

原 著

## 学校管理下における肥大型心筋症による 心事故発生状況の変化

阿部 百合子<sup>1)</sup>, 鮎沢 衛<sup>1)</sup>, 加藤 雅崇<sup>1)</sup>, 渡邊 拓史<sup>1)</sup>, 趙 麻美<sup>1)</sup>, 小森 暁子<sup>1)</sup>,  
大熊 洋美<sup>1)</sup>, 市川 理恵<sup>1)</sup>, 神山 浩<sup>1)</sup>, 住友 直方<sup>2)</sup>, 伊東 三吾<sup>1)</sup>, 高橋 昌里<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup> 日本大学医学部 小児科学系 小児科学分野

<sup>2)</sup> 埼玉医科大学国際医療センター 小児心臓科

### Study of Cardiac Events Due to Hypertrophic Cardiomyopathy under School Management

Yuriko Abe<sup>1)</sup>, Mamoru Ayusawa<sup>1)</sup>, Masataka Kato<sup>1)</sup>, Hirofumi Watanabe<sup>1)</sup>, Ami Cho<sup>1)</sup>,  
Akiko Komori<sup>1)</sup>, Hiromi Okuma<sup>1)</sup>, Rie Ichikawa<sup>1)</sup>, Hiroshi Kamiyama<sup>1)</sup>,  
Naokata Sumitomo<sup>2)</sup>, Sango Ito<sup>1)</sup>, and Shori Takahashi<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup> Department of Pediatrics and Child Health, Nihon University School of Medicine, Tokyo, Japan

<sup>2)</sup> Department of Pediatric Cardiology, Saitama Medical University International Medical Center, Saitama, Japan

**Background:** Hypertrophic cardiomyopathy (HCM) is a major cause of sudden death in children at school. However, more children with HCM are being successfully resuscitated after collapse due to the increasing availability and accessibility of basic life support systems. Therefore, the prognosis for children with HCM who experience cardiac events at school may be changing. This present study aimed to determine the outcome of cardiac events arising in children with HCM and the effect of automated external defibrillators (AED) applied under school supervision.

**Methods:** We retrospectively studied case reports of cardiac events submitted to mutual aid systems for schoolchildren with HCM between 2004 and 2011.

**Results:** Among 44 children with HCM who experienced sudden cardiac events at school, 29 died and 15 survived after resuscitation. An AED was applied to 14 of the survivors, and one already had an implantable cardioverter defibrillator (ICD). Males predominated among both the deceased and the survivors. Among children with HCM who experienced cardiac events in kindergarten, primary school, junior high school, and high school, only those in junior high school and high school survived. The ratios (%) of the deceased and the survivors that had been diagnosed with HCM before cardiac events occurred were 48% and 20%, respectively. Cardiac events occurred most frequently during exercise in both the deceased and the survivors.

**Conclusions:** The number of children with HCM who are resuscitated after cardiac arrest while at school has increased in Japan since 2007. Both AED and ICD are essential in preventing sudden death due to HCM in schoolchildren.

**背景:** 肥大型心筋症 (HCM) は学校管理下突然死の主要な原因の一つであるが、救急蘇生による救命例が報告され始め、予後が改善している可能性が予想される。

**方法:** 2004年から2011年に学校災害共済給付制度に報告された心事故例中、原因がHCMと判断された例を検討した。

**結果:** 調査期間中、HCMが原因の突然死は29例、蘇生後生存例は15例あった。生存例中、ICD埋

2015年3月17日受付, 2015年7月15日受理

別刷り請求先: 〒173-8610 東京都板橋区大谷口上町30-1 日本大学医学部 小児科学系 小児科学分野 阿部百合子

doi: 10.9794/jspccs.31.240

込後1例を除く14例でAEDが使用された。死亡、生存例ともに男子が多かった。死亡例では幼稚園生や小学生を認めたが、生存例は中学・高校生のみであった。死亡例の48%、生存例の20%が事前にHCMと診断されていた。心事故は死亡、生存例とも運動中に多かった。

**結論：**非医療従事者によるAEDの使用が普及し、2007年以降はHCMによる学校管理下心停止の救命事例が報告され始めた。心臓系突然死予防のため、さらなるAED普及とICD適応の検討が重要と考えられる。

**Keywords:** hypertrophic cardiomyopathy, sudden cardiac death, automated external defibrillator, implantable cardioverter defibrillator, schoolchildren

