

論文要約

The neuroanatomical and developmental outcomes of children with congenital heart disease between preschool and school age - a longitudinal study-

先天性心疾患児の発達 —発達検査と頭部MRI検査を用いた学童期までの長期予後—

医学薬学研究部（博士課程）生命・臨床医学専攻 小児科学教室
平岩明子

〔目的〕

小児循環器領域の治療成績の向上により、重症な先天性心疾患児も健常児と同様に就学できるようになってきた。しかし、学習障害などの精神神経発達異常が予想以上に高頻度であることが明らかになってきた。

本学小児科学講座では、10年以上前から重症心疾患児の発達研究として、3D-MRI 検査による脳の評価と発達検査を行ってきた。渡辺らは、1歳児のチアノーゼ性心疾患児で灰白質、特に前頭葉の容積が非チアノーゼ群と比較して有意に小さいことを発表した (Watanabe K, et al. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2009)。また、伊吹らは、幼児期までチアノーゼが持続する単心室 (Single Ventricle: SV) と、生後早期にチアノーゼから脱却できる完全大血管転位 (Transposition of the Great Arteries: TGA) の2群における乳児期から幼児期の発達と脳 MRI を比較した。乳児期には2群ともに発達検査・脳容積ともに有意差は認めないが、幼児期 (3歳) では、SV群の方が、TGA群と比較して有意に脳容積が小さく、発達遅延傾向にあることを示した。また、脳容積・発達指数ともに酸素濃度と正の相関にあることを発表した。 (Ibuki K, et al. *J Thorac Cardiovasc Surg* 2012)

これまで重症心疾患児では、頭部MRI画像や発達の異常が認められることは様々な研究で指摘されているが、幼児期から学童期に至る長期的な観察研究はない。今回、重症心疾患児の幼児期から学童期の発達について、以下の2つの研究を行った。

(研究1) 最重症心疾患であるSV児の幼児期の発達指数と、学童期の知能指数・学校での学習支援の有無との相関を調査する。

(研究2) 約3歳までチアノーゼが持続し、発達遅延傾向にあったSV児は、チアノーゼから脱却して5年以上経過した学童期には、生後早期にチアノーゼから脱却しているTGA児や健常児の脳容積や発達指数に追いつくことができるのかについて、検討を行った。

〔方法並びに成績〕

心疾患児の発達観察研究を継続した。対象者は、幼児期にBayley scale of Infant and Toddler Development検査(以下Bayley検査)、学童期にWechsler Intelligence Scale for Children, fourth edition検査(以下WISC検査)を行い、MRI対象者には幼児期、学童期に頭部MRI検査を行った。

(研究1)

＜方法＞2002年1月から2012年4月に出生し、当院で治療を行った対象のSV児は、幼児期(3歳)にBayley発達検査を行い、学童期(9歳)にWISC知能検査を行うとともに、学校での学習支援(通級・支援学級・支援学校)の有無について両親から聞き取りを行い、その関連と臨床因子を検討した。

＜結果＞対象者は34名で、SV児の幼児期の発達指数(Mental Developmental Index: MDI) 89.2 ± 10.5 、学童期のIQ (93.3 ± 11.5)ともに、健常児より有意に低く(ともに $P < 0.01$)、10名(28%)が何らかの学習支援を必要としていた。幼児期のMDIは、学童期のIQと相関があり($R^2 = 0.41$, $P < 0.01$)、幼児期にMDIが85未満(−1SD未満)群の方が、MDIが85以上群よりも有意に学習支援を必要としていた(53% vs, 10%, $P < 0.05$)。

(研究2)

＜方法＞2003年7月から2010年2月に出生し、当院で治療を行ったSVとTGAの対象者に対して、幼児期(3歳)と学童期(9歳)に頭部MRI検査と発達検査を行い、両群を比較した。また、健常児(control)とも比較を行った。

＜結果＞対象者27名(TGA 9名、SV 18名)であった。幼児期、学童期ともに、全脳容積やその他の部位でSV群がTGA群やcontrol群と比較して有意に小さかった。SV群とTGA群の幼児期と学童期の全脳容積の伸び率は、SV群とTGA群に有意差はなかった(2.95 ± 0.93 vs 2.73 ± 0.81 , $P = 0.70$)。幼児期のBayley発達検査と学童期のWISC知能検査ともに、SV群はコントロール群と比較して有意に低かった($P < 0.01$, $P < 0.05$)。また、脳容積と学童期のIQには弱い相関関係があった($R^2 = 0.243$, $P < 0.01$)。

〔総括〕

単心室児における幼児期の発達指数は学童期のIQだけでなく、学校での学習支援の有無に関しても予測することができる。幼児期から発達評価を行い、就学を見据えた早期介入を

行う必要がある。低酸素から脱却して5年程度経過したSV群の脳容積は、生後早期に低酸素から脱却したTGA群には追いつかない傾向にあった。脳容積とIQには相関関係があり、重症心疾患、特にSVなどでは、定期的な発達検査と場合に依りて早期リハビリなどの介入が必要である。

単心室症は、先天性心疾患の中でも最重症心疾患であり、低酸素や様々な要因から発達遅延、学習困難児となるリスクが高い疾患である。心疾患だけでなく、発達に関しても注意深くフォローを行っていく必要がある。

なお、研究内容は下記の論文にまとめ投稿中である。

<研究1> Toddler neurodevelopmental score may predict IQ levels and needs for special education services in school-age children with single ventricle physiology

<研究2> Brain development of children with single ventricle or transposition of the great arteries: longitudinal observation study

*2つともに2019年3月2日の時点でThe Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgeryに投稿中である。