双子、三つ子における障害児の発生状況

横山 美江^{*1}, 清水 忠彦^{*1}, 早川 和生^{*2}

^{*1}近畿大学医学部公衆衛生学教室

^{*2}大阪大学医学部保健学科

Handicaps in Twins and Triplets

Yoshie YOKOYAMA^{*1}, Tadahiko SHIMIZU^{*1} and Kazuo HAYAKAWA^{*2}

^{*1}Department of Public Health, Kinki University, School of Medicine, Osakasayama

^{*2}Department of Community Health Nursing, Osaka University, Faculty of Medicine, Suita

Abstract This study was conducted to investigate the prevalence rates of handicaps in twins and triplets. The subjects were 252 twins and 287 triplets. The following results were obtained.

- 1) The prevalence rates of the handicapped were 8.7 per 100 triplets, and 4.4 per 100 twins. The risk of producing at least one handicapped child was approximately 22% in triplet pregnancy and 9% in twin pregnancy. This means that one in 4 or 5 sets of triplets had at least one handicapped child, as did one in 11 pairs of twins.
- 2) Cerebral palsy was the most frequent handicap in twins and triplets. The risks of producing a child with cerebral palsy were 2.0% and 3.1% in twins and triplets, respectively.
- 3) The prevalence rates of congenital anomalies (congenital heart disease, limb anomalies, and others) were 2.4% in twins and 4.5% in triplets. Approximately 45% of the handicaps in twins and triplets resulted from congenital anomalies.
- 4) The prevalence rate of the handicapped in twins and triplets was not associated with maternal age, but was associated with the years of delivery in triplets, and was higher in babies with shorter gestation periods.

Key words: Twin (双子), Triplet (三つ子), Handicap (障害児), Anomaly (奇形)

I 緒 言

排卵誘発剤や体外授精の影響により多胎児の出産率は年々増加しており、双子では1951年に出産千対6.4であった出産数が1991年には7.2へと増加している。さらに、三つ子ではより急激な増加が認められ、1951年に出産100万対58であった出産数が1981年には96、1990年には168、1991年には176に至っている¹⁻⁵⁾。

多胎妊娠は単胎妊娠より母体への影響も大きく^{6,7)}、乳児死亡率も高いことが報告されており^{8,9)}、多胎は母子共にさまざまな危険にさらされていると考えられる。従来、三つ子は稀な存在であったため、本邦では多数の三つ子を対象とした調査報告はほとんどみられなかった。しかし、ここ数年の急激な増加も加味して、ある程度を対象を把握することが可能となり、われわれは三つ子を含む多胎児を対象とした調査を実施し、その報告を行ってき

Reprint requests to: Yoshie Yokoyama, Department of Public Health, Kinki University, School of Medicine 377, Ohnohigashi Osakasayama city, Osaka Japan 589

た¹⁰⁻¹²⁾。本報では、双子、ならびに三つ子における障害児の発生状況に関する成績を報告する。

II 方 法

1. 対 象

調査対象は、1977年以降に出生した双子126組¹⁰⁾(双子252名)と1978年以降に出生した三つ子96組¹¹⁾(死亡した1名を除いた三つ子287名)である。なお、これらの双子の母親は当教室の双生児育児指導研究会を紹介した新聞記事等を見て自発的に教室に連絡してきた者、また三つ子は三つ子の母親が自発的に組織するサークルからの紹介により当教室にて把握している者である。

2. 調査内容と分析方法

調査期間は1993年9月から1994年4月で、郵送質問紙法により調査した。

調査内容は、双子と三つ子における障害児の発生状況(障害の有無と障害の種類)、ならびに、双子と三つ子の出生年、調査時の児の年齢、在胎週数、児の出生時体重、および母親の年齢である。