## はじめに

1999年から2008年までの、わが国における学校管理下の突然死の発生状況は、年間80件台から30件程度まで徐々に減少しており、このおよそ7割が心臓系疾患で占められている。心臓系突然死の原因疾患としては、心筋症が最も多く、他に先天性心疾患、後天性心疾患、不整脈などがある。心筋症の比率は近年やや増加傾向であり、その多くはHCMである<sup>1,2)</sup>。このため、HCMに伴う突然死の背景を調査し、対策を考慮することは、学校管理下の突然死を減少させるために重要であると考えられる。

わが国では2004年7月に非医療従事者による自動体外式除細動器(AED)の使用が認められて以降、学校を含めた公共施設への設置が急速に進んでいる。近年は、学校管理下でのAED使用の報告がみられてきた。今回、学校管理下におけるHCMの心事故の検討を行い、近年の救命措置の普及が、その病歴にどのように影響しているか調査した。

## 方 法

対象は、2004年から2011年に日本スポーツ振興センターが管轄する学校災害共済給付制度に報告された、小・中・高等学校、幼稚園および保育所の学校管理下での健康被害事例である。学校管理下の時間帯としては、学校教育を受けるために登校してから下校し終わるまでであるが、林間学校、臨海学校、修学旅行、部活動、定時制、通信制高校の教育施設内で起こった事故なども含まれる<sup>2)</sup>。このうち、死亡事例の中から心臓系突然死に分類された事例は218例あり、その報告資料の内容からHCMが原因で突然死したと判断される事例(以下、「死亡例」とする)を抽出した。さらに、心臓系突然死を除いた全ての事例(年間約200万事例)から、「心停止」、「AED」、「除細動」、「心筋症」によりキーワード検索を行って該当した

140例を分析することにより、HCMを原因とする心停止からの蘇生成功例(以下「生存例」とする)を抽出した。「死亡例」と「生存例」の2群について、男女比、学校種、発症前診断の有無、AED装着の有無に加え、運動の有無・種類など発症時の状況を比較した。突然死の定義については、世界保健機構(WHO)の定義である「発症から24時間以内の予期せぬ内因(病)死」に加え、その状況から意識不明のまま発症後数日から数か月の期間を経て死亡した例を含めた<sup>2)</sup>。この制度の加入率は全国生徒の97%であり、実数調査として評価した。

## 結 果

### 1. 「死亡例」と「生存例」の推移

調査期間中の心臓系突然死218例のうち、HCMによる「死亡例」は29例(13.3%)であった。一方、キーワード検索該当の140例のうち、HCMによる心停止後の「生存例」は15例であった(Table 1)。「死亡例」は、2004年4例、2005年4例、2006年5例、2007年6例、2008年3例、2009年2例、2010年4例、2011年1例であった。「生存例」は2006年までは報告がなく、2007年1例、2008年6例、2009年2例、2010年4例、2011年2例と報告された(Fig. 1)。

「死亡例」29例のうち、2004年および2005年にAEDの装着の報告はなく、2006年以降の報告例21例中14例(67%)でAEDの装着が確認され、その実施者は教職員11例、救急隊員3例であった。「生存例」では1例のみ、すでにHCMと診断されICD植え込み後の事例があり、報告された心事故発症時にICDが作動した。残る14例では全てAEDの装着が確認され、その実施者は、教職員12例、周囲にいた他生徒の保護者1例、救急隊員1例であった(Table 2)。さらに14例中12例は、救命後に入院管理されICD植え込みが行われたことが確認された。報告内容に記載してある内容からは、「生存例」15例のう

Table 1 Characteristics of schoolchildren with hypertrophic cardiomyopathy

	Died (n=29)	Survived (n=15)
Male	24 (83%)	10 (67%)
School grade		
Nursery	1	0
Primary school	3	0
Junior high school	10	8
High school	15	7

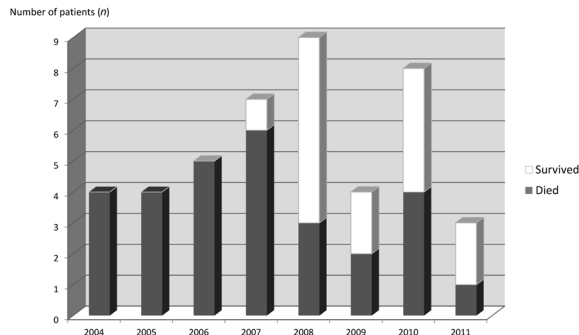


Fig. 1 Occurrence of cardiac events

ち、2例は救命後に学校に通学していることが確認できており、そのうち1例は、体育は見学だが、学習や日常生活は問題なく活動していた。また、他の1名は退院したことのみが確認できた。残りの12例の神経学的予後については、不明である。

