

うつ伏せ寝中に発症した乳児突然死 症候群 (SIDS) の2例

寺内昭子^{1)*} 天野芳郎¹⁾ 山崎宗廣¹⁾
塚田昌滋¹⁾ 加藤正裕²⁾ 原田謙³⁾
宮川恭一⁴⁾

- 1) 国立療養所東松本病院小児科
- 2) 信州大学医学部第1病理学教室
- 3) 信州大学医学部精神医学教室
- 4) 国立東信病院小児科

Two Cases of Sudden Infant Death Syndrome Occurring in Prone Sleeping Position

Akiko TERAUCHI¹⁾, Yoshiroh AMANO¹⁾, Munehiro YAMAZAKI¹⁾
Masashige TSUKADA¹⁾, Masahiro KATO²⁾, Yuzuru HARADA³⁾
and Kyoichi MIYAGAWA⁴⁾

- 1) *Department of Pediatrics, National Sanatorium Higashi-Matsumoto Hospital*
- 2) *Department of Pathology, Shinshu University School of Medicine*
- 3) *Department of Psychiatrics, Shinshu University School of Medicine*
- 4) *Department of Pediatrics, Tohshin National Hospital*

Two cases of sudden infant death syndrome (SIDS) were reported. The first was a 45-day-old boy and the second a 78-day-old girl. Both cases were found dead in the prone position and in night. The first case died in July 1991. He had had the sniffles for a few days, but his general condition seemed to be good. His father noticed at 1 am that the infant showed no signs of respiration. He was not revived by cardiorespiratory resuscitation in the hospital. At autopsy, small amounts of fibrinous substance and many migrated macrophages were seen in the alveoli of the lungs. A few glomeruli showed necrotic foci in various degrees. Immaturity of organ development was seen as intrahepatic hematopoiesis, and some thymus tissue remained in the thyroid. No pathological changes were observed in the brain, heart, pancreas or adrenal glands both of which weighed 2g. The second case had a history of one brief episode of apnea 4 days after birth but thereafter she had developed well. She had suffered from a slight cold for a few days. She was found dead at 4 am by her mother in February 1992. Both cases were examined by the police, who found a few petechiae on the ocular conjunctiva, and concluded that the direct cause of death was suffocation. *Shinshu Med J* 42: 591-595, 1994

(Received for publication June 20, 1994)

Key words: sudden infant death syndrome, pathology

乳児突然死症候群, 病理所見

I はじめに

* 別刷請求先: 寺内 昭子

〒399 松本市寿豊丘811 国立療養所東松本病院小
児科

乳児突然死症候群 (sudden infant death syndrome
以下 SIDS と略す) は, 呼吸中枢の未熟, 呼吸器感染

症、先天代謝異常症など様々な原因により発症するとされるが、診断が確定される例は少ない。また原因によらず、うつ伏せ寝中に発症することが多いともされている¹⁻⁴⁾。我々は、1991年から1992年にかけて、救急外来にて、生後45日、生後78日の2例のSIDSを経験した。2例とも原因を特定するための血液、尿等の検査が実施できなかったが、① 深夜にうつ伏せ寝にて発見された、② 感冒症状が先行した、等の共通する徴候がみられた。1例は病理解剖され、肺胞内のマクロファージの集積や一部の糸球体の変性壊死が観察された。SIDSの病態や発症予防についての知識は普及してきているが解剖所見の詳細な報告は少ない。また糸球体の変性壊死はこれまでの報告例に見られない所見であり貴重な症例と思われたので報告する。

