

原 著

## 最近 10 年間に於ける当院での胎児心エコー診断の変化

河津 由紀子, 稲村 昇, 田中 智彦, 浜道 裕二, 萱谷 太

大阪府立母子保健総合医療センター小児循環器科

## Change in Fetal Echocardiography at Our Institution between 2004 and 2013

Yukiko Kawazu, Noboru Inamura, Tomohiko Tanaka, Yuji Hamamichi, and Futoshi Kayatani

Department of Pediatric Cardiology,

Osaka Medical Center and Research Institute for Maternal and Child Health, Osaka, Japan

**Background:** In recent years, greater use of fetal echocardiography has resulted in an increased number of patients diagnosed with fetal congenital heart disease (CHD). Moreover, contextual factors relating to diagnosis are changing in Japan.

**Purpose:** To summarize a trend in recent fetal echocardiography in our institution and develop ways to improve it.

**Methods:** We retrospectively studied 687 cases diagnosed with CHD between 2004 and 2013, dividing them into the following two groups: Group A (2004–2008) with 241 cases and Group B (2009–2013) with 446 cases. We retrospectively evaluated various patient factors between the two groups.

**Results:** The prevalence rate of fetal CHD at our institution was 29.1% for Group A and 49.0% for Group B ( $p < 0.01$ ). The number of CHD cases prenatally diagnosed before 22 gestational weeks significantly increased from 36 cases (14.9%) in Group A to 91 cases (20.4%) in Group B ( $p < 0.05$ ). Reasons for referral were as follows: suspected CHD, congenital anomaly, and fetal growth restriction with no significant difference between the two groups. The number of non-severe CHD cases significantly increased from 101 cases (41.9%) in Group A to 235 cases (52.7%) in Group B ( $p < 0.01$ ). There was no significant difference in morbidity between the two groups during the fetal period and after birth.

**Conclusion:** The number of fetuses diagnosed with CHD increased, particularly those that were less than 22 gestational weeks. Adequate counseling and support should be provided for mothers whose fetus is diagnosed with CHD prior to 22 gestational weeks. In addition, due to the increased number of diagnoses, greater cooperation between delivery hospitals would be beneficial.

**Keywords:** fetal echocardiography, congenital heart disease, prenatal diagnosis, prognosis, prenatal counseling

**背景:** 近年, 本邦でも胎児心エコー検査が普及して先天性心疾患 (CHD) の胎児診断例が増加している現状である。

**目的:** 当センターにおける最近の胎児心エコー検査の動向をまとめ, 改善点を見出すことを目的とする。

**方法:** 2013 年までの 10 年間に当科の胎児心エコー検査で診断した CHD 687 例を対象とし, 前半 5 年間の 241 症例を A 群, 後半 5 年間の 446 症例を B 群として後方視的に検討した。

**結果:** 胎児心エコー検査施行例中の CHD 有病率は, A 群 241 例 (29.1%), B 群 446 例 (49.0%) と B 群で有意に高かった ( $p < 0.01$ )。紹介理由は両群ともに CHD 疑い, 先天異常, 胎児発育不全の順で多く, 2 群間での有意差はなかった。在胎 22 週未満の CHD 症例数は, A 群 36 例 (14.9%), B 群 91 例 (20.4%) であり, B 群において有意に多かった ( $p < 0.05$ )。軽症 CHD 症例数は, A 群 101 例 (41.9%), B 群 235 例 (52.7%) であり, B 群において有意に多かった ( $p < 0.01$ )。胎児期および出生後の生命予後においては 2 群間に有意差はなかった。

2015 年 7 月 5 日受付, 2015 年 11 月 26 日受理

著者連絡先: 〒594-1101 大阪府和泉市堂堂町 840 大阪府立母子保健総合医療センター小児循環器科 河津由紀子

doi: 10.9794/jspccs.32.31

**結論：**近年、胎児心エコー検査施行例中のCHD有病率が上昇していた。なかでも22週未満の早期CHD診断例が増加しており、関連各科の連携やカウンセリングを含めた家族へのサポートが必要となっていた。軽症CHD症例の増加に対しては、分娩施設の選定を含めて施設間の連携が今後必要であると考えられた。

