

令和 2 年 5 月 28 日現在

機関番号：37104

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2017～2019

課題番号：17K09261

研究課題名(和文)眼底出血があれば虐待なのか？～法医鑑定における眼所見の正しい評価法を探る～

研究課題名(英文) Possibility of ocular fundus hemorrhages and retinal folds in diagnosis of child abuse

研究代表者

大島 徹 (OSHIMA, Toru)

久留米大学・医学部・准教授

研究者番号：70464427

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,600,000円

研究成果の概要(和文)：研究期間に検査を施行できた症例は94例、188眼であった。出血性網膜ひだ(網膜分離)、網膜前出血(内境界膜下出血)、網膜出血、視神経鞘出血等の所見を認めた。網膜と硝子体の接着が強い乳幼児において、出血性網膜ひだ(網膜分離)と視神経鞘出血は、頭部加速度損傷に特異的な眼所見と考えられた。但し、これらの所見から虐待による頭部外傷や揺さぶられっ子症候群及び転落事故による頭部打撲を鑑別できるかについては、更なる症例数の積み重ねが必要と考えられた。一口に「眼底出血」といっても、種類や成傷機転は様々で、その成因の判別については、個々の病変を総合的に考察する必要がある。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本研究の目的は法医解剖例における網膜剥離や眼底出血の発症機序を明らかにすることである。期間中、出血性網膜ひだ(網膜分離)、網膜前出血(内境界膜下出血)、網膜出血、視神経鞘出血等の所見を認めた。一口に「眼底出血」といっても、種類や成傷機転は様々で、それが病的なものか、頭部加速度損傷なのか、虐待を疑う症例なのかの判別については、個々の病変を総合的に考察する必要がある。近年よく用いられている「広範で多発性・多層性・多形性の網膜出血、網膜ひだ、網膜分離症」は虐待を疑うスクリーニングとしては有用であるが、これらの所見のみをもって確定診断とするには不十分であると考えられた。

研究成果の概要(英文)：In three infant cases of non-accidental head trauma, we found perimacular retinal folds (RF), which is considered to be caused by violent vitreous traction. In four infant cases of head trauma, we found sub-internal limiting membrane (ILM) hemorrhages primarily in the post pole and peripheral retina, which is considered to be caused by vitreous traction. Diffuse sub-ILM hemorrhages were reported in an infant with coagulopathy. We should carefully consider the mechanism of sub-ILM hemorrhage in each case. We found retinal hemorrhages (RH) in seven cases. However, there was no relationship between RH and cause of death or post vitreous detachment. In three cases of intracranial injury with occipital impact and fracture, peripapillary scleral hemorrhages (PSH) were found. We considered that perimacular RF and PSH were specifically caused by acceleration-deceleration head trauma. However, more cases are needed to determine whether these findings can help identify child abuse.

研究分野：法医学

キーワード：法医学 子どもの虐待 揺さぶられっ子症候群 眼科学 眼底出血 出血性網膜ひだ 視神経鞘出血 網膜前出血

様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19 (共通)

1. 研究開始当初の背景

小児の身体的虐待の一つである揺さぶられっ子症候群(Shaken Baby Syndrome)では、硬膜下血腫の他に眼底出血の存在が診断に有用であると報告されている[1, 2]。生前であれば、眼科医による眼底検査を行えば眼底出血の診断は容易であるが、生前の状況が不明なことが多い法医学解剖の場合、法医学者自身が、訓練を要する眼底検査を行うことの難しさ、死後変化で生じる角膜混濁で眼底が見えなくなる等の理由から、眼底出血の診断は困難であることが多く、法医学解剖時の眼所見については未解明なことが多い。頭部外傷や小児虐待などの眼底出血についても様々な意見が交錯し、混乱していると言える。国内の総説の中には、「揺さぶられっ子症候群の網膜出血は硝子体の牽引による広汎・多発性・多層性のものであるが、一般の頭蓋内圧亢進の際の網膜出血は刷毛状を呈することが多い」などの記載もある。しかし、我々は片眼性の刷毛状出血を呈した揺さぶられっ子症候群の症例も経験しており[3]、実務上、眼底出血と頭部外傷や小児虐待の関係はそれほど単純なものではないと考えられる。さらに、我々は頭部外傷や小児虐待とは無関係の重症感染症症例において、網膜剥離や眼底出血を認めた症例を経験し、報告した[4]。一般に頭部外傷や小児虐待の症例では、長期に集中治療室で管理された後に肺炎や敗血症などの重症感染症で死亡することが多い。つまり、法医学解剖時に確認される眼所見については、入院後から死亡までの間に所見が修飾されている可能性があることが新たにわかった。また、臨床の現場において、頭部外傷や小児虐待の症例では、入院後早期に眼底検査をされることが多いため、死亡前後での眼底所見については知られていない。近年、解剖時の眼底所見が重要視された揺さぶられっ子症候群の刑事裁判例の報告もあることから[5]、社会的混乱を避けるためにも、法医学解剖で確認される眼所見の発症機序について早急に解明が望まれる。

