

# タイ国前頭部脳瘤対策プログラム 専門家チーム報告書

1985年12月

国際協力事業団  
医療協力部

医 業

J R

85 57



タイ国前頭部脳瘤対策プログラム  
専門家チーム報告書

1985年12月

国際協力事業団  
医療協力部

JICA LIBRARY



1042190E7J

国際協力事業団	
受入 月日 '86. 7. -7	122
	93.8
登録No. 12902	MCS

## は　じ　め　に

タイ王国は1961年以来、国家開発計画を定め現在、第5次国家経済社会開発計画（1982-86年）に基づき、国家建設を進めているところであり、保健医療分野においても、7大計画目標の社会開発及びサービスの中で、その向上を掲げている。

こうした背景の下、タイ王国に多発する前頭部脳瘤疾患について我が国に対して協力要請がなされ、昭和59年8月に実態調査を実施し、本疾患にかかる協力の必要性を認め、昭和60年8月に協力内容の詳細策定のため専門家チームを派遣した。

本報告書はその調査内容をまとめたもので、今後の協力事業実施のための資料となるものである。

今回の調査にあたり、ご協力を賜った調査団団員各位ならびにその他の関係者各位に、深甚なる謝意を表する次第である。

1985年12月

国 際 協 力 事 業 団  
理 事 末 永 昌 介



# 1 経済・社会開発計画概要

## 1-1 タイの概要

- 面積 514 千K m<sup>2</sup> (日本の 1.4 倍)
- 人口<sup>(a)</sup> 48,531 千人  
(1982 年央)
- 政体 立憲君主制  
元首: 国王, プミポン・アドンヤデート (PHUMIBOL Adulyadej)
- 民族 タイ族 (シャム族, ラオ族) 80%, 華僑 10%, マレイ族, 山岳少数民族等 10%, なお国籍法 (属地主義) 上は, タイ人 98.9%, 中国人 0.9%
- 言語 タイ語 (公用語)
- 宗教 仏教 (含, 儒教) 95.29%, イスラム教 3.88%, キリスト教 0.57%  
その他 0.15%, 不明 0.10%
- 教育 初等教育 (義務制) 6 年, 中等教育 6 年 (前期 3 年, 後期 3 年)  
大学 4 年ないし 5 年  
小学校年令層に占める就学者数 (1981)<sup>(b)</sup> : 96%  
中学校 " " : 29%  
成人識字率 (1980)<sup>(c)</sup> : 86.0%
- 貿易<sup>(d)</sup> (1982) 貿易額 (輸出入総額) : 13,566.7 百万米ドル  
輸出額 (FOB) : 5,019.8 百万米ドル  
日本, アメリカ, オランダ, シンガポール, 香港  
輸入額 (CIF) : 8,546.9 百万米ドル  
日本, サウジアラビア, アメリカ, シンガポール, 西ドイツ
- 外貨準備総額<sup>(b)</sup> (1982) 2,674 百万米ドル
- 対外公的債務残高<sup>(b)</sup> (1982) 6,206 百万米ドル (対GNP比 17.4%)
- 債務返済比率<sup>(b)</sup> (1982) 対GNP比 2.2% 対輸出比 8.4%
- G N P<sup>(a)</sup> (1982) 38,350 百万米ドル (1人当たり 790 米ドル)
- 消費者物価指数<sup>(e)</sup> (1980 = 100)
 

	1981	1982	1983
	112.7	118.6	123.0
- 会計年度 10月1日-9月30日
- 援助の要請
  - (1) 無償資金協力・技術協力  
総理府技術経済協力局 (DTEC - Department of Technical and Economic Cooperation, the Prime Minister's Office) が援助要請案件の取りまとめを行っている。  
DTEC は, 委員会 (Sub-Committee on Technical Cooperation Plan) にはかった後, 援助国に正式要請を行う。  
なお, 研修員受け入れおよび専門家派遣の要請は委員会にはかかることなく DTEC より要請できることになっている。  
わが国の対タイ技術協力及び無償資金協力の新現案件は, 毎年バンコクで開催されている年次協議において決定されている。
  - (2) 借 款  
国家経済社会開発庁 (National Economic and Social Development Board) が借款要請の取りまとめを行っている。大蔵省が援助国政府または援助機関に対し要請を行い, 借款条件等の交渉を行う。また, 各年度に借り入れる借款金額は大蔵省が中心になって取りまとめるが, その決定は大蔵大臣を議長とする対外借入委員会 (Foreign Loan Committee) で行われる。対外借入委員会の構成メンバーは大蔵大臣, 同副大臣, 同次官, 同担当局長, NESDB 長官, 予算庁長官, 中央銀行総裁である。

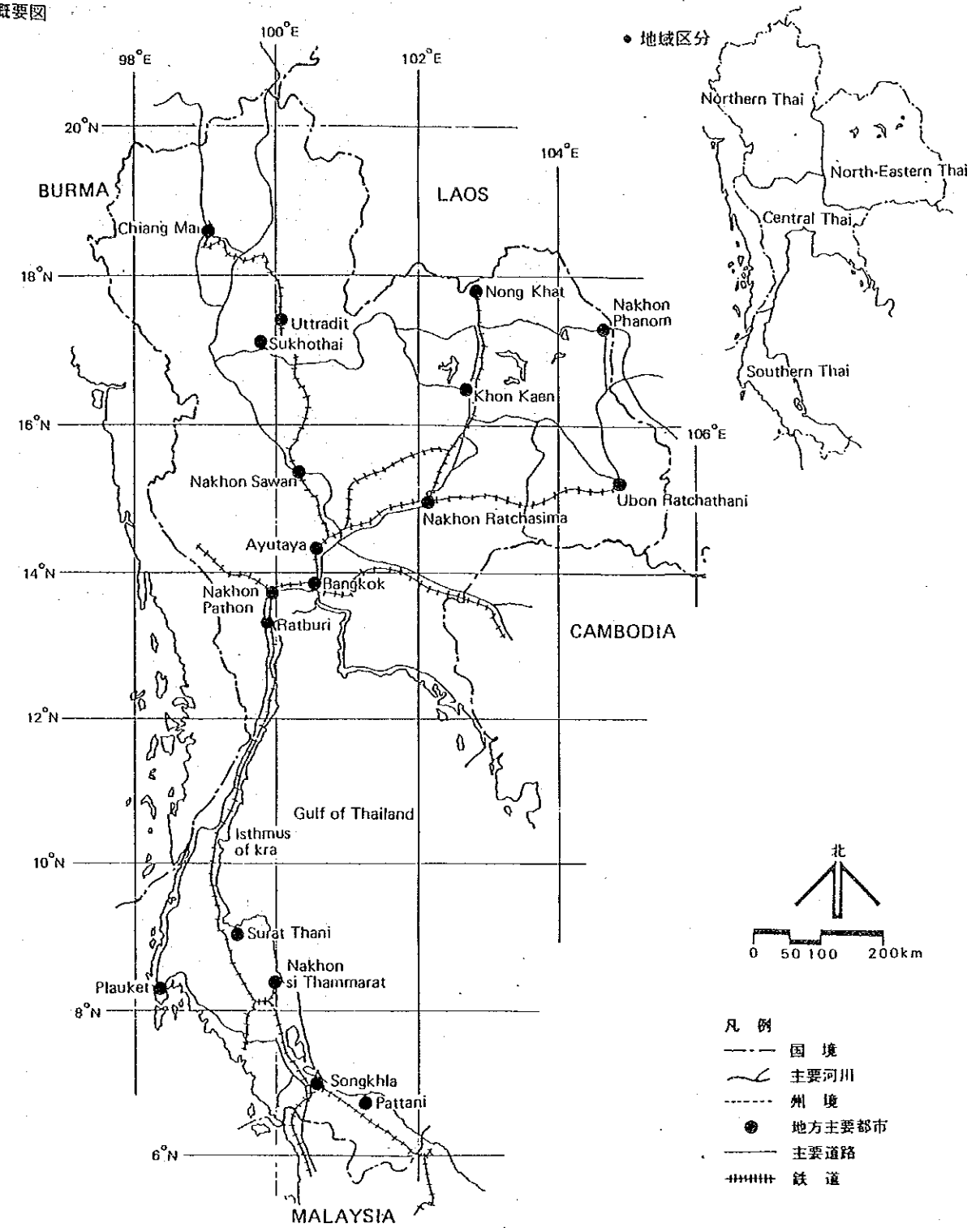
(出 典) (a): 世銀, World Bank Atlas 1984 (b): 世銀, 世界開発報告 1984  
(c): 世銀, World Tables 1983 (d): IMF, Direction of Trade Statistics Yearbook 1984 (e): IMF, International Financial Statistics, October 1984

タイは、インドシナ半島中央部に位置し、メナム川、メコン川の流域に平野が開けており、国土の大部分はサバンナ気候区に属する。また、長い歴史と伝統を有する古くからの独立国であり、現在の王室は1782年に始まるチャクリ王朝で、19世紀、欧米列強の進出の中で独立を維持したのち、1932年立憲革命を経ている。戦後は、軍部独裁時代から70年代前半の学生革命、*「血の水曜日」*事件以後の軍政復活を経て、1980年からブレム政権が発足、軍の支持を得ながら主要政党による連立内閣を組織している。

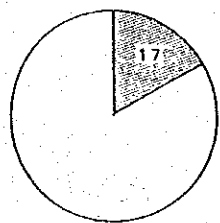
現政権の外交の基本路線は、アメリカ、日本及び西欧諸国等、西側との協調を第一としつつ、共産圏に対しても柔軟な対応を行っている。また75年のベトナム統一によるインドシナ共産化以降は、ASEANとしての結束を重要視している。

タイ経済は60年代に、インフラストラクチャーの整備と農地の拡大、輸入代替工業開発が進み、ベトナム戦争による特需にも支えられながらめざましい発展を遂げた。

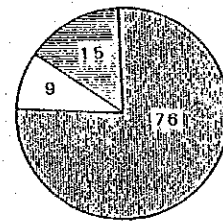
図1-1 タイの概要図



都市化率 (%)



労働力比率 (%)



注) 労働力とは、経済活動を行う10才以上の人口。  
各部門のシェアはILO及び世銀による推定値である。

- 農業部門 (農林水産業、狩猟)
- 工業部門 (鉱業、製造業、建設業、電気、水道、ガス事業)
- サービス部門 (上記2部門以外の全ての経済活動)

(出典: 世界開発報告 / 世銀 1984)



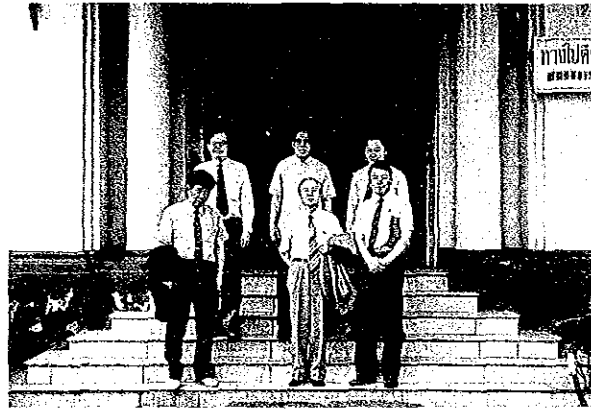




チュラロンコン大学  
同大学研究スタッフとの協議。



チュラロンコン大学  
ミニッツ署名  
右側より チャラス氏, 芦沢団長, 南野団員,  
高久団員



チュラロンコン大学付属病院玄関前にて



チュラロンコン大学臨床検査室



調査チーム主催懇親会(タイ側関係者と共々)



# 目 次

1. 調査チーム派遣の経緯と背景 .....	1
2. 調査チームの構成と関係者リスト .....	1
3. 調査内容 .....	4
4. 調査日程 .....	6
5. 調査結果 .....	8
1) 総 括 .....	9
2) 疫 学 .....	14
3) 遺 伝 学 .....	21
奇 形 学	
4) 外 科 学 .....	30
5) ミニッツ交渉経過 .....	35
6. 資 料 .....	37
1) ミニッツ署名文書 .....	37
2) チュラロンコン大学提示資料 .....	45
3) 報道記事 .....	113



1. 調査チーム派遣の経緯と背景
2. 調査チームの構成と関係者リスト
3. 調査内容
4. 調査日程



## 1. 調査チーム派遣の経緯と背景

タイ国に特に多発する前頭部篩骨洞部脳髄膜瘤について、我が国に対して協力要請がなされ、昭和59年8月26日から9月2日にかけて、同疾病の実態調査及び日本側の対応可能な協力内容、方法等につき協議のため調査チームを派遣した。本調査の結果、本疾患は、脳が前額部及び顔面に飛び出す先天奇形の一つであり、世界全体では約3万5千人に1人の稀なる病気であるが、タイ国では5千人に1人の頻度で発生していることがタイ側より報告されており、その分布はタイ国全域にもおよび、タイ国全体で、現在、推定10,000人の脳瘤患者がいると考えられて又、毎年200人の本疾患が新たに発生しているとされている。我が国に対する協力要請としては、本疾患の病因調査、診断、治療、及び巡回診療の四項目が掲げられた。

本調査結果に基づき、日本側の協力計画の策定を進めてきたところであるが、原因究明にかかるとタイ側の疫学調査体制の実態を再度調査する必要性及び協力内容をMINUTESとしてとりまとめ今後のプログラム開始をはかる必要性から今回再度調査チームを派遣することとなった。

## 2. 調査チームの構成と関係者リスト

### 1) 調査チームの構成

#### EXPERT TEAM ON MEDICAL COOPERATION FOR FEEM MEMBERS

OCTOBER , 1985

芦沢 正見 DR. MASAMI ASHIZAWA	総括/疫学 HEAD EPIDEMIOLOGY	国立公衆衛生院 理論疫学室長 CHIEF, THEORETICAL EPIDEMIOLOGY SECTION, THE INSTITUTE OF PUBLIC HEALTH
高久 晃 DR. AKIRA TAKAKU	脳神経外科 NEUROSURGERY	富山医科薬科大学. 医学部. 脳神経外科教授 PROFESSOR, DEPT. OF NEUROSURGERY, TOYAMA MEDICAL & PHARMACEUTICAL UNIVERSITY
塩田 浩平 DR. KOUHEI SHIOTA	遺伝学/奇形学 GENETICS/ TERATOLOGY	京都大学. 医学部附属先天異常標本解析 センター. 助教授 ASSOCIATE PROFESSOR, CONGENITAL ANOMALY RESEARCH CENTER, FACULTY OF MEDICINE,



南野 肇

MR. HAJIME NOHNO

技術協力

TECHNICAL  
COOPERATION

KYOTO UNIVERSITY

厚生省、社会局、老人福祉課係長

CHIEF,

DIVISION OF THE WELFARE  
FOR THE AGED, SOCIAL WELFARE  
BUREAU, MINISTRY OF HEALTH  
AND WELFARE

後藤 俊男

MR. TOSHIO GOTO

協力計画

COOPERATION  
PLANNING

国際協力事業団、医療協力部職員

MEMBER OF STAFF,

MEDICAL COOPERATION

DEPARTMENT, JAPAN

INTERNATIONAL COOPERATION

AGENCY

## 2) 面会者リスト

### イ. チュラロンコン大学関係者

Charas Suwanwela

医学部長

Saree Chittinantna

小児科 助教授

Chukiat Sakuntanaga

小児外科 助教授

Manit Limpaphayom

小児整形外科教授

Sumalee Srivuthana

小児科 助教授

Bidhya Chandrakamol

小児外科 助教授

Orasri Romyanan

解剖学 助教授

Pairroj Witoonpanich

産婦人科 助教授

Thada Sueblinvong

生化学 助教授

Reutai Sakulramrung

細菌学 助教授

Sonmai Bhongsvej

小児科 助教授

Suchin Ungthavorn

解剖学 助教授

Urai Apichitreungdej

解剖学 助教授

Surachai Kaoroptham

脳神経外科医

Ayut Dhamkrong-At

小児科 助教授

Pimolratn Thai thumyanon

小児科 助教授

Suwannee Phancharoen

Preeyachit Charoenwongse

細菌学科 免疫学 講師

ロ. DTEC (技術経済協力局)関係者

ハ. 日本大使館

橋 正 忠 大使

浦 部 和 好 参事官

高 山 康 信 一等書記官

ニ. JICA バンコク事務所

後 藤 教 基 所長

甲 斐 寿 治 所員

ホ. 王室関係

シリントン王女

### 3. 調査内容

#### 1) 調査対処方針（本調査にあたって事前に協議が行われた対処方針）

##### イ. 調査目的

- a) タイ側から要望のあった前頭部篩骨洞部脳髄膜瘤（FEEM）対策協力に関し、前回調査の実施できなかった原因究明にかかるタイ側の疫学調査体制の実態を調査すると共に日本側の対応可能な協力内容を協議する。
- b) 協議内容をMINUTESとしてとりまとめ署名する。MINUTESの内容は別紙（案）のとおりとする。

