

外傷性の揺さぶり  
外傷性の揺さぶりが疑われる事案の医学的調査における三徴候の役割  
系統的調査の報告書

医療技術評価および医療福祉評価局報告書 255E (2016 年)

翻訳：笹倉香奈 (甲南大学)

SBU (Swedish Agency for Health Technology Assessment and Assessment of Social Services)  
Assessment/ Report 255 E (2016), Traumatic Shaking: The role of the triad in medical  
investigations of suspected traumatic shaking—A systematic review

#### 検証結果の要旨

系統的調査により、以下の評価結果が明らかにされた。

- ・ 三徴候<sup>1</sup>とそれを構成する三つの徴候が外傷性の揺さぶりと関連するというを示す科学的なエビデンスは限定的なものにとどまる (質の低いエビデンス)
- ・ 外傷性の揺さぶりを判別する際の三徴候の診断の正確性を評価するための科学的エビデンスは不十分である (きわめて質の低いエビデンス)

**限定的な科学的エビデンス (質の低いエビデンス)** とは、良質なあるいは中程度の質の研究の総合的評価によって、エビデンスが著しく弾劾される要因が明らかにされたことを意味する。ただし、ある手法や効果の信頼性に関する科学的エビデンスが限定されているからといって、科学的な裏付けが全くないということにはならない。

**不十分な科学的エビデンス (きわめて質の低いエビデンス)** とは、研究が全く存在しないこと、あるいは存在する研究の質が低いこと又は矛盾した結果を示すことを意味する。

エビデンスの評価は GRADE による正式なエビデンスの評価に基づいて行われたのではなく、総合的な科学的根拠の評価に基づいて行われた。

---

<sup>1</sup> 全体を構成する三つの要素。一般的に、SBSに関連するとされる三徴候は、硬膜下血腫、網膜出血と脳障害である。

## 1. 目的

外傷性の揺さぶりが疑われる事案における診断は、従来、3つの所見に基づいて行われてきた。この3つの所見を併せて「三徴候」という。硬膜下血腫（硬膜と脳との間の出血）、網膜出血、そして様々な脳の症状（脳障害）である。既往歴としては、昏睡や無呼吸などがみられる。本評価の目的は、1歳以下の子どもにおける三徴候およびその三つの症状が、外傷性揺さぶりによるものであるとの説明に、どの程度信頼性があるのかを判断することである。

## 2. 背景事情

医学文献における児童虐待への言及は、すでに 1800 年代にみられる〈1〉。しかし、児童虐待に対する意識の高まりがみられるようになったのは、ずっと後のことである〈2,3〉。児童虐待は、しばしば家族内で隠ぺいされる。そして、子どもが言い分を言うことができないということもあり、過小な診断が行われるリスクがある。しかし同時に、過大な診断は重大な結果をもたらす。なぜならば、誤った理由により、家族が引き裂かれることもあるからである。子どもの症状について、他の原因を考慮に入れずに、三徴候が外傷性の揺さぶりによってしか生じないという医療原則に従ってしまうことは、過大な診断につながる可能性がある。

### 外傷性の揺さぶりとは？

外傷性の揺さぶりとは、子どもの頭が前後に動くように揺さぶられることを指す。1971年に神経外科医の Guthkelch は、頭蓋骨に外的な受傷の痕跡が発見できないときには、このような揺さぶりによって硬膜下血腫が生じたと考えられるという仮説を提唱した〈4〉。Guthkelch 論文には、子どもが発病する前に何らかの理由で子どもを揺さぶったという保護者が供述した、2つの事例が記載されている。乳児の一人には網膜出血もみられた。外傷性の揺さぶり、硬膜下血腫および網膜出血との関連性は、1972年に Caffey によって説明づけられ、むち打ち揺さぶり乳児症候群と名付けられた〈2〉。子どもを揺さぶることによって、頭が加速・減速し、回転加速度がかかる。このことによって損傷が生じるとされた。しかし、1987年に Duhaime らの研究〈5〉はこの説に疑問符を付した。Duhaime らの生体力学的研究は、直接的な暴力が加えられない場合、上記で説明したような傷害を生じさせるだけの十分な力は揺さぶりのみによって生じえないと結論付けた。

この症状は、その後、乳幼児揺さぶられ症候群（SBS）と呼ばれるようになった。臨床的知見やエックス線による所見と、子どもの暴力的揺さぶりによる傷害との関連についてはいくつかの研究が存在する〈6-13〉。

近年、虐待による頭部外傷（AHT）ということばが使われている（用語の定義の項を参照）。本プロジェクトは外傷のメカニズムについて説明する場合には「外傷性の揺さぶり」ということばを、実際の徴候や症状について説明するときには「三徴候」ということばを用いることにした〈13〉。

### 徴候と症状

科学的文献においては、様々な徴候と症状が外傷性の揺さぶりと関連付けて説明されている。「三徴候」という一般的名称は、最もよくみられる損傷（硬膜下血腫、網膜出血と脳

障害)を示すものである。本報告書の主要な対象は、この三徴候にある(用語の定義の項を参照)。外傷性の揺さぶりに関連して報告される他の徴候には、胸部打撲、肋骨と脛骨の骨折(骨幹端骨折)などがあるが、これらの損傷については、本報告の対象にはしていない。

