

# 脳性麻痺の疫学についての研究動向(2) ～1990年代における我が国での調査についての文献検討～

平田正吾<sup>1)</sup> 奥住秀之<sup>2)</sup> 北島善夫<sup>3)</sup>  
細渕富夫<sup>4)</sup> 国分 充<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup>千葉大学・教育学部・日本学術振興会特別研究員 <sup>2)</sup>東京学芸大学・教育学部  
<sup>3)</sup>千葉大学・教育学部 <sup>4)</sup>埼玉大学・教育学部

## Epidemiology of cerebral palsy in Japan: a review

HIRATA Shogo<sup>1)</sup> OKUZUMI Hideyuki<sup>2)</sup> KITAJIMA Yoshio<sup>3)</sup>  
HOSOBUCHI Tomio<sup>4)</sup> KOKUBUN Mitsuru<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup>Faculty of Education, Chiba University, Japan; Research Fellow of the Japan Society for the Promotion of Science

<sup>2)</sup>Faculty of Education, Tokyo Gakugei University, Japan

<sup>3)</sup>Faculty of Education, Chiba University, Japan <sup>4)</sup>Faculty of Education, Saitama University, Japan

1990年代における我が国の脳性麻痺 (CP) の発生頻度の推移について、3つの地域 (沖縄県、滋賀県、姫路市) を対象とした調査の結果を概観することから検討した。その結果、1) 1990年代にCPが増加傾向にあるのかについては調査により異なっていたが、減少傾向とするものはなかった。しかし、2) いずれの調査においても、LBW児や早産児のCPが多く、更に3つの内2つの調査ではLBW児のCPが増加傾向にあった。

キーワード：脳性麻痺 (Cerebral Palsy) 疫学 (Epidemiology) 低出生体重児 (Low Birth Weight Infant)

### 1 はじめに

本稿は、我が国の肢体不自由教育において代表的な障害とされている「脳性麻痺 (Cerebral Palsy: CP)」の発生動向の特徴について、諸外国の研究結果と比較しつつ明らかにすることを目的とした作業の一環である。よく知られているようにCPは単一の疾患概念でなく、CPの成因と状態像は時代とともに変化してきた。特に1970～1980年代においては、周産期・新生児期の医療的管理技術の進歩にともない新たに生存可能となった低出生体重児や早産児におけるCPが、世界的に見ても増加した。我が国における調査結果を見ても、1980年代以降より低出生体重児・早産児におけるCPの増加が、CP発生頻度を押し上げているとされている (国分, 1996)。前稿 (平田ら, 2013) では、脳性麻痺の疫学研究で著名なスウェーデンのHagbergらの1990年代における調査結果を概観した。その結果、Hagbergらの調査によると、1990年代においては早産児におけるCP発生頻度は一転して減少傾向にあり、1999～2002年にかけては正常産児におけるCP、特に異常運動型CP (日本におけるアテトーゼ型CPにほぼ相当する) が増加したとされている。それでは、近年の我が国におけるCPの発生頻度は、どのようになっているのだろうか。この点については既に北原・落合 (2004) の優れたレビューもあるが、本稿では1990年代に我が国で行われたCPの疫学調査の結果を独

自に要約しながら概観することにより、この点について検討する。

### 2 1990年代の日本におけるCPの疫学調査

1990年代におけるCP発生頻度を、地域を対象として経年的に調べているもので、今回筆者らが知り得たのは3つである。なお、今回はCP発生頻度の経年変化についての検討が主眼であるため、ある一時期のみの頻度を報告しているものは取り上げない。表1は、本稿で取り上げる3つの調査における対象地域と調査期間、頻度として用いている指標を示したものである。