2. 研究の目的

本研究の目的は法医学解剖例における網膜剥離や眼底出血の発症機序を明らかにすることである。これら眼所見の種類と分布、死因、後部硝子体剥離の有無(硝子体の牽引による出血への影響の検討)、病理組織学的検査、外傷の場合は受傷機転などとの検討を行い、眼所見の発症機序、発生頻度を明らかにする。

3. 研究の方法

解剖前に眼底検査、眼超音波検査を行い、眼内異常所見の確認と後部硝子体剥離の有無の確認を行う。異常所見を認めた場合に限り、解剖時に眼球を摘出して眼病理検査を行い、所見の最終診断を行う。

眼病理検査で診断された所見について、死因、受傷機転、後部硝子体剥離の有無などとの関連について統計解析を行い、眼所見の発生機序を明らかにする。

表. 確認された眼所見の一覧

所見	症例数	眼数
眼底出血		
出血性網膜ひだ(網膜分離, Perimacular retinal fold)	3	5
網膜前出血(内境界膜下出血)	4	7
網膜出血	7	13
視神経鞘出血(Peripapillary scleral hemorrhage)	3	6
上脈絡膜出血	1	2
その他所見		
眼内レンズ挿入眼	13	20
高度近視眼(後部ぶどう腫)	2	4
眼内レンズ偏位・落下	2	2
水晶体落下(腐敗以外)	1	1
眼球瘻	1	1

4. 研究成果

研究期間に検査を施行できた症例は 94 例, 188 眼であった。年齢は 0~97 歳(中央値 64.5 歳)。性別は男性 64 例, 女性 30 例であった。確認できた所見を表に示す。

1) 出血性網膜ひだ(網膜分離, perimacular retinal fold)

3 例 5 眼に認め、これらは 0 歳児(0 歳 4 か月~0 歳 11 か月)の虐待を疑う頭部外傷症例であった。その内 2 例は、頭頂結節付近の頭蓋骨骨折を伴うものであった。全例で眼底後極部に所見を認め、後部硝子体剥離は生じていなかった。網膜と硝子体の接着が強い耳側網膜血管沿い(図 1a 黄色矢頭, 図 1b)や黄斑部網膜(図 1a 緑色矢頭, 図 1c)に一致して出血性網膜ひだ(網膜分離)を認めた。出血性網膜ひだ(網膜分離)については、硝子体からの牽引によって生じることが知られており[6]、今回の症例も頭部加速度損傷によって形成されたと考えられた。

なお、過去には網膜前出血(内境界膜下出血)によって硝子体が牽引されて、出血性網膜ひだ(網膜分離)が生じるとの仮説も報告されたが[7]、本研究では出血性網膜ひだ(網膜分離)が生じるような大きな網膜前出血(内境界膜下出血)は眼底後極部に確認されなかった。

また、乳幼児を含む後部硝子体未剥離な若年者には、死後早期から死後変化としての網膜ひだが形成され、これは網膜下には出血を伴わないので(図 1d)、混同しないことが重要である[8]。

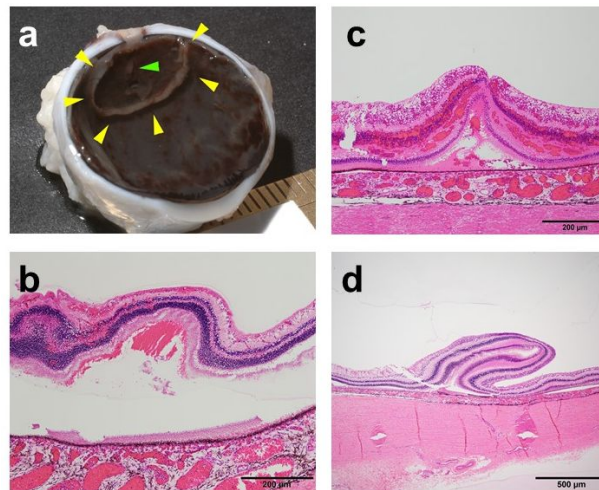


図 1. (a) 虐待(疑い)症例の眼球矢状断耳側半球所見。上下耳側網膜血管周囲に輪状の網膜ひだの形成を認める(黄色矢頭)。黄斑部網膜にも網膜ひだの形成を認める(緑矢頭)。(b) 輪状の網膜ひだの病理組織学的所見。網膜ひだ直下に網膜下出血を認める。(c) 黄斑部網膜ひだの病理組織学的所見。網膜ひだ直下に網膜下出血を認める。(d) 死後変化としての網膜ひだの病理組織学的所見(対照)。網膜ひだ直下に出血を認めない。