## 既往歴

発症した子どもに対する治療が行われる場合に、発作、昏睡その他脳障害の様々な症状が既往歴に含まれる。当初の診察や放射線検査によって、硬膜下血腫やその他の脳の機能不全を示す症状の存在が明らかにされる。硬膜下血腫、網膜出血とその他さまざまな脳障害は、重大な後遺症をもたらすことがあり、それによって脳や目の永久的な損傷が起こることもある。永久的な損傷は、認知機能や運動機能に重大な機能障害をあたえることがあり、子どもの健康、発達、そして将来的な生活の質に広範な悪影響を及ぼし得る。究極的には致死的なものになりうる可能性もある。

医療関係者は、三徴候を構成する結果に対して警戒する必要がある。法(社会福祉法第14章第1項)も、医療関係者が子どもの虐待を知った時や疑うにいたった時、あるいは子どもが保護を要することを知った時や疑うにいたった時には、社会福祉委員会に通知することを義務付けている。しばしば引用される米国小児科学会の1993年の論文〈14〉は、新生児の脳に影響する外傷に気づいた医師は、詳細な検査を行うとともに、外傷性の揺さぶりがあったことを確認できる診断やX線写真の所見についてよく理解しておく必要があるという。ストックホルム郡議会の2011年の地域医療計画は、次のようにいう。

「交通事故やある程度の高さからの落下などを経験したことがない場合、硬膜下血腫および浮腫又は出血を伴う脳障害が存在することは、子どもが虐待されたことを強く示唆する。さらに網膜出血がみられる場合には、医学的観点からして、虐待があったという診断は明らかである。」〈15〉

虐待を受けているあるいは虐待を受ける危険性のある子どもに関する、他の地域のケアプログラムやスウェーデン全国健康福祉委員会も、虐待の疑いがあるときの乳児のケアについてのガイドラインを発行している。〈16、17〉

しかし近年、三徴候が外傷性の揺さぶりによるものであると確実に診断できるのかという点については、疑念が呈されている〈18から26〉。外傷性の揺さぶりと、三徴候の症状と徴候の問題について議論を行う多くの論文と記事が、国内外のジャーナルやメディアに出された。このような流れの中では、以上のような徴候や症状の原因が外傷性の揺さぶりであるという結論が、最上級の科学的エビデンスに基づいているのか否かという点を確認する必要がある。しかし、科学性を支えるエビデンスの等級付けは、これまで、当該個人ではなく、集団の評価に基づいて行われてきた。疾病や損傷と体調悪化との関連について、司法や

社会福祉が何らかの言及をする場合には、個々のケースの評価が必要であると同時に、その際には、他の観察や症状を考慮に入れる必要がある。

## 用語の定義

三徴候を示す英語の言葉は、“Shaken Baby Syndrome”乳幼児揺さぶられ症候群（SBS）である。SBSは、頭部が物体にぶつからないような形で揺さぶられた場合などのような、外傷性の揺さぶりの後に生じたとされる徴候や症状のことを意味する。

米國小児科学会は、2009年に、「虐待による頭部損傷（AHT）」というより広い用語を用いることを推奨した。これは、頭部への直接的な衝撃を含む〈27〉。文献にはその他、いくつかの用語が現れる。それは、部分的に又は完全に、乳幼児揺さぶられ症候群又は虐待による頭部損傷ということばと重なるものである（第9章参照）。これらの言葉は科学論文において様々な方法で使用されており、このことは外傷性の揺さぶりの影響に関する研究の方法論的明確性が欠けていることの一因になっている。本研究グループはしたがって、対象を外傷性の揺さぶりだけが存在する場合に限定した。つまり、頭部への直接的な衝撃（外的な損傷）があったという証拠がないケースに関する研究に限定した。さらに、筆者はSBSとAHTということばを用いることを避けた。なぜならばSBSやAHTということばは、研究結果の背景にある徴候や症状、そしてメカニズム、主観的意図さえも含むことばだからである。その代わりに、筆者は損傷を与えるメカニズム（「外傷性の揺さぶり」）と診断結果（「三徴候」）とを明確に区別することとした。

## 外傷性の揺さぶりに基づく可能性のある損傷の調査

脳損傷が疑われる場合の診断は、コンピューター断層撮影(CT)や磁気共鳴映像法(MRI)に基づいて行われる。網膜出血の存在は、検眼鏡検査又は眼底検査による眼底部の検査によって判断される。

## 三徴候とその要素とその他の原因になりうるもの（鑑別診断）

三徴候が存在するケースでは、これらが外傷性の揺さぶりによるものなのか否かを判断する必要がある。硬膜下血腫、網膜出血と脳障害は、分娩の後にも生じる。けいれん、一部の出血性疾患、感染症、代謝性疾患、免疫疾患、骨疾患や血管奇形（詳細については補遺1を参照）などとも関連があるとされてきた。

## 三徴候: 徴候と症状

## 硬膜下血腫

頭部への衝撃によって硬膜下血腫が起こることはよく知られている。成人においては、架橋静脈が一つあるいは複数破断し、硬膜下腔に出血が起こるというメカニズムで発生する。このような場合の多くでは、軟部組織の出血という形で、外部的な衝撃の兆候が見られる。その他、外部には衝撃の証拠がない場合にも、CT スキャンによって内部的な損傷が明らかになることもある。

乳児を揺さぶると、頭蓋骨の動きと同調しない脳の動きが生じる。しかし、出血のメカニズムについてはコンセンサスが得られていない。出血が毛細血管の損傷によって生じると提唱されたことがある〈28、29〉。外傷性の揺さぶりによって、頭部に直接的な衝撃は加わらない。したがって、軟部組織の腫脹、挫傷、裂創、頭蓋骨の骨折などの衝撃の外的徴候は見られない。したがって、軟部組織の損傷や頭がい骨骨折が存在する場合には、その出来事は外傷性の揺さぶり単独のものとは分類されない。軟部組織の損傷と頭蓋骨の骨折がある場合には、単独での外傷性揺さぶりが除外される。