## 2. 「死亡例」と「生存例」の比較

男女比は、「死亡例」と「生存例」でそれぞれ24:5、10:5であり、両群ともに男児に多かった (Table 1)。学校種の比較では、「死亡例」は保育園児1例、小学生3例、中学生10例、高校生15例であった (Table 1)。その内訳は、保育園児1例、小学生1年生1例、小学6年生2例、中学1年生4例、中学2年生3例、中学3年生3例、高校1年生3例、高校2年生5例、高校3年生7例であった。「生存例」は中学生8例、高校生7例であり、保育園児と小学生は認めなかった (Table 1)。その内訳は、中学1年生1例、中学2年生5例、中学3年生2例、高校1年生2例、高校2年生2例、高校3年生3例であった。なお、プライバシー保護のため、実際の年齢は不明である。

HCMと事前に診断されていた事例は、「死亡例」で14例 (48%)、「生存例」で3例 (20%)であった (Table 2)。未診断の事例においては、「死亡例」15例のうち、3例は心事故前の学校心臓検診の心電図で異常なしの診断であり、1例は不完全右脚ブロックと心

Table 2 Circumstances of cardiac events

	Died (n=29)	Survived (n=15)
Pre-diagnosed	14 (48%)	3 (20%)
Situation		
Exercise	16	14
Moving, free time	6	1
Going to school / home	5	0
Classroom, lecture	1	0
Sleeping	1	0
AED operation		
2004–2005	0/8	0
2006–2011	14/21 (67%)	14/15*

\*One student already had an ICD before event.

Table 3 Level of exercise restriction and the situations at the time of the cardiac event

Restriction level (Died/Survived)	Exercise (n=7)	Moving, free time (n=5)	Going to school/home (n=5)	Total (n=17)
B (5/0)	0/0	2/0	3/0	5
C (3/1)	0/1	2/0	1/0	4
D (3/2)	1/2	1/0	1/0	5
E (2/0)	2/0	0/0	0/0	2
Unknown (1/0)	1/0	0/0	0/0	1

B: Restriction of mild or stronger exercise. C: Restriction of moderate or stronger exercise. D: Restriction of strenuous or competitive exercise. E: No exercise restriction.

室期外収縮を指摘されていた。残りの11例では、学校心臓検診の結果は不明であった。また、未診断の「生存例」12例のうち、2例は学校心臓検診で異常なしの診断であり、残りの10例では、学校心臓検診の結果は不明であった。これらの心電図所見は、検診の判読医が診断して記載した結果を、学校が報告したものであり、心電図そのものを著者自身が確認することはできなかった。

「死亡例」、「生存例」とともに事前にHCMと診断されている症例は、「死亡例」1例を除く全例で学校生活管理指導表が確認され、運動制限を受けていた。指導区分と事故発生時の行動内容を、Table 3にまとめて示した。「死亡例」14例のうち、B, C, D, E禁, E可, 不明が、各5, 3, 3, 1, 1, 1例であった。B, C, D管理すなわち運動制限されていた例が11例 (78.6%)であり、そのうち1例のみが運動中の発症であった。「生存例」では、Cが1例、Dが2例で、いずれも運動中の発症であった。

心事故の発生状況は、「死亡例」は運動中が16例、教室間などの移動中・休み時間中が6例、通学中が5例、座学中が1例、睡眠中が1例であった。「生存

例」は運動中が14例、教室間などの移動中・休み時間が1例であり、両群とも運動中が最も多かった (Table 2)。運動の種類では、「死亡例」は、ランニング (準備運動・軽いジョギング・持久走などを含める) が8例、球技が8例 (サッカー4、バスケットボール2、バレーボール1、卓球1) であり、「生存例」では、ランニングが13例、テニスが1例であった。