調査地域としては県を対象とした調査が2つ、市を対象としたものが1つであり、小寺澤らの調査は他の2調査よりやや規模が小さい。いずれの調査でも、基本的には調査時点におけるCP児の出生数1,000に対する発生頻度を求めていることから、指標としては有病率に近い。なお、これら3つの研究は、いずれもCPを厚生省脳性麻痺研究班にしたがい定義している。すなわち、CPとは「生後4週までの間に生じた脳の非進行性病変に基づく運動および姿勢の異常」である。表2は、各調査における調査対象の除外基準を整理したものである。表2より、各調査における対象の除外基準は完全に同一ではないことが分かり、これは発生頻度の大小を相互に比較する際に留意しなければならない。特に、染色体異常によるCPの扱いが調査によって異なることは注目に値する。鈴木らや小寺澤らの調査では、染色体異常によるCPを

連絡先著者：平田正吾

表1 1990年代の我が国におけるCPの疫学調査

著者	調査地域	調査期間	指標
當山ら (1998, 2008)	沖縄県	1963~2001	・沖縄県で出生したCP児の内、調査時点で死亡している児を除外した上で、出生1,000及び生存数1,000に対する割合
鈴木ら (2009(1)(2)(3))	滋賀県	1977~2000	・就学時にCPと診断されていた児を対象として、出生1,000に対する割合
小寺澤ら (1998, 2007)	姫路市	1983~1997	・姫路市で出生したCP児の内、早期に死亡した児を除外した上で、出生1,000に対する割合

表2 各調査における調査対象の除外基準

著者	除外基準
當山ら (1998, 2008)	・染色体異常による歩行不能は除外
鈴木ら (2009(1)(2)(3))	・染色体異常であっても、明らかな痙性四肢麻痺等があれば含める (Rett症候群やSeckel症候群等は含めない)。 ・明らかな痙性や不随意運動を呈さなくても、6歳時に立位に至らない重症心身障害児は含める。
小寺澤ら (1998, 2007)	・遺伝性疾患や染色体異常などに基づくものや、痙性や不随意運動は軽微でも重度の精神遅滞を認め将来的には重症心身障害児になると考えられる症例は対象に含める。 ・生後4週間以内に発生した髄膜炎やビタミンK欠乏による脳出血などの後遺症と考えられる症例は除外

調査の対象としているが、當山らでは染色体異常による歩行不能例は対象に含めておらず、他調査より対象が限定されている可能性がある。ちなみに、先に取り上げたHagbergらの調査では、Surveillance of Cerebral Palsy: a European Collaboration (SCPE, 2000)の基準にしたがい、染色体異常によるCPは筋緊張低下のみの者を除けば対象に含めている。これらの点に留意しつつ、以下より各調査の結果を見ていく。なお、比較のため前稿で取り上げたHagbergらの調査結果 (Hagberg, Hagberg, Olow & Von Wendt, 1989. Hagberg, Hagberg & Olow, 1993. Hagberg, Hagberg, Olow & Von Wendt, 1996. Hagberg, Hagberg, Beckung & Uvebrant, 2001. Himmelman, Hagberg, Beckung, Hagberg & Uvebrant, 2005. Himmelman, Hagberg & Uvebrant, 2010)も併せて示していく。また、本研究で示していく各指標は、各研究で明確に記載されている場合はそれを使用したか、記載されていない場合は示されているデータに基づき、筆者らが独自に算出したものを用いている。

### 3 1990年代におけるCP発生頻度の変化

図1は、各研究における出生1,000に対するCP発生頻度の変化を、1970年代後半からまとめたものである。図1より、我が国においては、いずれの調査に関しても1980年~1990年にかけてCP発生頻度の増加が認められるが、90年代における発生頻度の動向は少なからず異なっていることが分かる。まず、沖縄県では1990年代初頭に発生頻度の低下が認められた後に、1995年から再び上昇に転じている。その後、発生頻度に多少の変動が見

られるが、概して言うると発生頻度は2.3近傍を推移している。続いて、滋賀県の結果を見ると、1990年代における発生頻度は約2.0のまま、ほぼ横這いとなっている。最後に、姫路市の結果を見ると、発生頻度がやや上昇傾向にあり、その値は2.2となっていた。