## 緒 言

近年、本邦において胎児心エコー検査が普及しており、先天性心疾患（CHD）の胎児診断症例が増加している。大阪府立母子保健総合医療センター小児循環器科では1983年よりCHDの胎児診断が開始された。初年度の胎児心エコー検査は年間23件であったが、その後1990年代には100件を、2000年に入ってから200件を超え、2010年以降は年間300件以上となっている現状である（Fig. 1）。また開始当初の紹介理由の多くは胎児発育不全や他臓器疾患合併であったが、2002年に胎児心臓スクリーニング検査の普及を開始したところ、その後はCHD疑いの紹介が増加し、新生児入院中の胎児診断症例占有率が上昇したことを以前報告した<sup>1)</sup>。今回は、そのスクリーニングの普及以降の最近10年間に於ける、当科で胎児診断した心疾患の様々な因子の変化を後方視的に検討することによって胎児心臓病診断における改善点を見出し、更なる発展を目指すことを目的とした。

## 対象と方法

対象は2004年から2013年の10年間に大阪府立母子保健総合医療センター小児循環器科で胎児心エコー検査（レベル2<sup>2)</sup>）を施行した2,817件、1,740症例中、

CHDと診断した687例とした。なお、上室性期外収縮などの軽症不整脈や動脈管瘤・左上大静脈遺残などの軽度血管異常は除外した。

方法は、対象687例中、スクリーニング普及後の2004年から2008年まで5年間の241症例をA群（early period）、2009年から2013年まで最近5年間の447症例をB群（late period）とし（Fig. 2）、2群間での以下の項目について後方視的に検討した。

検討項目は、(1)胎児心エコー検査時：初回胎児心エコー検査時の在胎週数、母親の年齢、胎児の紹介理由、そのうち在胎22週未満のCHD症例数、胎児心エコー検査で診断したCHDの頻度（有病率）、(2)胎児CHDについて：疾患の内訳、レベル分類<sup>3)</sup>による重症度での層別化、(3)胎児期の予後と分娩について：当院・他院出生の割合および当院出生における分娩様式、(4)当院出生した症例の出生後経皮的バルーン心房中隔裂開術（BAS）と心臓手術（姑息術、心内修復術いずれか）の有無および生命予後とし、それぞれの結果をA群、B群の二群間で比較検討した。統計処理は、*t*検定と $\chi^2$ 乗検定を用い、有意水準を0.05未満とした。

なお、レベル分類とは塩野らの論文<sup>3)</sup>におけるトリアージを目的とした胎児心疾患の重症度分類を参考とし、レベル1と2を軽症（non severe）、レベル3と4を重症（severe）と層別化して評価した。

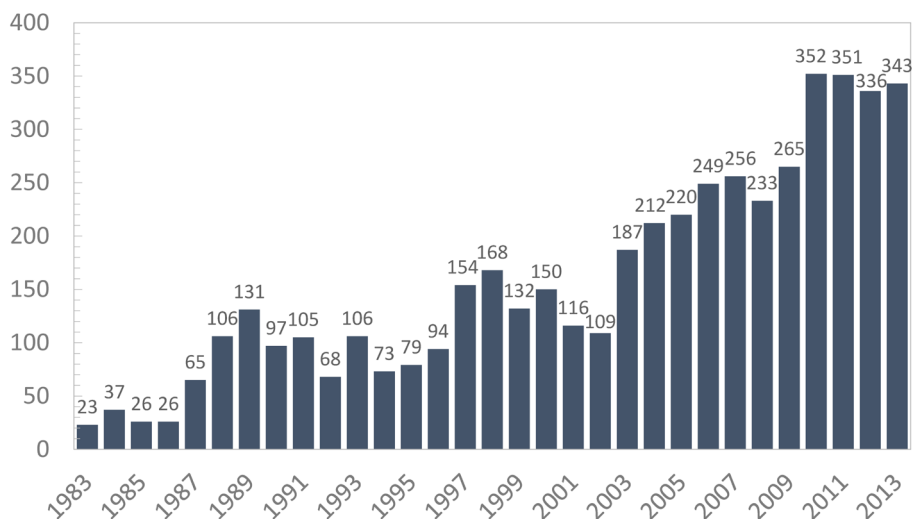


Fig. 1 Trends in the number of fetal echocardiograms performed during 1983–2013 in our institution