統計的手法として、比率の比較には χ^2 検定を使用した。なお、これらの統計計算には、すべてSPSSX統計パッケージを用いた。

III 結 果

双子を出産した時の母親の年齢は、25歳未満が7名(5.6%)、25歳以上30歳未満が63名(50.0%)、30歳以上35歳未満が39名(31.0%)、35歳以上が16名(12.7%)、無回答1名(0.8%)で、平均年齢は 29.5 ± 3.81 歳(平均値 $\pm$ 標準偏差)、最低23歳から最高42歳であった。一方、三つ子を出産した時の母親の年齢は、25歳未満が1名(1.0%)、25歳以上30歳未満が51名(53.1%)、30歳以上35歳未満が39名(40.6%)、35歳以上が5名(5.2%)で、平均年齢は 29.5 ± 2.88 歳(最低24歳~最高38歳)であった。

調査時点での双子の年齢は1歳未満が98名(38.9%)、1歳以上2歳未満が56名(22.2%)、2歳以上3歳未満が34名(13.5%)、3歳以上が64名(25.4%)であった。一方、三つ子の年齢は1歳未満が72名(25.1%)、1歳以上2歳未満が72名(25.1%)、2歳以上3歳未満が60名(20.9%)、3歳以上が81名(28.2%)、無回答2名(0.7%)であった。

双子の在胎週数は、25週から31週が18名(7.1%)、32週から35週が22名(8.7%)、36週以上が208名(82.5%)、無回答4名(1.6%)で、平均在胎週数は $36.8 \pm$

2.60週(最低25週~最高41週)であった。一方、三つ子の在胎週数は、27週から31週が44名(15.3%)、32週から35週が138名(48.1%)、36週以上が105名(36.6%)で、平均在胎週数は 34.2 ± 2.70 週(最低27週~最高39週)であった。

双子の出生時体重は1,500g未満が17名(6.7%)、1,500g以上2,500g未満が122名(48.4%)、2,500g以上が111名(44.0%)、無回答2名(0.8%)で、平均出生時体重は $2,396.9 \pm 686.0$ g(最低686g~最高3,684g)であった。一方、三つ子の出生時体重は1,500g未満が57名(19.9%)、1,500g以上2,500g未満が192名(66.9%)、2,500g以上が14名(4.9%)、無回答24名(8.3%)で、平均出生時体重は $1,835.7 \pm 431.2$ g(最低692g~最高2,950g)であった。

Table 1に示すごとく、双子252名のうち218名(86.5%)の児が健常児であったが、11名(4.4%)の児に何らかの障害が認められ、23名(9.1%)の児については障害の有無が不明(無回答)であった。11名の障害の内訳をみると、脳性麻痺が5名(2.0%)、視覚障害が1名(0.4%)、内部障害(先天性心疾患)が1名(0.4%)、知的障害が2名(0.8%)、その他の障害(肢体不自由児)が2名(0.8%)であった。

一方、三つ子287名のうち244名(85.0%)の児が健常児であったが、25名(8.7%)の児に何らかの障害が認められ、18名(6.3%)の児については障害の有無が不明(無回答)であった。25名の障害の内訳をみると、脳性麻痺が9名(3.1%)、聴覚障害が3名(1.0%)、視覚障害が5名(1.7%)、内部障害(先天性心疾患、腎機能障害など)が3名(1.0%)、その他の障害が奇形などによる肢体不自由児3名、運動発達遅滞2名計5名(1.7%)で

Table 1 Distribution of various types of handicaps in twins and triplets.

	Twins No. (%)	Triplets No. (%)
No. of subjects	252(100.0)	287(100.0)
Not handicapped	218(86.5)	244(85.0)
Handicapped	11(4.4)	25(8.7)
Cerebral palsy	5(2.0)	9(3.1)
Impaired hearing	0(0.0)	3(1.1)
Impaired sight	1(0.4)	5(1.7)
Internal handicap (disease)	1(0.4)	3(1.1)
Mental retardation	2(0.8)	0(0.0)
Other handicaps	2(0.8)	5(1.7)
Unknown	23(9.1)	18(6.3)

Table 2 Prevalence of handicaps per one set of twins and triplets.