画像技術によって経膈分娩と関連して硬膜下血腫が起こりうること、通常は数週間で吸収されることが明らかになっている〈22〉。血腫によって生じた腔への浸出（体液の漏れ）は、脳脊髄液などを含む硬膜下水腫に発展することがある。この腔内へのさらなる出血が自然発生的に、あるいは小さい衝撃によって起こりうることが提唱されている〈30 から 33〉。また、くも膜下腔が拡大することで、硬膜下出血のリスクが高まるとの主張もある〈19、34 から 36〉。

## 網膜出血

外傷性の揺さぶりによる網膜出血は、眼の硝子体のせんだん力が網膜の毛細血管の圧力亢進によって網膜に伝わり、血管が断裂することによって生じるとされてきた〈37 から 39〉。また、揺さぶりの間に加速と減速とが反復することによって、硝子体と網膜との間にせんだん力が生じ、また眼球そのものに損傷が生じるともされてきた。しかし、疾患によって硬膜下血腫に伴って眼底部の出血が生じることもあり、硬膜下血腫の結果として網膜下血腫が生じることもあるとも示されてきた。一つの説明は、脳浮腫による頭蓋内圧の亢進が網膜中心静脈内圧の亢進を引き起こし、網膜の鬱血をもたらすというものである〈40、41〉。硬膜下血腫と網膜出血との間に関連性があるという知見は、網膜出血のみが起こるという事例はほとんど存在しないという研究からも支持される〈38、41〉。網膜出血も、通常の経膈分娩の後に見られる〈42〉。

## 脳障害

脳障害は昏睡、発作、呼吸困難などの徴候を伴う。これらの徴候は脳や頸部髄質の摩擦損

傷や脳浮腫によるものである可能性がある。脳浮腫と脳低酸素症は、不可逆的な脳損傷を引き起こし得る。脳浮腫や硬膜下血腫によって頭蓋内圧が亢進した場合には、発作、無呼吸や昏睡などが起こることもある〈43、44〉。脳浮腫はコンピューター断層撮影（CT）と磁気共鳴映像法（MRI）とを用いて、脳溝の消失や脳室の圧縮などがみられることで判明する。CTやMRIによる所見で最も重篤なのは、脳白質と灰白質との区別があいまい化しており、脳全体が不可逆的に虚血性損傷に陥っている場合である。

## 診断の方法

### 頭蓋内検査

CT検査は、異なる密度の物質や組織によるX線の吸収差に基づくものであるが、MRIは物質や組織の様々な性質を生かして行う検査である。したがってMRIはCTに比べて検査対象となる組織の特性に関する情報をより詳細に呈示する。

いずれの技術も脳全体について、その薄く切った「部分」の観察を可能にするものである。いくつもの断面で脳を復元することもできるし、（血管造影剤を使うことで）頭蓋内の血管の評価をすることもできる。またいずれの方法も、脳浮腫の際の脳室の圧迫や脳水腫における拡張、血種による転移や脳ヘルニアのリスクなど、脳室や基底槽の変化についての情報を明らかにしてくれる。

しかし、MRI検査はCT検査では得られない情報を提供してくれる。例えば、新鮮な血液の存在、血鉄素（ヘモグロビンの分解生成物）の凝結、早期の虚血性損傷や軸索損傷などである〈45、46〉。

幼い子どもの急性硬膜下血腫は新鮮な血液から成るが、亜急性硬膜下血腫は、通常、体液が上層に、凝固した血液が下層にある混合物から成る〈47〉。出血が徐々に進行すると、CTとMRI上で、異なるパターンがみられる。このパターンが進行し、持続している期間は重なりあうこともある。したがって、損傷が何歳の時のものであるかという判断は、不確定である〈48〉。脳組織においては、稀に石灰化が新鮮な血液だと誤って判断されることもある。MRIの画像に比べて、CTスキャン上では出血はよりはっきりしたパターンを示すことがある。そして、出血の蘇生や損傷から経過した時間の長さによって、様々な外観や類似する外観を呈することもある。したがって、CTによって硬膜下出血の年齢を判断する方がMRIによって判断するよりも、より信頼性が高いとされている〈49、50〉。硬膜下血腫が発生した年齢を見極めることのできる能力は、損傷の時期との関連で重要になる。

CTもMRIも、脳浮腫を判断するために用いられる。脳浮腫は、脳の表面の溝の消失や脳室と基底槽の圧搾によって認められる。骨折を判断する際には、MRIに比べてCTの信頼性は高い。

### 網膜の検査

眼底の検査には 2 種類の方法が用いられる。最もよく行われるのは眼底検査で、散瞳する場合としない場合とがある。最近では、RetCam というデジタルカメラ撮影を用いた方法が開発された。この方法においては、検査後に病歴や検査の目的を知らない他の観察者により、結果の評価を行うことができる。

解剖が行われる場合には、眼球全体を検査することができ、他の所見を得ることもできる〈53、54〉。

眼底出血は CT や MRI により通常は判断できない。しかし、最近公表された MRI に関する研究では、検眼鏡検査と MRI の画像とが比較され、83%において MRI により網膜出血が検出できたことが明らかになった〈55、56〉。

この文脈では、CT、MRI、そして眼底検査の解釈は主観的なものであり、個々の観察者の経験が最終的な評価に影響を与えうるということを認識しておく必要がある。

### 3. 系統的評価：方法

#### 明らかにされるべき問い

本調査の目的は、次の問いに答えることであった。三徴候（硬膜下血腫、網膜出血、脳障害）が外傷性の揺さぶりのみによって生じたということは、（外的に衝撃の徴候がない場合に）どの程度確実に言えるのであろうか、という問いである。