##### ロ. 協力目的

- a) FEEMの原因究明にかかる疫学調査手法の確立をはかる。
- b) FEEM罹患者の診断、治療の改善をはかる。

##### ハ. 協力活動内容

##### ア) 原因究明（疫学調査）

FEEMに係るサーベイランスシステム 確立を目標として本疾病に係る実態調査、調査結果の記録化、記憶化、及び分析を実施する。

- b) チュラロンコン大学医学部および付属病院においてFEEM罹患者の診断、治療の改善のため、機材を整備し、脳神経外科専門家の技術指導により、タイ側カウンターパートに対して本疾病にかかる治療、診断を中心として技術移転をはかる。又、技術移転の実施にかかる補完措置として、同カウンターパートに対して日本で脳神経外科分野の研修を実施す。

##### ニ. ミニッツ対処方針

- a) 本協力はFEEM対策協力に限定し、プロジェクト技術協力方式とはせず、専門家派遣（単発）、特別機材供与、研修員受入（個別C/P）で対応する。
- b) 協力期間は3年間に限定する。
- c) 別紙暫定実行計画表を一応、交渉の目安とするが、時期、期間については、協議に応じて各年度を超えないことで柔軟に対応する。
- d) 上記a)～c)の範囲を超える要請、要望については応じられない。合意に達しない場合は持ち帰り検討とする。

##### ホ. 調査項目

##### ア) 疫学

タイ国情報集積の状況の確認

case finding, collection of data 及び data の reliability の検討(診断レベルを含む) 及び filing の model を示すという一連の過程の内、collection of data を進めるための準備をすること。

b) 遺伝学／奇形学

タイ国研究体制（研究者の技術レベル，研究者数）の確認

（具体的には，キーパーソンとのインタビュー及び主な研究室の訪問）

c) 脳神経外科

① 脳神経外科の人数，分布の確認

② FEM の処理状況の確認

（例えば母子保健センターの状況）

③ 一般脳神経外科医の手術レベルの確認

④ 機材配置の妥当性及び効率性

d) 全 体

① カウンターパートの配置確認

② 年次展開の専門家，研修員，機材投与の確認

#### 4. 調 査 日 程

月/日	曜日	時 間	内 容
10/7	月	17:10	バンコク着 (TG625便) (芦沢, 高久, 塩田団員)
		17:45	バンコク着 (TG312便) (後藤団員カトマンズより)
		19:00	浦部参事官主催夕食会
10/8	火	9:00	<チュラロンコン大学との協議> 場 所: チュラロンコン大学 Anandamahidol bldg. 209号室 出席者: チュラロンコン大学関係者リスト参照 内 容: 添付資料参照
		16:00	DTEC (技術経済協力局) 表敬
		19:00	チュラロンコン大学医学部長主催夕食会
10/9	水	9:00	<チュラロンコン大学との協議>
		13:00	- 8日の継続
		16:00	- ミニッツの内容につき協議
		17:10	バンコク着 (TG625便) (南野団員)
		19:00	チーム内打合せ
10/10	木	7:00~9:00	<チュラロンコン大学との協議> - ミニッツの交渉
			<div style="display: flex; justify-content: space-between;"> <div style="width: 45%;"> <p>[ 芦沢団長, 塩田団員 ]</p> <p>チャンタブリ 県へフィールドトリップ</p> <p>( 視察先 ) ・ Prapok-klao 県病院</p> <p>・ Klung 郡病院</p> <p>・ Somej Na Sriracha 病院</p> <p>・ Kien Huk の Subdistrict Health Station</p> <p>・ Hin Dad 村</p> </div> <div style="width: 45%;"> <p>[ 高久, 南野, 後藤団員 ]</p> <p>・ 大使館, JICA 事務所とミニッツの内容協議</p> <p>・ 東京 JICA 本部への連絡</p> <p>・ 最終ミニッツ案の作成</p> </div> </div>
10/11	金		
10/12	土		チーム内打合せ・自由
10/13	日		自由・チーム内打合せ
10/14	月	9:00~12:00	<チュラロンコン大学との協議> ・ 協力目的, 協力内容詳細打合せ
		13:00~	・ ミニッツ署名

月/日	曜日	時間	内 容
		15:00	シリントン王女謁見
		17:00	大使館報告, JICA 報告
		18:30	調査チーム主催懇親会
10/15	火	10:30	バンコク発 TG740 便  TG740 便 はバンコク離陸約1時間後, メカニカルプロ ブレムのためバンコクに戻り, 同日22時に再度バンコクを 出発したが, 再度メカニカル, プロブレムのため, 離陸約30 分後位にバンコクに引返した。
10/16	水	10:00	バンコク発 TG7401 便  TG740 便はTG7401 便に便名を変更し, 航空機体を変 更の上, 同日1時間遅れでようやく出発した。



## 5. 調 査 結 果

- |             |         |
|-------------|---------|
| 1) 総 括      | 芦 沢 正 見 |
| 2) 疫 学      | 芦 沢 正 見 |
| 3) 遺伝学／奇形学  | 塩 田 浩 平 |
| 4) 外 科 学    | 高 久 晃   |
| 5) ミニッツ交渉経緯 | 南 野 肇   |





## 1) 総括

芦沢正見

調査チームは疫学分野を芦沢正見、遺伝学/奇形学分野を塩田浩平、脳神経外科分野を高久晃が分担し、情報収集ならびに調査を行なったが、集団現象として遺伝/奇形を観察する場合、疫学/奇形分野は相互に関連するところが少なくないので、両分野は随時協議しつつ作業を進めた。

### 【疫学】

疫学の見地から情報収集についての問題点としては以下の事項が指摘されよう。

- 1) 得られたデータはすべて病院/診療所受診患者の疾病/死亡統計に限られた。このことは統計値はそれぞれの病院/診療所の性格(設置主体・サイズ・スタッフ・機器・地域性等)により著しく左右されているわけで、受診患者集団を如何に規定すればよいか当面の記述疫学の課題となる。
- 2) 疫学調査を計画するにあたり、基準(レファランス)集団設定のため人口学的情報は最小限度であれ必要であるが、今回の調査は短期のためもあり、信頼のおける公的な人口動態統計の内容の検討には至らず、チュラロンコン大学サイドとの接触・協議に終始したが、あわせて第1に取り組むべき課題としたい。
- 3) 一般にコホート研究法はケース・コントロール(レファランス)法に比し信頼度が高い結果が得られるといわれているが、実施を可能にするための前提条件を明かにするため、若干の拠点病院/診療所 診療/病歴保管・検索のネットワークをセットし、パイロット研究を行なうことが考慮されよう(フィージビリティ研究)。  
今回の現地踏査にあたり、チュラロンコン大学病院と関連のある病院/診療所はきわめて協力的であったことは意を強くするに足りる。
- 4) Dr Charas を中心としたチュラロンコン大学医学部の研究グループは本奇形について一通りの研究資料はもっており、その要旨は10月8日の会議の席でDr Charas はじめ研究担当者から逐次述べられた。それによると本奇形の頻度は $1/5,000 \sim 1/6,000$  以上と推定されているが、その個々のデータは調査対象・方法・診断基準等が一樣でなく、地域差・人種差や軽症者・未受診者等の問題など明白な結論が得られているものは何もなく、今後の研究調査活動をとおしてアプローチすべき課題は山積している。

疫学分野のカウンターパートとしてはチュラロンコン大学病院小児科のDr Ayut Dhamkrongit にまず指を屈したい。彼は "Case-Control Studies-Design, Conduct, Analysis, 1982" の著者である J. J. Schlesselman Ph. D. (合衆国の National Institute of Child Health and Human Development, 疫学生物統計研究部) 及び P. D. Stolley M. D., M. P. H. (University of Pennsylvania, School of Medicine, 内科教授) の許で血液学と臨床疫学を学んでおり、今後続行されるべき奇形疫学調査にあたっては、得がたいリーダーのひとり目されよう。

### 【 遺伝学／奇形学 】

- 1) 遺伝学の立場からみると、集団遺伝学の専門と称される研究者は存在せず、染色体検査も初歩的なレベルにとどまっている。少数の指導的地位にある者はいづれも欧米留学歴はあるものの、研究者の層はうすく、テクニシャンの養成研修にも事欠く実状のようである。

遺伝／奇形学の調査をプログラムにそって進めるためにも、さしあたり最低限必要な設備とテクニシャンの養成は急務であると思われる。

双生児登録と奇形児登録とを同時に発足し、相互の記録の連結（レコードリンクージ）をはかるシステムの開発は、遺伝学／奇形学の息の長い研究に対し豊饒な土壌を提供するものであり、すでにヨーロッパ経済共同体（ECC）は加盟国の18都市において1979年以来共通のフォーマットを用い登録／モニタリング事業を行なっている。チュロンコン大学を核として逐次このような方式でカバリッジを拡充することができれば理想的であろう。

【 疫学・遺伝学／奇形学 】 以上、疫学・遺伝学／奇形学の調査研究を今後3年間にわたり行なうためのプログラムは次のようなものになる。

- 1) 第1年次： i) 既収集症例の検討と確認 ii) 母の流死産歴の収集 iii) 患者両親の血液サンプルの収集と保存 iv) 流産胎児標本収集のための準備 v) 疫学情報の収集と検討 vi) 疫学的仮説の設定 vii) 主要奇形／複胎登録の準備
- 2) 第2年次： i) 第1年次の作業の継続と補充 ii) 家系データの分析 iii) 細胞遺伝学的研究 iv) 胎児の病理学的検索 v) ハイリスタグループの明確化 vi) ケースコントロール（レファランス）研究 vii) 主要外表奇形／複胎登録の開始
- 3) 第3年次： i) 第2年次の作業の続行 ii) 確立されたハイリマクグループに対する出生前診断及び新生児集団検診 iii) 疑われた外因について動物を用いての催奇形実験 iv) 研究の総括 v) 今後への指針

### 【 脳神経外科 】

- 1) タイ国内7医大病院のうち5医大病院が脳神経外科研修機関にあてられ、指導医は計30名、研修医は約20名、その他、県の病院に14名の研修を経た外科医、バンコク市内病院に13名の専門外科医がいる状態で、総数100名にみたく、日本の2000名の専門外科医に比し、絶対的に不足し、しかも都市に集中している。（少なくとも800名いるとすれば、ほぼわが国の対人口比に匹敵）
- 2) 欧米で教育をうけた指導者をよめるこの国の外科医のレベルは決して低くはない。しかし機器は充足されておらず、たとえばCTスキャナー、手術用顕微鏡などもチュロンコン大学においてすら、きわめて少なく、容易に使用できる状況にない。
- 3) Dr. Charas によって開発された本奇形に対する術式はほぼ完成されたものといえ

ようが、さらに今後の共同研究の方向として次のテーマがあげられよう。

- I) 手術の際の髄液漏の予防の実験的研究レーザーメスの効果のテスト
- II) 上記の臨床的応用
- III) 追跡予後調査による本奇形の手術適応に関する研究
- IV) 合併奇形に対する小児外科的治療及び術前術後管理についての研究
- V) 顎・顔面の形成外科学的研究

以上の各テーマは技術移転を通じ、双方の専門家の協議の上、各年次ごとのプログラムの展開が十分可能であると思われた。

2) 疫学

芦沢正見

Chantaburi 及び Chacheongsao 現地踏査報告

目的：疫学的研究を行なうための前提となる現地病院、診療所側のもつ情報の把握とその評価

日時：1985年10月10-11日

- 訪問場所
- 1) Prapokklao 病院, Chantaburi Province
  - 2) klung Community 病院
  - 3) Kwien Huk Subdistrict Health Station
  - 4) Somdej Na Sriracha 病院, Cholburi Province
  - 5) Ban-Hin-Dad 村の Subdistrict Health Station, Rajasan Sub-district Health Station, Rajasan Subprovince, Chacheongsao Province.

一行氏名：

- タイ側：
- 1) Dr Maait Limpaphayom
  - 2) Dr Chukiat Sakuntanaga
  - 3) Dr Ayut Dhamkrongat-At
  - 4) Dr Surachai Kaoroptham
  - 5) Dr Bidhya Chandrakamol

- 日本側：
- 1) 芦沢正見
  - 2) 塩田浩平

1) Prapokklao 病院訪問

10月10日午前9時過ぎ Chulalongkorn 大医学部発, Chantaburi Province の Prapokklao 病院に正午過ぎに到着, 院長以下スタッフの出迎えを受ける。昼食後, 1984年度病院統計報告書が配布され, 説明をうける。

第1表：外来患者の10大疾患

1. 口腔および顎の疾患	9,114
2. 急性呼吸器系感染症	8,028
3. 神経症, 人格異常および, その他の精神症でない精神障害	5,449
4. マラリア	5,089
5. 食道・胃・十二指腸の疾患	4,389
6. 交通事故による外傷	4,228
7. 肺結核	3,678
8. その他の女子生殖器の障害	3,625
9. 視器および付属器官の障害	3,588
10. 慢性閉塞性呼吸器疾患および付随する症状	3,038
計	50,226

第 2 表：年間在院患者統計

統 計	26,560
前年度からの繰越し	528
新 患	26,032
内 科	7,447
外 科	4,233
整形外科	1,220
小 児 科	5,716
産 科	4,422
婦 人 科	1,869
精 神 科	579
眼 科	225
耳鼻咽喉科	321
在院延日数	214,851
1日平均在院患者数	589
平均在院日数	8.25
病床占有率(%)	97.17
死亡患者数	1,155
収容前死亡数	176
外来死亡患者数	19
在院患者死亡数	960
死亡率(患者1000対)	36.88

今回の疫学調査に関係が深い産科入院患者数は年間4,422である。在院患者1,000人対死亡率は(在院患者死亡960/年間新入院患者数26,032)×1,000の式で算出されている。

表 2・1 在院患者の10大疾患	患者数
1. マラリア	3,318
2. 交通事故による外傷	1,377
3. 消化器系感染症	1,195
4. 交通事故を除く外傷	987
5. 死 産	534
6. 慢性閉塞性呼吸器疾患および付随する症状	505
7. 肺 炎	396
8. 故意による殺傷	388
9. 食道・胃および十二指腸の疾患	377
10. 女子生殖器の障害	369

以上10大疾患で年間総在院患者の35.6%を占める。

MorbidityおよびDeath rateの欄もあり、数値が記載されているが、(たとえばマラリアではそれぞれ13.75および21.4, 死産(abortion)では2.21および一)。

Morbidityは分母を年間在院患者総数とすると近い値が得られるが、Death rateについては不明。死産(abortion)は大多数は自然死産であるという。またピルの服用がすすめられているにもかかわらず、社会経済的な理由による非合法的な人工妊娠中絶は、農村地方ではかなり行なわれているという。