2) 網膜前出血(内境界膜下出血)

4 例 7 眼に認め、何れも 0 歳児(0 歳 4 か月~0 歳 11 か月)の頭部外傷症例であった。全症例で、後部硝子体剥離は生じていなかった。その内 3 例は、頭頂結節付近の頭蓋骨骨折を伴う、虐待を疑う症例で、残りの 1 例は転落事故と考えられた(図 2a)。「網膜前出血」と臨床的には称されるが、厳密に言う病理解剖学的には内境界膜下出血と硝子体下出血に分類される[9]。今回の症例は何れも内境界膜と神経線維層との間に血液が貯留したもので、内境界膜下出血であった(図 2b)。今回の網膜前出血(内境界膜下出血)は眼底後極部だけでなく、硝子体基底部付近にも多く認められ、硝子体からの牽引によって生じたものと推測された(図 2a)。しかし、周辺部までの網膜前出血(内境界膜下出血)は血液疾患等[10]で出現することがあると報告されており、本所見は既往症や出現部位などを考慮した上で、慎重に成傷機転を考察する必要があると考えられた。

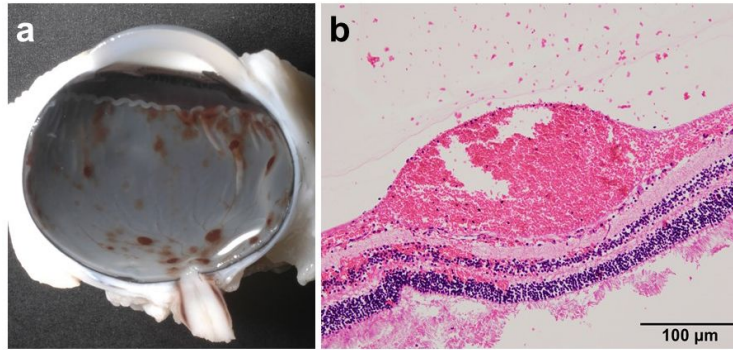


図 2. (a) 虐待(疑い)症例の眼球水平断下側半球所見. 網膜浅層出血～網膜前出血を眼底後極部及び硝子体基底部付近に認める. (b) 同症例の網膜前出血部の病理組織学的所見. 内境界膜下出血であることが確認できる.

3) 網膜出血

網膜出血は 7 例 13 眼で確認された. その内 6 例が頭部外傷(虐待疑いを含む)症例, 1 例が胸部圧迫症例であった. 網膜出血は網膜浅層優位な出血, 網膜深層優位な出血, 全層出血の何れの症例もあり, また同一症例内においても出血の傾向に左右眼に違いを認め(図 3a, b), 原因別や後部硝子体剥離の有無での差違は確認できなかった. なお, 我々の経験した過去の事案からも, 疾患である網膜静脈閉塞症においても, 網膜浅層出血や全層出血など, 様々なバリエーションも確認しており, 網膜出血単独での虐待の診断は困難と考えられた.

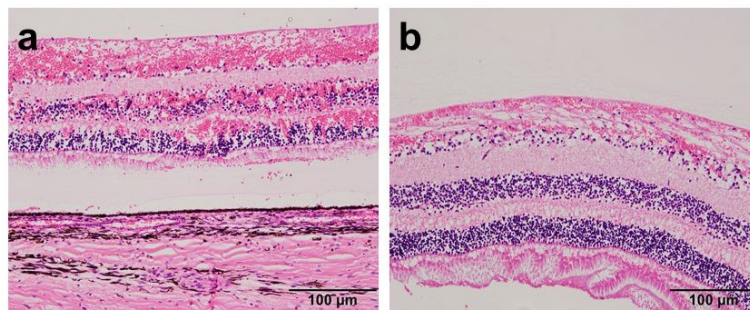


図 3. 虐待(疑い)症例の網膜の病理組織学的所見. 網膜剥離は病理標本作製時のアーチファクト. (a) 右眼には網膜全層の出血を認める. (b) 左眼には浅層出血を認める. (a)(b)は同一症例の網膜所見.