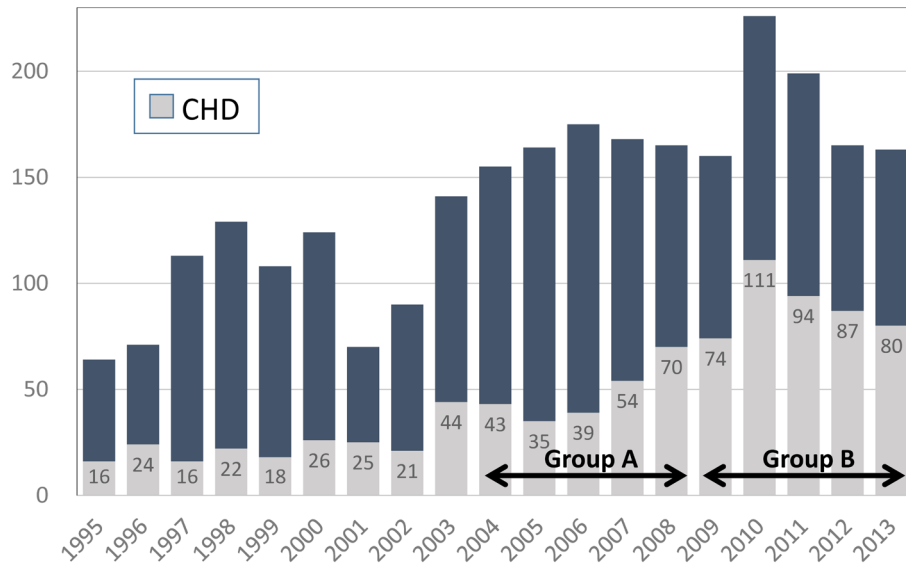


Fig. 2 Trends in the number of patients who have undergone fetal echocardiography testing and who have been confirmed with fetal CHD in our institution

Table 1 Gestational weeks and maternal age at the first fetal echocardiography. Reason for referral and the number diagnosed before 22 gestational weeks

	A (early period)		B (late period)		$p$ value
Gestational weeks (median)	29 (14–39)		29 (18–41)		0.93
Maternal age (years, mean)	32.0 (17–44)		31.9 (19–45)		0.84
Reason for referral					
Suspicion of CHD	162	67.2%	313	70.2%	0.44
Other abnormality	25	10.4%	44	9.9%	0.89
FGR	17	7.1%	33	7.4%	0.99
Arrhythmia	11	4.6%	12	2.7%	0.27
Twin	9	3.7%	10	2.2%	0.33
Sibling CHD	9	3.7%	6	1.3%	0.06
Hydrops fetalis	2	0.8%	4	0.9%	0.95
Maternal disease	1	0.4%	3	0.7%	0.93
Others	5	2.1%	21	4.7%	0.13
	241		446		
Under 22nd gestational weeks	36		91		0.047

CHD: congenital heart disease, FGR: fetal growth retardation.

## 結 果

### 1. 胎児心エコー検査時 (Table 1)

#### 1) 初回胎児心エコー検査時の在胎週数および母親の年齢

初回胎児心エコー検査時の検査時在胎週数の中央値はA群29週(14~39), B群29週(18~41), 母親の平均年齢はA群32.0歳(17~44), B群31.9歳(19~45)で, とともに2群間に有意差はなかった。

#### 2) CHD胎児の紹介理由

紹介理由で最も多かったのは両群ともにCHD疑い

がA群162例(67.2%), B群313例(70.2%), 次いで他の先天異常がA群25例(10.4%), B群44例(9.9%), 胎児発育不全(FGR)がA群17例(7.1%), B群33例(7.4%)であり, その他の紹介理由も含めていずれも2群間での有意差はなかった。

#### 3) 在胎22週未満のCHD症例数

22週未満のCHD症例数は, A群36例(14.9%)からB群85例(20.4%)へと有意に増加していた( $p < 0.05$ )。

#### 4) CHD有病率

胎児心エコー検査を受けた症例数に対するCHD有病率は, A群が2004~2008年に施行した827例中

Table 2 Characteristics of patients prenatally diagnosed with congenital heart disease