II 症 例

症例1：生後45日の男児。発症までには特記すべき疾患はなく、在胎40週、体重2,950gで正常分娩にて出生した。発症前の体重は4,860g、追視も始まっており、発育、発達とも正常であった。家族は邦人の父親、フィリピン人の母親、4歳の姉との4人であり家系内には特別な疾患はなかった。母親と姉は数日前より鼻汁、咳の上気道炎症症状があり近医にて感冒剤を与薬されていた。患児もSIDS発症の前日から鼻閉があり、軽い感冒に罹患したと思われていたが治療は受けていなかった。ふだんよりうつ伏せにしないと眠らないため、ほとんどうつ伏せ位でいたとのことであった。発症は、1991年7月19日、午前2時頃帰宅した父親がふとんの中でうつ伏せでぐったりしているところを発見し、救急車にて当院受診。病院到着時には心肺停止状態であり、気管内挿管、心マッサージにても蘇生しなかった。警察による検死結果、眼球後部に溢血点が見られ窒息死と判定された。病理解剖所見は後に示した。

症例2：生後78日の女児。1回目の妊娠は胎状奇胎であったが、本児の妊娠経過は順調で在胎40週、体重2,780gで正常分娩にて出産した。生後4日目に産院で短い無呼吸発作が1回みられたが後の発育に問題がなかったので検査等施行されなかった。発症前まで、

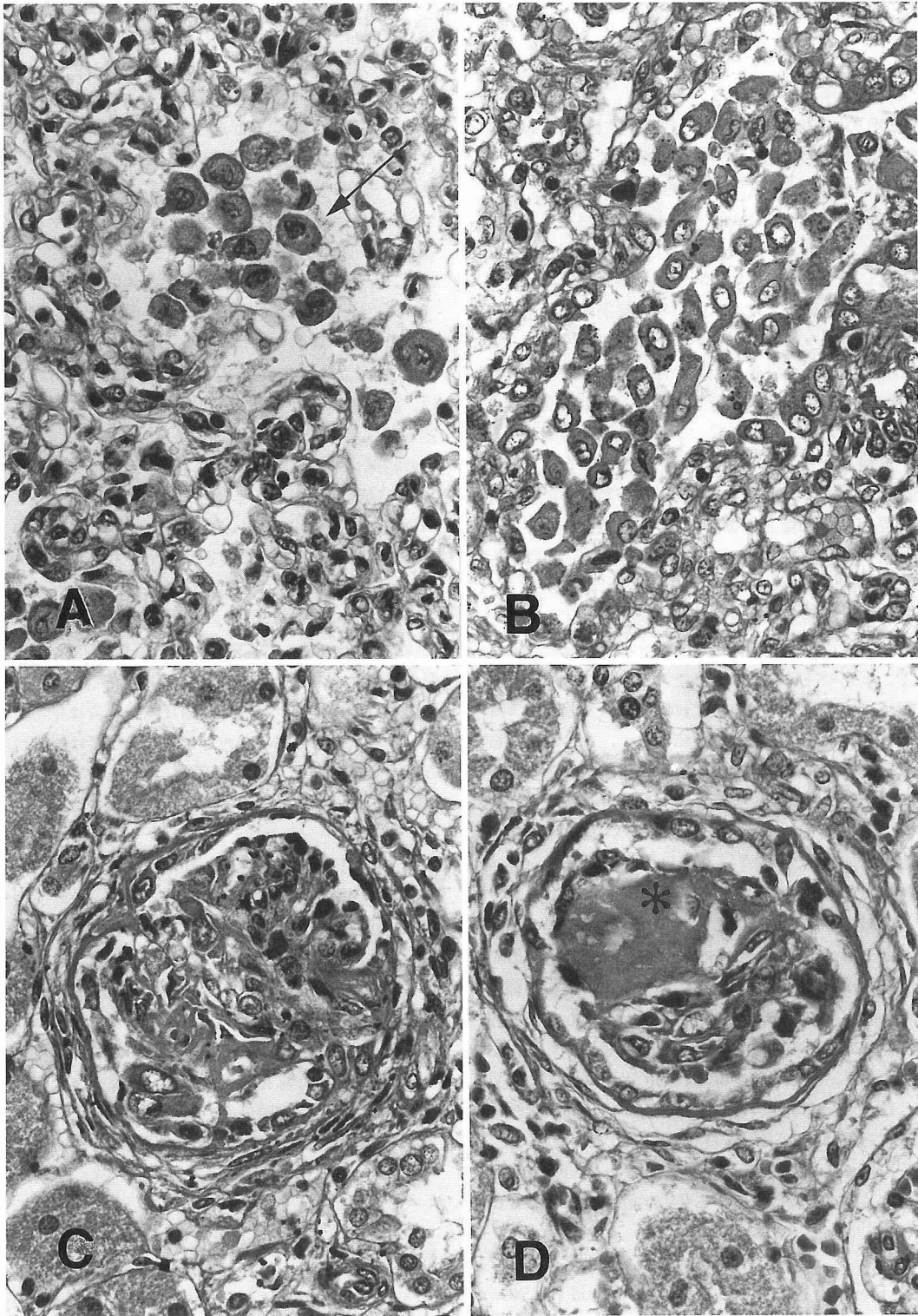
日に2ないし3回の吐乳がみられたが、追視や、声出し笑いあり発達の異常はみられなかった。発症前日、鼻汁が多く軽い感冒にかかっていたと思われた。うつ伏せにしないと眠らないためふだんよりうつ伏せにしていた。1992年2月7日。午前5時40分頃、母親が見に哺乳しようとしたがうつ伏せでぐったりしているのに気づき救急車にて来院した。病院到着時、心停止、呼吸停止状態であり、30分の蘇生術後、死亡と診断した。気管内には凝乳塊などの吐物はみられなかった。死亡時、体重は5,200g、身長58cm、頭囲36cmで、身体発育は正常範囲内であり、外表に奇形は見られなかった。咽頭ぬぐい液の培養では、Staphyrococcus epidermidis, Neisseria, α -streptococcusが同定された。警察による検死の結果、眼球後部に溢血点が見られ直接死因は窒息とされた。

