



母体の尾骨突出を認めた新生児頭蓋骨陥没骨折の2例

西田, 浩輔
藤岡, 一路
森沢, 猛
米谷, 昌彦
飯島, 一誠

(Citation)

日本周産期・新生児医学会雑誌, 55(3):848-851

(Issue Date)

2019

(Resource Type)

journal article

(Version)

Version of Record

(URL)

<https://hdl.handle.net/20.500.14094/90007871>



症例報告

母体の尾骨突出を認めた新生児頭蓋骨陥没骨折の2例

(平成30年12月29日受付)

(平成31年4月27日受理)

神戸大学大学院医学研究科内科系講座小児科学分野¹⁾、加古川中央市民病院小児科²⁾西田 浩輔^{1) 2)} 藤岡 一路¹⁾ 森沢 猛²⁾ 米谷 昌彦²⁾ 飯島 一誠¹⁾

Key words

Congenital Skull Fracture

Neonate

Birth trauma

要旨 従来新生児における頭蓋骨陥没骨折は、妊娠中の母体に対する外傷や、分娩時の鉗子および介助者の手による児頭への圧迫に起因するとされていた。しかし近年、妊娠期間中ないしは分娩時に児頭が母体の産道の一部で圧迫されて起こるという機序が重要視されるに至っている。今回我々は、母体に外傷の既往および鉗子分娩の既往のない新生児頭蓋骨陥没骨折の2例を経験した。2例とも正期産児(38週, 40週)であり、母体尾骨突出による遷延分娩のため吸引分娩で出生した。両児とも、頭部CTにて頭蓋内病変がないことを確認の上、各々日齢21、1に頭蓋骨整復術を行い、神経学的後遺症を認めず軽快退院となった。外傷を伴わない先天性新生児頭蓋骨陥没骨折の成因に関する文献的考察を加えて報告する。

緒言

新生児の頭蓋骨陥没骨折は、4,000～10,000出生に1人の頻度で生じる、比較的まれな分娩損傷の一つとされている。その原因として、分娩介助器具を用いた分娩後に生じる骨折(Instrument-associated depressed skull fracture)と、外傷の関与しない、いわゆる先天性の新生児頭蓋骨陥没骨折(Spontaneous depressed skull fracture)に大別される¹⁾。とりわけ、外傷の関与しない新生児頭蓋骨陥没骨折の頻度は非常に稀で、10,000出生に1人の頻度と報告されており²⁾、spontaneous intrauterine depressed skull fracture³⁾、intrauterine depressed skull fracture⁴⁾、congenital depression of the neonatal skull²⁾、congenital moulding depressions of the skull⁵⁾などと、用語にも統一を欠いている現状があり、その病態は十分に明らかになっているとは言えない。今回我々は、母体に外傷の既往および鉗子分娩の既往のない新生児頭蓋骨陥没骨折の2例を経験したため、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例

症例1：在胎38週4日、出生体重3,632g、Apgar scoreは1分値9点、5分値10点で出生の女児(第3子)。
妊娠分娩経過：自然妊娠成立後、妊娠経過に特記すべ

き異常を認めなかった。分娩時、母体尾骨突出があり、怒責にて児頭下降を認めなかったため、吸引分娩を行い出生となった。仮死なく出生するも、右前頭部に陥凹を認めたため、紹介入院となった。

入院時所見：活気良好で神経学的異常認めなかった。右前頭部に4.5×5cm、深さ2cmの陥没骨折を認めた。その他身体所見に異常を認めなかった。入院時の頭部CT(図1a, b)では右前頭部に陥没骨折を認めるものの、明らかな頭蓋内病変は認めなかった。

入院後経過：明らかな神経学的異常を認めず、哺乳も良好であったため、自然修復を期待し保存的加療により経過観察を行った。しかし、陥没の程度は若干改善したものの完全には回復しなかったため、日齢21に頭蓋骨整復術を施行した。術後経過は良好であり、日齢30に軽快退院となった。

症例2：在胎40週3日、出生体重3,412g、Apgar scoreは1分値9点、5分値9点で出生の女児(第3子)。

妊娠分娩経過：自然妊娠成立後、妊娠経過に特記すべき異常を認めなかった。分娩時、母体尾骨突出があり、児頭下降を認めなかったため、吸引分娩にて出生となった(過去2回の分娩も吸引分娩を要していた)。出生に際して「ポコン」という音が聞こえたと分娩記録に記

