

A Four-Month-Old Infant with Shaken Baby Syndrome

Atsushi OGAWA, Takashi KODAMA, Chizuru FUJIWARA,
Sadatoshi FUJIKAWA and Akihisa MITSUDOME

Department of Pediatrics, Fukuoka University School of Medicine

Abstract: A four-month-old infant presenting with a loss of consciousness and respiratory failure was admitted to our hospital. Head CT showed a subdural hemorrhage in the occipital region and a subarachnoid hemorrhage in the frontal region. Diffusion-weighted magnetic resonance imaging (MRI) after 19 hours showed an increased signal intensity of the bilateral temporal, occipital and parietal brain matter. The patient also had bilateral retinal hemorrhages. She was treated by a serial subdural tap. One month later, head MRI showed multicystic encephalomalacia. In this case, the baby's father and mother denied any history of shaking the baby. However, we finally diagnosed this case to have shaken baby syndrome, as a result of child abuse. Early radiographic testing such as head CT and MRI were useful for the diagnosis of shaken baby syndrome.

Key words: Head injury, Battered child syndrome, Retinal hemorrhage, Chronic subdural fluid collections, Subdural tap

揺さぶられっ子症候群 (Shaken Baby Syndrome) の 4 カ月女児例

小川 厚 児玉 隆志 藤原 千鶴
藤川 貞敏 満留 昭久

福岡大学医学部小児科学教室

要旨: 揺さぶられっ子症候群 (shaken baby syndrome) は小児救急医療や小児虐待に携わる多くの人々の啓発活動により認知されるようになってきた。しかしながら、本症は外傷の既往がはっきりしない事や養育者の自発的な申告がない事などにより診断に苦慮する症例が多い。虐待を医学的に診断するためには医学的所見・検査が行われ、鑑別診断もなされて虐待の可能性が指摘されなければならない。今回、我々は突然の意識障害と呼吸不全により発症した本症候群の 4 カ月女児を経験した。発症時の頭部 CT 検査で上矢状洞・大脳鎌後部に硬膜下出血、前頭部脳溝の一部にくも膜下出血を認めた。また発症 19 時間の頭部 MRI 検査で拡散強調画像において両側頭葉、頭頂・後頭葉の皮質・皮質下深部白質に高信号を認め、この部位は 1 カ月後には多房性脳軟化に移行した。病歴上ははっきりとした揺さぶりの確認の取れない症例において、積極的な各種の頭部画像検査は本症候群の早期診断の一助になると考え報告する。

キーワード: 頭部外傷, 被虐待児症候群, 眼底出血, 慢性硬膜下水腫, 硬膜下穿刺

はじめに

1972年, Caffey は乳児を揺さぶることで発症した頭

蓋内出血と眼底出血を報告し¹⁾²⁾, 1984年, Ludwig は同様の症例を shaken baby syndrome のタイトルで報告した³⁾. その後, 1993年にアメリカ小児科学会被虐待児委員会は本症候群が被虐待により生じる頭部外傷の特徴

を備えるため、被虐待児症候群の一型として紹介した⁴⁾。

今回、我々は4カ月時に発症した本症候群の女児例に早期に頭部画像検査を行い、虐待による頭部外傷と特定する事が可能な異常所見を得た。早期確定診断に有用と思われたので報告する。

症 例

症例は生後4カ月の女児。主訴は突然の意識障害と呼吸不全。現病歴であるが在胎40週、2,743g、自然分娩で出生し、4カ月検診時は異常を指摘されていない。11月13日、4カ月健診の3日後、21時まで元気にしていたが、突然意識消失し鼻と口から痰のようなものをだし10秒ほど息をしておらず顔色不良もあったとの事で消防署に連絡され救急車で地域の小児急患診療センターに緊急搬送となった。救急車の中で一度意識を回復したが小児急患診療センター到着時にけいれんがみられた。頭部CTで頭蓋内出血を指摘され紹介入院。後に詳細な病歴聴取を行ったところ発症2週間前と4日前頃に顔面に青あざができていた事に母親は気付いていたが誰にも相談せず、4カ月健診でも気付かれていなかった。