	Twins No. (%)	Triplets No. (%)
At least one handicapped in a set	10(8.7)	19(21.6)
No handicapped in a set	105(91.3)	69(78.4)
Total	115(100.0)	88(100.0)

Sets in which handicap status was unknown were excluded

あった。なお、三つ子のうち1名が生後18日で死亡した例が1組みられたが、生存した他の2名のうち1名が脳性麻痺であった。

また、障害児には分類しなかったものの、外耳奇形のある者が双子においては1名、三つ子においては2名認められた。

ところで、双子では1組中の両方の児が障害を有していたものは、115組中1組(0.9%)認められた。三つ子では、1組中の3人全ての児が障害を有していたものは88組中2組(2.3%)、1組中2人の児が障害を有していたものは2組(2.3%)認められた。

Table 2 に示すごとく、双子1組中に少なくとも1人以上の障害児を有する双子は10組(8.7%)、2人とも健常者である双子は105組(91.3%)であった。一方、三つ子1組中に少なくとも1人以上の障害児を有する三つ子は19組(21.6%)、3人とも健常者である三つ子は69組(78.4%)であった。なお、障害の有無について無回答があった組については、全て除外した。

Table 3 は、双子、三つ子における先天奇形の発生状況について示したものである。双子252名中6名(2.4%)の者に何らかの奇形が認められた。その内訳は、脳神経系の奇形が2名(0.8%)、耳や目の奇形が1名(0.4%)、

Table 3 Distribution of various types of anomalies in twins and triplets.

	Twins No. (%)	Triplets No. (%)
No. of subjects	252(100.0)	287(100.0)
Congenital anomaly	6(2.4)	13(4.5)
Anomaly of central nervous system	2(0.8)	1(0.3)
Anomaly of ear or eye	1(0.4)	6(2.2)
Congenital heart disease	1(0.4)	2(0.8)
Anomaly of renal system	0(0.0)	1(0.3)
Other limb anomaly	1(0.4)	2(0.6)
Other anomaly	1(0.4)	1(0.3)

先天性心疾患が1名(0.4%)、四肢の奇形が1名(0.4%)、その他の奇形が1名(0.4%)であった。

一方、三つ子においては287名中13名(4.5%)の者に先天奇形が認められた。その内訳は、脳神経系の奇形が1名(0.3%)、耳や目の奇形が6名(2.2%)、先天性心疾患が2名(0.8%)、腎臓の奇形が1名(0.3%)、四肢の奇形が2名(0.6%)、その他の奇形が1名(0.3%)であった。

なお、これらの先天奇形が原因で障害を負った者は、双子の障害児11名中5名(45.5%)、三つ子の障害児25名中11名(44.0%)であった。

Table 4 は、双子の出生年、児の出生時体重、母親の出産年齢別に障害児の発生状況を示したものである。双子の出生年についての区分は比較的最近である1990年以降とそれ以前、出生時体重については極小未熟児とされている1,500g未満とそれ以外¹⁾、母親の出産年齢については35歳以上を高年齢出産とみなして35歳以上と未満¹⁾で分析した。双子において出生年が1977年から1989年では43名中3名(7.0%)が、1990年から1993年では184名中8名(4.3%)が障害児で、双子の障害児の発生状況は出生年で1989年以前にやや高率の傾向であった。しかし、例数に乏しく有意な差異は認められなかった。出生時体重では1,500g未満であった双子のうち障害児であったものが15名中2名(13.3%)、1,500g以上では212名中9名(4.2%)で、1,500g未満の極小未熟児で障害児の比率が高いものの、例数に乏しく有意

Table 4 Prevalence of handicaps in twins by years of delivery, birth weight, and maternal age at delivery.

	No. of twins	Twins ¹⁾	
		Handicapped No. (%)	Not handicapped No. (%)
Years of delivery			
1977-1989	43	3(7.0)	40(93.0)
1990-1993	184	8(4.3)	176(95.7)
Birth weight (g)			
<1500	15	2(13.3)	13(86.7)
1500 and over	212	9(4.2)	203(95.8)
Maternal age at delivery			
<35	199	8(4.0)	191(96.0)
35 and over	30	3(10.0)	27(90.0)

1) Pairs in which handicap status was unknown were excluded

Table 5 Prevalence of handicaps in triplets by years of delivery, birth weight, and maternal age at delivery.