冒頭でも述べたように、1980年代におけるCP発生頻度の増加が、低出生体重児 (Low Birth Weight: LBW) や早産児といった、いわゆる未熟児におけるCPの増加に帰するものであったことは広く指摘されている。それでは1990年代において、これらの児がCPに占める割合はどれほどなのだろうか。まず、図2は各研究におけるCP中のLBW児 (出生体重2,500g未満) が占める割合の変化を示したものである。図2より、我が国においては、いずれの調査に関しても1980年~1990年にかけてCPの中でLBW児の占める割合が大きくなっていることが分かる。1990年代においても、沖縄県や滋賀県ではCPにおけるLBW児の割合は増加傾向にある。特に沖縄では経年に伴う増加傾向が明らかである。姫路市においては、1990年代においてLBW児が占める割合はやや小さくなっており、出生体重2,500g以上のCP児が微増したとされている。いずれにせよ、我が国では1990年代においてもCPにおけるLBW児の割合が高いことは明らかである。これは図からも明らかであるように、スウェーデンにおいてはCPにおけるLBW児の割合が1980年代から小さく、1990年代においては更に減少傾向であることと対照的である。

続いて、図3は各研究におけるCP中の早産児 (在胎37週未満) が占める割合の変化を示したものである。ただし、今回沖縄県のデータに関しては、1998年以前の早産

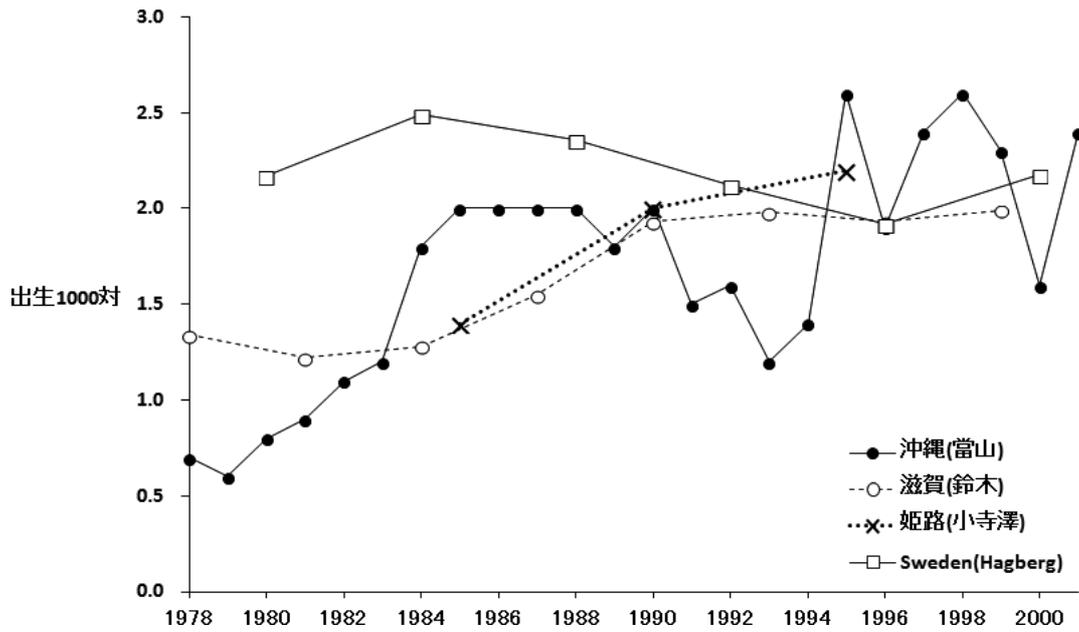


図1 1970年代後半から1990年代にかけてのCP発生頻度

注1：鈴木県の滋賀県のデータについては、1977年から3年単位で発生頻度が報告されていたため便宜上、各調査期間の2年目にその値をプロットした（例：1977～1979年についてのデータは1978年としてプロットした）。  
 注2：小寺澤の姫路市のデータについては、1983年から5年単位で発生頻度が報告されていたため便宜上、各調査期間の3年目にその値をプロットした（例：1983～1987年についてのデータは1985年としてプロットした）。  
 注3：Hagbergのスウェーデンのデータについては、1979年から4年単位で発生頻度が報告されていたため便宜上、各調査期間の2年目にその値をプロットした（例：1979～1982年についてのデータは1980年としてプロットした）。