#### PIRO

P（母集団）：12 か月以下の子ども

I（指数試験）：外傷性の揺さぶりが疑われる事件における三徴候

R（基準準拠テスト、黄金の基準）：外傷性の揺さぶりその他の衝撃が自白・目撃されていること

O（結果判定法）：診断上の正確性

本プロジェクトは、SBUのマニュアルで説明された方法に基づいて行われた〈57〉。

#### 包摂と除外の基準

##### 包摂の基準

##### 研究デザイン

症例管理、コホート研究、登録された研究と分析において質的方法を適用した研究。

#### 観察

選別の際の確率的誤差を減少させるために、10 件以上のケースを含む研究のみを包摂した。他に説明可能性がある場合（鑑別診断）については、本プロジェクトグループは、三徴候の原因が常に外傷性の揺さぶりであるという仮説に疑問を抱くためには、一件でも公表された例があればよいと考えている。鑑別診断に関する論文は質的には評価されておらず、したがって結論を導くためには使われていない。AHT 研究において外傷性の揺さぶりの対象となった下位集団が存在する場合、あるいは12 か月（中央値・平均年齢）の下位集団が存在する場合は、本プロジェクトグループの研究対象とした。外傷性の揺さぶりの対象となる子どもの年齢の中央値は、2 か月から3 か月であるといわれており〈58〉、本プロジェクトグループはしたがって中央値あるいは平均年齢が12 か月以下の子どもに関する研究のみを対象とすることにした。

## 言語

英語、ドイツ語、フランス語、スウェーデン語、デンマーク語、ノルウェー語で書かれた研究を対象とした。

## その他の基準

本プロジェクトグループは、目撃者がいる場合(例えばビデオ録画されているとき)、あるいは子どもを揺さぶったことを自白している人がいる場合の症例のみを包摂した。

## 排除の基準

本プロジェクトグループは、10件以下しか扱っていない研究を除外した。また、頭部への外的な損傷や骨折等の損傷があるケースを含む AHT 研究は除外した。

生体力学的研究や、三徴候のその他の原因について分析する研究については別途検討し、補遺 1 と 2 でその結果を示した。

## 研究の選別方法

本プロジェクトが答えるべき問題を解決するために、文献データベースの系統的な探索が行われた。情報の専門家と本プロジェクトグループの専門家は、緊密に連携をとりつつ探索を行った。文献探索は、2015年10月15日までの PubMed、Embase とコクラン図書館のデータベース上で行われた。さらに、個別研究や系統的研究の参照文献リストに基づいて、さらにマニュアルで探索が行われた。探索をした用語や限界の詳細については、補遺 4 を参照されたい。

## 関連性の評価

文献探索によって得られた要旨のリストが、独立した 2 人の専門家によって検討された。本プロジェクトの課題と関連すると、少なくとも 1 人の専門家が判断した場合には、論文全文が入手され、本プロジェクトの包摂基準に合致するかをさらに 2 人の専門家が独自に検討した。論文全文が検討され、包摂基準に合致しなかった研究は除外された。そして除外の理由が記録された(補遺 5 を参照)。論文を読んだ 2 人の専門家の意見が一致しない場合には、その専門家同士の議論が行われた。一部のケースでは、この議論にプロジェクトグループ全員が加わり、同意に基づいて包摂・除外が決定された。

## 個別の研究の質評価

本研究分野の特殊性にかんがみ、本プロジェクトグループは包摂された研究の質とバイアスの危険性（循環論法。第5章の「臨床と研究における循環論法」の項を参照）を判断するためのSBUのテンプレートを一部変更した。テンプレートには、研究の種類（前向き研究、診断研究、生体力学研究など）、研究の主な目的、研究が硬膜下血腫、網膜出血と脳障害について言及しているかなどが含まれた。SBUのガイドラインに基づいて、中程度あるいは高度の質のある研究のみが結果・考察で取り上げられている〈11〉。

この領域の系統的研究の質は、AMSTARを用いて判断された〈57〉。本報告書の結果は、元となる研究にもとづいており、他の系統的研究にもとづくものではない（第5章を参照）。

## 結果の統合方法

複数の研究の結果を質的に評価し、より大きなサンプルからデータを得て統計的不確実性について信頼できる査定をするために行われる統計的方法がメタ分析である。結果をプールするためには、複数の研究が同様の方法で行われており、類似した背景要因の分析をするための調整が可能であることが必要である。包摂された研究のうち1件のみが準拠集団を用いていたため、メタ分析をすることができなかった。

## エビデンスの質評価

エビデンスの質は結果の信頼性の程度を示す。研究の質（バイアスの危険性）、矛盾、不正確性、公表バイアスと間接性の評価に基づく。

メタ分析をすることができなかったため、包摂された研究のナラティブ統合によって結論を導いた。エビデンスの評価は、GRADEに基づく正式なエビデンス評価ではなく、全体的な科学的根拠の評価に基づいて行われた。高い、あるいは中程度の質の研究の統合的な評価によってエビデンスが弾劾される要因が発見される時には、エビデンスの質は限定的（低い）ものであるとされる。研究が存在しないとき、存在する研究の質が低い時や同様の質の研究が矛盾する結果を示す場合には、エビデンスの質は不十分（とても低い）とされる。ある方法や効果の信頼性に関する限定的なエビデンスは、科学的支持が全くないということの意味するのではないことには気を付ける必要がある。