表2.2 死 因

	死亡数	死亡率	死因%
1. 周産期死亡	88	3.38	9.17
2. 交通事故外傷	79	3.03	8.23
3. マラリア	71	2.73	7.40
4. 脳血管損傷	70	2.69	7.29
5. 肺 炎	67	2.57	6.98
6. が ん	66	2.54	6.88
7. その他の消化器系疾患	56	2.15	5.83
8. 自殺・自傷	53	2.04	5.52
9. 肺 結 核	50	1.92	5.20
10. 心 不 全	49	1.88	5.10
計	649		67.60%

死産原因

母体の感染	( 9 )
マラリア	6
梅 毒	3
先天奇形	( 4 )
無 脳 症	2
水 頭 症	1
胎児水腫	1 (腹水, 剖検例)
不 明	(32)
計	(45)

1984年1月~1985年6月

生産数 5,976

主な先天奇形	97	率 千対 16.8	
中枢神経系	22	一内訳	無脳症 10
骨格系	14		髄膜瘤 (4)
皮膚	12		F E E M 2 <sup>*)</sup>
泌尿生殖器系	10		胸部髄膜瘤 1
先天性心奇形	10		腰部 " 1
消化器系	9		小頭症 4
ダウン症	8		水頭症 4
視器・聴器	4		計 (22)
唇裂・口蓋裂	2		
ターナー症	2		*) 約1歳の男児例を観察する 機会を得た。
絞扼輪症候群	1		
システイックヒグローム	1		
結合双生児	1	(中国系)	
Smith-Lemit-Opitz症候群	1		

妊娠の受診は初診は4か月から。

妊娠診断は6週から可能である。

血族結婚はバンコクにおけるより少ない。

施設内分娩率は全国的にみて20~30%であると。

脳髄膜瘤手術例	男	女	
1980年10月-81年9月	—	4	
81年 " 82年 "	—	3	
82年 " 83年 "	4	4	
83年 " 84年 "	3	8	
84年 " 85年 "	3	4	
計	10	23	計 33

F E E M 32, 後頭脳髄膜瘤1で他はF E E M。

うち、水頭症を伴うものは10例。

所得は比較的低所得層に多いようであると。

表3-9は診療科別病床数, 麻酔施行種別患者数, 手術種別患者数, 病院職種別従事者数, 家族計画施行別統計, 予防接種施行統計, 等であるが省略する。

表10. 他機関への紹介 (Refer to), 他機関からの受け入れ (Received from) 等の実数

Refer	Provincial Hospital	67例
	Community "	87



Health Center	56
その他	11
計	221
Reply	63
Received from Prov. Hospital	112
Comm. Hospital	1,042
Health Center	513
その他	63
計	1,730
Response	675

三種の機関間の連絡、通報システムの可能性、有効性をさぐる意味で検討に値しよう。

付：Chulalongkorn 大学の医学部、歯学部は1981年10月、タイ国の東部地域における保健問題の把握とヘルスケアシステム導入のための予備的調査を行なっており、当時の報告の要旨が提供された。標題「Report of Epidemiological Study at Klung, Chan-Tha-Buri」調査目的として4項目があげられている。

1. 保健状態と保健事業の有効性を評価する適当な方法の発見
2. タイ国東部地域における地域保健問題の探究
3. 健康にイムパクトを与える社会文化的、経済的状态についての資料の収集
4. ヘルスケアシステム利用の試行

進め方として、Chulal 大医・歯科部及び、Chan-Tha-Buri 地方の臨床医・公衆衛生スタッフによる調査研究委員会を設けつぎの段階をふんで調査研究を行なうとしている。

1. 地区保健従事者の参加
2. 対象世帯のマッピングと有意標本、抽出
3. 地区保健記録と報告制の検討と評価
4. 直接世帯訪問調査による疫学的データの収集
5. 健康教育活動を促す目的をもって実施する村落の住民健診
6. 医療ニーズ推量を可能にする一定方式による健康記録収集センターの設置

パイロット調査の対象として、タイの東部地方の二村、Kwien-Huk と Trok-Nong が選ばれた。両村は多くの点で類似している。人口は、それぞれ628と739、性比はほぼ1、被扶養者率は67.6、61.5%、家計は主に熱帯果樹の収かくにより、年収はそれぞれ42,183 B, 48,278 B, 低所得者率は48.3, 39.1%。

調査項目は自然環境、人口構造、住居、上下水、農薬使用、家族計画、有病者、事故傷病者、先天異常者、栄養検診、結核検診、歯科検診、以上の結果の概略が述べられ、結論として適切な疫学的アプローチを進める上で、ひとつの農村保健情報センターが必要であり、その活動に

よって cost-benefit, および cost-effectiveness の判断の上に立った合理的な保健計画が推進できるとしている。

## 2) Kwien-Huk Health Station 訪問

われわれは上記の村のうちの Kwien-Huk 村の Subdistrict Health Station を訪問したわけである。日常の簡易な治療と分娩介助を 1 名のナースが行っており、健康教育用の資料も若干は用意されているようであった。

## 3) Ban-Hin-Dad Health Station 訪問

人口数百の米作を主とする都市的環境から全く隔絶した小村落であり、Chulalongkorn 大学医学部が前に免疫学的研究のフィールドにした村である。やはり、1 人の女性が保健医療に従事しているのみである。1 例の唇裂・口蓋裂（手術済み）の男児（5～6 歳）とその家族に問診する場面に立会った。

## 4) Klung Community Hospital 訪問

医師 2 名がいる 10 床の地域の小病院、入院患者の約 9 割がマラリアである。地域の分娩数は月 3.5 - 4.0 で年出産率は 14.5/1,000, 先天異常の頻度は明かでない。

突出軽度の FEEM 症例（49 歳女）を観察する機会を得た。

## 5) Somdej Na Sriracha 赤十字病院訪問

Chulalongkorn 大学病院の関連病院であるので、途次、院長を表敬訪問したのであろう。院長は産婦人科医であり、われわれの意向に理解を示し、今後の協力についても好意を示された。

## 6) 意見交換ならびに総括討議

Chulalongkorn 大学医学部において 10 日 8-9 及び 10 月 14 日午前、意見交換ならびに総括討議が行われた。ただし 14 日午前はミニッツ署名をひかえ、十分な時間がなかった。（午後は王宮にてのシリキントン王女謁見の予定が組まれていた。）

疫学部門について意見交換の結果つぎの諸点について相互理解と合意が得られたものと考えられる。

1) FEEM をふくむ中枢神経系先天異常に関する疫学調査研究の可能性を明かにするため、適当な地区を選んでパイロット調査を行なう。分母人口、発生頻度（性、年齢、出生時の父母年齢、種族、社会階層、職業、出生順位別統計）、妊娠分娩歴の収集。

2) 1) により可能と判断された項目について過去にさかのぼり（たとえば 5 年間）、なるべく多くの症例を、Chulalongkorn 大学病院は固より、すべての関連病院によびかけてデータを集めるため、Chulalongkorn 大学病院/医学部内に収集センターをおき、専任の管理者をおく。将来に向かっても、登録センターの機能をもつことを期待する。統計上検定にたえる症例数が集まれば、頻度の時系列変動、季節変動等も観察できよう。問題は分母となる人口学的データの確定であるが、当面は hospital based registry としての発足を主にせざるを得ないと考えられる。

- 3) 妊娠中も分娩時も来院しないケースの把握方法をパイロットスタディを通じ探策する。これまでのChlal. 大学のフィールド研究の経験を生かす。
- 4) 以上の記述疫学の知見から、いくつかの仮説を立てて、ケース・コントロール研究を行なう。
- 5) 十分な症例数を得て、要因別にコーホルト研究が組めないか、前向きコーホルト研究を進めるには、モニタリング/サーベイランスシステムの設置が効率的である。この点について芦沢より、ICBDMS ( International Clearinghouse for Birth Defects Monitoring Systems ) の沿革と現状、日本のモニタリングシステムとのかかわり、国際疫学研究の事例、WHO当局との関係等につき説明を行なった。

## 1. タイ側による F E E M 研究の現況とその問題点

Dr. Charas を中心とした Chulalongkorn 大学のグループは F E E M について一通りのデータを既に有しており、その概要が 10 月 8 日の会合において Dr. Charas から提示された(表 1~7)。

まず生産児中の頻度は、調査によってばらつきはあるが、ほぼ  $1/5,000-6,000$  或いはそれ以上と推定されている。しかし、これらの調査対象や診断基準は必ずしも明確ではなく、general population における頻度、地域差、軽症患者の ascertainment の問題などは今後の疫学的研究の過程において解決される必要がある。

遺伝学的データについては表 3 に示すごとく、F E E M のほとんどが Thai 人に発生していないという。このデータを見る限りにおいては、強い人種差があるように見えるが、Thai と Chinese の区別は、前者が "said to be Thai blood", 後者が Chinese community の住民というくらいで、例えば遺伝学的マーカーや数代前の祖先までさかのぼって調べたものではないようである。タイ人の中には見かけ上明らかに中国人と思われる人がかなり多く、上の区別がどの程度意味のあるものかは検討を要する。

家系内発生については、約 50 例の患者の両親には F E E M の発生はなく、同胞、同胞の子、おじおばにも全く発生がなかったが、おじ又はおばの子に 2 例の発生が見られたのが注目される。(表 7) Dr. Charas の患者については全例家系調査がなされているとのことであったが、祖父母の同胞などについてのデータは不十分であった。また家系調査も、脳外科医や小児科医が問診によって作成したもので、遺伝学者或いは遺伝学のトレーニングを受けた医者は関与していない模様であった。Chulalongkorn 大学には、population geneticist はいないとのこと、したがって本研究チームのメンバーにも加わっていない。

これまで Dr. Charas のグループが扱った F E E M の患者には染色体異常は見出されていないという。但し、F E E M の全例について染色体分析を行ったものではない。

患者は第 1 子に最も多く、約半数の患者が lowland rice field の住人であるとのことであるが、これらについても control data がなく、特別の意義は認め難い。母親の産科歴については、生産児の場合のデータは集められているが、流死産歴、特に自然流産の際のデータはほとんど不明である。

タイ国内での患者発生の分析について調べることも重要であるが、Chulalongkorn 大学は Bangkok とその周辺及びタイ南東部のいくつかの Province についてはかなり影響力をもっているが、北部地方のデータは乏しく、また他大学との連携については不十分で、今後特にその意欲があるように感じられなかった。例えば、文献 Humangenet 11:1-8 (1970) の存在やその著者の Chongdee Sukthomya (Chiang Mai 大学) について知っているのは、本研究チームに誰もいなかった。なお会議中にもしばしば F E E M が

poor people に多いというコメントが聞かれたが、これはいわゆる“感じ”であって信頼すべき疫学調査によるものではないようである。

以上のように、Dr. Charas を中心とした Chulalongkorn 大学のスタッフは、F E E M の多数例について、既に多くのデータを保有している。もとより、これらのデータは多くの重要な示唆を与えるものではあるが、個々のデータの質を検討してみると、これらがそのまま遺伝学的または疫学的解析に耐えるものとは言い難い。彼らは多数の患者の名前や住所を把握しているとのことであるので、これらのデータを今後補完するのは可能かもしれない。

形態学的な観点からは、これまで Dr. Charas は患者及び死亡例については頭蓋顔面及び脳の病理像についていくつかの論文に記載しているが、これまで F E E M 胎児死亡例を検索したデータは乏しく、また発生学的なアプローチもほとんどなされていない。なお、10月8・9日の両日にわたって Dr. Charas 以外の多数のスタッフからも多くの presentation がなされた。これらは、Chulalongkorn 大学における各種研究の概要やそのレベルを知る手懸りにはなったが、F E E M そのものの問題解決に結びつくデータはほとんど得られなかった。

## 2. タイ側研究者と研究施設

10月8・9日に、Chulalongkorn 大学病院の ward tour と研究室の視察を行ない、各研究者を interview した。全般的な印象としては、会議に列席したタイ側研究者の多くは欧米でトレーニングを受けており、一定レベルの研究を行い得る能力と知識を有していると思われたが、彼らの共同研究者というべき人は少なく多くの研究室では彼らが1人～数人のテクニシャンを使って仕事をしている状態で、研究者の層は非常に薄いと感じられた。また scientific な publication も活発ではないようであった。

各研究室の研究施設は乏しく、必要最小限の機器も備えられていない研究室がいくつかあった。いわゆる“最新”の研究機器類はほとんど見られなかった。

### a) 染色体検査

解剖学教室の Dr. Orasri Romyanantna が一人の獣医と一人の中年女性テクニシャンを使って行っている。研究室は1971年に設置され、1980年頃からようやく軌道にのったとのことである。現在、末梢血リンパ球を用いた分析を行っており、時々羊水材料も分析するが後者は培養がむずかしいとのコメントであった。1標本当り25～30組の metaphase を分析しており、毎月最大30～40検体の分析なら可能だろうとのことであった。分析はギムザ染色及びGバンド法を使っているが、他の分染法は全く行っておらず、タイ側資料に見られるように転座部位の正確な同定などは困難な現状である。蛍光顕微鏡は備えられておらず、培養設備やクリーンベンチも旧態であった。Dr. Orasri 自身も、より高度のテクニックを身につけたいとの意向であった。

なお、タイ国内で染色体分析が可能な施設はここを含めて3か所のみ(うち1つはチェ

ンマイ大学)とのことである。

b) 遺伝生化学, 分子遺伝学など

thalassemia に関してはかなり研究が行われており, ヘモグロビン研究の基礎は備わっていると思われた (Dr. Sumalee Srivuthana)。その他, Dr. Reutai Sakulramrung は B 型肝炎の研究を, Dr. Preeyachit Charoenwongse は HLA-typing をやっている。Dr. Thada Sueblinvong も biochemist で, 先天異常に関する molecular work をやりたいとの希望をもっていたが, そのプランは抽象的で, また研究室もまだ set up されておらず, 直ちに何らかの研究を始めるのは不可能との印象を受けた。本研究チームには他の生化学者は参加しておらず, 分子レベル, DNA レベルの各種研究を行うには今後かなりの時日が必要と思われる。研究設備も十分ではなく, deep freezer, spectrophotometer などはなく, それぞれの研究に必要な高価な試薬も仲々手に入らないとのことであった。

c) 集団遺伝学

Chulalongkorn 大学には集団遺伝学者はいない。

d) 遺伝相談, 出生前診断

遺伝相談を専門に行なっているスタッフはなく, 主として産婦人科医が診療の一部に遺伝相談をしている。

出生前診断については, ハイリスク妊婦について超音波診断や羊水穿刺を行っているが Chulalongkorn 大学においてすら妊婦に超音波検査をルーチンには実施しておらず, 一般の産婦人科医で超音波診断装置を保有しているものは少ないとのことである。Chulalongkorn 大学には 3 台の超音波装置があるが, うち 2 台は放射線科に置かれてあって産科診療には使えない。会議において提示された胎児のエコー像はすべて 3.5 MHz の装置によるもので, 解像力は十分とはいえなかった (最近の超音波装置はすべて 5 - 7.5 MHz)。現在 Chulalongkorn 大学産婦人科で超音波診断を行う医師は 2 名のみで, 今のスタッフのままでは外来妊婦のすべてに超音波検査を施行するのは困難であるとのことである。

当大学産婦人科における羊水穿刺後の胎児死亡率は 1/200 で, これは諸外国の成績と差がない (Dr. Pairoj)。

e) 胎児病理学

現在, 流産胎児や新生児を専門に検索する研究室はない。また, 流死産胎児を系統的に集めるシステムももっていない。本プログラムでは, Dr. Urai Apichitreungdej に胎児病理学を分担させるとというのが Dr. Charas の意向である。彼女は十数年前京都大学西村秀雄教授のもとで数か月間研修を受けたが, 現在ヒト胎児病理学の研究は行われていない。