これらの注は、以降の図表においても同様である。

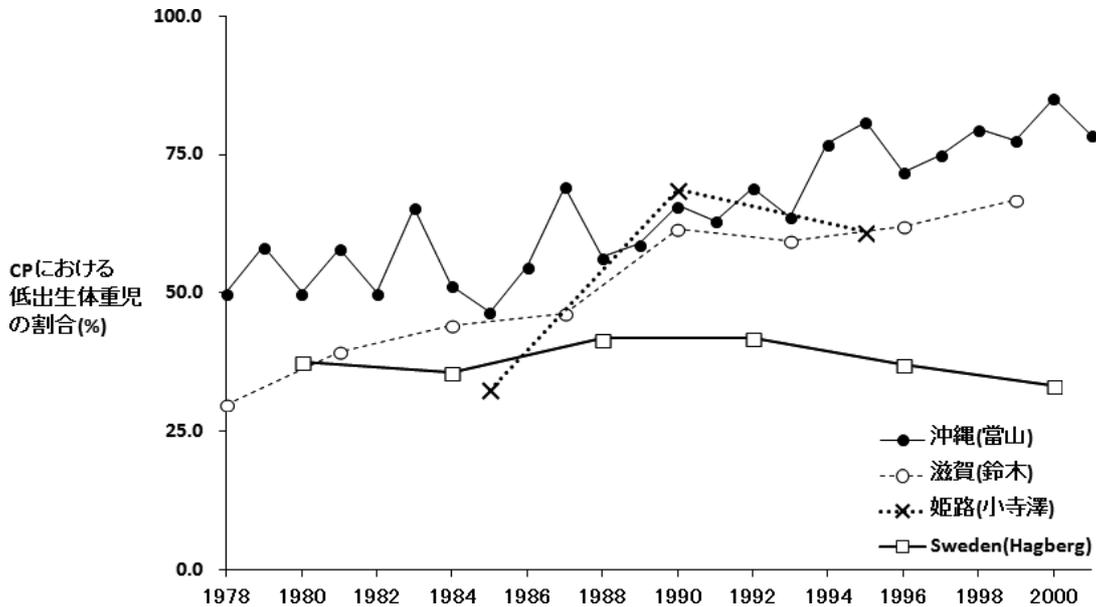


図2 1970年代後半から1990年代におけるCP中のLBW児の割合 (%)

のCP数についての記載がなかったため、1998年以降の値のみを示している。図3より、早産児の割合に関しても、先に見たLBW児と同様の傾向であることが明らかである。すなわち、我が国においては、いずれの研究に関しても1980年～1990年にかけてCPの中で早産児の占める割合が大きくなっており、1990年代においても滋賀県ではCPにおける早産児の割合は増加傾向にある。また、沖縄県でもCP中の早産児の割合は、1995年以降

80%近傍の高い水準を推移している。一方、スウェーデンにおいてはCPにおける早産児の割合が1990年代では50%以下であることに加え、1999～2002年においては更に減少傾向にあることが明らかである。