## 4. 結果

文献調査により、3773 件の論文要約が得られた。うち、1065 件について、全文を入手した。このうち 1035 件は、包摂の基準に合致しなかったため除外された。残りの 30 件のうち、2 件については中程度の質のものであると判断され、質が高いとされたものはなかった。質的要求を満たす研究の数が少なかったのは、これらの研究には外傷性の揺さぶりが行為者によって自白されたか、あるいは目撃者によって目撃されたかについての情報が記載されていなかったからである。したがって、結果は自白のある外傷性揺さぶりに関する 2 つの研究に基づくものであり、メタ分析もすることができなかった。検討された研究の結果について、本プロジェクトグループにおいては議論が行われた。

### 論文探索のフローチャート図

〈略〉

### エビデンスの質

系統的調査により、以下の評価結果が明らかにされた。

- ・ 三徴候とそれを構成する三つの徴候が外傷性の揺さぶりと関連するというを示す科学的なエビデンスは限定的なものにとどまる（質の低いエビデンス）
- ・ 外傷性の揺さぶりを判別する際の三徴候の診断の正確性を評価するための科学的エビデンスは不十分である（きわめて質の低いエビデンス）

中程度の質の 2 研究は、いずれもフランスで実施された。依拠した事案は、行為者が子どもを揺さぶったと自白したものであった。Vichon らによる研究は、前向き研究であった。2001 年 5 月から 2009 年 2 月までの間に病院に搬送された 2 歳以下の子どもの外傷性頭部損傷の記録に基づいて行われた。この病院の管轄は、人口およそ 400 万人であった〈59〉。研究の対象は 412 件であり、うち 124 件が故意による頭部損傷（IHI）、288 件が事故による衝撃（AT）に分類された。故意による頭部損傷グループ（IHI グループ）のうち、自白があったのは 45 件であった。30 件には外傷性の揺さぶりに関する自白があり、15 件では他の外的衝撃についても自白があった。しかし、行為者がどのように損傷行為を行ったか、あるいはどのような状況で自白が得られたかについての詳細な説明はなかった。このグループの子どもたちは、公の場所で事故による衝撃が目撃された 39 事件（AT グループ）の子どもたちと比較された。

故意による衝撃グループにおいては、45 件中 37 件（82%）で硬膜下血腫がみられた。事故による衝撃グループでは、39 件中 17 件（44%）であった。44 件中 37 件（84%）には網

膜出血がみられた。事故による衝撃グループでは 35 件中 6 件 (17%) であった。45 件中 12 件 (27%) には脳虚血がみられたが、事故による衝撃グループでは 39 件中 1 件 (3%) であった。

Adamsbaum らによる研究は、後ろ向きの観察研究であり、29 の自白のある外傷性の揺さぶり事案 (うち 5 件では、頭部への直接的な衝撃が存在した) と、対照として 83 の自白のない事案が扱われた (60)。研究に包摂されるための基準は、CT スキャンによって明らかにされた硬膜下血腫と、被疑者の自白の存在であった。硬膜下血腫が外傷性揺さぶりグループに包摂されるための基準の 1 つであったため、この調査にあたっては網膜出血の結果のみを見ることができた。

外傷性の揺さぶりに関する自白が存在したグループ (グループ A) においては、24 人の子ども (83%) に網膜出血がみられた。自白のある事件すべてにおいて、揺さぶりは暴力的なものであると説明され (100%)、一部の事件 (55%) では、何度も揺さぶりを行ったとの自白があった。硬膜下血腫の濃度と、揺さぶりの回数との間に有意な関連はなかった。グループ A の 29 件中 14 件では、被疑者がどのように行為を行ったかの詳細な説明が存在した。別のグループ (グループ B) の中には、蘇生のために揺さぶられた子どもや、事故による損傷を受けた子ども、そして症状が生じた原因についての説明がなされていない子どもが含まれていた。したがってこのグループは適切な準拠集団とはいえない。

Vinchon らと Adamsbaum らの研究はいずれも外傷性の揺さぶりが硬膜下血腫と網膜出血の原因となると結論付けている。Vinchon らの研究では、外傷性の揺さぶりについての自白があるグループにおいては、目撃された事故による損傷グループの子どもに比べ、硬膜下血腫と網膜出血、脳虚血のある子どもが多くみられた。Adamsbaum らは行為者が外傷性の揺さぶりについて自白をした子どものグループを、自白のない子どものグループと比べた。しかし、このいずれのグループへの包摂についても、バイアスが生じうる。この 2 つの研究のうち、関連性のある準拠集団があった研究は 1 つのみであったため、メタ分析をすることはできなかった。

2 つの中程度の質の研究と同様、自白についての詳細な説明が存在するような、公表された研究は存在するものの、これらは除外された (不適切な母集団、不適切な研究デザイン) (61、62)。中程度あるいは高度の質の研究が少なかったため、三徴候によって外傷性の揺さぶりを正確に診断できるのか否かについては、判断することができなかった。

〈表 4.1〉 省略

## 5. 考察

検討に入れるための基準を満たす研究は比較的多数あったものの、中程度の質が認められる研究は、文献探索によれば2研究のみであった。この事実には当惑した。なぜなら、外傷性の揺さぶりは非常に重大なものであり、子どもにとっても、その家族にとっても重大な帰結をもたらす出来事だからである。この研究領域は複雑である。しかしながら、だからといって循環論法や、収集したデータの不適切な提示が許されるわけではない。この領域に関する検証においては、この領域の研究が有する方法論的欠陥の特性を検討する必要がある。