		A		B		$p$ value
Level 3+4 (severe)	DORV	43	17.8%	64	14.3%	0.23
	SV	20	8.3%	37	8.3%	0.99
	HLHS	15	6.2%	17	3.8%	0.18
	Ebstein's anomaly or dysTV/PA	14	5.8%	15	3.4%	0.16
	TA	10	4.1%	5	1.1%	0.01
	CoA/IAA complex	9	3.7%	18	4.0%	0.95
	PA/VSD	9	3.7%	14	3.1%	0.66
	cPS or PA/IVS	6	2.5%	10	2.2%	0.8
	TGA	4	1.7%	11	2.5%	0.59
	Truncus	4	1.7%	5	1.1%	0.73
	cTGA	4	1.7%	10	2.2%	0.78
	TAPVC	1	0.4%	3	0.7%	0.99
	TOF/APV	1	0.4%	2	0.4%	0.99
Level 1+2 (non-severe)	VSD	44	18.3%	116	26.0%	0.02
	TOF	12	5.0%	20	4.5%	0.85
	AVSD	5	2.1%	36	8.1%	0.001
	Others	24	10.0%	52	11.7%	0.53
	Arrhythmia	10	4.1%	8	1.8%	0.08
	Cardiac tumor	6	2.5%	3	0.7%	0.07

DORV: double outlet right ventricle, SV: single ventricle, HLHS: hypoplastic left heart syndrome, dys TV: dysplastic tricuspid valve, PA: pulmonary atresia, TA: tricuspid atresia, CoA: coarctation of aorta, IAA: interruption of aortic arch, PA/VSD: pulmonary atresia with ventricular septal defect, cPS: critical pulmonary stenosis, PA/IVS: pulmonary atresia with intact ventricular septum, TGA: transposition of great arteries, cTGA: corrected TGA, TAPVC: total anomalous pulmonary venous connection, TOF/APV: tetralogy of Fallot with absent pulmonary valve, VSD: ventricular septal defect, AVSD: atrial ventricular septal defect.

241例 (29.1%) に対して、B群は2009~2013年に施行した913例中446例 (49.0%) であり、B群において有意に増加していた ( $p < 0.01$ ).

## 2. 胎児CHD疾患の内訳とCHD重症度の変化 (Table 2, 3)

胎児CHD疾患症例数を重症 (Level 3+4) と軽症 (Level 1+2) に分けて示した。重症 (severe) CHDでは両群ともに兩大血管右室起始 (DORV)、単心室 (SV)、左心低形成症候群 (HLHS)、肺動脈閉鎖を伴うエプスタイン奇形もしくは三尖弁異形成 (Ebstein's anomaly or dysplastic TV with PA) が多かった。三尖弁閉鎖 (TA) は有意にB群で少なかったがそれ以外の疾患では2群間で有意差を認めなかった。軽症 (non severe) CHDにおいて、両群ともに心室中隔欠損 (VSD) 単独が最も多かったが、A群44例 (18.3%) に対しB群116例 (26.0%) とB群で有意に増加していた ( $p < 0.05$ )。ファロー四徴症 (TOF) は有意差がなかったが、房室中隔欠損症 (AVSD) はB群で有意に多かった ( $p < 0.01$ )。重症CHD数はA群140例、B群211例と絶対数は増加していたが、軽症CHD数はA群101例 (41.9%) に対しB群235例 (52.7%) とB群で有意に増加していた ( $p < 0.01$ )。

Table 3 Number of patients with severe (level 3+ level 4) and non-severe (level 1+level 2) congenital heart disease (CHD)

	A	B
Severe CHD (Levels 3+4)	140	211
Non-severe CHD (Levels 1+2)	101 (41.9%)	235 (52.7%)

$p = 0.008$

## 3. 胎児期の予後と分娩 (Table 4, 5, 6)

胎児期の経過としては、子宮内胎児死亡 (IUFD) をA群14例 (5.8%)、B群27例 (6.1%)、妊娠中絶 (TOP) をA群4例 (1.7%)、B群15例 (3.4%) に認めたが、2群間での有意差は認めなかった。当院・他院出生の割合についても2群間で有意差は認めなかった。当院出生の分娩様式に関しては、吸引分娩がB群で有意に増加していたがその他の様式については2群間で有意な変化はなかった。

## 4. 胎児CHD症例の生後の経過と生命予後 (Table 7, 8)

生後BASを施行した症例はA群40例 (21.5%)、B群40例 (12.6%) と有意にB群で低下していた ( $p = 0.01$ )。BAS施行日数はA群0~130日 (中央値7日)、