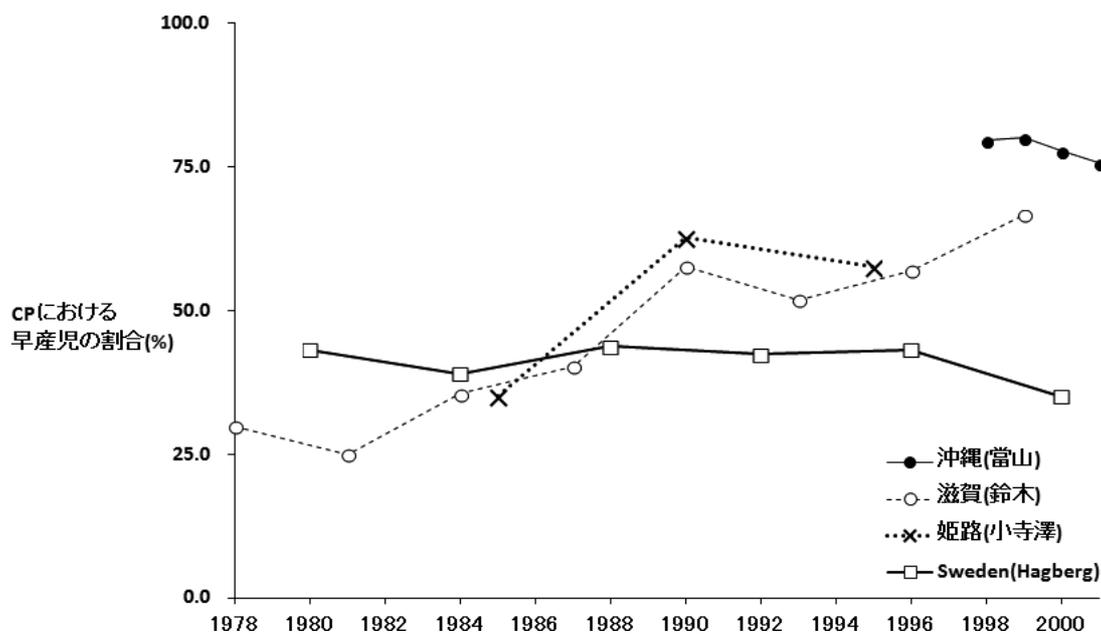


図3 1970年代後半から1990年代におけるCP中の早産児の割合 (%)

#### 4 1990年代における低出生体重児からのCP発生頻度の変化

ここで少し視点を変え、LBW児におけるCPの発生頻度を見てみる。今回、取り上げた調査の内、小寺澤ら(2007)以外ではLBW児の出生数について記載があったため、これら2つの調査におけるLBW児の出生1,000に対するCPの発生頻度を求め、図4に示した。図4より、我が国においては、まず1980年～1990年にかけてLBW児におけるCP発生頻度は上昇傾向にあることが明らかである。1990年代における発生頻度の推移を見ると、沖縄県においては1995年以降に発生頻度が明らかに上昇している。これに関して当山ら(2008)は、1995年以降に沖縄県ではLBW児の中でも、特に極低出生体重児(出生体重1,000～1,499g)におけるCP発生頻度が有意に増加したと報告している。一方、滋賀県においては90年代初期にやや減少した後に、その後は横這いの傾向にあるように見える。

続いて、図5は出生体重2,500g以上の児におけるCP発生頻度を示したものである。図5より、我が国における1990年代以降の出産体重2,500g以上の児におけるCP発生頻度は、前稿で取り上げたHagbergらとは異なり、沖縄県と滋賀県のいずれに関しても1.0以下の低い水準にあることが分かる。沖縄県では、発生頻度に変動が認められ一貫した傾向を読み取りづらいが、1995年以前と以後で平均して比較して見ると、その頻度に差はなかったとされている。滋賀県においては、頻度が近年やや減少傾向にあるように見える。

#### 5 まとめと今後の検討課題

以上、ここまで1990年代における我が国のCP発生頻度についての3つの調査を見てきた。その結果は、以下のように要約される。1) 1990年代にCPが増加傾向にあるのかについては調査によって異なっていたが、減少