4) 視神経鞘出血(Peripapillary scleral hemorrhage)

視神経鞘出血は Peripapillary scleral hemorrhage とも言われ, 厳密には視神経周囲の動脈輪の破綻による強膜からの出血が視神経鞘に流れ込んだものである. 3 例 6 眼で確認され, 2 例が頭頂結節付近の頭蓋骨骨折を伴う虐待(疑い)症例で, 残り 1 例は高齢者の後頭部に頭蓋骨骨折を伴う頭蓋内損傷であった. 過去の我々の報告通り, 何れの症例も後方への加速度損傷であった[3].

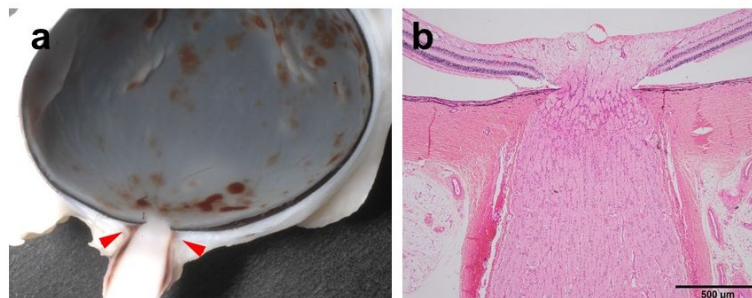


図 4. (a) 虐待(疑い)症例の眼球水平断上側半球所見. 視神経鞘出血(Peripapillary scleral hemorrhage)を認める(赤色矢頭). (b) 同一症例の病理組織学的所見. 視神経周囲に出血を認める.

5) 上脈絡膜出血

過去に我々は, 胸腹部圧迫や気道内異物などの胸腔内圧が高度に上昇する病態で上脈絡膜出血

が出現することを報告している[11]。今回は 1 例 2 眼，溺水で，気道内異物を伴った症例で確認された。

まとめ

網膜と硝子体の接着が強固な乳幼児において，出血性網膜ひだ（網膜分離，perimacular retinal fold）と視神経鞘出血（Peripapillary scleral hemorrhage）は，頭部加速度損傷に特異的な眼所見と考えられた。但し，これらの所見から虐待による頭部外傷（Abusive Head Trauma）や揺さぶられっ子症候群（Shaken Baby Syndrome）及び転落事故による頭部打撲を鑑別できるかについては，今後の更なる症例数の積み重ねが必要と考えられた。一方で，網膜前出血（内境界膜下出血）については，前述の通り，既往症や出現部位等を考慮の上に，慎重にその成傷機転を判断する必要があると考えられた。これまでの総説や論文等の多くは，網膜出血と網膜前出血（内境界膜下出血）を混在して論じているものも多く，区別して考えることが望ましい。

揺さぶられっ子症候群では，以前から 硬膜下血腫またはくも膜下出血， 脳浮腫または脳実質損傷， 眼底出血が三主徴として，診断に用いられてきた経緯がある。一口に「眼底出血」といっても，種類や成傷機転は様々で，それが病的なものか，頭部加速度損傷なのか，虐待を疑う症例なのかの判別については，個々の病変を総合的に考察する必要がある。また，近年よく用いられている「広範で多発性・多層性・多形性の網膜出血，網膜ひだ，網膜分離症」は虐待を疑うスクリーニングとしては有用であるが，これらの所見のみをもって確定診断とするには不十分であると考えられた。虐待を疑う症例のうち，死亡症例については海外同様に眼病理所見まで検討すること[12]，臨床症例では眼科専門医も積極的に関与し，その成傷機転についてのディスカッションを行うことが必要と考えられた。

[引用文献]