	No. of twins	Twins ¹⁾	
		Handicapped No. (%)	Not handicapped No. (%)
Years of delivery			
1978-1989	55	10(18.2)	45(81.8)*
1990-1993	214	15(7.0)	199(93.0)
Birth weight (g)			
<1500	52	8(15.4)	44(84.6)
1500 and over	199	17(8.5)	182(91.5)
Maternal age at delivery			
<35	257	24(9.3)	233(90.7)
35 and over	12	1(8.3)	11(91.7)

1) Sets in which handicap status was unknown were excluded

* $P < 0.05$

な差異は認められなかった。同じく、母親の出産年齢が35歳未満の場合199名中8名(4.0%)が障害児であったのに対し、35歳以上では30名中3名(10.0%)が障害児で、35歳以上で比率が高いものの、例数に乏しく有意な差異は認められなかった。

Table 5は、三つ子の出生年、児の出生時体重、母親の出産年齢別に障害児の発生状況を示したものである。三つ子においても双子と同様の基準で分析した。障害児の発生状況は出生年と有意($P < 0.05$)な関連が認められ、出生年が1977年から1989年では55名中10名(18.2%)が、1990年から1993年では214名中15名(7.0%)が障害児で、1989年以前で高い比率を示した。また、出生時体重については、1,500g以上のうち障害の認められたものは199名中17名(8.5%)、1,500g未満では52名中8名(15.4%)で、1,500g未満で障害児の比率が高いものの有意な差異ではなかった。母親の出産年齢では、35歳未満が257名中24名(9.3%)、35歳以上が12名中1名(8.3%)が障害児で、ほぼ同率であった。

Fig. 1, Fig. 2は、双子ならびに三つ子の在胎週数の累積率を示したものであるが、障害児の在胎週数は健常児に比べ短い傾向が認められた。なお、双子の障害児の在胎週数は平均 34.9 ± 5.09 週(最低25週～最高39週)、健常児は平均 36.8 ± 2.46 週(最低25週～最高41週)であった。一方、三つ子の障害児の在胎週数は平均 33.5 ± 3.16 週(最低27週～最高38週)、健常児は平均 $34.3 \pm$

Fig. 1 Handicap and gestational age of twins. **Fig. 2** Handicap and gestational age of triplets.

2.60週(最低27週～最高39週)であった。

IV 考 察

双子¹⁵⁾ならびに三つ子¹⁶⁻¹⁸⁾は低体重で出生する危険が高く、本報においても双子の6.7%、ならびに三つ子の19.9%が1,500g未満の極小未熟児であった。このように極端に低体重で出生した児は脳性麻痺、知的障害、視覚障害等の障害を負う危険が高いことが報告されており¹⁹⁻²¹⁾、出生時体重から考慮しても多胎児は単胎児よりも障害を負う危険が高いと推察される。

本調査は、多胎児の出生人口を無作為抽出によりサンプリングした調査ではないため、データに多少の偏りがあると考えられるが、本調査において双子の4.4%、三つ子の8.7%が障害児と認められた。また、双子の1組中に少なくとも1人が障害を有する比率は約9%で、おおよそ11組につき1組の比率であった。一方、三つ子は、障

害児の比率が双子よりも高率であるだけでなく、1 組あたりの人数が 3 人なので双子よりも 1 組中に障害児を含む確率は高くなると考えられる。今回の成績では三つ子の 1 組中に少なくとも 1 人が障害を有する比率は約 22%と、4, 5 組に 1 組の著しい高率で障害児がいることが明らかになった。今回は例数が少ないので詳細な検討は今後に委ねるが、いずれにしても 4, 5 組に 1 組が障害児をかかえているということは、三つ子以上の多胎児が急激に増加している現在、無視できない値であるといえる。

