



Title	Fetal Echocardiographic Assessment of Endocardial Fibroelastosis in Maternal Anti-SSA Antibody-Associated Complete Heart Block
Author(s)	青木, 寿明
Citation	大阪大学, 2012, 博士論文
Version Type	
URL	<a href="https://hdl.handle.net/11094/58926">https://hdl.handle.net/11094/58926</a>
rights	
Note	著者からインターネット公開の許諾が得られていないため、論文の要旨のみを公開しています。全文のご利用をご希望の場合は、 <a href="https://www.library.osaka-u.ac.jp/thesis/#closed">https://www.library.osaka-u.ac.jp/thesis/#closed</a> 大阪大学の博士論文について <a href="https://www.library.osaka-u.ac.jp/thesis/#closed">https://www.library.osaka-u.ac.jp/thesis/#closed</a> をご参照ください。

*The University of Osaka Institutional Knowledge Archive : OUKA*

<https://ir.library.osaka-u.ac.jp/>

The University of Osaka

【123】

氏名	青木 寿明
博士の専攻分野の名称	博士 (医学)
学位記番号	第 24989 号
学位授与年月日	平成 24 年 1 月 24 日
学位授与の要件	学位規則第 4 条第 2 項該当
学位論文名	Fetal Echocardiographic Assessment of Endocardial Fibroelastosis in Maternal Anti-SSA Antibody-Associated Complete Heart Block (母体抗 SSA 抗体陽性の先天性完全房室ブロック患者における心内膜線維弾性症の胎児心エコー図での評価)
論文審査委員	(主査) 教授 大菌 恵一 (副査) 教授 小室 一成 教授 澤 芳樹

#### 論文内容の要旨

##### 〔目的〕

SLE などの膠原病を持つ母から生まれた児に完全房室ブロックを発症し、生後にペースメーカー治療を要することがある。その原因として母体中の抗 SSA 抗体による児での抗原抗体反応が報告されている。また Nield らは母体抗 SSA 抗体陽性の完全房室ブロックの児に心内膜線維弾性症などの心筋症が合併したと報告しており、それらの症例の多くが周産期や生まれて数年してから心不全が原因で死亡している。しかしその頻度、発症時期、機序などまだ不明な点が多い。母体抗 SSA 抗体陽性の完全房室ブロックの胎児 12 例のうち 5 例に心内膜線維弾性症の合併を認めた。本研究の目的はその臨床的特徴、予後について明らかにすることである。

〔方法ならびに結果〕

【方法】対象は1985年から2005年までに大阪府立母子保健総合医療センターで診断された母体抗SSA抗体陽性の先天性房室ブロックの胎児12例。方法は後方視的に診療録、胎児心エコー図、母体中の抗SSA抗体のうち対応抗原の異なる52kD抗SSA抗体と52kD抗SSA抗体の抗体価を解析した。

【結果】観察期間は中央値11年。先天性完全房室ブロック12例のうち5例が死亡し、すべて心内膜線維弾性症を合併、残り7例は生存し心内膜線維弾性症を合併していなかった。上記は剖検でも確認された。死亡例の死亡時期はそれぞれ胎児期、生後1日、生後5日、3歳、15歳であった。6例が胎児水腫を呈し、うち5例が死亡した。

胎児心エコー図で在胎30週時における胸部径に対する心臓径（CTAR＝心臓の大きさを反映）、胎児の心室拍数（FHR）、左室、右室の収縮力（LVFS、RVFS）、心内膜線維弾性症では心内膜の線維化による肥厚、心筋の菲薄化をきたすことから心内膜の厚さに対する心筋全体の厚さを除した値（心内膜厚／心筋壁厚）を左室、右室（LE/W、RE/W＝大きければ心内膜線維弾性症を示唆する）で測定した。それを生存例（心内膜線維弾性症非合併例）、死亡例（心内膜線維弾性症合併例）、コントロール群の3群で比較した。生存群、死亡群でコントロールに比べ有意にCTARが大きく、FHRは低く、LE/Wは大きかった。LVFS、RVFSは3群で違いはなかった。RVFSは死亡群で生存群、コントロール群に比べ有意に大きかった。死亡群と生存群でのLE/WとRE/Wの関係をみると死亡例では両者が大きく、生存例ではLE/Wのみが大きかった。右室の病変が予後に影響する可能性を示唆した。

異なる対応抗原に対する抗体である52kD、60kD抗SSA抗体は12例すべて陽性であった。生存例、死亡例でその値の違いはなかった。

〔総括〕

母体抗SSA抗体陽性の完全房室ブロックの胎児12例のうち5例に心内膜線維弾性症の合併を胎児心エコー図で観察し得た。心内膜線維弾性症を合併すると致死的である。抗体価ではEFEの発症は予測できない。右室の心内膜の輝度上昇、収縮低下が増悪の徴候を予測できる可能性がある。

## 論文審査の結果の要旨

膠原病を持つ母から生まれた児に完全房室ブロックを発症することが知られている。近年心内膜線維弾性症という心筋症を合併する報告が散見されるが、その発症時期・予後は不明であった。完全房室ブロックに合併した心内膜線維弾性症5例を胎児心臓超音波で観察することにより、①胎児期から上記の心筋症が発症していること、②心内膜線維弾性症を合併すると致死的であること、③胎児期の右心室の病変がその予後に影響することを明らかにした。心合併症の発症予防には早期の出生前診断・治療が不可欠である。

以上の内容は、学位の授与に値するものと認める。