家族歴では、父親は20歳で母親は18歳であり、本児の妊娠が判明した後、両親は入籍している。児の当科入院

時の現症では心拍数は150/分、呼吸数60/分、血圧は94/52mmHg、体温は35.8°Cであった。意識はJapan Coma ScaleにてⅢ-300で顔面蒼白であった。左前額部に直径1cmほどの薄い皮下出血斑を3カ所認めた。大泉門は2×2cmで膨隆あり。両瞳孔は直径5mmで、正円同大、対光反射は遅延していた。呼吸音は減弱しており湿性ラ音を聴取した。心雑音は聴取されなかった。

検査所見は白血球数13,200/ μ l、赤血球数424万/ μ l、ヘモグロビン11.3g/dl、血小板は59.4万/ μ lでありこの月齢の乳児の正常範囲内であった。血液生化学検査でも異常は認められなかった。アンモニア値は47 μ g/dlと正常範囲。乳酸54mg/dl、ピルビン酸2.8mg/dlと上昇を認めたが後に正常化した。凝固能検査に異常は認めなかった。尿中アミノ酸分析は正常だった。

眼科に依頼した眼底検査で両側共に多発性に眼底出血を認めた。

頭部CT検査では大泉門の軽度の膨隆があり、上矢状静脈洞・大脳鎌後部にhigh density areaを認め、硬膜下出血と判断した。前頭部脳溝の一部にくも膜下出血を認めた(図1)。

発症後19時間の時点での頭部MRI検査ではT2強調画像で両側側頭葉から頭頂・後頭葉および前頭葉にびまん性のほぼ左右対称性の淡い高信号域を認め、脳溝の狭

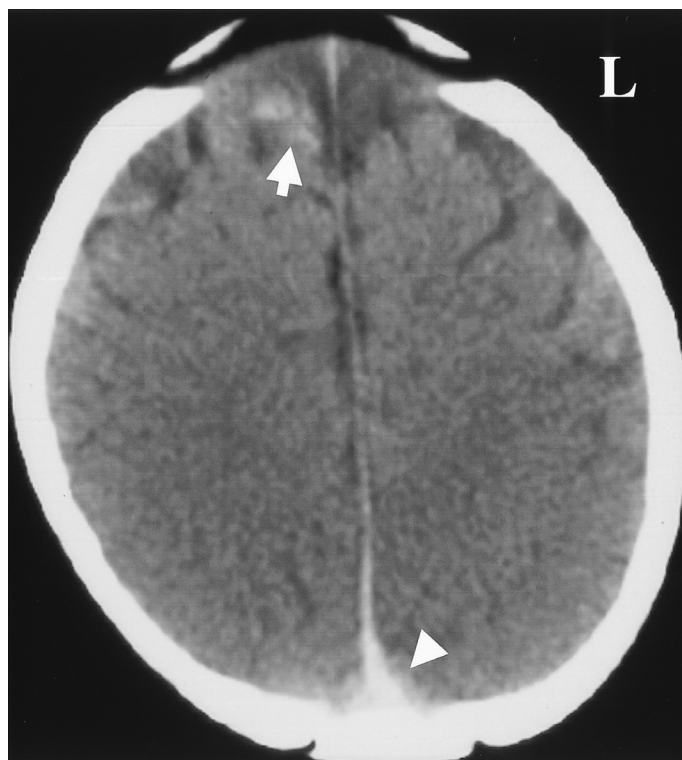


図1 入院時頭部CT画像
大泉門の軽度の膨隆を認める。上矢状洞・大脳鎌後部にhigh density area(矢頭)がみられる。前頭部脳溝の一部にくも膜下出血(矢印)を認める。

