

表 2-3 尿道下裂の環境要因に関する報告

著者 年 国	研究のデザイン	対象	主な調査項目	有意の関連要因	関連なし	文 献
Garcia AM, et al. 1999 スペイン	Hospital based Case-control study (1993 - 1994)	症例: 8病院で出生した先天奇形 (神経系、循環器系、唇裂、口蓋裂、尿道下裂、筋骨格系、その他) 261例 対照: 同病院で症例出生日に最も近い日に出生した児、261	農薬曝露	母親の農作業-妊娠前&第1三半期 3.16 (1.11-9.01) 父親の殺虫剤曝露 1.49 (0.94-2.35)	父親の農作業	24

表3-1 尿道下裂と妊娠経過や家族歴との関連に関する報告

著者 年 国	研究のデザイン	対象	主な調査項目	有意の関連要因	関連なし	文 献
Kaellen B, et al. 1982 スウェーデン	Register based case-control study -1973	スウェーデンの先天 奇形登録 (生後一週 間以内に診断された 先天奇形、死産・生 産を含む) と出生登 録 (全出生の情報を 含む。先天奇形はICD ナンバード分類) 症例: 68例	合併奇形 ホルモン剤抗生物 質などの薬剤使用	停留精果 先天性疾患 口唇裂・口蓋裂 鎖肛 神経管の異常		3
Angerpointner TA 1984 ドイツ	Hospital based survey (1970 - 1979)	症例: ミュンヘン大学 小児病院で治療を受 けた尿道下裂児。 対照: ババリアの住 民	重症度分類 I°: 亀頭部、II°: 陰莖 部、III°: 陰囊 部、IV°: 会陰 部、両親の職業へ の曝露、先天奇形 の家族歴、母親の 妊娠経過など	農村に居住(III°) p<0.0005 季節性変動(III°) p<0.05 早産(III°, IV°) p<0.0005 第1子(III°) p<0.05 低出生時体重(III°) p<0.0005 若い母(III°) p<0.005 農夫の妻(III°) p<0.005 切迫流産 p<0.025	母親の先天異常 妊娠中の新たな疾患 死産 月経異常 他先天奇形の家族歴	4
Calzolari E, et al. 1986 イタリア	Register based case-control study (1978 - 1983)	症例: 北イタリアのエ ミリア・ロマーニャ 地域の先天奇形登録 (42の病院での出生 児) に登録された尿 道下裂 168例 対照: 同時期に登録さ れた新生男児 378例	母親の職業 妊娠経過	早い月経開始 p<0.001 切迫流産 p<0.05 妊娠中のプロゲステロン製 剤 p<0.05 低出生時体重 p<0.001 早産 p<0.001	季節性変動 両親の年齢 結婚の形態 同族結婚 月経周期 経口避妊薬 出産回数 流産の既往 毒物への曝露 放射線曝露 母親の疾患 合併奇形	8

表 3-2 尿道下裂と妊娠経過や家族歴との関連に関する報告

著者 年 国	研究のデザイン	対象	主な調査項目	有意の関連要因	関連なし	文 献
Swerdlow AJ 1988 イギリス	Register based case-control study (1977 - 1978)	the Office of Population Censuses and Statistics 症例: 出生登録に登録 された全尿道下裂 188例 対照: 母親の年齢、出 産回数、出産年を マッチさせた 376 例	妊娠経過	出生時体重 p<0.001 出産回数 p<0.001 出産時の母親年齢 p<0.001		11
Kaellen B 1988 Sweden	Register based case-control study (1982 - 1983)	母親の職業 妊娠経過	母親の職業 妊娠経過	レストラン・ホテル従業員 1.8(0.9-10.9) 分娩中・分娩後の出血 0.4(0.2-0.8) 微弱陣痛 3.0(1.3-6.8) 帝王切開 2.0(1.0-4.0) オキシトシンあるいはプロスタグランディンによる誘発分娩 4.1(2.0-8.3)	医療・保健 0.8(0.5-1.4) 教師 1.7(0.8-3.4) 秘書 1.1(0.6-2.1) 店員 1.5(0.6-4.1) 工場労働者 1.4(0.7-2.8) 保育・介護職 1.3(0.6-3.0) 清掃員 1.0(0.5-3.8) その他の職業 0.5(0.3-0.8) 母親の糖尿病 1.5(0.2-9.1) 妊娠初期の産出血 1.1(0.2-4.6) 常位胎盤早期剥離 1.3(0.1-11.9) 前置胎盤 1.2(0.2-6.3) 胎盤残留 0.4(0.0-1.7) 前期破水 2.7(0.4-18.8) 胎児仮死 1.2(0.5-8.3) 吸引分娩 0.5(0.2-1.7)	25
Castilla EE, et al. 1990 South America, Italy	Hospital based (1982 - 1986)	南米の熱帯地域の病 院で生まれた 287165例、南米の 非熱帯地域の病院で 生まれた582585	季節性変動		季節性変動	26