B群0~217日(中央値4日)で有意差は認めなかった。心臓手術(姑息術, 心内修復術いずれか)を施行した症例はA群88例(47.3%), B群159例(50.0%)で有意差はなかった。生命予後としては, 生存はA群151例(81.2%), B群268例(84.3%)で有意差はなかった。死亡時期において, 生後1ヶ月以前での死亡, 1ヶ月以降の死亡いずれも2群間で有意差を認めなかった。

## 考 察

先天性心疾患の胎児診断は, 1980年代にイギリスでLindsey Allanを中心に“Fetal echocardiography”として開始され, その後世界的に著しい広がりを見せながら, 本邦においても2000年前後から急激に施行数が増加してきた。2006年に「胎児心エコー検査ガイドライン」(日本小児循環器学会)が発行され,

Table 4 Outcome of fetuses with congenital heart disease during the fetal period

	A (241)		B (446)		<i>p</i> -value
Live birth	215	89.2%	375	84.1%	0.07
IUFD	14	5.8%	27	6.1%	0.99
TOP	4	1.7%	15	3.4%	0.23
Unknown	8	3.3%	29	6.5%	0.11

IUFD: intrauterine fetal demise, TOP: termination of pregnancy.

Table 5 Number of deliveries in our hospital and in other hospitals

	Live birth, A		Live birth, B	
Other hospital births	29	13.5%	57	15.2%
Our hospital births	186	86.5%	318	84.8%

*p*=0.63

Table 6 Mode of delivery

	Our hospital, A		Our hospital, B		<i>p</i> -value
Natural vaginal delivery	81	43.5%	129	40.6%	0.51
Induced vaginal delivery	31	16.7%	72	22.6%	0.11
Vacuum extraction	1	0.5%	13	4.1%	0.02
Painless delivery	1	0.5%	0	0.0%	0.37
Emergency cesarean section	36	19.4%	57	17.9%	0.72
Scheduled cesarean section	36	19.4%	47	14.8%	0.21

Table 7 Numbers of fetal CHD cases who underwent BAS and cardiac operations after birth

	A		B		<i>p</i> -value
BAS (days after birth)	40	21.5%	40	12.6%	0.01
	(0-130, median 7)		(0-217, median 4)		(0.72)
Cardiac operation	88	47.3%	159	50.0%	0.58

BAS: balloon atrial septostomy.

Table 8 Outcome for fetuses with congenital heart disease after birth

	A (186)		B (318)		<i>p</i> -value
Alive	151	81.2%	268	84.3%	0.39
Dead	35	18.8%	50	15.7%	0.39
<1 month	22	11.8%	23	7.2%	0.1
>1 month	13	7.0%	27	8.5%	0.61



実際に近年では日本胎児心臓病学会の登録においても報告数の増加を認めている<sup>4)</sup>。当科においても1983年より胎児心エコー検査が年間23件にて開始されたが、その後30年を経過し年間300件を超える施行数となっている状況である。我々は以前、その過程において2008年までの胎児心臓スクリーニングの効果と問題点を主題とした報告を行った<sup>1)</sup>。その中で近隣医療機関における胎児心臓スクリーニング(レベル1)の普及により当センターにおける胎児心エコー件数および胎児CHD診断の症例数が増加したことを報告した。それ以降、中でも直近4年間において、胎児心エコー施行数が横ばいとなって胎児CHD症例数が軽度減少しているのは、当科と同じく精査としての胎児心エコー検査(レベル2)を施行する施設が増加したことによると思われる。その状況を踏まえた上で、2013年までの10年間を、増加傾向であった前半5年間と横ばいとなった後半5年間に分類し、胎児CHDの様々な因子について比較検討することによって、改善点を見出すことを目的として研究を行った。

10年間の前半と後半において、胎児CHD患者での初診時週数および初回検査時の母体年齢には変化は認めなかった。しかしながら、初診時週数が在胎22週未満と早期に胎児CHDが診断される症例数については、後半において有意に増加していた。原因としては胎児CHD診断ばかりでなく、妊娠早期からの出生前診断全般が近年増加していることが考えられた。在胎22週未満の症例については妊娠中絶(TOP)の可能性があるため、今回の研究ではTOP症例がA群4例(1.7%)に対しB群15例(3.4%)と有意差はなかったものの絶対数としては増加しており、産科医との密な連携を取りながら胎児の家族に対するカウンセリングを含めたきめ細かい対応、サポートが必要となっていると考えられた<sup>5)</sup>。