## 考 察

HCMの有病率はわが国で人口10万人あたり374、米国で170であり、稀な疾患ではない<sup>3-5)</sup>。HCMは若年者の突然死の原因として最も多いものであり、若年者の突然死を予防する際に重要な疾患である<sup>6-8)</sup>。2002年にわが国で行われた大規模な疫学調査では、HCMの年間死亡率は2.8%であり、死因としては不整脈が31.9%、心不全が21.3%であった<sup>3,9)</sup>。Maronらの報告では、若年者のスポーツに関連した突然死の原因としてHCMは最多で、26.4%であった<sup>10)</sup>。近年のわが国の報告では、若年者の病院外の心停止58例のうち、HCMは8例であり、そのうち学校での心停止が6例、運動中または運動後が4例であった<sup>11)</sup>。Pilmerらの報告では、2005年から2009年のカナダでの1歳から19歳の心臓突然死において、心筋の病理検査を行った56例中8例(14%)がHCMと診断された<sup>12)</sup>。今回の研究では、学校管理下における心臓系突然死事例総数218例中、HCMによる「死亡例」は29例(13.3%)で、以前よりもやや突然死の中での比率は減少している可能性がある。また、「死亡例」、「生存例」とともにHCMが原因の心事故は男児に多く、発症状況は運動中が最多であり、学校種では、「死亡例」、「生存例」とともに高校生が最も多かった。

この検討では、学校災害共済給付制度への報告をもとに集計した。この制度の加入率は全国生徒の97%であり、学校管理下の健康被害のほぼ全数調査を見込むことができる。わが国では2004年7月から学校教職員など非医療従事者によるAEDの使用が認められ、近年は全国的に普及してきた。今回の研究により、学校管理下におけるHCMによる心停止について、2006年以前ではAEDが使われた報告はあるが「生存例」を認めなかったことと、2007年以降は、AEDによる救命事例が報告されるようになったことが明らかになった。「生存例」では、事前にHCMと診断されICD植え込みが行われていた1例を除いた全例で、AEDの装着が確認された。AEDを装着して

も死亡した例もあるが、AED装着またはICD埋め込みなしに生存した例は認めなかった。さらに、AED装着までの時間や病院搬送までの時間が、救命の成否に強く関わったと考えられた。しかし、時間経過について詳細は不明であった。心事故予防の対策を検討するうえで、今後は詳細な記録を残していくことが必要であると考えられる。

HCMによる心事故事例のうち、すでにHCMと診断されていた事例は、「死亡例」で14例(48%)、「生存例」で3例(20%)と「死亡例」で頻度が高く (Fig. 2)、早期に発見されている症例はより重症であると考えて対応すべきと思われた。「死亡例」の中で、事前にHCMと診断され学校生活管理指導表が確認され、B, C, D区分で管理された事例では、運動中の事例は11例中1例のみで、他は通学中や教室間の移動中の心事故であり、指導区分は守られていたが発症は避けられない病状があったのではないかと考えられた。直接的な誘因を特定することは難しいが、HCMの重症例ではこのような状況での発症の可能性があることを、関係者で意識しておく必要があると考えられた。E区分で管理されていた「死亡例」2例とC, D区分で管理されていた「生存例」3例は、いずれも運動中の発症であり、関係者で運動内容や指導方法に問題がなかったか検証する必要がある。心事故以降の指導区分については、1例のみ、事前の心臓検診は異常なしで心事故後は体育が見学となったことが確認できた。残りの事例では、心事故後の指導区分は不明であるが、主治医と学校側、保護者で、運動制限の見直しと心事故への対応について検討することが求められる。

発症時の運動強度は様々であったが、ランニング中が最も多いことは、全てのスポーツでトレーニングも含め、走ることに費やす時間が最も長いと思われる。しかし、「死亡例」では球技を行っていた事例が50%であり、「生存例」7.1%に対して多かった。その理由は、球技ではより過剰に運動に熱中しやすいことが想像されるが、推測の域を出ない。

一方、両群あわせて半数以上の27例は心事故の発症後に初めて診断された例で、HCMの発症は予測されない心事故として起こることが比較的多いと考えられた。そのような場面では、AEDの迅速な使用が重要と考えられる。文部科学省の報告書「学校における自動体外式除細動器(AED)の設置状況調査」によると、平成22年度にAEDを設置済みもしくはAED設置予定の学校は、小学校96.4%、中学校99.8%、高等学校99.2%であり、幼稚園など含めた学校全体でみると85.4%である<sup>13)</sup>が、AEDの設置台数や場