Adamsbaum らによる研究と Vinchon らによる研究には、中程度の質が認められた。両研究とも方法論的限界は存在するものの、外傷性の揺さぶりのみによって三徴候が生じるという仮説を支持する。

Vinchon らの研究の前向き研究は、400 件以上の事例に基づくものであった。124 件では、頭部への故意による損傷が、288 件では事故による損傷が存在した。45 件は故意による頭部損傷についての自白があり、うち 30 件では自白により外傷性の揺さぶりのみを行ったとされる事件であった (IHI 群)。

39 件は目撃者のいる事故であった (AT 群)。この研究の特長は、長年にわたって、病院におけるすべての外傷性の事件が登録されていたという点である。さらに、明確に定義づけられた準拠集団が存在することである (目撃証人の面前で自己性の損傷を受けた子ども)。しかしながら、上記の準拠集団の子どもは、やや年齢が上である。本研究の限界の1つは、揺さぶりの出来事がいつ、どのようにして起こったのかに関する詳細な説明が欠けている点である。Vinchon らは三徴候の構成要素を別々に分析した。しかし、Vinchon らは同時に、別の組み合わせから成る三徴候を作り出したのである。硬膜下血腫、網膜出血と、「頭皮の腫脹の不存在」である。

脳への影響に関するデータは研究に登場する。発作、昏睡などである。定義上、外傷性の揺さぶりのみの子ども群には、外的な衝撃の徴候がない事例のみが含まれる。これに対して、事故による損傷群には、外的な衝撃の徴候がある事例のみが含まれる。本プロジェクトのグループは、調査の早期に Vinchon 博士に連絡をとり、いくつかのあいまいな点について明らかにしようとしたが、すべての質問に対する回答が得られたわけではなかった。我々の質問には「網膜出血の定義」「三徴候についての感度、特異度、的中率の計測方法はどのようなものか」「なぜ三徴候について異なる構成要素を選択したのか (脳障害の代わりに「頭皮の腫脹の不存在」を選択した理由)」「嫌疑をかけられた行為者がいかなる場合に自白し、自白の内容はどのようなものだったか」などが含まれていた。

Adamsbaum らの研究は、後ろ向き観察研究であり、外傷性の揺さぶりにつき被疑者が自白した 29 事件を対象とした。14 件については詳細な自白が存在したが、詳細な自白が得ら

れなかった事件の一部では、子どもが脳損傷の症状を見せた後に揺さぶり行為が存在した可能性があった。研究対象とされた事件群は、83 件の自白のない準拠集団と比較対照された。しかし、これは厳密な意味での準拠集団とはいえない。なぜなら自白のない 83 件のうちにも、外傷性の揺さぶりがあった事件が含まれている可能性があるからである。硬膜下血腫がある事件が研究対象とされたので、網膜出血の有無のみが考慮されることとなった。

文献の検証の中で、本プロジェクトグループは三徴候の三つの徴候をもたらさうる様々な症状や出来事を発見した。これらの症状や出来事の一部は、不可逆的な障害にいたることはない、あるいは滅多にないが、三徴候やその三つの徴候の原因が揺さぶり以外にもありうるということについては注意する必要があるだろう。したがって、外傷性の揺さぶりが疑われた事件の捜査においては、これらの他の鑑別診断を考慮する必要がある。社会福祉サービスや裁判システムによる判断は、医学的所見のみならず、他のエビデンスにも基づくものである。

生体力学的研究（補遺 2）の分析からは、矛盾した結果が明らかになった。子どもがこれらの損傷を受けるために必要な最小限の力がどれくらいのものなのかについては、結論を得ることができなかった。

## 方法論的問題

12 か月（平均あるいは中央値は 12 か月以下）の子どもにおける外傷性の揺さぶりの診断についての科学的エビデンスの検証によって、これまで公表されてきた研究の方法論的問題点がいくつか浮かびあがってきた。

## 外傷性の揺さぶりの定義

本プロジェクトは、外傷性の揺さぶりが子どもの損傷の第一次的な原因である場合に関する研究を対象としたが、いくつかの研究においてはより広い定義、例えば故意による頭部損傷がある場合、というようなものを採用していた。したがって、外傷性の揺さぶりを原因とする損傷と、頭部に対する直接の衝撃を原因とする損傷とを区別することが常にできたわけではない。

## 対象をグループ化する際の問題点

次の方法論的問題は、外傷性揺さぶりが常に目撃されていたり、被疑者が自白していたりするわけではなく、外傷性の揺さぶりがあるグループと準拠集団とに事件を適切に分類することは困難であるという点である。つまり、三徴候と外傷性の揺さぶりとの間の関連性を不正確に評価してしまう危険性が存在する。虚偽自白の危険性はあるものの、映像によって

録画されている場合を除き、自白は乳児に実際のところ何が起こったのかについての情報を得るための唯一の手段である。しかし、虚偽自白の危険性があるため、これらの研究における自白の扱いには注意が必要である。

したがって、自白があるという事件のみを選ぶプロジェクトグループの判断には、少なからぬリスクが存在する。司法取引の一環として行われた自白の場合もある。また、強要によって虚偽の自白が行われる場合もある〈63から65〉。

### 臨床と研究における循環論法

社会福祉法の下では、社会福祉委員会はすべての児童虐待（の疑いのある）事件について通知されなければならないのみならず、子どもが危害を受けやすく、保護を必要とするような場合についても通知されなければならない。保険サービスや医療サービスの従事者、歯科医、幼稚園、学校、社会サービスや刑事司法の従事者も、児童虐待の疑いがある場合には通知をしなければならない（社会福祉法14章第1節）。