神戸大学大学院医学研究科内科系講座小児科学分野
〒650-0017 神戸市中央区楠町7-5-1

Department of Pediatrics, Kobe University Graduate School of
Medicine, Kobe, Japan
7-5-1 Kusunoki-cho, Chuo-ku, Kobe 650-0017, Japan

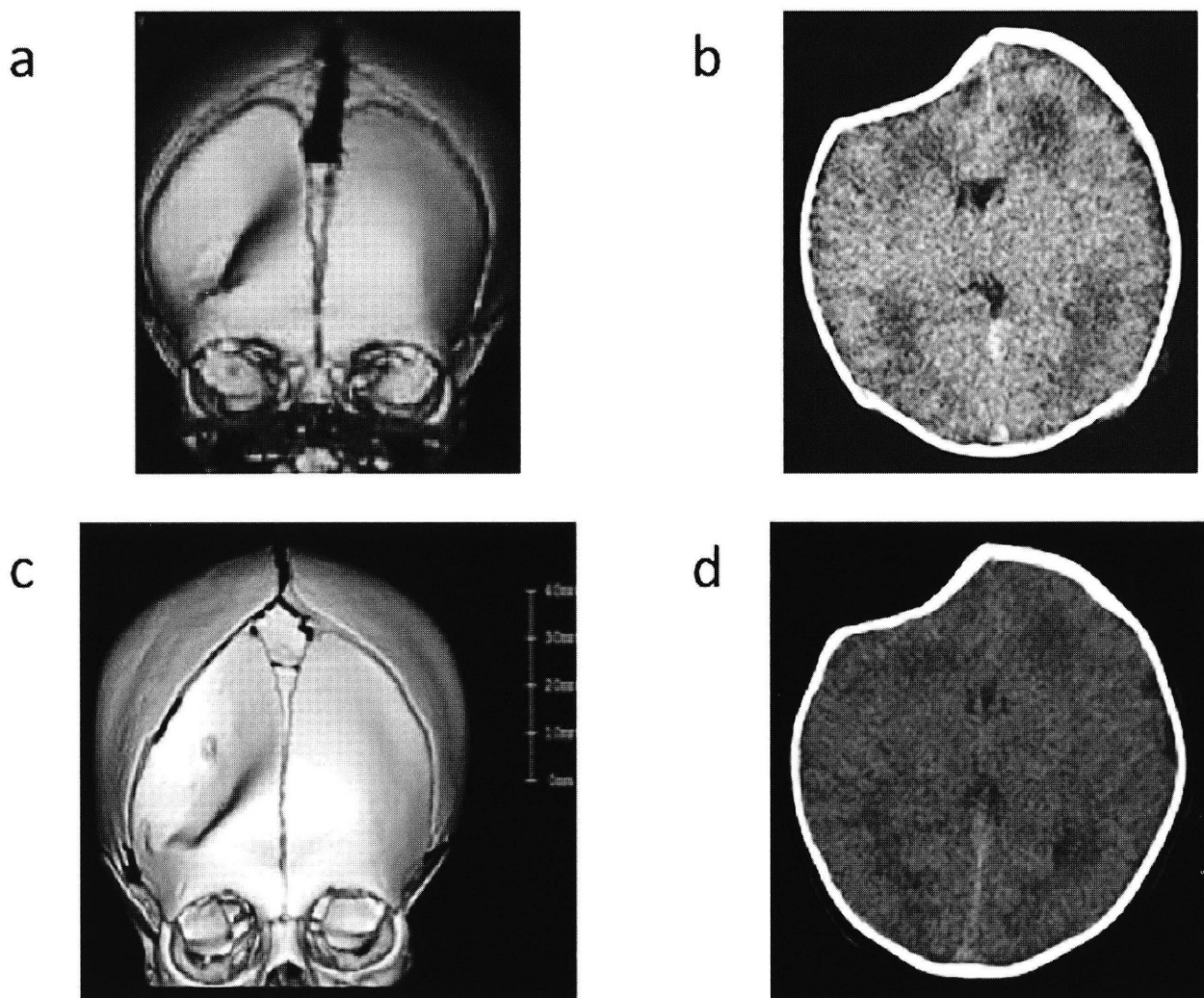


図1 入院時頭部CT

症例1 a：三次元再構成画像, b：体軸断面画像

症例2 c：三次元再構成画像, d：体軸断面画像

ともに頭部CTにおいて、右前頭部に陥没骨折を認めるものの、明らかな頭蓋内病変は認めなかった。

載があった。仮死なく出生するも、右前頭部に陥凹を認めたため、紹介入院となった。

入院時所見：活気良好で神経学的異常を認めなかった。右前頭部に4×3cm、深さ1cmの陥没骨折を認めた。その他身体所見に異常を認めなかった。入院時の頭部CT（図1c, d）では右前頭部に陥没骨折を認めるものの、明らかな頭蓋内病変は認めなかった。

入院後経過：入院後、明らかな神経学的異常を認めず、哺乳も良好であった。症例1の経験から短期的な自然回復は期待できないと考え、日齢1に頭蓋骨整復術を施行した。術後経過は良好であり、日齢16に軽快退院となった。

考察

新生児における頭蓋骨陥没骨折の多くは、妊娠中の母体に対する外傷や分娩時の、鉗子、介助する産科医の手による児頭への圧迫に起因するとされていた。し

かし近年、妊娠期間中ないしは分娩時に児頭が母体の産道の一部で圧迫されて起こるという機序が重要視されている^{3)~7)}。

外傷に起因しない新生児頭蓋骨陥没骨折の発生機序として、Axtonらは、過去に報告された非外傷性の先天性頭蓋骨陥没例18例と、自験例31例について検討を行い、これら病因が主として児頭が子宮内において母体の仙骨岬角や恥骨結合などにより数カ月圧迫された結果によるものであると考察している⁵⁾。