維持するために、同様の事故や犯罪を抑制する必要がある。この、

社会正義を実現する場面では、死に至る経緯や責任の所在を明確にすることが求められ、分類名/診断名が重要な役割を担う。一方、犯罪の可能性がないと判断されれば、遺族、関係する全ての人の悲嘆の癒やし（グリーフケア）を優先する必要がある。しかしながら、「死因は『不詳』でした」という遺族への説明は、癒しの第一歩に大切とされる死の受容を妨げる。また、自責の念を抱いたり、他者に疑念を持たせたりすることもある。何がどのように起こったかを家族が知る一助となる分類名/診断名が求められる。

このような「不詳」が多くなる原因の1つにSIDS診断の難しさがある。そして、その難しさの要因としては、1）病理所見や死亡状況調査の解釈や定量化は困難であり、除外診断であるSIDSの根拠としてこれらをどこまで利用できるかが不確かであること、2）明瞭な説明が求められる裁判では、上記のような不確かな根拠に基づいたSIDSという診断名を提示しづらいこと、3）診断医の意図とは異なる死因分類を人口動態統計への登録で付されてしまうことなどが挙げられてきた。

なお、日本においては、2005年に厚生労働省研究班によってSIDSの定義が「それまでの健康状態および既往歴からその死亡が予測できず、しかも死亡状況調査および解剖検査によってもその原因が同定されない、原則として1歳未満の児に突然の死をもたらした症候群」と改訂された。また、剖検を実施しなくても「SIDSの疑い」とできるとされていたそれまでの方針が変更され、剖検が必須とされた。これにより、それまでは剖検を実施せずにSIDSとされていた症例が「不詳」とされるようになったために、日本における「不詳」が増加したと推測された。実際、改訂された2005年以降、SIDSは減少し「不詳」が最多となっている（図1）。しかし、剖検率を調査してみると2005年以前の我が国にお

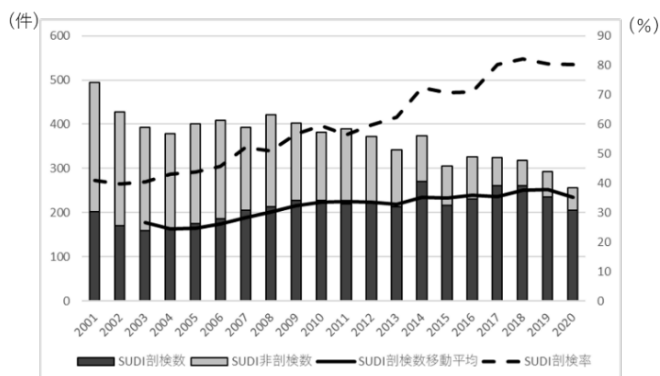


図2 SUDI発生件数と剖検実施件数/率の年次推移

ける SUDI 症例の剖検実施率は 50%に満たなかったが、2020 年には 80%に達している(図 2)⁶。

このことは、剖検を実施しても診断が確定できないのが現状であることを示しており、剖検を実施した際に利用すれば、標準化された診断/分類に導かれる新たな手引き(改訂第 3 版)が必要である。

3. 診断へのアプローチと改訂第 3 版の観点

改訂第 3 版では、医学的な死因診断/分類および臨床・基礎・社会医学研究、そして、「予防のためのこどもの死亡検証制度(Child Death Review: CDR)」、グリーンケアへの貢献を目的に編纂した。

死亡診断書(死体検案書)は、「死亡の原因」として傷病名を記載する欄と病死や不慮の外因死・自他殺といった「死因の種類」を記載する欄で構成されているが、この改訂第 3 版は「死亡の原因」の診断(推定)を支援することに焦点を当てた。

この SUDI における「死亡の原因」の診断(推定)は、通常、出生歴・生活歴・病歴調査と死亡状況調査(Death Scene Investigation; DSI)、さらに剖検を含む各種検査の結果を総合して行う。SUDI では、死の前兆が全く認められなかった児が、死の瞬間を目撃されることなく死亡するのが一般である。従って、諸検査で死を説明し得る所見が認められないときは、家族歴を含めた病歴と DSI から得られた客観的事実に基づいて医科学的理論を援用して考察によって診断されるのである。

そこで、改訂第 3 版では SIDS の診断は除外診断であるとの立場に立ち、除外するための調査・剖検・検査方法を提示することで、診断へのアプローチの標準化を目指した。しかしながら、それでもなお、病理学的所見や検査結果、また、死亡状況調査による外的ストレスに関するそれぞれの相互関係や死に至る機序への重みなどの解釈は解決しない。そのため、診断者はこの手引きを利用して、担当した症例の最終的な診断は個々の裁量で行わなければならない。つまり、このフローのみでは最終的な診断に行き着くわけではないこと、言い換えれば、個々の医師の診断や鑑定を拘束するものではないことを明記しておく。改訂第 3 版は最終判断(推定)を行う直前の段階までは導いてくれる図 3 のようなフローチャートの提示を目指している。

そこで第一に、DSI および病歴調査に必要な

問診・チェックリストを提示した。ここで収集される情報は、剖検や各種検査の結果を解釈する際にも利活用できる。また、死亡発見現場に立ち会う可能性のある警察官や保育士、福祉関係者も利用できることを目指した。さらに、診断医と蘇生にあたった救急医の間で共有すべき情報や、死亡確認を行った医師とかかりつけ医における情報共有についても言及した。