### 3. Field trip

10月10, 11日の両日, Chantaburi province, Cholburi province, Chacheongsao provinceのfield tripを行ない, 数か所の病院及びhealth stationを視察した。日本側から参加したのは芦沢, 塩田の2名で, タイ側から5名の研究者が同行した。

#### a) Prapokklao Hospital, Chantaburi province

病院側から, 病院全体の説明と先天異常に関するデータの提示があった。この病院では, 1984年1月から1985年6月までの18か月間に5,996例の生産児分娩があり, うち97例(16.2/1,000)に先天異常が見出された(表8, 9)。最も多いのが中枢神経系の奇形で, 無脳症が10例あった。meningoceleの出産は4例あり, frontalのものが2例, 胸部と腰部のものが各1例あったという。このうちFEEMをもつ小児(約1歳)が連れてこられ, 観察する機会を得た。ここでは先天異常調査のためのシステムが整いつつあるように感じた。

なお, 同病院での上の調査期間に8例のダウン症児が生れているが, いずれも染色体検査を行わず臨床像だけで診断を下したものである。したがってトリソミー型か転座型かの別さえわかっていない。染色体検査のための施設はなく, 検査が必要な場合は, Chulal大学へ送るとのことであった。

全国的には, 全出産の70-80%がhome deliveryによっているとのことである。

脳外科では, 1980年10月-1985年9月の間に33例のencephalomeningoceleを手術し, うち1例は後頭部脳瘤, 32例がFEEM(M:F=10:22)であった。FEEMのうち10例が水頭症を合併していた。

#### b) Klung Community Hospital

医師2名がいる10床の病院(現在の入院患者は15人!)である。入院患者の90%がマラリアである。

当病院がカバーする地域で, 月に35-40出産があり, 出産率は14.5/1,000である。ちなみに死亡率は4.7%。先天異常の統計データは整っていなかった。

なお, 入院中の若い女性1人が軽症のFEEMを有していた。肋骨部の突出は軽度であったが, 腫瘍の一部が眼窩内へ出ており, hypertelorismが認められた。

#### c) Somdej Na Sriracha 病院 (Chulal. 大学関連の赤十字病院)

産婦人科医である院長を表敬訪問した。本研究に興味を示し, 是非協力したいとのことであった。

#### d) Kien HukのSubdistrict Health Station

保健婦に当たる女性が日常の簡単な治療と分娩などを行うシステムになっていた。こうした女性は正規の看護婦ではなく, 簡単な訓練を受けただけのものである。

#### c) Hin Dad 村

人口数百の隔離村であり、Chulalongkorn大学が以前この住民を対象に免疫能に関する調査を行なっている。やはり上と同様の Health Station が一か所あり、住民全部をよく把握しているとのことである。近親婚は多くないが、村には大きく分けて2つの姓があるとのことである。この村で唇裂口蓋裂（治療後）の児童があり、その家族を問診する機会を得た。患児以外の家族メンバーには同様の異常はこれまで知られていないとのことであった。またこの村での F E E M の発生は知られていない。

#### 4. タイ側研究者の要望

懇談の中で、タイ側研究者から日本への要望が出された。但し、これらは研究チームとしての意見ではなく個々の研究者の希望を塩田個人が聞くという形で行なわれた。タイ側研究者の希望は大別して (1)研究施設及び機器類 (2)手に入りにくい試薬など (3)running cost (人件費を含む) (4)日本での研修、に分けられた。各研究室とも基本的な研究機器が不足して一方、最新の機器も手に入れたいという希望があって、非常に幅広い要望が出された。以下に要望の出された機器類のうち主なものを列記するが、この中には F E E M 研究に直接必要がないと思われるものも含まれている。

蛍光顕微鏡、新しい光学顕微鏡、培養装置、染色体自動分析装置（以上、染色体研究用）  
ディープフリーザー、分光光度計、低温超遠心機、液体シンチレーションカウンター、pH  
メーター、液体窒素タンク、flow cytometer、ELISA washer, lamina flow,  
biohazard 用研究設備（以上、主に生化学用） 超音波診断装置（出生前診断用） 病理  
用設備一式（胎児病理学）

#### 5. 将来計画

10月14日の最終会議で、遺伝学及び奇形学の方面で今後 F E E M について行なうべき研究項目が挙げられ、今後具体的に検討されることになった。

##### (1) 原因究明

疫学研究と並行して遺伝学的な調査を行なう。

##### a. 家系分析

なるべく多くの患者について、より完全な家系調査を行なう。近親婚、母親の流死産歴についても詳細に調べる。

##### b. 細胞遺伝学的研究

染色体分析、染色体多型、sister chromatid exchange など。

##### (2) 早期診断

##### a. 出産前診断

超音波診断、羊水穿刺（染色体、 $\alpha$ -fetoprotein など）

##### b. ハイリスクグループの新生児スクリーニング



(3) 発生機序の解明

a. マーカーの検索

血液型, HLA, 各種抗体 (B型肝炎, 抗ウィルス抗体など), 蛋白質・酵素の変異など

b. 流死産胎児についての胎児病理学的研究

F E E M胎児

F E E M患者の母親からの流死産胎児

ハイリスクグループからの流死産胎児

c. 患者及び血縁者についての人類学的研究

顔面の解剖学的特徴など

(この種の研究が唇裂口蓋裂患者について行なわれている。)

d. 動物モデルの開発

e. 疫学で疑われた外因に関する実験的研究 (催奇形実験)

(4) 予 防

疫学研究の結果, 特定の外因や栄養障害などが疑われた場合はその予防対策を立てる。

a. 栄養 (ビタミンなど) の補給

(英国で無脳症の予防にビタミン投与が試みられているが, F E E Mの場合は, 同胞再発例がないなどの理由からこの方法は現実的ではないかもしれない。)

b. 疑われた外因の除去

具体的な研究の進め方としては, 次のような暫定プランが合意された。

第1年次

F E E M症例の ascertainment

詳細な家族歴の収集

母の流死産歴の収集

患者と両親の血液サンプルの収集と保存

胎児収集の開始

研究設備の set up

第2年次

第1年次の作業を継続する

家系データの分析

細胞遺伝学的研究

胎児の病理学的検索

ハイリスクグループに対する出生前及び新生児スクリーニング

第3年次

第2年次の作業を継続する  
 疑われた外因についての催奇形実験  
 総括

Dr. Charas のデータ ( slide presentation から書き取ったもの )

表1. FEEMの合併奇形

水頭症 ( 10% ), holoprosencephaly, 指趾奇形  
 精神薄弱, てんかん, 無眼球症, 神経管奇形

表2. FEEMの予後

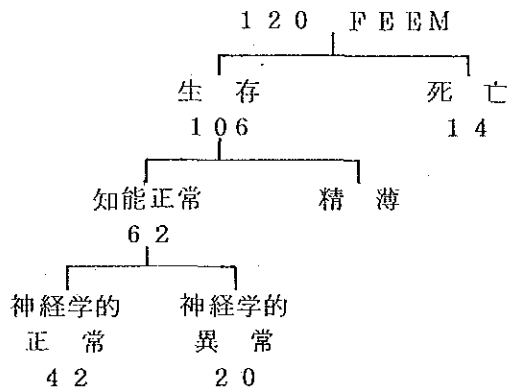


表3. FEEMと人種

Thai	人口 10,111 中	奇形 41 例	FEEM 2 例
Chinese	" 10,402 中	" 8 例	" 0

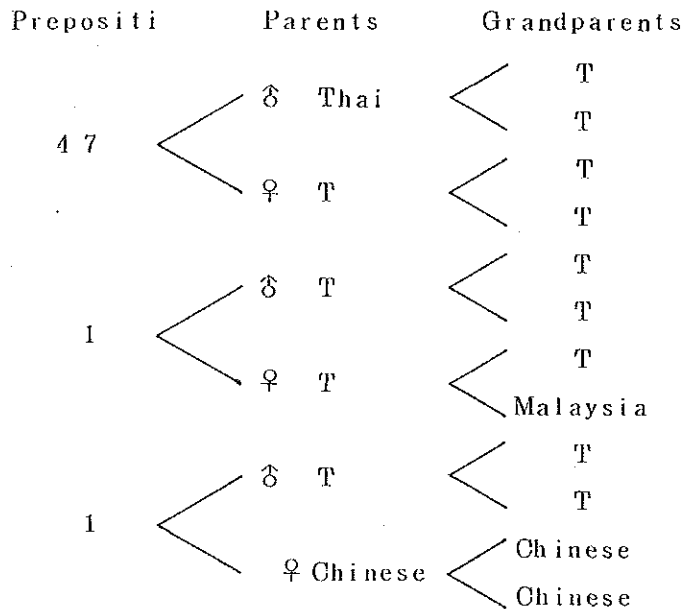


表 4. FEEM患者の出生順位

1 <sup>st</sup> Child	15	6 <sup>th</sup>	4
2 <sup>nd</sup>	5	7 <sup>th</sup>	3
3 <sup>rd</sup>	5	8 <sup>th</sup>	0
4 <sup>th</sup>	5	9 <sup>th</sup>	4
5 <sup>th</sup>	7	10 <sup>th</sup>	1

表 5. FEEM患者の親の職業

Farmer	32
White color	7
Blue color	6
Others	4

表 6. FEEM患者の家の経済状態

Well to do	5
Medium	3
Poor	2

表 7. Family history

169	Sibs	1	IE Cong. blindness
37	Offspring of Siblings	0	
162	Sibs of fathers	0	
192	Sibs of mothers	2	(twins)
376	{ Offspring of uncles " of aunts }	7	cong. anomalies incl. <u>2 FEEM</u>

Prapokklao Hospital のデータ

表 8. 1984年1月～1985年6月の出生データ

5996 live births	
Gross anomalies	97 (16, 18 / 1,000)
1	中枢神経系 22
2	骨格系 14
3	皮膚 12
4	尿生殖器系 10
5	先天性心奇形 10

6	消化器系	9
7	トリンミー	8
8	眼, 耳	4
9	Miscellaneous	

表 9. 中枢神経系奇形の内訳

無 脳 症	10
髄 膜 瘤	4
前 頭 部	2
胸 部	1
腰 部	1
小 頭 症	4
水 頭 症	4

## 4) 外科学

A 脳神経外科に関し調査した内容は以下の如くである。即ち①タイ国脳神経外科医の人数・分布の確認 ②前頭部脳瘤の処理状況の確認 ③一般脳神経外科医の手術レベル及び能力の確認 ④機材配置の妥当性及び効率性

## ① タイ国脳神経外科医の人数・分布の確認

(表1)  
タイ国には7つの医科大学があり、その中の5ヶ処が脳神経外科医訓練場所となっている。5ヶ所の訓練場には夫々に1～8名の指導的立場に立てる脳神経外科医が総計30名おり、夫々の施設には1～7名の訓練中の若い脳神経外科医が約20名配置されている。その他地方各県の病院に14名の訓練を終えた脳神経外科医がおり、又バンコック内の各種病院にも13名の訓練を終えた脳神経外科医がいる。即ち人口約5,000万人の中に訓練を終えた脳神経外科医60名、訓練中の脳神経外科医20名いるのがその実態であり、(図1)その分布も全国にも比較的均等に配置されてはいる。しかし日本では人口11,000万人に対し訓練された脳神経外科医約2,000がいるのに比べれば、尚その絶対数は少いと言える。

## ② 前頭部脳瘤

訓練を終えた脳神経外科医がまだ少なかった時代に於ては、その症例は地方よりチュラロンコン大学病院に集ってきていた様である。しかし全国に均一に脳神経外科医が配置されつつある現在では、地方においても前頭部脳瘤の手術が技術的には可能となりつつあると言えよう。

## ③ 一般脳神経外科医の手術レベルの確認

チュラロンコン大学病院における年間手術数は600台を数え、その多くは脳腫瘍、脳血管障害等の大手術であり、これらの手術を消化している事から考えて、そのレベルは決して低くない事を示すと思われる。又 Bangkok 内の訓練された脳神経外科医30名中22名は欧米に於て訓練された脳神経外科医であり、数は少いにしてもそのレベルは一定の水準に達していると考えられる。

## ④ 機材配置の妥当性及びその効率性

以上の如き比較的高水準の脳神経外科医によって日常の診療活動が行われているにも拘らず、その機材は不足している。即ち、CTスキャンはタイ国全体で7台程度、手術用顕微鏡も全国に6台程度しか配置されていないので、明らかに不足していると考えられる。従って機材配置の必要性は充分にあり、その効率性も良いと推察される。

B 以上の如きタイ国における脳神経外科の実状に鑑み、以下脳神経外科又は外科領域における前頭部脳瘤に関する対策を策定すると以下の如くなる。

尚、本疾患に関する手術療法は関係者の一人、現チュラロンコン大学医学部長 Dr. Charas によって開発されたものであり、その手術療法はほぼ完成されたものと言えよう。

① 前頭部脳瘤の手術における髄液漏の予防と実験的研究

Las er を用いた硬膜等の軟部組織の接着を開発するのを目的とする。この実験は主にタイ国脳神経外科医及び本邦脳神経外科医が日本の研究施設に於て行うのが妥当と考えられる。

② 前頭部脳瘤の手術における髄液漏の予防と臨床応用

1.における実験の成果を踏えて主としてチュラロンコン大学に於て臨床に応用する。

③ 前頭部脳瘤の手術適応に関する検討

Dr. Charas 等によりその手術適応はほぼ決定されてはいるが、臨床例の追跡結果等により、更により良い手術適応を検討する。

④ 合併奇形に対する小児外科的治療及び新生児期手術に於ける術前術後管理の検討

主として小児外科医により検討されるべき問題であり、タイ国小児科医の来日等の機会に検討実施する。

⑤ 顎、顔面の形成外科

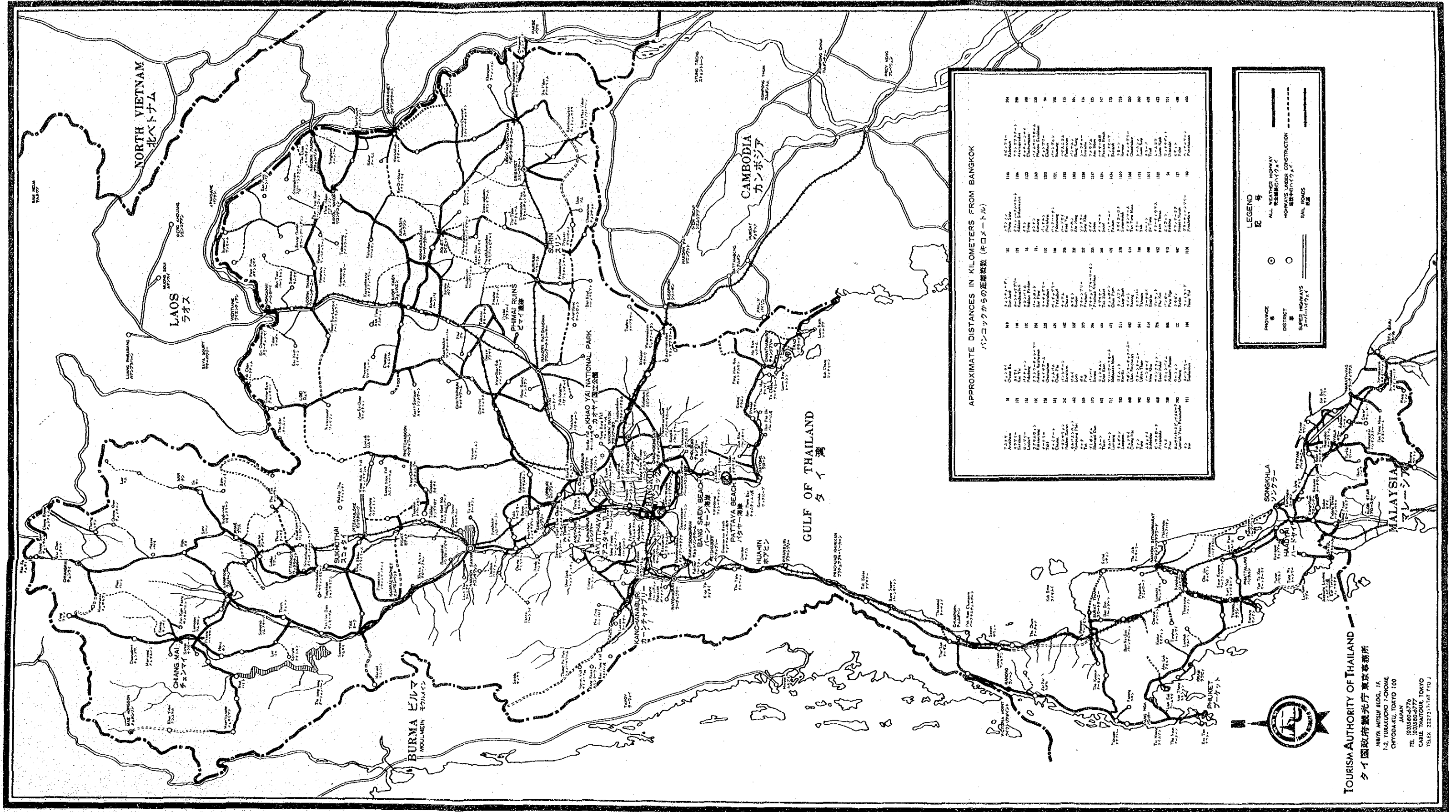
前頭部脳瘤の手術後の顔面異形に対する形成外科的問題の検討を行う必要がある。

⑥ ①～⑤の前頭部脳瘤に関する外科的治療の問題の解決を通じて、脳腫瘍、脳血管性疾患に関する脳神経外科的技術の移転をも同時に行っていく。

表1 医科大学及び脳神経外科医訓練場所(\*)