更に彼らは、自験例31例が全例アフリカ系女性からの出生であった点、また骨盤部レントゲンを撮影した症例の多くが相対的に小さな骨盤であったという点から、母体の体格がリスクファクターとなる可能性を推察している。また興味深いことに、新生児頭蓋骨陥没骨折の児を複数回出産した3例の母親が報告されており、その内訳は11経産の母における最後の2人、2経産の母に

における2人、4経産の母における最後の3人となっている。このことから、頭蓋骨陥没骨折の児を出生した母においては、以降の同胞が同疾患に罹患するリスクが上昇すると報告している⁵⁾。Garza-Mercadoらは、多産、低カルシウム食、アフリカ女性に特有のある種の骨盤形態などが新生児頭蓋骨陥没骨折の危険因子であると報告している⁴⁾。Veeravaguらは過去の報告より、羊水過少・児頭骨盤不均等を合併した経陰分娩症例、分娩中の胎児機能不全等による緊急帝王切開後の症例などを報告し、胎児と母体骨盤の何らかの異常が組み合わさることによって胎児頭蓋骨骨折が生じる可能性を考察している⁸⁾。また、母体の要因として、腰椎の外骨症、子宮筋腫、骨盤骨折、Ehlers-Danlos症候群、前期破水、児の要因としては、巨大児、胎児自身の足、双胎児の他方の足などが児頭を圧迫した症例、先天性骨形成不全、頭蓋瘻も報告されている^{6) 9) ~11)}。

陥没骨折の部位に関しては、多くの報告で頭頂部が最多であり、次に前頭部が多い。この部位で骨折が多いことは、骨盤入口部と胎児の頭部が接する位置で骨折が生じやすい可能性を示唆している^{3) 8)}。骨盤入口面は仙骨岬角中央と恥骨結合を結ぶ産科的真結合線が最短径であり、児頭骨盤不均衡の診断に重要となる部位である。一方、骨盤出口面は尾骨先端と恥骨結合下縁を結ぶ平面であり、児が通過する際に尾骨が後方に後退し前後径が拡大する¹²⁾。尾骨は産道の一部を形成し分娩にも関わる部位であるが、尾骨突出が頭蓋骨陥没骨折の直接の原因とする報告は検索した限りで認めなかった。