傾向とするものはなかった。しかし、2) いずれの調査においても、LBW児や早産児のCPが多く、更に3つの内の2つの調査ではLBW児のCPが増加傾向にあった。これらのことより、我が国においては前稿で検討したHagbergで指摘されている正期産児、あるいは完全に正期産と一致する概念ではないが、出生体重2,500g以上の児におけるCPの増加は認められない可能性が高い。少なくともLBW児や早産児のCPが、現時点において我が国で優勢なことは確かである。当山ら(2008)は、1990年代におけるLBW児のCP増加について、周産期医療の更なる向上によりLBW児の出生が増え、また生存率も上昇したことにより、その神経学的後遺症としてCPとなる児が増加したのではないかと述べている。また、出生体重2,500g以上のCPについても当山ら(2008)は、近年の発生頻度がほぼ一定であることから、現在の医療管理技術で予防可能な例は少ないのではないかと述べている。正期産あるいは出生体重2,500g以上のCPの少なさは、スウェーデンと比較した場合の我が国の特徴であると言える。今後はスウェーデン以外の国におけるCP発生頻度の推移を調べ、我が国との異同を明らかにしていく必要がある。また、今回は極低出生体重児や超低出生体重児といったLBW児内の差異を扱わなかったため、この点にも留意した検討を今後、行っていく必要がある。

よく知られているように早産児やLBW児では、その脳血管発達の特徴などから低酸素性虚血性脳症の一種である脳室周囲白質軟化症(Periventricular Leukomalacia: PVL)が発生するリスクが高く、その後遺症として痙直型CP、特に両麻痺となる者が多いとされている。今回、取り上げた調査でも、鈴木ら(2009(2)(3))や小寺澤ら(2007)は画像所見からCPの成因について、早産児と正期産児ごとに報告している。それによると、いずれの調査でも1990年代においては早産のCPではPVLが広く認められ、鈴木ら(2009(3))は6歳児に痙直型両麻痺や四肢麻痺となる児が多かったとしている。一方、正期産のCPでは、鈴木ら(2009(2))は、その主な成因とし