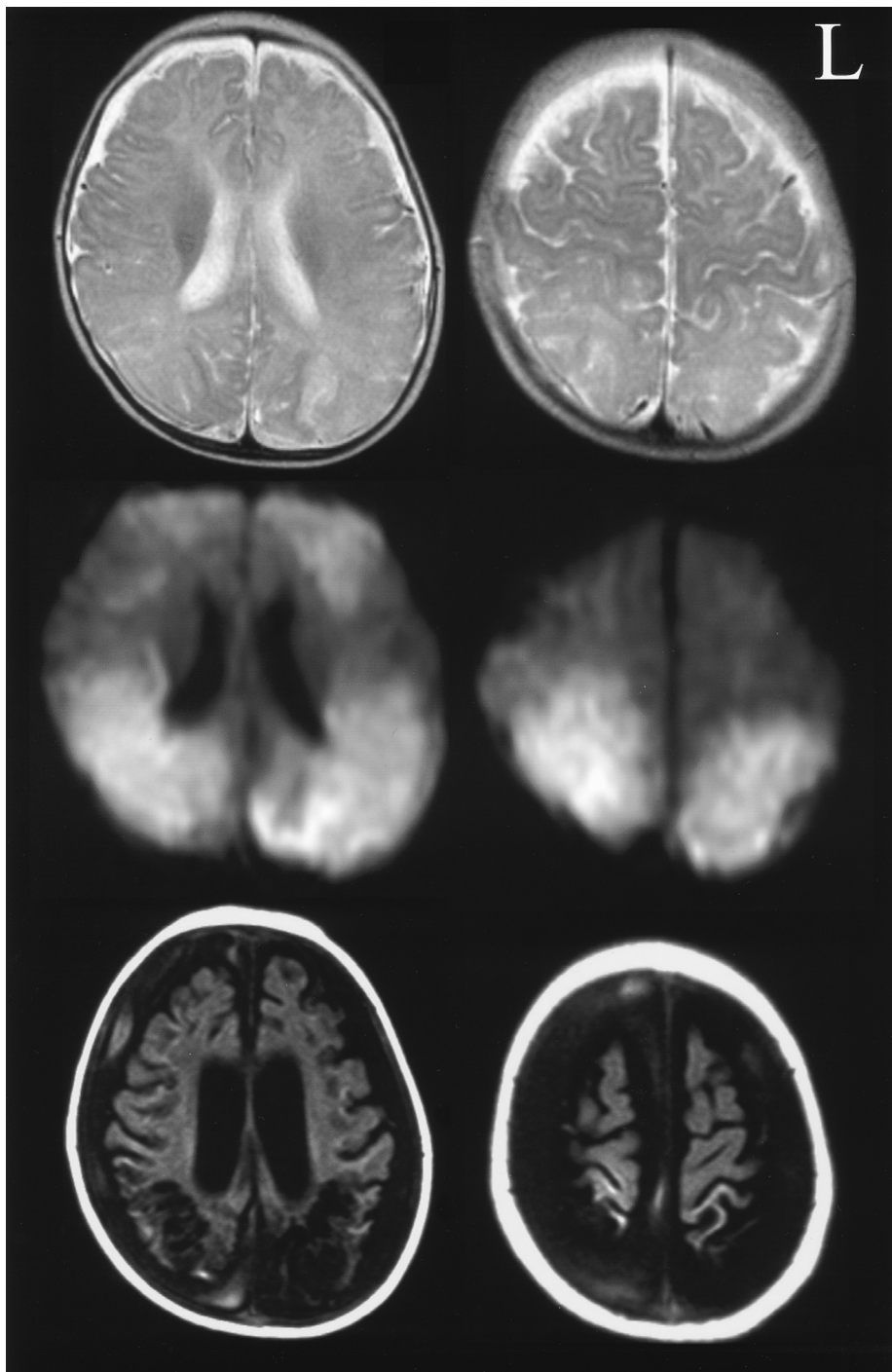


図2 頭部 MRI 画像

上段：発症後19時間の T2 強調画像，両側側頭葉から頭頂・後頭葉および前頭葉の皮質にびまん性のほぼ左右対称性の淡い高信号域を認め脳溝の狭少化を伴っている。

中段：発症後19時間の拡散強調画像，後頭部優位に高信号を呈しており，一部脳回には明瞭な高信号を示す領域がみられた。

下段：発症後1カ月の FLAIR 法画像，テント上脳実質は著明に萎縮しており，硬膜下液貯留を認め，発症時より増大していた。両側頭・頭頂・後頭葉および前頭葉の皮質から皮質下を中心に，ほぼ髄液と同等の信号強度を示す病変が多発している。多房性脳軟化の所見。