一方、分娩介助器具に起因する頭蓋骨陥没骨折と自然発症の頭蓋骨陥没骨折を比較した研究では、器具に起因する陥没骨折では頭蓋内病変の合併を認める(15/50, 30%)一方、自然発症の陥没骨折では頭蓋内病変の合併は認めなかった(0/18, 0%)。興味深いことに、器具に起因する頭蓋骨陥没骨折の全例が鉗子分娩またはそれに引き続いて使用された器具によって生じており、吸引分娩のみによる陥没骨折の発症は認めなかった。予後についても、器具に起因する陥没骨折のうち頭蓋内病変を合併した場合は重度の運動障害を残した症例がある一方で、自然発症の新生児頭蓋骨陥没骨折については後遺症を残した症例は認めなかった³⁾。

治療方針については、自然治癒例が報告されている一方、合併症なく外科的に治療された症例も報告されており、未だ結論がでないのが現状である。そもそも症例自体が非常に稀であり、その自然経過が十分に明らかになっていないため、外傷に起因する陥没骨折と同様に扱われ、手術的に整復されている症例が多いと考えられる²⁾。Abbassiounらは、頭部CTにて頭蓋内病変が存在しない場合には、1~2日経過観察し自然挙上を待ち、その後母指による圧迫などの用手的整

復、産科用吸引器によって陰圧をかけることによる整復を行い、最後に外科的適応を考えるべきであるとしている¹³⁾。Dunnは、新生児期から乳児期早期の成長は極めて急速なため、子宮内圧迫による陥没骨折は生後2~3カ月間にその90%が自然に正常へと修復され、残りの10%も早期から適切な姿勢をとることにより、ほぼ100%が正常化されると報告している¹⁰⁾。Hungらは新生児頭蓋骨陥没症例に対して、陥没の深さが5mm未満の群に対しては保存的に経過観察し、5mm以上の群に対しては吸引で整復を試みるという方針で治療した結果、8例の患者において6カ月以内に自然整復を認め、残りの14例に対して吸引整復を行い13例において完全整復を達成することができたと報告している¹¹⁾。Steinbokらは、頭蓋陥没骨折の児に対して外科的治療を試みた群と、外科的治療を行わなかった群において、痙攣の発症頻度、神経学的欠損、美容上の問題のいずれにおいても差はなかったと報告し、外科治療の一番の適応は美容上の問題であり、それはむしろ頭蓋のリモデリングが幼児ほど成功しない年長児において考慮されるべきであると指摘している¹⁴⁾。

我々の2症例は、母体に外傷歴がなく、また鉗子の使用もないことから、母体の尾骨突出が新生児陥没骨折の発症に影響した可能性を考えたが、症例1は10年以上前の症例であり既に紙カルテが廃棄されていたため、また症例2は院外出生児であったため、骨盤部レントゲン写真などの詳細な母体情報を入手することは困難であり、原因の特定には至らなかった。治療方針に関しては、症例1は初期に経過観察を行ったものの、改善を認めず外科的に整復した。また、症例2は症例1の経験に基づき経過観察を行わずに外科的整復を選択した。症例1, 2ともに、比較的大きく深い陥没であったため、手術適応は満たしていると考えるが、既報のごとく自然回復する可能性もある疾患であり、治療方針の確立のためには更なる症例の蓄積が必要であると考えている。

結語

母体に外傷の既往および鉗子分娩の既往のない新生児頭蓋骨陥没骨折の2例を経験し、新生児期に手術的に整復を行った。外傷を伴わない先天性新生児頭蓋陥没骨折の成因を考慮する場合、母体情報の収集が極めて重要である。

利益相反について

今回の論文に関連して、開示すべき利益相反状態はありません。

著者役割：

西田浩輔、藤岡一路：論文に関する研究の構想、計画作成に関与。

森沢猛, 米谷昌彦, 飯島一誠: 論文の執筆に関与.