表3-3 尿道下裂と妊娠経過や家族歴との関連に関する報告

著者 年 国	研究のデザイン	対象	主な調査項目	有意の関連要因	関連なし	文 献
Stroll CS, et al. 1990 フランス	Register based case-control study (1979 - 1987)	176 cases: 北東フランスアルザス地方の11病院で生まれたで生まれた尿道下裂児 176 controls: 同じ病院で次に生まれた健康児 周産期の相談記録、産院カルテ、新生児病棟カルテ、剖検記録、外来カルテ、小児科カルテ、外科カルテ	妊娠経過、妊娠前・妊娠中の病歴・両親の環境・職業からの曝露など	胎盤重量 3.69(2.08-6.55) 頭囲 1.88(0.90-3.92) 発熱 0.02(0.01-0.25) 喫煙 0.78(0.01-0.53) 薬剤依存 0.06(0.01-0.53)	出生時体重 出生時身長 羊水過少症 切迫流産 糖尿病 てんかん 高血圧 インフルエンザ アルコール依存 経口避妊薬	母親の職業性暴露 父親の職業性暴露 X線への暴露 母親の年齢 父親の年齢 誘発分娩 帝王切開 高齢初産 10歳以下月経開始
Macnab AJ and Zouves C 1991	Prospective data collection	体外受精で生まれた男児53例		体外受精で生まれた男児53中2児に尿道下裂。 体外受精で尿道下裂のリスクが高まる可能性がある。		27
Zhang J, et al. 1994 中国、上海	Register based case-control study (1986 - 1987)	症例: 上海先天奇形プログラム (出生時体重1000g以上の先天奇形を登録)の先天奇形 対照: 症例の直前あるいは直後に同じ分娩室で出生した1013	切迫流産: 妊娠28週未満の臍からの出血。	切迫流産 2.3(1.1-4.9)		28

表3-4 尿道下裂と妊娠経過や家族歴との関連に関する報告

著者 年 国	研究のデザイン	対象	主な調査項目	有意の関連要因	関連なし	文 献
Fredell L, et al. 1998 スウェーデン	Hospital based	4小児外科病院に記録 にある尿道下裂のあ る子の保護者に質問 票を郵送して同定し た28組の 双生児のう ち、一卵性の18組。	出生時体重	18組の一卵性双生児のうち16組で低体重の兄に 尿道下裂あり。		29
Akre O, et al. 1999 スウェーデン	Cohort study (1983 - 1993)	全国的コホートの入 院記録と出生登録の リンケージによる。 症例: 尿道下裂 1220 例の男児 対照: 同じコホートから無 作為に、5例を出生年 と病院をマッチ。	妊娠経過の家族の 先天奇形合併など	他先天奇形の合併 2.75(1.98-3.83) 出産回数 4回(対初産) 0.52(0.35-0.77) 19歳以下の出産 1.42(0.94-2.16) (対20歳代) 喫煙 0.85(0.71-1.02) 重症の子癆 2.11(1.42-3.14) 双生児 1.56(0.95-2.56) 出生時体重1500g未満 6.20(2.51-14.41) (対2500-4000g)	母親の身長 妊娠するまでの期間 4年 1.05(0.58-1.90) 以上 (対1年未満) アプガー・スコア(1分) 1.15(0.79-1.68) 6以下 (対7以上) 在胎週数	30
Weidner IS, et al. 1999 デンマーク	Population based Case-control study (1983 - 1992)	症例: 患者登録に登録 された尿道下裂 1345 例 対照: 同時期にデン マークで生まれた全 男児から、無作為抽 出された23273 例	妊娠経過の家族の 先天奇形合併など	出生時体重2500g未満 3.42(2.83-4.13) (対3500-4000g) 在胎週数42週以上 1.26(1.01-1.56) (対40週) 在胎週数37以下 1.19(0.96-1.47) (対40週) 経産1回以上(対初産) 0.89(0.80-1.00) 死産の既往 2.02(1.26-3.25) 双生児 0.67(0.47-0.94) 兄に尿道下裂 10.56	経産3回以上(対初産) 0.95(0.71-1.27)	31

表 4 尿道下裂の個体要因に関する報告

著者 年	国	研究のデザイン 出生年	対象と方法	結果	文 献
Batch JA, et al. 1993	米国	Case series	会陰型尿道下裂のある 2 家族についてアンドロゲン受容体のアンドロゲン結合能とアンドロゲン受容体遺伝子を検索	一家族でアンドロゲン受容体のアンドロゲン結合の欠損。 もう一家族でアンドロゲン受容体遺伝子の点変異。 重症型尿道下裂はアンドロゲンに対する感受性の異常の表現型として重要である。	32
Hiort O, et al. 1994	ドイツ	Case series	21 名の異なる重症度の尿道下裂患者のアンドロゲン受容体遺伝子の変異を検索	1 例のみにアンドロゲン受容体遺伝子の変異。	33
Albers N, et al. 1997	ドイツ	(1980 - 1995)	ハノーバー大学小児病院で治療された重症型尿道下裂時 33 例について、理学所見、超音波、造影、内分泌学的検査、遺伝子検索等によって、尿道下裂の病因を検索。	尿道下裂のほとんどはアンドロゲン受容体遺伝子の変異を持たない。 33 例の重症型尿道下裂のうち 12 例に病因が同定された。 ① Wilms 腫瘍を伴なう Drash 症候群 (3)、 ② アンドロゲン受容体遺伝子変異によるアンドロゲン不応症 (2)、 ③ 真性半陰陽 (2)、 ④ 染色体異常 (1)、 ⑤ 抗ミューラーホルモン欠損 (1)、 ⑥ 性腺形成不全 (1)、 ⑦ 遺伝子の点変異による部分的 5 α -リダクターゼ欠損 (1)、 ⑧ XX-male 症候群 (1)	34
Nordenskjold A 1999	ハンガリー	Case series	35 例の尿道下裂の男児と、1 例の臨床的に診断された完全型アンドロゲン不応症の女児について、アンドロゲン受容体遺伝子、Wilms 腫瘍 1 遺伝子、テストステロン-5 α -リダクターゼを調べた	① 26 人の尿道下裂のみの男児に遺伝子変異なし。 ② 2 人の重症型尿道下裂に停留精巣合併の男児アンドロゲン受容体遺伝子変異 ③ 1 人の臨床的に診断された完全型アンドロゲン不応症の女児はテストステロン-5 α -リダクターゼの遺伝子変異のホモ接合体。	35