少化を伴っていた。拡散強調画像では後頭部優位に高信号を呈しており、一部脳回には明瞭な高信号を示す領域がみられた。入院後の詳細な病歴聴取で1時間ほど父親と二人きりになっていた後、発症している事がわかった。

入院後、けいれん重積に対し diazepam 投与、phenobarbital, dexamethasone, glycerin/fructose により治療を行った。大泉門よりの硬膜下穿刺排液を3日間行った。それぞれ1回につき30ml程度の淡血性髄液が採取された。3病日目より経管栄養、10病日目より経口摂取が可能となった。1カ月後のMRI検査でFLAIR法画像においてテント上脳実質は著明に萎縮しており、硬膜下液貯留を認め、発症時より増大していた。両側頭・頭頂・後頭葉および前頭葉の皮質から皮質下を中心に、ほぼ脳脊髄液と同等の信号強度を示す病変が多発しており、多房性脳軟化の所見に移行していた(図2)。

獲得されていた頸坐が不能となり四肢の瘳直があり、発達の遅れを認めている。

発症当初より児童虐待の診断で地域の児童相談所と連絡を取り方針を検討したが、受傷機転についての父母からの揺さぶりの事実の確認は取れず、地域の保健所などにも連絡を取り、父母や祖父母との面談を行なった上で、母親および母方の祖父母と同居し父親とはしばらく別居するとのことで退院を決定した。頻回の外来受診および家庭訪問を繰り返しながら注意深く在宅で経過観察中である。

考 察

本症候群は養育者(caretaker)により揺さぶられたり、打ち付けられたりして発症する。その発症頻度は1998-9年のスコットランドのprospective population-based studyにおいて24.6/100,000(1歳以下での検討)とされている。受傷の平均月齢は2.2か月で、75%が秋から冬にかけて入院している⁵⁾。

本症候群が予期せぬものなのか、意図された外傷なのかについてBillmireとMyers⁶⁾は米国シンシナティ小児病院医療センターに入院した1歳未満の頭部外傷例を病歴と頭部CTの観点で検討し、合併症のない頭蓋骨骨折等を除外した頭部外傷の64%、また重篤な頭蓋内損傷の95%は小児虐待によるものと結論づけている。BruceとZimmerman⁷⁾は米国フィラデルフィア小児病院において、2歳以下の頭部外傷による死亡の80%は非事故であると述べている。本症のように重篤な症状を呈する頭部外傷においては、常に児童虐待の存在を念頭に置かなければならない。

本症候群の臨床所見と鑑別についてだが、軽症の場合、診療所を受診しないことが多く発覚しにくい。受診

する典型例はけいれんや意識障害がみられる。75-90%に眼底出血が見られ、特徴的な所見とされている。初診時に意識障害がみられた場合、60%は死亡するか知的障害、四肢麻痺など重篤な後障害を残す。本症候群の診断は典型例では本症を念頭に置けば比較的容易だが、軽症例の場合、診断に苦慮する場合もある³⁾⁶⁾⁸⁾。

放射線学的検討の報告ではDiasら⁹⁾が本症候群の33例に117回CT/MRIを行い、後方視的に検討し、急性硬膜下水腫27例(81%)を認め、その他慢性硬膜下水腫、くも膜下出血、硬膜外血腫、実質内低吸収、浮腫、脳挫傷、萎縮、脳軟化などの所見が見られたと報告している。注目すべきは慢性硬膜下水腫が受傷後17時間ですで見られると述べられている点である。自験例においても、この慢性硬膜下水腫が発症後19時間と早期に出現し、硬膜下穿刺を行い軽快し、この報告を支持する所見であった。実質内低吸収域の存在は虐待後6-24時間の経過で出現すると報告されている。本症例では見られなかったが、複数の硬膜下の低吸収域の混在は複数回の虐待のエピソードを示すと報告されている。