次に、各種検査の項では、専門機関や研究機関以外の施設でも実施が推奨される検査(推奨検査)を提示した。また、その推奨検査の検体採取(実施)方法・保管方法・解釈・依頼方法(実施が困難な施設の場合)を提示した。さらに、最終診断医が、推奨検査以外にも追加(補充)検査が必要と考えた場合に、その追加(補充)検査を依頼できる専門機関や研究機関を紹介した。

今回の改訂ではグリーンケアにも焦点を当て、蘇生に当たる臨床医の対応や DSI を実施する警察官の心得なども記載した。また、現在、全国での社会実装が目前に迫る CDR に資する手引きとなることも念頭に改訂した。

なお、改訂第 3 版によって導かれた SIDS 診断には不確定な要素が少なからず含まれる。そのため、この改訂第 3 版を刑事/民事法廷における議論で活用されることは念頭に置いていない。

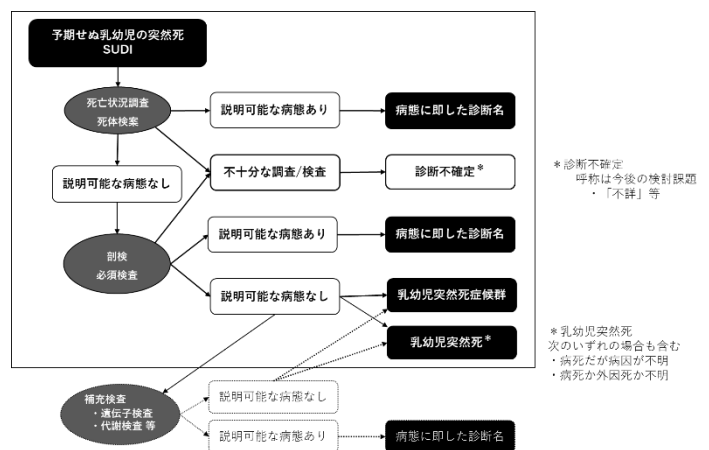


図 3. 診断フローチャート

D. 考察

CDR は予防を目的にしたこどもの死亡検証制度である。現在我が国には多様な死亡検証制度が存在しているが、CDR が他の検証制度と異なる点は、①地域を基盤に実施される、②個別の事案を対象にするのではなく、18 歳以下全てのこどもの死亡を対象としている、③死因究明や、

事案にかかわる責任の所在や程度などを明らかにすることは目的にしている、④死因究明の事実を基に、仮定や仮説をまじえて予防の可能性を検証する、⑤こどもの安全環境を創出するために、多職種により継続的に検証を行う、などが挙げられる。このため、CDRは「予防のためのこどもの死亡検証」と命名されている。

予防を迫及するときには、死因が事実に基づき適切に究明されている必要がある。これが不正確であったり不確実である場合、それを基にした検証では予防策の適切さや有効性は不十分である。従って、死因究明はCDRの生命線とも言える。今回の診断基準検討委員会の検討は、現在急速に発展している遺伝子検査や感染症検査の最新の知見を踏まえて、より確実に正確な診断に導く順路を明確にすることを目的に手引きの改訂を試みた。しかし、死の機序を合理的に説明する所見が存在しない死亡の取り扱い、科学の進歩によっても困難であることが判った。

CDRの目的の一つにグリーフケアが挙げられている。グリーフケアとは、悲嘆の事実を受け入れ、未来へ向かう心の指向性を支援することとされている。こどもを亡くした遺族が抱く思いは多様であるが、「何が起こったのかを知りたい。そして、このような悲しみが再び起こらない社会にしてほしい。」との思いは概ね共通した心情である。何が起こったのか、なぜ起こったのかという疑問に対しては、死因究明がそれに答えを出す役割を担っている⁷。それに納得がいかない場合などは、各種の検証委員会が集中的に原因や背景を明らかにすることで、死そのものを受け入れる支援となる。一方、同じことが繰り返されない世の中にしてほしい、この思いに寄り添うのがCDRの役割である。SIDSの病態生理を明らかにし予防法や治療法を解明することは、現状は不可能にみられる。しかし、あおむけキャンペーン(BSC)が社会実装されたことで、SIDSの発生率は半減以下まで抑制された。このように、社会が同じ苦しみの再発予防に取り組み、たゆまぬ努力を続けることが遺族の願いを現実化し、未来志向の心の支援となるであろう。これが、CDRが実現するグリーフケアである。

E. 結論

今回の乳幼児突然死診断の手引きの改訂は医学的な効果のみならず、有効なCDRを社会実装させるために必要な事業と位置付けることができる。

参考文献

1. 小保内俊雅, 沼口敦, 小谷泰一, 青木康博. 予期せぬ乳幼児の突然死(SUDI)の診断に関する検討. 令和3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))『わが国の至適なチャイルド・デス・レビュー制度を確立するための研究』分担研究報告書
2. 小保内俊雅, 小谷泰一, 山本琢磨, 松永綾子, 沼口敦. 予期せぬ乳幼児の突然死(SUDI)の診断環境改善に関する検討. 令和5年度 小児家庭科学研究費補助金(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))『こどもの死亡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
3. 山中雅弘, 中川聡, 小保内俊雅, 他. 乳幼児突然死症候群(SIDS)診断の手引き改訂第2版. J. Jap. SIDS Res. Soc 2006; 2: 73-97
4. 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、こ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
5. 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
6. 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
7. Vennemann MM, Rentsch C, Bajanowski T, et al. Are autopsies of help to the parents of SIDS victims? A follow-up on SIDS families, Int J Legal Med 2006; 120: 352-354

F. 健康危機情報

(特記すべきことなし)

G. 研究発表

1. 論文発表

2. 学会発表

(特記すべきことなし)

H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得

2. 実用新案登録

3. その他

(特記すべきことなし)