	*	SIRIRAJ	}	MAHIDOL
	*	RARATHIBOCHI		
	*	CHIULALONGKORN		
		KHON KAEN		
		CHIANG MAI		
		SONG KHLA		
	*	MONGHUT KHLAUS (MILITARY HOSPITAL)		
	*	INSTITUTE OF NEUROLOGICAL SCIENCE		
Provincial Hospital	}	HAADYAI		
		NAKHON SITHAMMARAT		
		RATCHABURI		
		CHANTHABURI		
		CHOLBURI		
		NAKORN RATCHSIMA		
		UBON RAJCHTANI		
		SARABURI		
		LAMPANG		
		SOURDJ SRIRACHA		

図1. タイ国脳神経外科医配置







## 5) ミニッツ交渉経過

南野 肇

本件ミニッツについては、我が方を事前にJICAルートで先方に提示し、調査団到着後チュラロンコン大学チャラス医学部長を中心とする先方関係者と詳細な協議を行った。先方の協議で争点となったのは主として次の二点であるところ、その概要は次のとおり。

### (1) 巡回診療車の取扱い

我が方としては、本件協力が王室間協力として端を発したこともあり、王室と最も縁の深い巡回診療車を優先して供与したいとした。これに対し、先方は次のとおり述べた。

- ① 本件協力の限られた予算では、専ら奇病の治療、原因究明に係りのある機材に集中して供与してもらいたい。巡回診療車は、PEEMとは直接的な関係があるとはいえないので除外してほしい。
- ② 巡回診療車の使用には、巡回診療チームの編成、ラニング、コスト等に相当の費用がかかるが、タイ側の実情としては、これらの費用負担は困難である。
- ③ 巡回診療車を供与機材とすることは、そもそも自分（<sup>Dr. Charas</sup>チャラス氏）のアイデアであるが巡回診療車を供与対象機材から外すことについては、自分が責任をもって王室を説得するし、また後で追加的な供与要請は行わない。

以上のような交渉の後、外務本省に請訓を仰いだ結果、上記③を先方に再確認した上、先方の要望どおり、巡回診療車を供与機材リストから外すこととした。

### (2) 研修員の受入人数

先方は、「日本側の予算上からくる協力規模、程度の制約について十分承知するも、タイ側としても本件に熱心に取り組んでおり、研究体制を確立するためにも是非とも研修員の人数を、研修期間を短縮してでも増やしてもらいたい」旨述べた。

我が方としても、本件協力の効果の実施という観点から、先方の要望には首肯しうるところがあり、外務本省に請訓を仰いだ上、TIS中の研修員リストには先方の要望を記載し、注として次の一文を加えることで合意した。

Note : Item 2. mentioned above is the request of Thai side, and Japanese side will convey the request to the government of Japan.

上記次第で、ミニッツについて相方の合意をみ、10月14日、日本側芦沢団長、タイ側チャラス医学部長の間で署名が行われた。



## 6. 資 料

### 1) ミニッツ

### 2) チュラロンコン大学会議用配布資料

- ① DRAFT PROGRAM CONFERENCE ON "CONGENITAL ANOMALIES"
- ② A REPORT ON THE FIELD TRIP TO CHAUTABURI AND CHACHEBONSAO
- ③ Report from joint Conference on Congenital Malformation Studies
- ④ Project Planning for Genetic, Congenital Abnormalies and Other
- ⑤ Obsteteic Ultrasonography and Perinatal Postmortem Examinators
- ⑥ FRONFETHMOIDAL ENCEPHALOMENINGOCELE (CHARAS SUWANVELA)
- ⑦ FRONTOETHMO IDAL ENCEPHALOMENINGOCELE (Surachai Kaoroptham)  
(※ピンク)
- ⑧ Comparative Study of the Incidence of Congenital Malformations
- ⑨ Pediatric Surgery
- ⑩ RESEARCH ON CONGENITAL CLUBFOOT
- ⑪ SINGLE GENE DEFECT AS A PUBLIC HEALTH PROBLEM
- ⑫ Cytogenetic Service in Chulalongkorn Hospital
- ⑬ Prenatal Diagnosis of Hereditary Disease and Congenital Malformation
- ⑭ Experimental Teratology in Faculty of Medicine Chulalongkorn University
- ⑮ Report of the Epidemiological Study at KLUNG, CHAN-TIA-BURI.  
October, 1981

### 3) 報道記事 (タイ現地語新聞)



1) ミニッツ

1985年10月14日 署名



MINUTES OF THE MEETING BETWEEN THE JAPANESE EXPERTS' TEAM  
AND THE AUTHORITIES CONCERNED OF THE GOVERNMENT  
OF THE KINGDOM OF THAILAND  
ON THE  
FRONTO-ETHMOIDAL ENCEPHALOMENINGOCELE COUNTERMEASURE PROGRAMME  
IN THE KINGDOM OF THAILAND

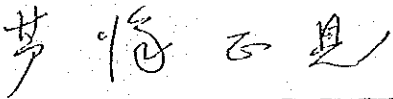
The Japanese Experts' Team (hereinafter referred to as "the Team") organized by the Japan International Cooperation Agency (hereinafter referred to as "JICA") and headed by Dr. Masami Ashizawa visited in the Kingdom of Thailand from October 7 to October 15, 1985 for the purpose of working out the details of the technical cooperation concerning the Fronto Ethmoidal Encephalomeningocele Countermeasure Programme in the Kingdom of Thailand.

During its stay in the Kingdom of Thailand, the Team exchanged views and had a series of discussions with the Thai authorities concerned in respect of the desirable measures to be taken by both Governments for the successful implementation of the above-mentioned Programme.

As a result of the discussions, the Team and the Thai authorities concerned agreed to recommend to their respective Governments the matters referred to in the document attached hereto.

In case the respective Governments have agreed upon, the Programme activities will be carried out based on the "Tentative Implementation Schedule of the Programme" in the Attached Document. This schedule is formulated tentatively on the assumption that the necessary budget will be secured by the both sides, and is subject to changes, if necessity arises during the course of the implementation of the Programme.

Bangkok, October 14, 1985



Dr. Masami Ashizawa  
Head of the Japanese Experts' Team  
Japan International Cooperation  
Agency, JAPAN



Prof. Charas Suwanwela  
Dean  
Faculty of Medicine  
Chulalongkorn University,  
The Kingdom of Thailand

ATTACHED DOCUMENT

1. The Fronto-Ethmoidal Encephalomeningocele Countermeasure Programme (hereinafter referred to as "the Programme") will be implemented in accordance with the following plan,
  - 1) Objectives
    - 1) Establishment of methodology for an epidemiological study on the fronto-ethmoidal encephalomeningocele
    - 2) Improvement of diagnosis and treatment of fronto-ethmoidal encephalomeningocele
  - 2) Activities
    - 1) Epidemiological study on the fronto-ethmoidal encephalomeningocele
      - a) fact finding
      - b) systematic collection and recording of information on fronto-ethmoidal encephalomeningocele
      - c) analysis of information on fronto-ethmoidal encephalomeningocele
    - 2) Transfer of the diagnostic and neurosurgical techniques in Chulalongkorn University Hospital
2. In accordance with the laws and regulations in the Kingdom of Thailand, the Chulalongkorn University of Thailand will bear overall responsibilities for the implementation of the Programme, through the normal procedures under the Colombo Plan Technical Cooperation Scheme, taking into account the recommendations made by the experts dispatched by the Government of Japan.

For the implementation of the Programme, the Government of Japan will dispatch Japanese experts, accept Thai counterpart personnel for training in Japan and provide necessary equipment and materials, in accordance with the laws and regulations in Japan through the normal procedures under the Colombo Plan Technical Cooperation Scheme.
3. The duration of the technical cooperation for the Programme under this Attached Document will be three (3) years from October 14, 1985.



TENTATIVE IMPLEMENTATION SCHEDULE OF THE PROGRAMME

ITEM	FISCAL YEAR (April to March)	1985/86	1986/87	1987/88	1988/89
1. EXPERTS 1) Genetics(1) 2) Epidemiology(1) 3) Neurosurgery(1)			1 Month 1 Month 1 Month	1 Month 1 Month 1 Month	1 Month 1 Month 1 Month
2. ACCEPTANCE OF THAI PERSONNEL 1) Genetics/Teratology 2) Epidemiology 3) Surgery			2 Months X 4 Persons 2 Months X 1 Person	3 Months X 2 Persons	2 Months X 2 Persons 2 Months X 1 Person
3. EQUIPMENT			1) Laser Surgical Unit(1) 2) Laboratory Equipment a) Spectrophotometer (1) b) Fluorescence Microscope (1) c) Deep Freezer (1)	1) Neurological CT Scanner(1)	

NOTE: Item 2. mentioned above is the request of Thai side,  
and Japanese side will convey the request to the Government of Japan.

CS.



2) チュラロンコン大学会議用配布資料



DRAFT PROGRAM CONFERENCE ON " CONGENITAL ANOMALIES "  
8 - 9 OCTOBER 1985 FACULTY TO MEDICINE, CHULALONGKORN UNIVERSITY

Tuesday, 8 October

9.00 - 9.10	<u>Official opening</u> - Dean Rm 209 Anandamahidol bldg.
9.10 - 10.00	<u>Fronto - ethmoidal encephalomeningocele</u> Dr. Charas Suwanwela
10.00 - 10.15	<u>Coffee Break</u> Rm 208/1
10.15 - 10.45	<u>Incidence of Congenital malformation in</u> <u>Chulalongkorn Hospital, Neonatal unit</u> Dr. Saree Chittinantna. Rm 208/1
10.45 - 11.00	<u>Comparative Incidence of Congenital malformation</u> <u>in various countries</u> Dr. Pitya Chantrakamol
11.00 - 11.30	<u>Pediatric Surgery on Congenital anomalies</u> Dr. Chukiat Sakuntanag
11.30 - 12.00	<u>Discussion</u>
12.00 - 13.00	<u>Lunch</u>
13.00 - 14.00	<u>Ward Tour</u> - Nursery unit
14.00 - 14.30	<u>Club foot</u> Dr. Manit Limpapayom
14.30 - 15.30	<u>Discussion</u>

Wednesday, 9 October

9.00 - 9.30	<u>Single gene defect - Clinical aspect</u> Dr. Sumalee Sriwatana
9.30 - 10.00	<u>Chromosome Study</u> Dr. Orasri Romyanantna.
10.00 - 10.15	<u>Discussion</u>
10.15 - 10.30	<u>Coffee Break</u>

10.30 - 11.00	<u>Prenatal Diagnosis</u> Dr. Pairoj Vitoonpanich
11.00 - 12.00	<u>Discussion</u>
12.00 - 13.00	<u>Lunch</u>
13.00 - 14.00	<u>Ward Tour</u> : Orthopedics, Neurosurgery units
14.00 - 14.15	<u>Experimental Teratology</u> Dr. Suchin Ungthavorn
14.15 - 14.30	<u>Available Laboratory Facilities</u> Dr. Thada Sueblinvong, Dr. Priyachit Charoenvong, Dr. Reutai Sakulramrung
14.30 - 15.00	<u>Discussion</u>

A REPORT ON THE FIELD TRIP TO CHANTABURI AND CHACHEONGSAO

OBJECTIVE : To provide population bases for further studies

DATE : 10 - 11 October 1985

PLACE : 1. Prapokklao Hospital, Chantraburi province  
2. Klung Community Hospital  
3. A subdistrict health station of Kien Huk  
4. Somdej Na Sriracha Hospital, Cholburi province  
5. A subdistrict health station of Ban-hin-Dad village,  
Rajasan subprovince, Chacheongsao province.

MEMBERS

1. DR. MASAMI ASHIZAWA
2. DR. KOUNEI SHIOTA
3. DR. NANIT LIMPAPHAYOKI
4. DR. CHUKIAT SAKU-ITANAGA
5. DR. AYUT DHAMKROHIGAT
6. DR. SURACHAI KAOROPTHANI
7. DR. BIDHYA CHANDRAKARNOL

REPORT IN DETAILS :

The company left the Faculty of Medicine by car at 9.00 a.m. and reached Prapokklao Hospital, Chantaburi province by 12.00 at noon. Director of the Hospital and staff members presented statistical data along with lunch and interesting discussions on the incidence of congenital anomalies, it was fortunate to see a baby with frontoethmoidal encephalomeningocele, and in the past 5 years (October 1980 - 1985) there were 32 cases.

On 10<sup>th</sup> October, the team left the Faculty of Medicine by car at 9.00 a.m. and reached Prapokklao Hospital Chantaburi province at noon. Director of the hospital and staff members presented interesting statistical data along with lunch. Discussions on congenital malformations were exchanged. It is fortunate to see a baby with frontoethmoidal encephalomeningocele and it is also striking to know that during the past 5 years (October 1980 - September 1985) there are 32 operating cases. The team left Prapokklao Hospital by 2.30 p.m. and reached Klung Subprovince where 2 villages- Kien Huk and Trok Nong have been epidemiologically studied in 1981. At the Community Hospital the team came across another case of frontoethmoidal encephalomeningocele in a female of 49 years old who did not have any operative treatment. The team went into the village and visited a subdistrict health station. By 5.00 p.m. the team left Klung for Pattaya and got into Grand Palace Hotel by 7.00 p.m.

On 11<sup>th</sup> October, the team left Pattaya and visited Somdej Na Sriracha Hospital, a Red Cross Hospital affiliated to Chulalongkorn Hospital. At noon the team left for Chachingsao to reach Hin Dad village by a tortuous route instead of a proper route. It took more time than expected. At the remote village of Hin Dad where no electricity available, shortage of water supply and Common Consanguines marriages. The team came across one case of cleft lip and palate. The subdistrict health station seemed to be less services as the new Community Hospital set in nearby.