Biousseら¹⁰⁾は18例の確定的な本症候群の後方視的にMRIを検討し、全例にMRI拡散強調画像に通常のMRIに比較して明瞭な異常を認めたと述べている。これらの所見は本症例と一致するが、Biousseらの報告では検査を行った時期は発症5日以内での検討であった。本症例は発症後19時間で頭部MRIを施行し、すでに明瞭な異常所見が見られていた。本症候群において、緊急一次保護などの対応を迫られる場合があるが、その際客観的な判断を求められる。発症後早期の頭部MRI拡散強調画像検査は検討に値する検査と考えられる。

本症候群で画像上、一般的に見られる後障害は脳表外側の液貯留と脳萎縮、多房性脳軟化の所見であり¹¹⁾、本児もこれらの画像所見と一致していた。

このように、一度発症してしまうと死亡したり、重篤な後障害を残したりする本症候群では予防対策が重要となってくる。本症候群の予防としては小児科医が両親のストレスを聞く、自宅訪問プログラム¹²⁾、“Don't Shake the Baby”カードなどの啓発活動¹³⁾などの養育者に対する配慮等が上げられている。Oldsらは小児虐待を予防するため、未成年、未婚、社会経済的に低い層の初産婦に看護師が自宅訪問を行い、行わなかった場合と比較して有意に虐待のリスクを軽減できたと報告している。“Don't Shake the Baby”カードとは揺さぶりに関する啓発をカードにして15,708名の母親に配り、返信用葉書でその有用性を問うたもので、返信は21%であった。返信の3/4はカードが役に立ったと、またその91%が他の新生児を持つ家族もカードを読むべきと答えていた。このように本症候群の予防には医師のみならず保健センターや児童相談所、コミュニティーの介入な

どの多岐にわたる分野での共同作業が必要である。

本症例では振り返ってみると、母親が児の顔面に青あざができていたと後から述べていたため、4カ月検診時に把握できた可能性がある。本症例を教訓に子どもを取り巻く職種間での連携を強めていきたい。

文 献

- 1) Caffey J: On the theory and practice of shaking baby infants. It's potential residual effects of permanent brain damage and mental retardation. *Am J Dis Child* 124: 161-169, 1972.
- 2) Caffey J: The whiplash shaken infant syndrome; manual shaking by extremities with whiplash induced intracranial and intraocular bleedings, linked with residual permanent brain damage and mental retardation. *Pediatrics* 54: 396-403, 1974.
- 3) Ludwig S: Shaken baby syndrome; a review of 20 cases. *Ann Emerg Med* 13: 104-107, 1984.
- 4) American Academy of Pediatrics Committee on Child Abuse and Neglect: Shaken baby syndrome; inflicted cerebral trauma. *Pediatrics* 92: 872-875, 1993.
- 5) Barlow KM, Minns RA: Annual incidence of shaken impact syndrome in young children. *Lancet* 356: 1571-1572, 2000.
- 6) Billmire ME, Mayers PA: Serious head injury in infants: accident or abuse. *Pediatrics* 75: 340-342, 1985.
- 7) Bruce DA, Zimmerman RA: Shaken impact syndrome. *Pediatr Ann* 18: 482-494, 1989.
- 8) Levin AV: Ocular manifestations of child abuse. *Ophthalmol Clin North Am* 3: 249-264, 1990.
- 9) Dias MS, Backstrom J, Falk M, Li V.: Serial radiography in the infant shaken impact syndrome. *Pediatr Neurosurg* 29: 77-85, 1998.
- 10) Biousse V, Suh DY, Newman NJ, Davis PC, Mapstone T, Lambert SR: Diffusion-weighted magnetic resonance imaging in shaken baby syndrome. *Am J Ophthalmol* 133: 249-255, 2002.
- 11) Sinal SH, Ball MR: Head trauma due to child abuse: serial computerized tomography in diagnosis and management. *South Med J* 80: 1505-1512, 1987.
- 12) Olds DL, Henderson CR, Chamberlin R, Tatelbaum R: Preventing child abuse and neglect: A randomized trial of nurse home visitation. *Pediatrics* 78: 65-78, 1986.
- 13) Showers J: "Don't shake the baby": the effectiveness of a prevention program. *Child Abuse Negl* 16: 11-18, 1992.

(平成18. 3.3 受付, 18. 6.21 受理)