これらの障害児のうち、双子、三つ子共に脳性麻痺が一番多く、双子においては全体の 2.0%、三つ子においては全体の 3.1%が脳性麻痺であった。Pettersson ら²²⁾によるオーストラリアでの調査によると、単胎児の 0.2%、双子の 0.7%、三つ子の 2.7%が脳性麻痺であったと報告しており、本報と多少のズレはあるものの、三つ子についてはほぼ類似した値であり、また双子よりも三つ子に高率である傾向も同じであった。また、多胎児では 1 人が死産であった場合、他の生存した児が脳性麻痺になる危険はさらに高くなり^{23,24)}、1 年以上生存した双子で 10%、三つ子で 15%に上ると報告されている²²⁾。本調査においては該当する死産例がなかったものの、生後 18 日に 1 人が死亡した三つ子の 1 組は、生存した他の 2 名のうち 1 名が脳性麻痺であった。

ところで、先天性心疾患や四肢の奇形等の先天奇形は、双子で 2.4%、三つ子で 4.5%の者に認められた。双子ならびに三つ子の障害児のうち、約 45%がこれらの先天奇形が原因で障害を負っていた。先天奇形についても三つ子は双子より発生率が高く、双子では全体の 2.4%であったのに対し、三つ子では 4.5%を占めていた。本調査では、死産ならびに複数が生後早期に死亡した多胎児についての情報を把握できなかったため、致命的な奇形を含めた実際の先天奇形の発生率はさらに高いと考えられる。近年、排卵誘発剤や体外授精により多胎児、特に三つ子が急激に増加しているが、体外授精等により三つ子以上を出生する可能性のある場合、あらかじめ障害や先天奇形を有する児の比率が高くなることを家族へ説明する必要があるだろう。

さらに、障害児に関連する要因について言及したい。Russell の調査²⁴⁾によると、脳性麻痺の双子は社会的地位や母親の年齢等をマッチさせた対照群と比較して、在胎週数が有意に短いことを報告しており、在胎週数の短縮は未成熟で出生する危険が高く、障害が発生しやすい状況が生じると推察される。本報においても、双子や三

つ子における障害児の在胎週数はそれぞれ 34.9 週、33.5 週であった。一方、双子や三つ子における健常児は 36.8 週、34.3 週で、障害児は健常児よりも在胎週数が短い傾向が認められ、在胎週数が短い場合に障害児の発生率が高くなると考えられた。

なお、出生年では、三つ子で関連が認められ、1989 年以前で障害児の比率が高かった。双子では有意な差異はなかったものの、やはり 1989 年以前で障害児の比率が高くなっていた。しかし、調査対象の偏り、医療技術の進歩、在胎期間、および出生時体重など多くの要因が関連するとも考えられるので、今後さらに例数を増やし検討する必要があるだろう。

V 結 語

本調査において双子の 4.4%、三つ子の 8.7%が障害児と認められた。さらに、双子の 1 組中に少なくとも 1 人が障害を有する比率は約 9%、三つ子では約 22%と、双子ではおおよそ 11 組につき 1 組の比率で少なくとも 1 人の障害児がいるのに対し、三つ子では 4,5 組に 1 組の比率で障害児がいることが示唆された。

さらに、先天性心疾患や四肢の奇形等の先天奇形は、双子で 2.4%、三つ子で 4.5%の者に認められ、双子ならびに三つ子の障害児のうち、約 45%がこれらの先天奇形が原因で障害を負っていることが明らかとなった。近年、排卵誘発剤や体外授精により三つ子以上の多胎児が増加しているが、それらに伴う障害や奇形の発生について今後さらに検討する必要があることが示唆された。