また、10年間に胎児心エコー検査を施行した症例において、今回対象とした胎児CHD患者の割合は有意に増加していた。これは当科へ紹介されてきた段階で胎児CHD症例が多い、つまり紹介してくる産科医の胎児心エコー検査レベルが上昇していることが理由と考えられた。

胎児CHDの疾患については、症例全体の増加に伴い重症(severe)CHD症例の絶対数も増加していたが、一方でVSD単独を含めた軽症(non severe)CHD症例数が有意に増加していた。これもやはり産科医の胎児心臓スクリーニングレベルが上昇し、VSD単独例でも見つけることが可能になっていることの表れであろう<sup>6)</sup>。このような軽症心疾患例の増加によ

て小児循環器専門施設における慢性的な満床が継続するなどの問題もあり、従来は胎児期もしくは出生後早期からのback transferを含めたトリアージが必要であった。一方で、軽症心疾患症例においては一定の割合で染色体異常、遺伝子異常の合併症例が含まれる<sup>7)</sup>ことから一律にback transferすることも困難であり、病院ごと地域ごとでの母体搬送システム、新生児搬送システムに応じた適切な対応を検討しなければならないであろう。

胎児期の経過および他院・当院出生数についてはこの10年での有意な変化は認めなかった。分娩様式についても特に顕著な変化は認めなかった。胎児CHD症例の中で、出生後にBASを施行した症例の割合はB群で有意に低下していた。これはBASを要するような、完全大血管転位(TGA)単独を含めた重症CHDの増加以上に、前述したようなBASを要さない軽症CHD症例数が有意に増加したことによると考えられた。一方で、絶対数においてはBASが必要な重症CHD、なかでも胎児診断が困難とされていたTGA単独の症例数が増加していたことからスクリーニングおよび診断の精度は向上していることが示唆された。出生後の生命予後については2群間において有意な変化を認めなかった。これは重症CHD症例の数は増加したものの、軽症CHDの数もそれ以上に増加したことから実際の予後に反映されていない可能性がある。

## 結 論

近年、胎児心エコー症例中のCHD症例数は有意に増加していたが、なかでもVSDを含めた軽症CHD症例が有意に増加していることが判明した。今後はこのような軽症CHD症例の分娩施設の選定を含めた地域の医療機関との連携が不可欠である。また在胎22週未満に胎児CHD診断を受ける症例数が有意に増加していたことについては、妊娠中絶というナーバスな問題にかかわることからも産科医との連携および看護スタッフを交えた家族へのカウンセリングを含めたサポートが今後さらに重要となるであろう。

## 引用文献

- 1) 青木寿明, 稲村 昇, 河津由紀子, ほか: 先天性心疾患における胎児心臓スクリーニングの効果と問題点. 小児循環器会誌 2010; 26: 99-105
- 2) 里見元義, 川滝元良, 西島 信, ほか: 胎児心エコー検査ガイドライン: 胎児心エコー検査ガイドライン作成委

- 員会編. 日小児循環器会誌 2006; **22**: 591-613
- 3) 塩野展子, 河津由紀子, 稲村 昇, ほか: 当院における先天性心疾患の胎児診断とそれによる院内トリアージの現状. 日本周産期・新生児医学会雑誌 2012; **48**: 934-938
  - 4) 瀧間浄宏: 胎児心臓超音波検査の多施設間登録制度について. 日小児循環器会誌 2010; **26** (Suppl): 201
  - 5) 河津由紀子, 植田紀美子, 西島 信, ほか: 先天性心疾患の胎児診断における母親への心理的影響: 多施設調査結果報告. 日小児循環器会誌 2014; **30**: 175-183
  - 6) 山下美智子, 日高庸博, 林 周作, ほか: 胎児心臓超音波スクリーニング検査で発見された心疾患症例と見逃された症例の検討. 日小児循環器会誌 2014; **30**: 166-172
  - 7) 稲井 慶: 先天性心疾患と遺伝子異常. 日小児循環器会誌 2014; **30**: 104-111