文 献

- 1) Nakahara T, Sakoda K, Uozumi T, et al. : Intrauterine depressed skull fracture. A report of two cases. *Pediatr Neurosci* 1989 ; 15 (3) : 121-124
- 2) Ben-Ari Y, Merlob P, Hirsch M, et al. : Congenital depression of the neonatal skull. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 1986 ; 22 (4) : 249-255
- 3) Dupuis O, Silveira R, Dupont C, et al. : Comparison of "instrument-associated" and "spontaneous" obstetric depressed skull fractures in a cohort of 68 neonates. *Am J Obstet Gynecol* 2005 ; 192 (1) : 165-170
- 4) Garza-Mercado R : Intrauterine depressed skull fractures of the newborn. *Neurosurgery* 1982 ; 10 (6 Pt 1) : 694-697
- 5) Axton JH, Levy LF : Congenital Moulding Depressions of the Skull. *Br Med J* 1965 ; 1 (5451) : 1644-1647
- 6) Alexander E, Jr., Davis CH, Jr. : Intra-uterine fracture of the infant' s skull. *J Neurosurg* 1969 ; 30 (4) : 446-454
- 7) Loeser JD, Kilburn HL, Jolley T : Management of depressed skull fracture in the newborn. *J Neurosurg* 1976 ; 44 (1) : 62-64
- 8) Veeravagu A, Azad TD, Jiang B, et al. : Spontaneous Intrauterine Depressed Skull Fractures : Report of 2 Cases Requiring Neurosurgical Intervention and Literature Review. *World Neurosurg* 2018 ; 110 : 256-262
- 9) Preston D, Jackson S, Gandhi S : Non-traumatic depressed skull fracture in a neonate or 'ping pong' fracture. *BMJ Case Rep* 2015 ; 2015
- 10) Dunn PM : Congenital postural deformities : perinatal associations. *Proc R Soc Med* 1972;65 (8) : 735-738
- 11) Hung KL, Liao HT, Huang JS : Rational management of simple depressed skull fractures in infants. *J Neurosurg* 2005 ; 103 (1 Suppl) : 69-72
- 12) 荒木日出之助 : 骨盤構造と分娩との相関. *産科と婦人科* 1983 ; 50 (4) : 692-694
- 13) Abbassioun K, Amirjamshidi A, Rahimizadeh A : Spontaneous intrauterine depressed skull fractures. *Childs Nerv Syst* 1986 ; 2 (3) : 153-156
- 14) Steinbok P, Flodmark O, Martens D, et al. : Management of simple depressed skull fractures in children. *J Neurosurg* 1987 ; 66 (4) : 506-510

Spontaneous congenital depressed skull fracture with maternal tailbone protrusion. Report of Two Cases.

Kosuke Nishida^{1) 2)}, Kazumichi Fujioka¹⁾, Takeshi Morisawa²⁾, Masahiko Yonetani²⁾, Kazumoto Iijima¹⁾

Department of Pediatrics, Kobe University Graduate School of Medicine, Kobe Japan¹⁾,

Department of Pediatrics, Kakogawa Central Hospital, Kobe, Japan²⁾

Background: The incidence of congenital depressed skull fractures is approximately 1 per 10000 births. This 'ping-pong ball' fracture occasionally require surgical intervention. The known etiologies are birth trauma such as maternal abdominal trauma during pregnancy or direct oppression by forceps or obstetrician's hands during labor. Besides, 'spontaneous' depressed skull fractures are extremely rare. Herein, we describe two cases of 'spontaneous' congenital depressed skull fractures detected after birth.

Case Reports: Case 1 (38 gestational week 4 days, birth weight of 3632g, Apgar scores 9/10, female) and Case 2 (40 gestational week 3 days, birth weight of 3412g, Apgar scores 9/9, female) were term infants who were delivered vaginally by using vacuum extractor due to difficult fetal decent. The depressed skull fractures were found at birth in both cases. The sizes, depth, and locations of fractures were 4.5x5cm, 2cm, right frontal (case1) and 4x3cm, 1cm, right frontal (case2). No infants exhibited neurological symptoms, and brain CT disclosed no intracranial involvement except depressed fracture.

Both infants underwent open craniotomy and elevation of their depressions on day 21, 1 and discharged on 30, 16 respectively, without any neurological deficits.

Intriguingly, maternal tailbone protrusion preventing fetal decent were noticed in case 1 and 2, those were reported as the causes.

Conclusions: Congenital depressed skull fracture should be acknowledged even in cases without evident history of birth trauma. Neurosurgical intervention safely underwent in our cases without any neurological sequelae.