1. 中山百合，小児虐待とその対応，日本の眼科 2014 vol: 85 (7) pp: 901-907
2. 山田不二子，[虐待による乳幼児頭部外傷(AHT)] AHT/SBS の概念と歴史，子どもの虐待とネグレクト 2016 vol: 18 (1) pp: 8-15
3. Oshima T, *et al.*, Four intracranial injury cases with peripapillary scleral hemorrhage—Reconsidering the mechanism of hemorrhage, *Legal Medicine* 2017 vol: 27 pp: 5-9
4. 大島徹ら，網膜剥離や眼底出血を伴った重症感染症の 2 剖検例，第 17 回日本法医学会学術北日本地方集会 2016 年 10 月，仙台市
5. 西村明儒ら，両側性網膜出血を検出し Shaken baby syndrome と剖検診断した 1 例，第 92 次日本眼科学会総会 2008 年 4 月，長崎市
6. Abed Alnabi W, *et al.*, Pathology of perimacular folds due to vitreoretinal traction in abusive head trauma, *Retina* (Philadelphia, Pa.), 2019 vol: 39 (11) pp: 2141-2148
7. Sturm V, *et al.*, Optical Coherence Tomography Findings in Shaken Baby Syndrome, *American Journal of Ophthalmology*, 2008 vol: 146 (3) pp: 363-368
8. Oshima T, *et al.*, Examination of postmortem retinal folds: A non-invasive study, *Journal of Forensic and Legal Medicine*, 2015 vol: 30 pp: 16-20
9. 猪俣孟，網膜前出血，眼の組織病理アトラス，医学書院，東京 pp.204-205
10. Levinson J, *et al.*, Diffuse bilateral retinal hemorrhages in an infant with a coagulopathy and prolonged cardiopulmonary resuscitation, *Journal of American Association for Pediatric Ophthalmology and Strabismus*, 2016 vol: 20 (2) pp: 166-168
11. Oshima T, *et al.*, Three cases of suprachoroidal hemorrhage associated with chest compression or asphyxiation and detected using postmortem computed tomography, *Legal medicine*, 2015 vol: 17 pp: 188-191
12. Gilbert-Barnes E and Debich-Spicer DE, Pediatric Forensic Pathology, In *Handbook of Pediatric autopsy pathology*, Humana Press, Totowa, NJ, 2005 pp.471-498

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計12件（うち査読付論文 12件 / うち国際共著 0件 / うちオープンアクセス 0件）

1. 著者名 Oshima Toru, Yoshikawa Hiroshi, Yoshitomi Takeshi, Ohtani Maki, Mimasaka Sohtaro	4. 巻 41
2. 論文標題 A Case of Personal Identification Via Postmortem Computed Tomography Confirmation of Aphakic Eyes	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 The American Journal of Forensic Medicine and Pathology	6. 最初と最後の頁 60 ~ 63
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1097/PAF.0000000000000534	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 白井聡馬、美作宗太郎、大島徹、大谷真紀	4. 巻 62
2. 論文標題 刈込鉄が顎部から刺入した穿通性頭部外傷により死亡した1剖検例	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 法医学の実際と研究	6. 最初と最後の頁 31 ~ 36
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Sohtaro Mimasaka, Toru Oshima, Maki Ohtani	4. 巻 282
2. 論文標題 Visualization of old bruises in children: Use of violet light to record long-term bruises	5. 発行年 2018年
3. 雑誌名 Forensic Science International	6. 最初と最後の頁 74-78
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/J.FORSCIINT.2017.11.015	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 大島徹、宮田元、大谷真紀、美作宗太郎	4. 巻 61
2. 論文標題 塞栓子の動態が解剖所見から推測できた出血性脳梗塞の一例	5. 発行年 2018年
3. 雑誌名 法医学の実際と研究	6. 最初と最後の頁 133-138
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) -	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Oshima Toru, Yoshikawa Hiroshi, Koda Yoshiro, Ohtani Maki, Tsukamoto Shoko, Mimasaka Sohtaro	4. 巻 27
2. 論文標題 Four intracranial injury cases with peripapillary scleral hemorrhage - Reconsidering the mechanism of hemorrhage	5. 発行年 2017年
3. 雑誌名 Legal Medicine	6. 最初と最後の頁 5-9
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.legalmed.2017.06.001	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計12件 (うち招待講演 0件 / うち国際学会 2件)

1. 発表者名 垣明歩、大谷真紀、松尾悠平、大島 徹、美作宗太郎
2. 発表標題 交通事故による入院後急死した一例 ~死は防げたか?~
3. 学会等名 第20回日本法医学会学術北日本地方集会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 T. Oshima, H. Yoshikawa, T. Yoshitomi, M. Ohtani, S. Mimasaka
2. 発表標題 A case of personal identification by detection of aphakic eyes using postmortem computed tomography
3. 学会等名 the 24th Congress of the International Academy of Legal Medicine (IALM) (国際学会)
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 大島徹、宮田元、大谷真紀、美作宗太郎
2. 発表標題 塞栓子の動態が解剖所見から推測できた出血性脳梗塞の一例
3. 学会等名 第19回日本法医学会学術北日本地方集会 (法医学談話会第105回例会)
4. 発表年 2018年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究 分担者	大谷 真紀 (Ohtani Maki) (30292379)	秋田大学・医学系研究科・助教 (11401)	
研究 分担者	美作 宗太郎 (Mimasaka Sohtaro) (50284998)	秋田大学・医学系研究科・教授 (11401)	
連携 研究者	吉川 洋 (Yoshikawa Hiroshi) (00304808)	九州大学・医学系研究科・特任講師 (17102)	