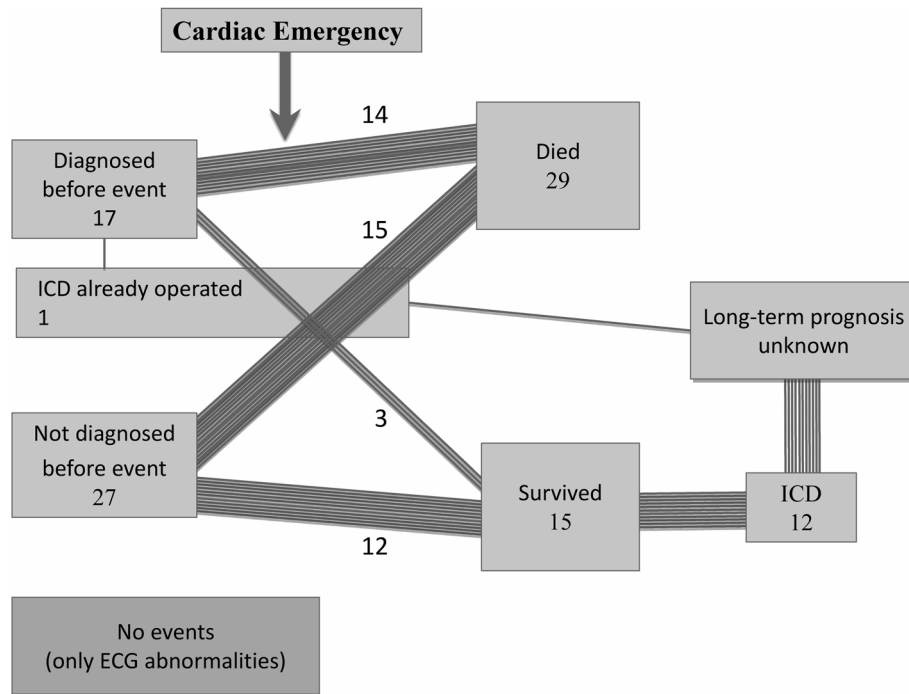


Fig. 2 Course of hypertrophic cardiomyopathy under school management

所が不十分な場合も指摘されている<sup>14)</sup>。

また、「生存例」では、事前に ICD 植え込みが行われていた 1 例を除いた 14 例中 12 例で、その後の ICD の植え込みが確認された (Fig. 2)。ICD の適応については、日本循環器学会から「肥大型心筋症の診療に関するガイドライン (2012 年改訂版)」<sup>3)</sup> が作成されており、小児もこれに準じているが、特に小児の適応は確立されていない。ICD 植え込み後の HCM の小児 224 人の検討では、平均 4.3 年間で 43 人 (19%) の ICD が作動して心室頻拍または心室細動を停止させた一方で、91 人 (41%) に不適切作動やリード不良などの合併症が発生していた<sup>15)</sup>。1995 年から 2009 年に米国で行われた研究では、ICD 植え込み後の HCM の若年者 73 人を検討し、11 例 (通電 8 例 (11%)、抗頻拍ペーシング 3 例 (4%)) で適切作動を認めたが、16 例 (22%) に不適切通電を認めた<sup>16)</sup>。他の研究でも、HCM の若年者において ICD は突然死のリスクを低下させるものの、リード不良などの不利益も報告されていた<sup>17,18)</sup>。わが国における小児の HCM 患者に対する ICD の検討は少ないが<sup>19)</sup>、突然死の予防と同時に、今後は若年者の HCM に対する ICD の適応と安全な管理を確立していくことが重要と考えられる。

本研究の limitation としては、1) 後方視的調査である、2) キーワード検索のため、抽出から漏れた症

例が存在する可能性がある、3) 医療者以外 (学校教員) が書類の一部を記載しているため、学校検診での心電図所見は直接確認されず、記載された診断名で集計している、4) 多くの事例において、病院搬送後については、ICD の装着の有無についての記載は確認したが、神経学的後遺症の有無やその後の ICD の作動状況などについては不明である、などが挙げられる。しかし、わが国における学校管理下の心事故の検討を行った報告は少なく、AED の普及で変化しつつある現状の分析は重要であり、学校管理下における心臓系突然死を予防するうえで、今回の検討は意義があると考えられる。今後は、AED の配備と心肺蘇生法の習得、ICD 装着者の予後についての検討が重要であると考えられる。

## 結 語

HCM は若年者の心臓系突然死の主因となるが、非医療従事者による AED の使用が認められて以降、学校管理下における心停止が救命されるようになってきた。今後は、心臓系突然死の予防のために、さらなる AED の普及と ICD の適応の検討が重要と考えられる。