The team arrived in Bangkok at 8.00 p.m.



Report from joint conference on Congenital Malformation studies

October 8 - 9, 1985; Faculty of Medicine, Chulalongkorn University

Proposal title : Epidemiologic study on Frontoethmoidal Encephalo meningocele ( FEEM ) in Thailand.

Major Objective : 1. to conduct epidemiologic studies on distribution of FEEM within the Thai population in descriptive aspects.  
2. to focus on the study of determinants of disease in specific groups ( case - control study ).

Material and Methods :

As a pilot study, one of the predominant Congenital malformations relating to the neural tube defect such as FEEM will be considered as a study model. Practically, the characteristic of FEEM will be fully described with respect to occurrence, age, sex and ethnic groups. Other demographic variables relating to maternal factors - age at pregnancy, parity, pedigree, history of exposure to health hazardous agents or events of illnesses will be questioned.

As indicated earlier, the data aggregation for the descriptive epidemiology will be summarized in the registry form firstly establishing as a hospital-based at Chulalongkorn University Hospital. Particularly the fully developed hospital - based registry will be expanded to other local hospitals which serve some specific ethnicity or social classes.

Once such identification has been made, the more meaningful hospital - based registry development will be achieved, then extensive indepth study can be carried on in order to approach by analytic epidemiology. By which, the model - building and formulation of hypotheses will be developed from these clinical observations.

These hypotheses will then be tested in sequence by retrospective ( case - control ) studies or if then will be positive by prospective ( cohort ) studies.

Consequently, analysis of the results will elucidate possible risk factors or disease determinants, then an intervention trial may be designed to ascertain whether modification of such factors in patients is followed by reduction in amount of disease. In addition, an experimental approach to testing hypotheses about etiology may perhaps be conducted in animal models for teratogenic effects.

In the more informative congenital malformation registry establishment, population - based or nation wide studies will be the prospective goal, which could furthermore be collaborated with other nations or continents. Such national - data aggregation will be highly achieved by extensive community surveys. As for as this study will answer to the - above proposals, field surveys will be launched at Chan - Thai Buri and Cha - Choeng - Sao provinces to testify the regional community - based registry development.

配布資料4

Project planing for Genetic, Congenital abnormalities and other

non - communicable diseases

1. Immediate project - trying to establish the prenatal diagnosis of some non-communicable diseases eg. esp. single gene defect by using the DNA probe or genetic engineering techniques.
2. Long term projects divided into two lines.
  - a. after the establishing of prenatal diagnosis in Chulalongkorn Hospital, the method should be introduced to other centers including regional centralized hospital ( โรงพยาบาลศูนย์ประจำภาค ) and later to provincial if possible ( may be 10-20 years time if started now )
  - b. attempting to work on the probing of the multiple gene defects and the molecular genetic basis of congenital malformation by genetic engineering technique, gene cloning, gene mapping, DNA sequencing, DNA probing etc. using frontoethmoidal meningocele as the model.

Supports needed

- include :
1. technical transfer either sending scientist from Chulalongkorn to Japan or vice versa
  2. grants for research assistant
  3. grants on some expensive equipments
    - eg. - biohazard Laminar flow
    - $\beta$ -counter or liquid scintillation counter
    - 70<sup>o</sup> Deep freezer
    - 20<sup>o</sup>
    - Radioisotope hood, shields
    - Refrigerated centrifuge

Obstetric Ultrasonography and Perinatal Post mortem examiners

Personnels

- 1. Trained 3 sonographers  $\left\{ \begin{array}{l} 2 \text{ M.D.s.} \\ 1 \text{ Technician} \end{array} \right.$
- 2. Trained 1 or 2 perinatal pathological examiners

Equipments

- 1. Real Time Ultrasonography with needling biopsy transducers a small one for screening
- 2. Real Time Ultrasonography with
  - 2.1 Electronic sector transducer
  - 2.2 Doppler detection of fetal blood flow and placental bloodflow ( WAVE FORM )
- 3. Fetoscopy - and fetal blood detection equipment
- 4. Chorion biopsy and? D.N.A. analysis

FRONTOETHMOIDAL  
ENCEPHALOMENINGOCELE

CHARAS SUWANWELA, M.D.  
CHARU SUKABOTE, M.D.  
and  
NITAYA SUWANWELA, M.D.  
Bangkok, Thailand

From Chulalongkorn Hospital, Faculty of  
Medicine, Chulalongkorn University

Reprinted from

SURGERY  
St. Louis

Vol. 69, No. 4, Pages 617-625, April, 1971

(Copyright © 1971 by The C. V. Mosby Company)  
(Printed in the U. S. A.)

# Frontoethmoidal encephalomeningocele

CHARAS SUWANWELA, M.D.  
CHIARU SUKABOTE, M.D.  
NITAYA SUWANWELA, M.D.

BANGKOK, THAILAND

From Chulalongkorn Hospital, Faculty of  
Medicine, Chulalongkorn University

**C**ongenital malformations are among the most distressing of the diseases that affect mankind. Many of them are not amenable to reconstructive attempts and must be accepted as a failure of nature. In the majority, the causative mechanism is obscure and prevention is impossible. Geographical variations in the incidence of various malformations are well known. In Thailand, anterior encephalomeningocele stands out as an exceptionally common and most interesting malformation of the nervous system.

In the past eight years, we have treated 100 patients with anterior encephalomeningocele which may be called sincipital or frontoethmoidal encephalomeningocele. During this period, the meningoceles encountered included 35 spinal, 11 occipital, three vertex, and one temporal. The present communication is an analysis of our experience with the frontoethmoidal lesions at the Chulalongkorn Hospital Medical School, Bangkok, Thailand.

## INCIDENCE

Among 21,071 live births in the maternity ward of the Chulalongkorn Hospital from June, 1963, to November, 1965, four frontoethmoidal encephalomeningoceles were found. In a survey of rural communities of Nong Ree District, Kanchanaburi Province, in Western Thailand,<sup>14</sup> and two other districts in Trang Province in Southern Thailand, one case of encephalomeningocele in

each district was found among populations of 6,124, 3,500, and 7,428, respectively. The incidence of this disease in Thailand is therefore about 1 in 5,000. There are always at least one or two patients with this disease in our 33 bed neurosurgical ward. It comprises about two percent of our neurosurgical operations. This incidence appears to be higher than that reported from other neurosurgical centers around the world.

## ETIOLOGIC EVALUATION

All encephalomeningoceles in this series were congenital in origin; the lesions were found at birth. There was no family record of congenital malformation in any case, and no two patients in this series were in the same family.

One girl of a pair of twins thought to be identical had a meningocele at the root of the nose while the second twin was completely normal.

A study of 26 family trees of these patients up to three generations revealed that all members of 23 families were born in Thailand and were said to be of "Thai blood." In three families the grandfather or grandmother on one side was a Chinese immigrant, the other grandparent was Thai. None of the patients had Chinese or Indian immigrants as both paternal and maternal ancestors. The significance of this finding is uncertain and needs further evaluation. The large immigrant population of Thailand and the resultant proportion of patients of non-Thai stock in our hospital, may have some

Accepted for publication July 15, 1970.

Vol. 69, No. 4, pp. 617-625

April, 1971 SURGERY 617



Fig. 1. A 10-day-old female infant with a mass of brain tissue at the glabella. The covering skin was thin and ruptured at birth. Purulent exudate covered several areas of ulceration on top of the mass. She also had purulent meningitis. Her head was small and the anterior fontanel was closed. Operative repair was considered to be unjustified.

Table I. Site of mass of encephalomeningocele

Site	No. of cases
Glabella	26
Middle part of root of nose between eyes	39
One side of base of nose	17
Both sides of base of nose	7
Inside nose (widened base)	6
Lower part of bridge of nose	2
Facial cleft	2
Multiple sites	1
Total	100

bearing upon the preponderance of this disease among the Thai population.

Chromosome study was done in five patients in this series by our pediatric colleague.<sup>3</sup> All but one were normal; a questionable trisomy was found in one newborn infant.

The distribution of blood groups in these patients showed no significant difference from the unaffected population of Thailand.

There was no predilection concerning mother's age and parity. There was no strik-

ing history of trauma, infection, or metabolic disturbance during the pregnancy.

#### PATHOLOGY

External features. The encephalomeningocele presented as a mass or masses at many sites ranging from the middle part of the forehead to the root of the nose or the side of the base of the nose (Table I and Figs. 1 to 5).

The majority of the masses were solid and firm but some were soft and cystic. Transmitted pulsation was detectable in only a small number of patients.

The most common site (39 cases) was in the midline, at the root of the nose, between or just below the inner canthi. The size of the mass varied from slight elevation to one larger than a child's head. The covering skin varied from thin and shiny to thick and wrinkled. A congenital scar was commonly seen on top of the mass. Hyperpigmentation of skin and hypertrichosis were noted in some patients.

Twenty-six patients had a mass at the glabella or midforehead. The majority of



Fig. 2. A newborn infant with a swelling at the left side of the face and agenesia of the left eye and left nasal structures. A dimple lateral to the swelling was the rudimentary eye.



Fig. 3. A 10-month-old girl with a large mass at the root of the nose displacing the eyes laterally. This was partly cystic, with a congenital scar at the lower part of the mass. Her mentality was slightly retarded. Extracranial repair of the herniation with simultaneous plastic correction was done.

the masses were sessile but a few were pedunculated. Four patients with mass at this location were born with exposed brain tissue without skin covering. Continuous bleeding and dripping of cerebrospinal fluid was noted in three patients. Granulation tissue covering the extruded brain was encountered in the fourth patient. The rest had skin covering of variable thickness. In two patients leakage of the cerebrospinal fluid occurred after traumatic rupture of the sac.

Masses at the lower part of the nose and on one side of the base of the nose were less commonly seen.

In six patients the mass was inside the nasal cavity and only widening and swelling of the root of the nose was seen externally. The nasal bone overlying the mass was expanded but intact. The covering skin was normal.

Among these 100 patients, seven were encountered with microcephaly and 10 with

hydrocephalus. Hypoplasia of the eye was found in six patients—unilateral in five and bilateral in one. The palpebral fissure, orbit, and eyeball were small and the pupillary opening was absent. The opposite eye in the unilaterally affected children was normal in size and appearance. Bizarre deformity of the face and facial cleft in addition to the huge encephalomeningocele was encountered in two patients. In another patient anophthalmia of one eye with obliteration of one nasal cavity and nostril was seen.

Skull defects. The defect of the cranial bones through which the herniation passed was examined at operation in 72 patients. In all, the opening was located between frontal and ethmoidal bones. One opening in the midline was found in 40 patients. The crista galli was identified at its posterior rim. The site of the defect corresponded





Fig. 4. An 8-year-old girl with a swelling at the right side of the base of the nose. It was about the size of a fingertip at birth and progressively enlarging. Intracranial repair through bifrontal craniotomy in this child resulted in disappearance of the mass.



Fig. 5. The mass in this 7-year-old boy was firm with a thick wall. There was a long neck connecting the sac with the intracranial cavity. A small elongated frontal tip extended into the sac. His mentality was within normal limits. The mass did not disappear after an intracranial repair and had to be removed by a second plastic operation.

to that of the foramen cecum. Bilateral openings, one on each side of the midline, were found in 20 patients. The openings were located at the anterior end of the cribriform plate and the crista galli was at the posterior part of the bridge of the bone between them. A unilateral opening at the anterior end of the cribriform plate was seen in the remaining patients.

Postmortem dissection was done in five patients. The location of the cranial end of the defect at the junction between the frontal and the ethmoidal bone was confirmed. The location of the overlying facial bones—nasal, lacrimal, and maxillary—was variable. In some, the nasal bone attached to the upper edge of the maxillary bone at the inferior aspect of the mass. In such cases, the mass was high at the glabella or midforehead (Fig. 6).

In the other cases, the nasal bone was at

the lower edge of the frontal bone above the mass of the encephalomeningocele. In one patient the facial bones were in normal positions and the encephalomeningocele had an elongated neck between the nasal and lacrimal bones.

In addition to the defect, there was usually hypertelorism and an increase in depth of the anterior cranial fossa.

Brain abnormalities. All but two of the patients operated upon had herniation of the frontal tips into the sac. In some, the intervening falx cerebri also protruded. The amount of herniated brain varied from a half to several centimeters in diameter. In a small number of patients, the anterior horn of the lateral ventricle was also involved (Fig. 7).

When a large amount of brain tissue was



Fig. 6. Postmortem dissection showing a large defect in the midline corresponding to the foramen cecum. The crista galli was indentified at its posteroinferior rim. The nasal bones were below the defect. The cribriform plates were low in position compared to the orbits, which were displaced laterally. Note the plate of bone forming the medial wall of the orbit. It could be fractured and displaced medially, together with the orbital contents, in order to correct the hypertelorism.

herniated, the head was consequently small. The whole brain was pulled forward and the optic nerves, internal carotid arteries, and pituitary stalk were angulated anteriorly. The tip of the temporal lobe was seen to herniate above the sphenoid ridge into the anterior cranial fossa in one patient. The foramen of Monro might be partially or completely occluded, resulting in unilateral or bilateral hydrocephalus.

#### CLINICAL FEATURES

These encephalomeningoceles presented at birth but the patients came to us at ages ranging from premature newborn to 25 years. At birth the lesion was usually smaller; some of them showed only a small scar at the root of the nose and hypertelorism. As

the child grew, the mass progressively enlarged and the facial deformity increased.

Generally the lesion was quite apparent and there was no problem in the diagnosis of the classical cases. This could, however, be difficult in patients in whom the opening was small and the communication between the sac and the intracranial cavity was not readily detectable. The lesion had to be differentiated from tumors or cysts indigenous to the region.

Aspiration of the mass and determination of the sugar content of the fluid was helpful in some patients. Plain roentgenography of the skull was very helpful, the diagnosis of the encephalomeningocele being suggested by the abnormally wide distance between the two orbits. As a rule, the opening could not be seen in a newborn infant because of poor calcification of the cranium, but in older children it was usually visible. Postero-anterior projections at various angles were helpful because the opening was best seen only at certain angles. Occasionally tomography was helpful in defining the opening more clearly. Scanning of the head after intrathecal injection of radioactive iodinated serum albumin was helpful in demonstrating the communication between the sac and the intracranial cavity. In the past four years, pneumoencephalography has been used routinely in order to outline the neck of the sac as well as to find the associated abnormalities of the brain.

#### TREATMENT

**Indications.** The bizarre nature of the encephalomeningocele in the middle of the face makes removal almost mandatory for cosmetic reasons alone. However, in some patients, the swelling progresses with age and surgical correction obviates the brain damage caused by further herniation of brain tissue into the sac. Furthermore, ulceration, rupture, and leakage of cerebrospinal fluid are probable and removal will prevent subsequent meningitis. Finally, removal of a big mass facilitates care of the infant.

**Contraindications.** Not every patient

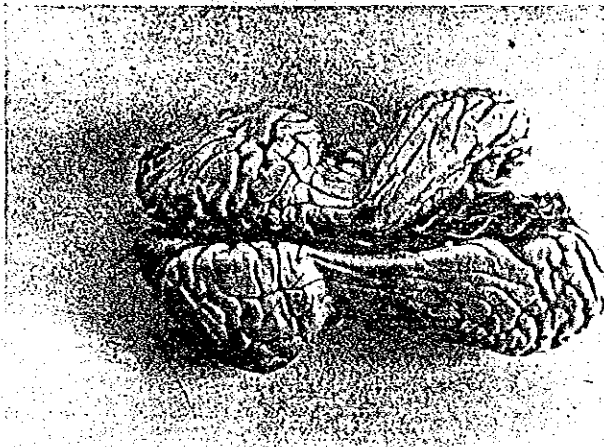


Fig. 7. Brain of a child showing massive herniation of almost half of the cerebrum. Note the constriction in the middle of the cerebrum corresponding to the cranial opening. The cranial cavity is small. A satisfactory operative repair of such a lesion is yet to be devised.

should be operated upon. In our opinion operation is not justified in children with severe brain damage or little hope of normal mental development. Massive herniation of tissue, associated brain anomalies, and hydrocephalus are the causes of brain damage. In the presence of acute infection of the ulcerated sac, the operation should be postponed.