多くのケースにおいて、外傷性の揺さぶりの疑いがある事件の捜査をするのは、児童保護チームである。長年かけて、これらのチームは一定の症状や徴候がある場合、子どもの症状にほかの原因がない場合には、外傷性の揺さぶりと関連付ける基準を作り上げてきた〈66、67〉。これらの基準の一部は、養育者の信頼性にかかわる。養育者は、子どもの症状について「受け入れられる」説明を与えることができなければ（例えば、子どもが低位から落下し、外的な損傷がないというような場合）、信用できないと判断される。供述の変遷（例えば、養育者が当初は揺さぶりを否認したが、その後揺さぶったことを自認した場合。しかし、その揺さぶりは子どもが息を止めたり意識を失ったりしたあとにしか行っていないと供述した場合）があるばあいには、養育者の信頼性は低下する。子どもが急変した（呼吸困難や無呼吸）ため揺さぶられたというときは、揺さぶりの前に子どもの状態に問題があり、揺さぶりによって症状が起きたわけではないと推測するのが合理的である。しかし、このような出来事の説明が「受け入れられる」ものであるととらえられなければ、その事件は外傷性の揺さぶりによるものであると結論付けられてしまうのである。

児童保護チームの基準は、基本的には臨床的アプローチに準拠している〈66、67〉。のちに三徴候と外傷性揺さぶりと関連を系統的に研究する研究者たちによって、その基準が検証されない場合には問題が生じる。つまり、児童保護チームの解釈が科学的な調査と仮説の検証を規定することになってしまう。そして、このことは、慣習的なアプローチが検証されることなく、強化されてしまうことを意味する。さらに、研究が行われる前に、研究によって検証されるべき問題の答えが出されている場合（つまり、三徴候の症状と徴候と外傷性の揺さぶりととの間の関連性が児童保護チームの基準に基づいて説明されてしまっている場合のように）、循環論法が生じる。この文脈で用いられるとき、この論法にはバイアスの高いリスクがある。そして、何が比較されようとしているのかが研究者にもわからないという

状況が生じるのである（つまり、外傷性による揺さぶり群には、揺さぶられていない子どもが含まれている可能性があり、準拠集団には揺さぶられている子どもが含まれている可能性がある）。これらの集団を比較して得られる感度、特異度、的中率は、誤った結論につながる。誤った計測にもつながる。

このような循環論法を避けるためには、研究対象となるケースと統制集団のケースとが明確に区別されねばならない。本プロジェクトグループは揺さぶりの目撃（又はビデオ録画）があった場合、あるいは子どもを揺さぶったことについての詳細な自白がある場合のみが研究対象になりうると考えた。

### 診断方法

硬膜下出血がいつ生じたのかという判断は不確実である。さらに、12 か月以下の子どもの硬膜下出血の特徴は成人と異なるため、この判断は子どもの場合にはより不確実である。子どもや乳児の硬膜下出血は、体液が上層に、凝固した血液が下層にある混合物から成る。硬膜下出血が亜急性であるとき、この層は様々な希釈の度合いを示す〈47〉。CT や MRI スキャンを用いることによってより確実な診断が可能になっているものの〈46〉、やはり異なったパターンや、一部重なるパターンがみられる時には、出血の時期を判断する場合には注意が必要である。

コントロールされた実験研究や観察研究においても、系統的誤差が生じる。なぜなら、観察者が複数いれば、彼らは常に同じ観察をするとは限らないし、観察した内容の解釈も異なりうるからである。観察者がどれだけよくトレーニングを受けているのかによって、ある研究における調査者の観察や解釈に違いが生じうる。観察や評価一般のみならず、外傷性の揺さぶりが疑われる事案における症状や症候の検査や診断についてもこのことは当てはまる。

例えば、ある研究においては、網膜出血についての観察者の解釈には大きな幅がみられた（観察者間の一致度が低かった）〈51〉。

### 他の批評的研究の結果との比較

本プロジェクトグループは、本報告書と同様の問題について検討する系統的文献研究7つを発見した〈68 から 74〉。これらの文献は、本報告書の「結果」には含まれていない。しかしながら、これらは科学的研究にしばしば引用されている文献であることから、検討し評価した。すべての系統的研究は本研究グループによって、質が低い（高いバイアスの危険性がある）と判断された。大多数のものは、三徴候が存在した場合に子どもの揺さぶりがあったと判断する研究に依拠していた（循環論法である。「臨床と研究における循環論法」の項を参照）。さらに、外傷性の揺さぶりが特定されず、より一般的な AHT という用語が用いられており、この用語に何が含まれるのかについて詳細な説明が存在しないという欠点も見られた。

## 6. 将来的な研究の課題

様々な年齢の子どもを様々なレベルで揺さぶるようなランダム化実験を行うことは不可能である。ダミー人形や、種々の内蔵式測定装置を装着したモデルを使った生体力学的研究によって、子どもに対する機械力の影響を調査することが試みられてきたが、矛盾した様々な結果が得られている。さらに、様々な理由から、動物実験の結果を乳児に当てはめることは難しい。

したがって、本プロジェクトグループにおいては、暴露（つまり揺さぶり）が起こったと推測されるケースについての観察研究のみを対象とせざるを得なかった。最も信頼性があるのは前向きのコホート研究である。そして外傷性の揺さぶり群にふくまれるべき対象は、理想的には、行為者が詳細な自白を行い、さらに自白が得られた状況についての記録が行われているというケースのみである。