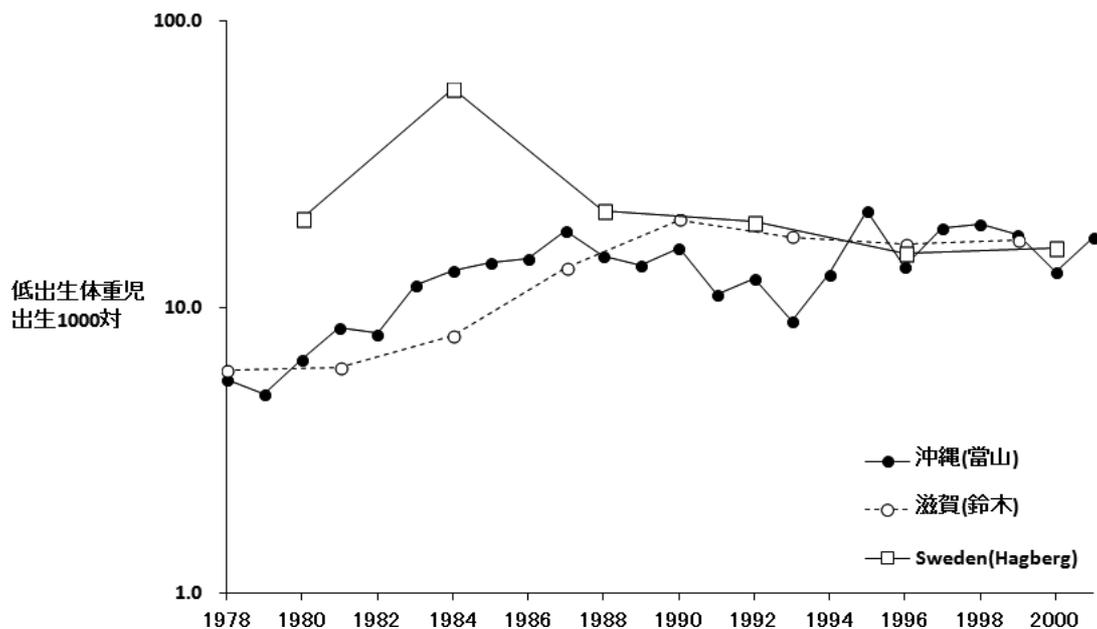


図4 LBW児におけるCP発生頻度

注4：縦軸の発生頻度は対数で示した。

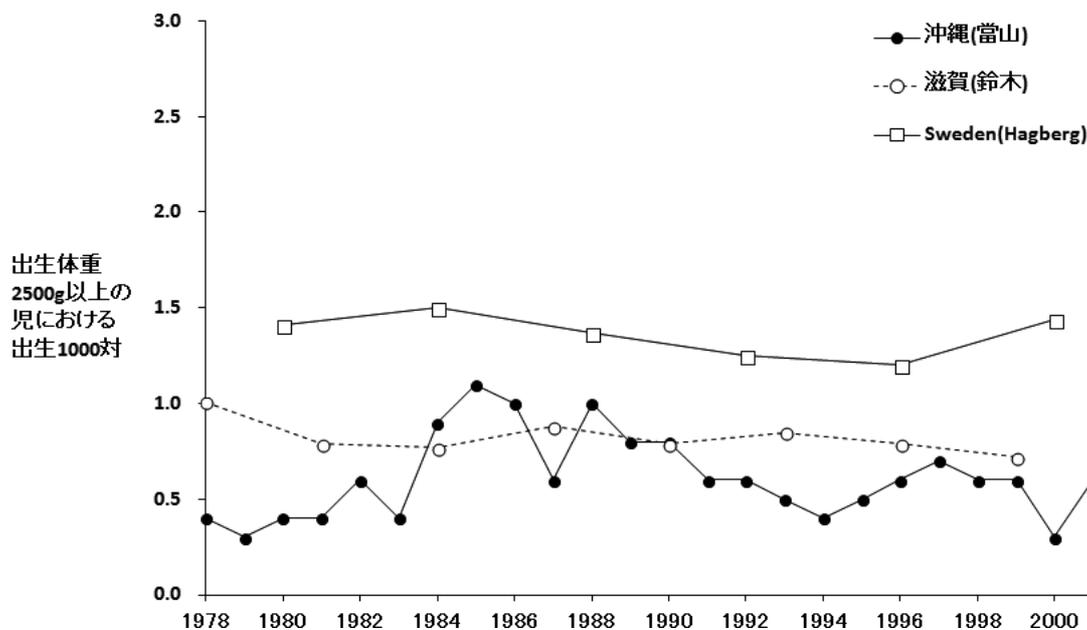


図5 出生体重2,500g以上の児におけるCP発生頻度

て脳形成障害や胎児期脳血管障害などを挙げている。PVLに関しては、我が国のNICUを対象とした最新の調査では、その30%の施設でPVLの発生が減少傾向にあることが報告されている (Sugiura et al. 2012)。こうした現状は我が国におけるCP発生頻度にどのような影響を及ぼすのだろうか。PVLに限らずLBW児や早産児の出生頻度や生存率にも留意しつつ、これからも注視していく必要がある。

最後に、肢体不自由教育の立場からすると、現時点における代表的CPであろうPVLによるCP児の心理特性を整理していく必要があるだろう。例えば、アテトーゼ型CPでは知的障害の程度が軽い者が多いと古くから評されているように、CPにおいては、その中枢神経系の損傷部位に応じて心理特性も異なると考えられる。PVL

においても下肢へ向かう皮質脊髄路だけでなく、その付近を通っている視放線も損傷されることで、運動障害のみならず眼球運動や視覚認知の問題を併せ持つとされている (仁志田, 2012)。だが、CPの心理特性について、神経心理学的観点から実際に調べた研究は、意外なほど少ない。CP児の心理特性について、その神経系の損傷部位と照らし合わせながら整理し、それに対応した支援・指導法を考案していく必要がある。今後の課題としたい。

## 文 献

- 1) Surveillance of cerebral palsy in Europe: a collaboration of cerebral palsy surveys and registers.