**Optimal time for surgical repair.** In patients born with a mass of exposed brain tissue protruding from the middle of the forehead, an emergency operation is necessary in order to stop the continuous bleeding and to prevent the inevitable infection. In general, surgical repair should be carried out just as early as the child's condition permits. Early operation will minimize the facial deformity and other complications. It will also prevent brain damage from further herniation into the defect.

**Operative techniques.** A number of patients were seen with complications resulting from simple excision done at other hospitals. Leakage of cerebrospinal fluid through disruption of the wound was not uncommon. The patients had recurrence of the

mass with additional brain damage. Meningitis also increased the likelihood of development of hydrocephalus.

In our experience successful treatment requires a good watertight closure of the intracranial end of the herniation. If the hole in the bone is of considerable size, a strengthening of the bone defect is also essential. We have elected to use a fascial or periosteal graft to repair the dura and a stainless steel mesh extracranially over the defect.

A good repair can be accomplished by either the extracranial or the intracranial approach.

**Extracranial approach.** An elliptical, curved, or Y-shaped incision is made around the base of the herniated mass. Care is taken to leave skin enough for closure of the wound. Amputation of the sac is at the level of the skull defect. The herniated brain is removed. A piece of periosteum or temporal fascia is then sutured to the dura with interrupted silk sutures at intervals of 1 to 2 mm. A piece of stainless steel mesh is then inserted across the bone defect between the dura and skull. Galeal and sub-

cutaneous sutures are applied before a fine silk skin closure.

*Intracranial approach.* Through a coronal incision and bilateral frontal craniotomy, exploration is made under the frontal lobe both inside and outside the dura. The herniated brain is amputated at the cranial end of the orifice and the herniated portion is partially removed. The dura is elevated from the bone around the rim of the opening. Some difficulties may be encountered at the posterior edge where the crista galli is situated. A piece of periosteum or fascia is then sutured to the dural defect. A very small curved needle may be needed in making the deepest sutures. The bone defect is then reinforced by extradural stainless steel mesh.

Advantages and disadvantages of each approach have to be considered in selecting the operative method. The extracranial operation is feasible only when the lesion has a short canal and the intracranial end of the defect is accessible through the hole. It is therefore suitable for patients with a mass at the forehead or upper part of the root of the nose.

On the other hand, the intracranial approach, being a craniotomy, is a more formidable operation. It is, however, necessary whenever the distance between the internal and external orifices is considerable and a good dural closure at the internal orifice is not feasible otherwise.

*Reconstructive operation.* When extracranial repair of the encephalomeningocele is made, the excess tissue is excised and plastic repair is done at the same sitting. With the intracranial operation, however, the facial mass is left unremoved. It may shrink or disappear after the operation. In some patients, a second stage plastic operation is needed for removal of the excessive skin and the remainder of the sac.

*Hypertelorism:* with lateral displacement of one or both orbits is a cosmetic problem. There usually is a plate of bone on the side of the sac of the encephalomeningocele forming the medial orbital wall. This bridge of bone can be fractured and moved

Table II. Causes of death

Cause of death	No. of cases
Hydrocephalus	3
Infected encephalomeningocele and meningitis	2
Facial cleft	2
Postoperative death	1
Pneumonia complicating mental retardation	1
Postnatal death of unknown cause	1
	10

medially. The orbit with its content is thus moved medially. Care is taken to prevent rupturing of the mucous membrane of the adjoining paranasal sinuses.

Hypertelorism is also less apparent with the presence of the bridge of the nose. Flatness of the nasal bridge, when present, can be corrected by insertion of a prosthesis. We have elected to use a folded piece of stainless steel mesh to form the nasal bridge, with fairly good results.

*Hydrocephalus.* Hydrocephalus was seen in ten patients, three of whom showed sufficient cortical preservation so that a shunting operation was done as a primary procedure. After the shunting operation, the protruded sac shrank. Operative repair of the encephalomeningocele was necessary, at a later date, in only one of them. Three patients had hydrocephalus after the operative repair of the protruded mass. One was benefited by a ventriculoatrial shunt but the other two patients were seen when the hydrocephalus was too far advanced. The remaining patients were considered beyond salvage when first seen and no definitive treatment was given.

#### DEATHS

There were ten deaths in our series, the causes of which are shown in Table II. Of three patients with hydrocephalus, one newborn had brain damage beyond salvage, and the remaining two had severe brain damage when first seen at the ages of 5 and 10 months. These latter patients might have been treatable if they had been seen earlier.

Two patients with exposed brain were referred to us too late. They became infected and intensive antibiotic therapy failed. Facial cleft and severe craniofacial deformity in two patients were incompatible with life. Unrecognized subgaleal hematoma was responsible for a postoperative death. One patient with severe mental retardation died at the age of 22 months. There was a post-natal death of unverified cause.

#### DISCUSSION

Ingraham and Matson<sup>5</sup> found reports of 187 encephaloceles as compared to 1,157 of spinal lesions. Of the encephaloceles, only 21 cases were in nasal, nasopharyngeal, and facial regions. There have been occasional reports of meningoceles in the anterior aspect of the head and in the nose.<sup>2, 4, 6, 7, 8, 9, 10</sup> but the condition is considered a rarity in Europe and America. This is true also in Japan, Hongkong, and Southern India. In Thailand, it is exceptionally common; 100 patients were seen in 8 years at our neuro-surgical service. A high incidence is also found in Malaysia and Indonesia. Tandon<sup>15</sup> reported a higher than average incidence at Lucnau, Northern India, but stated that the incidence in New Delhi was low. For the African Negro in Nigeria, Odeku<sup>10</sup> found six sincipital ones among 36 encephalomeningoceles. He also quoted Gupta, who found one encephalomeningocele among 4,220 births at a hospital in Ibadan, Western Nigeria. Acquaviva reported a large series of 39 patients with sincipital encephalomeningocele in Morocco. The incidence in Africa is therefore slightly higher than in Europe and America but is still lower than in Southeast Asia.

Meningoceles situated in the anterior part of the skull are sometimes referred to as sincipital encephalomeningoceles and are usually classified according to the site of the protruding mass. The findings at operation or autopsy in our cases, however, showed that the persistent site of the cranial opening in all cases was at the junction between the frontal and ethmoidal bones. In the majority the opening was in the midline

and the site corresponded to that of the foramen cecum or anterior neuropore. The site of the protruding mass varied according to the development of the nasal, lacrimal, and frontal processes of maxillary bones overlying the defect. That the site of the cranial opening in our patients was so often the same suggests common etiologic factors. Consequently we believe that these encephalomeningoceles can be identified as frontoethmoidal.

#### SUMMARY

In eight years, we have studied 100 patients with encephalomeningocele in the anterior part of the head. Operation is advised to correct deformity, prevent progression of the lesion, and to anticipate erosion and infection. Neglected hydrocephalus, active infection, or possible brain damage constitute contraindications to operation. We have had one operative death among 72 patients treated by operation.

#### REFERENCES

1. Anderson, F. M.: Intranasal (sphenopharyngeal) encephalocele; a report of a case with intracranial repair and a review of the subject, *Arch. Otolaryng.* 46: 644, 1947.
2. Davis, C. H., Jr., and Alexander, E., Jr.: Congenital naso-frontal encephalomeningoceles and teratomas. Review of seven cases, *J. Neurosurg.* 16: 365, 1959.
3. Dharmkrong-Ai, A.: Chromosome studies in various congenital anomalies. Thesis for M. S. Degree, University of Medical Sciences, Bangkok, Thailand, 1968.
4. Finerman, W. B., and Pick, E. I.: Intranasal encephalomeningocele, *Ann. Otol.* 62: 114, 1953.
5. Ingraham, F. D., and Matson, D. D.: *Neurosurgery of infancy and childhood*, Springfield, Ill., 1954, Charles C Thomas, Publisher, pp. 48-56.
6. Kahn, E. A., and Lemmen, L. J.: Unusual congenital anomalies of neurosurgical interest in infant and children, *J. Neurosurg.* 9: 59, 1952.
7. Kahn, E. A., Bassett, R. C., Schneider, R. C., and Crosby, E. C.: *Correlative Neurosurgery*, Springfield, Ill., 1955, Charles C Thomas, Publisher, pp. 375-376.
8. Lewin, M. L., and Shuster, M. M.: Transpalatal correction of basilar meningocele with cleft palate, *Arch. Surg.* 90: 687, 1965.
9. Meacham, W. F.: In Jackson, I. J., and

- Thompson, R. K., editors: Pediatric neurosurgery, Springfield, Ill., 1959, Charles C Thomas, Publisher, pp. 114-120.
10. Odeku, E. L.: Congenital malformations of the cerebrospinal axis seen in Western Nigeria. The African child with "Encephalocele." *Int. Surg.* 48: 52, 1967.
  11. Rusonova, A. A.: Surgical treatment of anterior encephalocele, *Khirurgiya* 6: 67, 1964. (*Excerpta Medica of Neurology and Psychiatry* 18: 342, 1965.)
  12. Suwanwela, C., and Hongsaprabhas, C.: Frontoethmoidal encephalomeningoceles, *Proc. Second Int. Congr. Neurol. Surg.* Excerpta Medica Foundation, 1965.
  13. Suwanwela, C., and Hongsaprabhas, C.: Frontoethmoidal encephalomeningocele, *J. Neurosurg.* 25: 172, 1966.
  14. Suwanwela, C., et al.: Medical experiences at Nong Ree District, Kauchansaburi Province, Chulalongkorn Med. J. Bangkok, 14: 22, 1969.
  15. Tandon, P. N.: Meningocephalocele, *Neurol. India* 14: 161, 1966.
  16. Walker, E., Moore, W. W., and Simpson, J. R.: Intranasal encephaloceles. Survey of problem, with recommendations for reducing mortality, *Arch. Otolaryng.* 55: 182, 1952.

Frontoethmoidal Encephalomeningocele

Surachai Kaoroptham

F-E encephalomeningocele is the extracranial protrusion of meninges and brain tissue through the cranial defect between the frontal bone and ethmoid bone. It can be divided into 3 subgroups according to the location of the cranial defect.

1. Nasofrontal The bone defect is at the frontonasal suture. The nasal bone is attached to the ethmoid bone below the herniation.
2. Nasoethmoidal The bone defect is between the nasal bone above and ethmoid bone below.
3. Naso-orbital The bone defect is between the nasal bridge and medial orbital wall.

Pathology and Clinical features

The F-E encephalomeningocele presents as a solid and firm mass or masses some are soft and cystic at the middle part of the forehead, root of nose or side of the base of nose. The covering skin varies from exposed brain tissue to normal skin covering. Holoprosencephaly, agenesis of corpus callosum, localized cortical atrophy, hydrocephalus and hypoplasia of one or both eyes may be seen associated with F-E encephalomeningocele. The patient usually has hypertelorism. As the child grows, the mass progressively enlarges and facial deformity increases.

F-E encephalomeningocele is exceptionally common in Southeast Asia from Burma, Vietnam, Thailand, Malaysia, Singapore and Philippines. The incidence in Thailand is 1 in 6000 to 1 in 20,000. Among 42315 live

birth in the maternity ward of Chulalongkorn Hospital during a period of  $4\frac{1}{2}$  years from 1962 to 1966, seven cases of F-E encephalomeningocele were found. In a survey of 2 communities in Bangkok, the disease was found among Thais but not among Chinese immigrants and their descendants. In the study of 26 familial trees of these patients up to 3 generations revealed that all members of 23 families were borne in Thailand and were said to be of Thai blood. The chromosome study was done in five patients but showed no significant abnormality. The distribution of blood groups in these patients showed no significant difference from the unaffected population. There was no familial incidence. The birthplace of these patients spread all over Thailand and there was no geographic predilection. The socioeconomic status was low in the affected families. There was no predilection concerning mother's age, parity. There was no striking history of trauma, infection, metabolic disturbance during pregnancy.

*Fresh fish, vitamin deficiency, aritaminosis and teratogenic agents are among the possible causes.*



ANALYSIS OF CONGENITAL MALFORMATION IN THE NEWBORN INFANTS

JANUARY 1975 - DECEMBER 1984

NEONATAL UNIT CHULALONGKORN HOSPITAL

Sommai Bhongsvej, M.D.

Classification based on WHO comparative study of Congenital Malformations in 24 participating centres, 1966

Alan C. Stevenson, H.A. Johnston, D.R. Golding, M.I. P. Stewart,  
Population Genetics Research Unit, Old Road, Headington, Oxford.

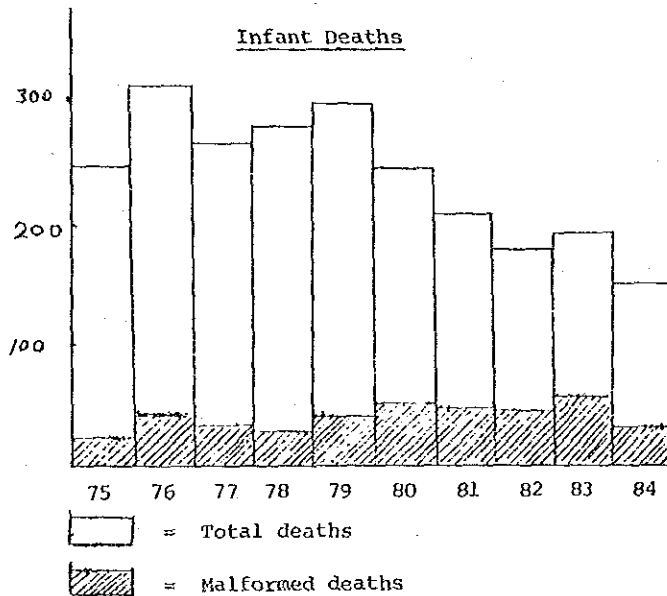
Total admissions	164,503	live-births
Total deaths	2,269	"
Death rate per 1,000 live-births	13.7	
Major malformations	1,805	or 1.09 %
Minor malformations	2,004	or 1.21 %
Total malformed case deaths	385	
Death rate of malformed case per 1,000 live-births		2.3

Total live-births and mortality

year	live-births	deaths	M.R./1,000 L.B
1975	12,267	239	19.48
1976	15,963	311	19.48
1977	15,794	254	16.08
1978	17,356	269	15.49
1979	18,920	280	14.79
1980	18,316	246	13.43
1981	17,530	193	11.09
1982	16,705	158	9.45
1983	16,488	181	10.90
1984	15,164	146	9.62
Total	164,503	2,277	13.84

Mortality of malformed cases

year	deaths	M.R./1,000 L.B.
1975	24	1.95
1976	40	2.50
1977	33	2.08
1978	31	1.78
1979	40	2.11
1980	50	2.72
1981	44	2.50
1982	42	2.51
1983	51	3.09
1984	30	1.97
Total	385	2.34



Frequencies of specific major malformation group

Group of malformation	case	per 10,000 L.B.
Orthopedics	556	33.85
Gastro-intestinal tracts	392	23.82
Central nervous systems	228	13.85
Chromosomal defect	188	11.36
Heart and great vessels	127	7.7
Urogenital systems	95	5.7
Misc. (Isolated)	122	7.4
Misc. (Multiple)	98	5.3