検討した研究において、準抛集団に含まれた子どもは、外傷性の揺さぶり群の子どもに比べて、相当程度年齢が高かった。2か月の乳児と8か月の子どもとを比べると、脳、頭蓋骨、そして頸部の筋肉の状態は異なる。0か月から2か月の乳児は、より大きな乳児に比べて揺さぶりによる損傷への耐性はより低いと推定されている。2つのグループ（外傷性の揺さぶりグループと事故による損傷グループ）の比較を行う場合、年齢が一致していなければ選択バイアスが生じ、不正確な結果が導かれることになる。一致した年齢のグループを比較する研究は、感度、特異度、的中率の測定を可能にするだろう。そうすれば、三徴候が外傷性の揺さぶりに関連する可能性があるという意見は、より高い確実性をもって主張されうるだろう。

経膈分娩による硬膜下出血と網膜出血の発生の病理生理学についての詳細な知見は存在しない。分娩に伴う出血の多くには症状がなく、数か月たつと消滅する（吸収される）が、出血が水腫に発展する場合も存在する〈19、30、36〉。分泌液の限局性集積が皮膜組織に生じ、そこに小血管が形成され、その後新たな出血（再出血）が起こり、慢性的に硬膜下の液体蓄積が生じる。再出血によって症状が出るケースもあるという可能性は否定できない〈19、36〉。このことは子どもが急に脳障害の徴候（昏睡、呼吸困難、発作）を呈する理由の一つになりうるし、この時養育者は病院に駆け込むだろう。仮説的に言えば、このような再出血は自然発生的に起こることもあれば、ごく小さい衝撃によって生じることもあるだろう。したがって、硬膜下出血と網膜出血の病理生理学と、自然な発生要因について研究することは火急の課題である。さらに、よりよい生体力学モデルを開発することによって、外傷性の揺さぶりについての理解は深まるであろう。例えば、脳と頸椎に対する外傷性の揺さぶりの影響を考慮したモデルの開発などが考えられる。

## 科学的不確実性を解決するためには、どうすればよいか？

この領域における科学的不確実性の理由は様々である。したがって、それに対応するためにも様々な方策が必要である。将来的な研究の方向性に関して領域全体が協力すること、正しい方法論に基づいて研究がおこなわれ、研究がどのように行われたのかを詳細に記載することなどが必要であろう。

## 国際的な調整

領域において診断を改善するためには、国際的なレベルでの大規模な調整を行い、適切なサイズの研究対象の母集団を確保する必要がある。この領域の研究者はどの課題の検討がもっとも緊急を要するものであるか合意し、より大規模な研究を、類似した研究デザインを用いて行う必要がある。そうすることで研究結果を簡単に比較することができる。さらに、自白があり、十分に記録がなされているケースの国際的なデータベースが必要であろう。

## 優先されるべき研究課題

脳、頸椎、眼球の診断画像の診断的正確性を高めるための研究は特に必要であろう〈75〉。観察された損傷の自然経過を研究するためのよりよい方法を開発する必要もある。分娩に伴う新生児の出血の鑑別診断についても研究がなされ、自然経過の判別が行われる必要がある〈22、36、76、77〉。三徴候の病理生理学の理解を増進するための研究も必要であろう。精緻化された生体力学モデルは、外傷性の揺さぶりに関する理解を促進するだろう。

さらに、研究はあらかじめ定められた質保証の基準をクリアする必要がある。研究者が損傷の原因であると疑われているメカニズムについて知っていないし、診断の正確性が判断できるような方法で結果が提示されなければならない。後者は、研究対象となっているグループと準拠グループとの双方において、個々の結果が評価できなければならないということを意味する。

この領域でエビデンスを発見することが難しかった理由のひとつは、多くの研究において方法と結果とが正確に記述されていなかったことにある。将来的に研究が行われる場合には、下記の勧告と要請とが満たされる必要がある。これらが満たされることによって、研究の質を評価することができるし、メタ分析を行うことも可能になるだろう。

今後の研究は、次のように行われる必要がある。

- ・ 自白があり、十分に記録が行われているケースについて、信頼できる方法論を用いた前向きな観察研究が行われなければならない。虚偽自白のリスクは、最小限に抑えられなければならない。
- ・ 研究対象となるグループと、準拠グループとの年齢が一致している必要がある。

- ・ 研究の素材がいかに収集されたかが詳細に記述される必要がある。検討のテクニックの記録や、鑑別診断を除外するために行われる補足的な調査がある場合には、その詳細も記録されねばならない。
- ・ 疑われている原因について、症状や徴候の観察者が知らなかった（気づいていなかった）ことが示されなければならない。そして盲検はどのように実現したのかが説明されねばならない。
- ・ 生データ、感度、特異度と信頼区間が示されねばならない
- ・ 適度な大きさの素材に基づいており、統一的な検査方法が通じて用いられていなければならない。
- ・ 自白の詳細を記述し、何が自白されたのか、どのような状況下で自白が行われたのかが示されなければならない。

\* 訳注: 本稿は、SBU (Swedish Agency for Health Technology Assessment and Assessment of Social Services) Assessment/ Report 255 E (2016), Traumatic Shaking: The role of the triad in medical investigations of suspected traumatic shaking-A systematic review の英語版を翻訳者の責任において日本語に翻訳した私訳である。文献リストは省略したが、文中の文献番号は残した。

図表や補遺は省略した。元の報告書は、下記より入手可能である。

[http://www.sbu.se/contentassets/09cc34e7666340a59137ba55d6c55bc9/traumatic\\_shaking\\_2016.pdf](http://www.sbu.se/contentassets/09cc34e7666340a59137ba55d6c55bc9/traumatic_shaking_2016.pdf)