本論文の要旨は、第 50 回日本小児循環器学会総会・学術集会で発表した。

## 引用文献

- 1) 鮎沢 衛：学校保健の今，気になる課題—学校管理下における突然死の現状と対策. 小児保健研究 2014; **73**: 272-276
- 2) 鮎沢 衛, 伊東三吾, 岡田和夫, ほか：学校における突然死予防必携 (改訂版). 第2版, 1刷, 東京, 独立行政法人日本スポーツ振興センター, 2011
- 3) 土居義典, 市田路子, 川合宏哉, ほか：循環器病の診断と治療に関するガイドライン (2011年度合同研究班報告) 肥大型心筋症の診断に関するガイドライン (2012年改訂版). [http://www.j-circ.or.jp/guideline/pdf/JCS2012\\_doi\\_h.pdf](http://www.j-circ.or.jp/guideline/pdf/JCS2012_doi_h.pdf)
- 4) 黒田敏男, 椎名 明, 鶴田喜志夫, ほか：循環器系住民検診における断層心エコー図法の意義. J Cardio 1989; **19**: 933-943
- 5) Maron BJ, Gardin JM, Flack JM, et al: Prevalence of hypertrophic cardiomyopathy in a general population of young adults. Echocardiographic analysis of 4111 subjects in the CARDIA study. Coronary artery risk development in (young) adults. Circulation 1995; **92**: 785-789
- 6) Maron BJ, Epstein SE, Roberts WC: Hypertrophic cardiomyopathy: A common cause of sudden death in the young competitive athlete. Eur Heart J 1983; **4** Suppl F: 135-144
- 7) Maron BJ, Haas TS, Murphy CJ, et al: Incidence and causes of sudden death in U.S. college athletes. J Am Coll Cardiol 2014; **29**: 1636-1643
- 8) Maron BJ, Haas TS, Ahluwalia A, et al: Incidence of cardiovascular sudden death in Minnesota high school athletes. Heart Rhythm 2013; **10**: 374-377
- 9) Matsumori A, Furukawa Y, Hasegawa K, et al: Epidemiology and clinical characteristics of cardiomyopathies in Japan: Results from nationwide surveys. Circ J 2002; **66**: 323-336
- 10) Maron BJ: Sudden death in young athletes. N Engl J Med 2003; **349**: 1064-1075
- 11) Mitani Y, Ohta K, Ichida F, et al: Circumstances and outcomes of out-of-hospital cardiac arrest in elementary and middle school students in the era of public-access defibrillation. Circ J 2014; **78**: 701-707
- 12) Pilmer CM, Kirsh JA, Hildebrandt D, et al: Sudden cardiac death in children and adolescents between 1 and 19 years of age. Heart Rhythm 2014; **11**: 239-245
- 13) 文部科学省：学校における自動体外式除細動器 (AED) の設置状況調査 (平成22年3月末時点の設置状況及び平成22年度の設置予定). [http://www.mext.go.jp/a\\_menu/kenko/anzen/1339095.htm](http://www.mext.go.jp/a_menu/kenko/anzen/1339095.htm)
- 14) 三田村秀雄, 高山守正, 石見 拓, ほか：AEDの具体的設置・配置基準に関する提言. 心臓 2012; **44**: 392-402
- 15) Maron BJ, Spirito P, Ackerman MJ, et al: Prevention of sudden cardiac death with implantable cardioverter-defibrillators in children and adolescents with hypertrophic cardiomyopathy. J Am Coll Cardiol 2013; **61**: 1527-1535
- 16) Kamp AN, Von Bergen NH, Henrikson CA, et al: Implanted defibrillators in young hypertrophic cardiomyopathy patients: A multicenter study. Pediatr Cardiol 2013; **34**: 1620-1627
- 17) Kaski JP, Tomé Esteban MT, Lowe M, et al: Outcomes after implantable cardioverter-defibrillator treatment in children with hypertrophic cardiomyopathy. Heart 2007; **93**: 372-374
- 18) Schinkel AF, Vriesendorp PA, Sijbrands EJ, et al: Outcome and complications after implantable cardioverter defibrillator therapy in hypertrophic cardiomyopathy: Systematic review and meta-analysis. Circ Heart Fail 2012; **5**: 552-559
- 19) Suzuki T, Sumitomo N, Yoshimoto J, et al: Current trends in use of implantable cardioverter defibrillators and cardiac resynchronization therapy with a pacemaker or defibrillator in Japanese pediatric patients: Results from a nationwide questionnaire survey. Circ J 2014; **78**: 1710-1716