引用文献

- 1) Imaizumi, Y.: Twinning rates in Japan, *Acta Genet. Med. Gemellol.*, **41**, 165-175 (1992).
- 2) Imaizumi, Y. and Inoue, E.: Analysis of multiple birth rates in Japan, *Acta Genet. Med. Gemellol.*, **28**, 107-124 (1979).
- 3) 今泉洋子: 人口動態統計からみた多胎出産の動向、厚生省の指標, **40**(6), 3-8 (1993).
- 4) Imaizumi, Y.: Sex ratio of triplet births in Hum., *Hered.*, **32**, 114-120 (1982).
- 5) 今泉洋子: 多胎発生の疫学, *周産期医学*, **23**, 158-162 (1993).
- 6) Bryan, E.M.: The loss of a twin, *Maternal and Child Health*, **8**, 201-206 (1983).
- 7) Macgillivray, I., Campbell, D.M. and Thompson, B.: Twinning and twins, pp.111-142, John Wiley

- and Sons Ltd., New York (1988).
- 8) Imaizumi, Y., Inoue, E. and Asaka, A.: Mortality rate of Japanese twins and triplets III. Infant deaths of triplets after birth to one year of age, *Acta Genet. Med. Gemellol.*, **30**, 281-284 (1981).
 - 9) Imaizumi, Y., Inoue, E. and Asaka, A.: Mortality rate of Japanese twins, *Social Biology*, **28**, 176-186 (1981).
 - 10) 横山美江, 清水忠彦, 早川和生: 双子の一方の児に対する母親の愛情の偏りと育児環境上の問題, 日本公衛誌 (投稿中).
 - 11) 横山美江, 清水忠彦, 早川和生: 双胎妊娠との比較からみた品胎妊娠における妊娠経過の異常および児の出生時体重, 日本公衛誌 (投稿中).
 - 12) 横山美江, 清水忠彦, 早川和生: 双胎, 品胎家庭における育児に関する問題と母親の疲労状態, 日本公衛誌 (投稿中).
 - 13) 真柄正直: 最新産科学—異常編—, p.305, 文光堂, 東京 (1981).
 - 14) Stanley, F.J.: An epidemiological study of cerebral palsy in Western Australia, 1956-1975. I: Changes in total incidence of cerebral palsy and associated factors, *Develop. Med. Child Neurol.*, **21**, 701-713 (1979).
 - 15) Asaka, A., Imaizumi, Y. and Inoue, E.: Analysis of multiple births in Japan I. Weight at birth among 12392 pairs of twins, *Jpn. J. Human Genet.*, **25**, 65-71 (1980).
 - 16) Itzkowic, D.: A survey of 59 triplet pregnancies, *British Journal of Obstetrics and Gynaecology*, **86**, 23-28 (1979).
 - 17) Newman, R.B., Jones, J.S. and Miller, M.C.: Influence of clinical variables on triplet birth weight, *Acta Genet. Med. Gemellol.*, **40**, 173-179 (1990).
 - 18) Holcberg, G., Biale, Y., Lewenthal, H. and Insler, V.: Outcome of pregnancy in 31 triplet gestations, *Obstetrics and Gynecology*, **59**(4), 472-476 (1982).
 - 19) Ehrenhaft, P.M., Wagner, J.L. and Herdman, R. C.: Changing prognosis for very low birth weight infants, *Obstetrics and Gynecology*, **74**(3), 528-535 (1989).
 - 20) Saigal, S., Rosenbaum, P., Stoskopf, B. and Milner, R.: Follow-up of infants 501 to 1500 gm birth weight delivered to residents of a geographically defined region with perinatal intensive care facilities, *Pediatrics*, **100**, 606-613 (1982).
 - 21) Kraybill, E.N., Kennedy, C.A., Teplin, S.W. and Campbell, S.K.: Infants with birth weights less than 1,001 g: Survival, growth, and development, *Am. J. Dis. Child*, **138**, 837-842 (1984).
 - 22) Petterson, B., Nelson, K.B., Watson, L. and Stanley, F.: Twins, triplets and cerebral palsy in births in Western Australia in the 1980s, *BMJ*, **307**, 1239-1243 (1993).
 - 23) Stanley, F.: Cerebral palsy in multiple births, *Irish Medical Journal*, **82**(3), 97 (1989).
 - 24) Russell, E.M.: Cerebral palsied twins, *Archives of Disease of Childhood*, **36**, 328-336 (1961).
- (受付 1994年7月22日 受理 1994年10月13日)