III 症例1の病理解剖所見

脳は重量600g。肉眼的には脳軟膜は平滑、脳回には形成の異常は見られなかった。光学顕微鏡的に大脳、中脳、延髄、橋および小脳において細胞構築に異常なく、神経線維髄鞘の形成も正常内であり神経細胞の脱落、グリア細胞の増殖は見られなかった。脳室上衣細胞、脳室内腔にも異常は見られなかった。心臓は、肉眼的には心外膜に点状出血が散在していた。光顕的には、心筋層には特別な組織異常をみなかった。肺は表面に点状出血が散見された。光顕的には肺胞の一部に不均等な拡張不全がみられ、他の一部の肺胞内には浸出液およびマクロファージの集積が観察され炎症所見を呈したが細菌は見られなかった(図1A, B)。気管、気管支および細気管支には吐物等は見られなかった。肝臓は、表面は平滑で分葉異常はなかったが実質には肝内造血が散見された。脾臓はHE染色像ではラ氏島の形成は正常内であった。腎は外形は左右差はなく外観に異常は見られなかった。光学顕微鏡では、およそ20個に1個の糸球体に、分節性から係蹄全体にいたるまで大小様々の変性壊死像がみられた(図1C, D)。甲状腺組織に接して、胸腺の遺残が見られた。その他、消化管、脾臓、睪丸、膀胱組織等には特異な所見は見られなかった。副腎の両側の重量はそれぞれ

図1 剖検病理組織写真, HE染色

- A, B 肺組織像。肺胞内に多数のマクロファージの集積がみられる(矢印)。700倍
 C 腎臓糸球体像。糸球体に小範囲の壊死巣が多発性にみられる。700倍
 D 腎臓糸球体。塊状の分節性壊死巣がみられる(*)。700倍