- (2000). *Developmental Medicine & Child Neurology*, 42, 816-824.
- 2) Sugiura, T., Goto, T., Ueda, H., Ito, K., Kakita, H., Nagasaki, R., Mizuno, K., Suzuki, S., Kato, I. & Togari, H. (2012). Periventricular leukomalacia is decreasing in Japan. *Pediatric Neurology*, 47, 35-39.
- 3) 鈴木順子・宮島智子・藤井達哉. (2009(1)). 滋賀県の脳性麻痺の疫学的検討—1977～2000—第1編 滋賀県の脳性麻痺の発生動向 出生体重別・在胎週数別分析. *脳と発達*, 41, 279-283
- 4) 鈴木順子・宮島智子・藤井達哉. (2009(2)). 滋賀県の脳性麻痺の疫学的検討—1977～2000—第2編 滋賀県の脳性麻痺の発生要因. *脳と発達*, 41, 284-288
- 5) 鈴木順子・宮島智子・藤井達哉. (2009(3)). 滋賀県の脳性麻痺の疫学的検討—1977～2000—第3編 滋賀県の脳性麻痺の6歳児の臨床像. *脳と発達*, 41, 289-293
- 6) 當山真弓・落合靖男・大城秀子. (1998). 沖縄県における脳性麻痺児の実態 (その5). *小児科診療*, 129, 1501-1506
- 7) 當山真弓・當山潤. (2008). 沖縄県における脳性麻痺児の発生率について. *脳と発達*, 40, 387-392
- 8) 北原 侑・落合靖男. (2004). 脳性麻痺. *総合リハビリテーション*, 32, 19-28
- 9) 国分充. (1996). わが国の脳性麻痺の疫学に関する近年の知見. *障害者問題研究*, 24, 142-152
- 10) 小寺澤敬子・鍋谷まこと・宮田広善・児玉荘一・高田哲・上谷良行・中村肇. (1998). 姫路市における15年間の脳性麻痺発生の動向. *脳と発達*, 30, 489-493
- 11) 小寺澤敬子・中野加奈子・宮田広善・鍋谷まこと・児玉荘一・高田哲・中村肇. (2007). 姫路市における15年間の脳性麻痺発生の動向 II. 1983～1997年出生児について. *脳と発達*, 39, 32-36
- 12) Hagberg, B., Hagberg, G., Olow, I. & Von Wendt, L. (1989). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. V. The birth-year period 1979-1982. *Acta Paediatrica*, 78, 283-290.
- 13) Hagberg, B., Hagberg, G. & Olow, I. (1993). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. VI. The birth-year period 1983-1986. *Acta Paediatrica*, 82, 387-393.
- 14) Hagberg, B., Hagberg, G., Olow, I. & Von Wendt, L. (1996). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. VII. The birth-year period 1987-1990. *Acta Paediatrica*, 85, 954-960.
- 15) Hagberg, B., Hagberg, G., Beckung, E. & Uvebrant, P. (2001). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. VIII. Prevalence and origin in the birth-year period 1991-1994. *Acta Paediatrica*, 90, 271-277.
- 16) Himmelmann, K., Hagberg, G., Beckung, E., Hagberg, B. & Uvebrant, P. (2005). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. IX. Prevalence and origin in the birth-year period 1995-1998. *Acta Paediatrica*, 94, 287-294.
- 17) Himmelmann, K., Hagberg, G., Uvebrant, P. (2010). The changing panorama of cerebral palsy in Sweden. X. Prevalence and origin in the birth-year period 1999-2002. *Acta Paediatrica*, 99, 1337-43.
- 18) 平田正吾・奥住秀之・北島善夫・細瀬富夫・国分充. (2013). 脳性麻痺の疫学についての研究動向～近年のHagbergらの調査についての文献検討～. *千葉大学教育学部研究紀要*, 61, 39-43
- 19) 仁志田博司. (2012). *新生児学入門*, 医学書院