2 g と正常内であり組織上も異常はなかった。

IV 考 察

A 病理所見

SIDSの原因は単一でなく、代謝異常症や⁹⁾、臓器の機能障害が原因である場合は病理解剖結果からだけでは診断が不能で血液、尿等の検査が必要である。本報告の2例は生前の検体が得られず原因が特定できなかったが、従来のSIDSの報告のうち剖検の所見が記載されているものが少ないため剖検し得た1例についての病理所見を報告した。本例の病理解剖のおもな所見は、肺胞内のマクロファージの集積や浸出液の存在などの気道感染症の徴候、一部の腎糸球体の変性壊死、肝内造血や胸腺と甲状腺の分離不全などの器官発達の未熟であった。呼吸器感染はSIDSの誘引の1つとされ、剖検されたSIDSの半数が、急性咽頭炎、扁桃腺炎、気管支炎、気管支管支炎、無気肺等の呼吸器感染の所見がみられたとの報告や⁹⁾、肺組織上、肺浮腫、肺血管内微小血栓⁷⁾、細気管支壁細胞浸潤、肺胞内マクロファージの集積⁸⁾を呈していたとの報告がある。いずれも、組織上では重篤な換気障害を生ずる程でないとされ気道の機能の未熟がSIDSの誘引と推定している。乳児の呼吸機能の発達では、肺機能は生後次第に低下し、生後30～60日頃には機能的残気量、肺コンプライアンスともに最低値を示すため、この時期に細気管支および終末気管支において、炎症による浸出物質等の液体が腔壁を被った場合、腔壁の収縮力が低下するため換気能の不全に陥りやすいとの報告がある⁹⁾。このことは生後1～2カ月の乳児が軽微な呼吸器感染でもSIDSに進行して行く危険があることを支持する報告と思われる。このような呼吸不全への進行の説明として、SIDS死亡の乳児の脳前頭葉皮質の星状膠細胞は他の原因による死亡乳児に比べ未成熟細胞が多い¹⁰⁾ことや、脳幹部にグリオセを呈した例の報告¹¹⁾等、神経系の発達の未熟との関係を示す報告も見られるが、本例では中枢神経系には特異な変化は見られなかった。本報告例では腎糸球体の一部に変性壊死がみられたが、SIDS発症との関係は不明であった。従来、ウイルス感染症に合併するGoodpasture症候群をはじめ、肺炎に合併する免疫学的機序による腎炎

が知られているが¹²⁾、本例のように軽い上気道炎症状に腎炎が合併していたかどうかは判定できなかった。腎障害を伴う先天性代謝異常症も鑑別が必要と思われた。その他、今までに報告されている、胸腺および全身リンパ節肥大、副腎低形成⁹⁾、脾臓内の内分泌組織の増殖¹³⁾¹⁴⁾は本例ではみられなかった。

B SIDSと睡眠中の体位

SIDS発症時の体位は実数としては側臥位や背臥位中よりうつ伏せ寝が多い事が注目されてきた¹¹⁾⁴⁾。しかし、全健康乳児の普段の睡眠中の体位の比率が不明であることやSIDS発症時の体位が明確でない例が多かったため、睡眠中の体位がSIDSの発症に関係あるかどうかについて結論を出すことは困難であった。最近、腹臥位におけるSIDSの他の体位に対する危険度推定値(オッズ比)を検討しオッズ比が1.0以上では正の相関をもって腹臥位中によりSIDSの発症が多いことが統計的に確実となり、この方法を用いて、SIDSは腹臥位中により起こりやすいとの報告が出されている¹⁵⁾¹⁶⁾。本邦では寝返りのできない時期の乳児の場合、普段の睡眠中が腹臥位であるのは9%であり他の体位に比べ低いとの調査結果がある¹⁷⁾。一方SIDS発見時の体位は12例中9例⁴⁾、19例中11例¹⁸⁾と腹臥位に多いとの報告から、腹臥位中の発症率が他の体位より高いと推測されるが詳細な統計報告は見あたらない。最近はや育児指導のなかでうつ伏せ寝は観察可能な時に限るよう等、適切な指導がされている¹⁹⁾。

V 結 語

- 1) 生後45日目の男児、および生後78日目の女児の2例のSIDSについて報告した。2例は、数日前より軽い感冒症状を呈していたこと、深夜から未明にうつ伏せ寝で発見されたことの共通する徴候を示した。
- 2) 検死結果、2例とも眼球結膜に小出血点が見られ、死因は窒息と判定された。剖検された1例では、肺表面および心外膜にも肉眼的な小出血点が見られた。肺では局所的な肺胞拡張の不全、浮腫、マクロファージの集積等、肺感染症の所見がみられた。一部の腎糸球体は変性壊死を示したが原因は特定できなかった。

文 献

- 1) Fleming PJ, Gilbert R, Azaz Y, Rud PJ, Stewart A, Hall E: Interaction between bedding and sleeping position in the sudden infant death syndrome: a population based case-control study. Br Med J 301: 85

-89, 1990

- 2) Engelberts AC, Jong GA: Choice of sleeping position for infants: possible association with cot death. *Arch Dis Child* 65: 462-467, 1990
- 3) Beal SM, Finch CF: An overview of retrospective case-control studies investigating the relationship between prone sleeping position and SIDS. *J Paediatr Child Health* 27: 334-339, 1991
- 4) 太神和広, 金城沢子, 大西宏彰, 香取竜生, 堀尾 恵: 乳幼児突然死症候群における死亡時体位について. *日児誌* 96: 780, 1992
- 5) 永井敏郎: SIDS一原因となる代謝異常一. *小児科診療* 56: 717-722, 1993
- 6) 太神和広, 香取竜生, 堀尾恵三, 飯森裕一, 曾根良治, 渡辺三郎, 佐久間秀夫: 乳幼児突然死症候群14例の臨床像についての検討. *日児誌* 97: 1797-1804, 1993
- 7) Bunai Y, Ohya I, Brinkman B: Pathological approaches to SIDS. I. Special emphasis on the histopathological differences between SIDS and asphyxia. *Nippon Hoigaku Zasshi* 46 (Suppl) :70, 1992
- 8) 土井幹雄, 大橋教良, 斉藤久子, 竹田一則, 三沢章吾: 小児急性細気管支炎はSIDSの原因たりうるか. *日法医誌* 46(補冊): 122, 1992
- 9) Martinez FD: Sudden infant death syndrome and small airway occlusion: facts and a hypothesis. *Pediatrics* 87: 190-198, 1991
- 10) 張 維東, 鈴木裕子, 山田良広, 森 啓, 高取健彦: 乳幼児突然死症候群の死因に関する免疫組織学的アプローチ. *日法医誌* 46(補冊): 123, 1992
- 11) Takashima S, Armstrong D, Becker L, Bryan C: Cerebral hypoperfusion in the sudden infant death syndrome? Brainstem gliosis and vasculature. *Ann Neurol* 4: 257-262, 1978
- 12) Edelmann CM: *Pediatric Kidney Disease*. 1st ed, pp. 736-745, Little Brown and Company, Boston, 1978
- 13) 向井敏二, 大城尚伸, 玉城 尚, 内間栄行, 宇根裕代: 乳児急死例における臓器組織像. *日法医誌* 46(補冊): 121, 1992
- 14) Hisaoka M, Haratake J, Nakamura Y, Itoh Y: Pancreatic islet abnormalities in sudden infant death syndrome. Qualitative and quantitative analysis of 15 Cases. *Acta Pathol Jpn* 42: 870-875, 1992
- 15) Ponsonby AL, Dwyer T, Gibbons LE, Cochrane JA, Wang YG: Factors potentiating the risk of sudden infant death syndrome associated with the prone position. *N Engl J Med* 329: 377-382, 1993
- 16) Poets CF, Southall DP: Prone sleeping position and sudden infant death. *N Engl J Med* 329: 425-426, 1993
- 17) 大江啓二, 大原俊夫: 乳児のうつ伏せ寝についての実態調査. *小児保健研究* 50: 84-88, 1991
- 18) 木部哲也, 浅井雅美, 藤本伸治, 岡島一樹, 木内正信, 側島久典: SIDSと未然型SIDSの発生状況 一愛知県下主要施設のアンケート調査から一. *日児誌* 94: 1389-1394, 1990
- 19) 今村栄一: 育児の話題のその後. *小児保健研究* 52: 13-17, 1993

(6. 6. 20 受稿)