Common type of major malformations

Type of malformation	case	per 10,000 L.B.
Polydactyly	156	9.5
Down syndrome	144	8.7
Hip dislocation or dysplasia	135	8.2
Talipes equino varus	129	7.8
Anencephaly	90	5.5
Hare-lip with cleft-palate	88	5.3
Hypospadias	63	3.8
Cleft-palate	58	3.5
Hare-lip	58	3.6
Anal atresia	48	2.9

Common malformations leading cause of death

Malformation	case	death	% of death
Anencephaly	90	90	100.00
Holoprosencephaly	11	11	100.00
Encephalomeningocele	9	8	88.88
Trisomy D syndrome	11	9	81.81
Exomphalos	21	16	76.19
Coarctation of the aorta	7	5	71.42
Diaphragmatic hernia	33	23	69.69
Cystic disease of kidney	12	8	66.66
Tracheo-esophageal fistula	13	8	61.53
Trisomy E syndrome	27	15	55.55
Gastroschisis	14	7	50.00

Group	Malformation	case	per 10,000 L.B.
A	<u>Chromosomal abnormalities</u>		
	Down syndrome	144	8.7
	Trisomy E syndrome	27	1.6
	Trisomy D syndrome	11	0.7
	Turner syndrome	1	0.1
	Male Turner syndrome	3	0.2
	Klinefelter syndrome	1	0.1
B	<u>C.N.S. abnormalities</u>		
	Anencephaly	88	5.3
	Meningo(myelo) cele	42	2.5
	Hydrocephaly	36	2.1
	Microcephaly	18	1.1
	Macrocephaly	13	0.8
C	<u>Heart and great vessels abnormalities</u>		
	V.S.D.	42	2.5
	Transposition of the great vessels	25	1.5
	Pulmonary atresia or stenosis	8	0.5
	A.S.D.	8	0.5
	Coarctation of the aorta	7	0.4
	Tetralogy of Fallot	6	0.4
	P.D.A.	5	0.3
D	<u>G.I.system abnormalities</u>		
	Hare-lip and cleft-palate	88	5.3
	Cleft-palate	58	3.5
	Hare-lip	50	3.0

Group	Malformation	case	per 10,000 L.B.
D	Anal atresia	48	2.9
	Diaphragmatic hernia	33	2.0
	Exomphalos	21	1.2
	Gastroschisis	14	0.8
	Duodenal atresia	14	0.8
	Tracheo-esophagial fistula	13	0.8
	Hirschprung disease	11	0.7
	Asplenic syndrome	8	0.5
	Jejunal atresia	7	0.4
	Ileal atresia	6	0.4
E	<u>Orthopedic abnormalities</u>		
	Polydactyly	156	9.5
	Hip dislocation or dysplasia	135	8.2
	Talipes equino-varus	128	7.8
	Syndactyly	37	2.2
	Pierre Robin syndrome	10	0.6
	Branchial arch syndrome	8	0.5
	Achondroplasia	8	0.5
	Hemimelia	8	0.5
	Micrognathia	6	0.4
	Arthrogryposis multiplex congenita	3	0.2

Group	Malformation	case	per 10,000 L.B.
F	<u>Urogenital system abnormalities</u>		
	Hypospadias	63	3.8
	Cystic disease of kidney	12	0.7
	Ambiguous sex	10	0.6
	Potter syndrome	3	0.2
	Triad syndrome	1	0.1
	Epispadias	1	0.1
	Female pseudohermaphrodite	1	0.1
G	<u>Miscellaneous (isolated)</u>		
	Cystic hygroma	21	1.3
	Microphthalmia	15	0.9
	Leucoma cornea	15	0.9
	Cutis aplasia	12	0.7
	Colloidian baby	10	0.6
	Epidermolysis bullosum	9	0.5
	Poland syndrome	8	0.5
Anophthalmia	7	0.4	
H	<u>Miscellaneous (multiple)</u>		
	Amniotic band complex	39	2.4
	Rubella syndrome	38	2.4



Other rare major malformations

Group	Malformation	case
B	<u>C.N.S. abnormalities</u>	
	Dandy walker syndrome	2
	Hemangioma of leptomeninge	2
	Hemangioma of choroid plexus and ventricle	1
	Scaphocephaly	1
	Craniosynostosis	1
	Skull depression	1
C	<u>Heart and great vessels abnormalities</u>	
	Tricuspid atresia	3
	Single ventricle	3
	Aortic stenosis	2
	Truncus arteriosus	2
	Ebstein anomalies	2
	Hypoplastic left heart syndrome	1
	Pseudotruncus	1
	Hypoplasia of aorta	1
	Corbilocurale	1
	Ectopia cordis	1
	Endocardial fibroelastosis	1
	Unspecified	1

Group	Malformation	case
D	<u>G-I system</u> Meconium plug syndrome Gut perforation Situs inversus Volvulus Hemangioma of liver Colon atresia Rectal atresia Common bile duct atresia	5 5 3 2 2 1 1 1
E	<u>Orthopedic system</u> <u>Digit anomaly</u> Wrist drop Flexion deformity Lobster hands and feet Hypertrophy of big toe <u>Reduction deformity of limb</u> Amelia Symilia-unipus Phocomelia Micromelia Caudal axis regressive syndrome Cornelia de lanqe syndrome	3 3 3 2 4 2 1 1 1 1

Group	Malformation	case
E	<u>Other deformity of limb</u>	
	Genu recurvatum	6
	Knee dislocation	1
	Knee contracture	1
	<u>Local skeletal deformity</u>	
	Oro facial digital syndrome	2
	Oto palato digital syndrome	1
	Schwartz syndrome	1
	Wristling face syndrome	1
	Smith Opitz syndrome	1
	Bifid noses	1
	Hemithorax and kyphoscoliosis	1
	Deformity of lumbar spine	1
	Tibial scoliosis	1
	<u>Osteo chondrodystrophy</u>	
	Ellis Van Creveld syndrome	3
	Diastrophic dwarfism	2
	Hypertrophic dwarfism	1
	Cleido cranial dysostosis	1

Group	Malformation	case
E	<u>General skeletal deformity</u>	
	Apert syndrome	2
	Crouzon disease	1
	Larsen syndrome	1
	Rubinstein Taybi syndrome	1
	Robinow syndrome	1
M	<u>Other misc. (isolated)</u>	
	Conjunctival dermoid cyst	4
	Epulis of lip	4
	Laryngomalacia	2
	Prune Belly syndrome	2
	Terratoma	2
	Microcornea	1
	Glaucoma	1
	Coloboma of eye-lids	1
	Thyroglossal duct cyst	1
	Choanal atresia	1
	Papilloma of lip	1
	Bifid tongue	1
	Fibrous band in oral cavity	1
	Lipoma	1
	Congenital facial palsy	1

Group	Malformation	case
N	<u>Other misc. (multiple)</u>	
	Thoraco omphalo pagus conjoined twins	2
	Ischio pagus tetrapus conjoined twins	1
	Myotonia congenita	1
	Klippel Trenaunay Weber syndrome	1
	Beckwith syndrome	1
	Fraser syndrome	1
	Not specified	14
	<u>Minor malformations</u>	
	<u>Malformation</u>	case
1	Torsion of testes	1
2	Micropenis	1
3	Hydrocele	325
4	Indirect inguinal hernia	5
5	Imperforate hymen	1
6.	Septate vaginal	1
7	Vaginal cyst	7
8	Minor ear and auricle abnormality	42
9	Nevi, moles and minor skin blemishes	
	Hemangioma	93
	Hemangio lymphangioma	2
	Hemangio lipoma	1

Malformation	Case
Melanocytic nevus	46
Giant pigmented nevus	4
Epithelial nevus	4
Nevus unius lateris	1
Nevus sebaceous of Jadassohn	16
Incontinentia pigmenti	12
Nevoxantho-endo-epithelioma	1
Plebectasia	2
Hyponigmented macule	1
Histiocytoma	1
Histiofibroma	1
Pyogenic granuloma	1
White forelock spotting albinism	1
Albinism	2
Hypertrichosis universalis	3
10 Misc.	
Natal teeth	57
Pre auricular appendage	354
Pre auricular sinus	873
Pre auricular dermoid cyst	1
Calcaneo valgus	102
Calcaneo varus	13
Metatarsus adductus	16
Metatarsus varus	15
Total	2,004

NEONATAL MORTALITY

SIGNIFICANT CONGENITAL ANOMALIES IN 760 NEWBORN AUTOPSIES (1967-1979)

(DHARMA ONPILAS J. and YENRUOI S.)

CONGENITAL ANOMALIES	BIRTH WEIGHT				TOTAL	
	1,000-2,500 g.		2,500 + g.			
	CASES	%	CASES	%	CASES	%
MULTIPLE	19	11.7	18	11.1	37	22.8
CARDIOVASCULAR SYSTEM	11	6.8	33	20.4	44	27.2
G-I. SYSTEM	13	8.0	21	13.0	34	21.0
RESPIRATORY SYSTEM	5	3.1	4	2.5	9	5.6
C. N. S.	7	4.3	7	4.3	14	8.6
DIAPHRAGMATIC HERNIA	1	0.6	11	6.8	12	7.4
OMPHALOCELE	2	1.2	4	2.5	6	3.7
K.U.B.	2	1.2	1	0.6	3	1.8
BONE	2	1.2	1	0.6	3	1.8
TOTAL	62	38.2	100	61.8	162	100

TABLE 2.4  
SINGLE BIRTHS: NUMBERS OF MALFORMATIONS BY GROUPS

CENTRE	NUMBERS OF INFANTS WITH MALFORMATIONS CLASSIFIED IN GROUPS A - N													All malformations		All Malformations less D, H & I Per 1000 total births	
	A	B	C	D	E	F	G	H	I	J	K	L	M	N	No.		Per 1000 total births
I 1 MELBOURNE	8	28	2	12	9	2	11	26	7	13	3	6	6	13	148	18.9	12.1
I 2 MELBOURNE	6	12	0	6	6	0	2	10	0	6	1	0	11	8	58	17.3	13.3
II SAO PAULO	11	40	2	9	14	3	19	43	0	65	4	10	3	8	231	16.0	12.4
III SANTIAGO	37	29	1	3	6	0	33	48	9	30	6	6	9	7	224	9.4	6.9
IV 1 BOGOTA	10	22	0	9	6	0	27	99	61	48	6	5	9	13	315	16.7	7.8
IV 2 MEDELLIN	18	17	0	17	3	0	27	51	5	55	4	3	8	21	229	11.2	7.5
V CZECHOSLOVAKIA	27	38	13	34	23	7	22	69	0	38	17	11	18	31	348	17.3	12.2
VI ALEXANDRIA	0	76	0	1	4	0	9	5	0	5	2	0	4	5	111	11.6	10.9
VII HONG KONG	1	22	0	9	5	0	16	16	0	19	5	2	4	15	114	11.5	9.0
VIII 1 BOMBAY	0	142	1	9	23	1	48	38	0	34	6	6	10	22	340	8.6	7.4
VIII 2 CALCUTTA	0	11	0	2	3	0	15	8	0	14	0	4	2	0	59	3.1	2.6
IX 1 KUALA LUMPUR	3	37	1	4	15	1	25	26	1	21	3	3	19	8	167	10.5	8.5
IX 2 SINGAPORE	17	43	2	0	9	3	69	116	0	61	0	0	7	16	343	8.6	5.7
X 1 MEXICO CITY	46	66	2	18	19	4	23	70	1	46	12	7	14	36	364	14.7	11.1
X 2 MEXICO CITY	22	15	0	12	5	2	6	52	2	16	2	5	5	11	155	11.0	6.3
XI BELFAST	28	291	0	32	16	1	37	51	4	39	11	6	10	18	544	19.4	16.3
XII PANAMA CITY	17	37	1	2	2	4	11	172	3	57	5	2	4	12	329	20.8	9.6
XIII MANILA	17	30	1	21	10	4	45	27	0	43	5	5	13	31	252	8.5	6.9
XIV 1 CAPE TOWN	0	7	0	3	1	0	1	2	0	5	1	1	2	3	26	8.5	6.9
XIV 2 JOHANNESBURG	8	26	0	26	13	8	19	77	0	31	9	9	7	19	252	22.5	13.3
XIV 3 PRETORIA	6	27	0	2	4	0	5	12	0	62	1	2	4	4	129	12.9	11.5
XV MADRID	39	35	0	65	9	5	20	37	0	26	3	7	7	11	264	13.4	8.2
XVI 1 LJUBLJANA	20	15	4	9	3	2	8	42	27	8	10	2	11	10	171	19.2	10.5
XVI 2 ZAGREB	6	13	0	6	7	0	6	35	0	14	4	5	4	7	107	12.7	7.8
TOTAL	347	1079	30	311	215	47	504	1132	120	756	120	107	193	329	5290	12.7	8.9



配布資料 8

Comparative study of the incidence of congenital malformations

Midaya Chandrakamol M.D.

It is difficult to say what to be the actual incidence of the congenital malformation and even more difficult is to compare the incidence from one to another because of differences in methods of ascertainment, of sampling, of nomenclature and diagnostic criteria. However twenty years has been passed since the A.H.O. put into making such tremendous work on well established purpose built registries and monitoring programs, perhaps the most logical approach for comparison.

The incidence of this series is 1.08% in comparing with that of WHO 1.27%

The comparison with those studied by WHO groups is presented in the following table :-

Table I Recent studies are compared with this series as

MALFORMATIONS	BANGKOK	SINGAPORE	LIVERPOOL (U.K.)	WHO
DOWNE SYNDROME	8.7	7.1	11.1	8.3
ANENCEPHALUS	5.3	5.0	25.7	10.5
SPINA BIFIDA	2.6	-	31.5	8.1
HYDROCEPHALUS ONLY	2.1	-	5.1	6.1
GUT	11.9	6.4	16.5	3.7
EXOPHTHALGOS	2.0	1.2	4.4	1.0
CLÉFT LIP AND/OR PALATE	11.9	17.5	15.9	12.1
CHD	7.7	39.9	30.9	7.5

The incidence of individual defects varies very widely from place to place and from time to time and in particular these of the neural tube defects. Besides the encephalomeningocele which is fairly common here and all Southeast Asian countries, other CNS defects seem to be on the reverse especially Spina bifida. More surprising, and possibly more interesting than international and interracial differences are the quite marked regional differences which may be found in any small or big countries even in Thailand as shown in the following table of the incidence of University Hospitals in Bangkok. ( table two )

Besides the extraordinary high incidence of frontoethmoidal encephalomeningocele in Thailand and perhaps in Southeast Asia, The central nervous system malformation is the leading cause of death. Though some regards anencephaly to be stillbirths instead.

Common congenital malformations as well as monster, conjoined Twins are of considerable interest and where population studies are not available, they may be of little value in planning further studies both epidemiology as well as clinical services.

TABLE II

INCIDENCE OF CONGENITAL MALFORMATION				
(per 1,000 Live births)				
ANOMALIES	CHULA 72-76	RAMA 69-76	SIRIRAT 74	PRAHONGUT 77-78
CHROMOSOME	1.25	1.32	2.20	0.44
CARDIOVASCULAR S,	0.58	1.74	7.40	2.64
CLEFTLIP&PALATE	1.01	1.29	2.0	1.32
NERVOUS SYSTEM	1.11	1.20	2.80	0.88
G.T. SYSTEM	0.97	1.29	1.40	2.42
GENITOURINARY S.	0.16	0.84	1.60	2.20
MUSCULOSKELETAL S.	3.64	3.10	2.40	1.10
MISCELLANEOUS				
MAJOR	0.95			4.41
MINOR	33.40	9.87	17.60	16.33
	40.10	20.67	36.40	31.78
TOTAL CASES	78814	33237	5000	4570

## References

1. Stevenson A. C. et al : Congenital malformations. A report of a study of series of consecutive births in 24 centres. Bull. Wld. Health. Org. 34 Suppl. 1966
2. Kennedy W.P. : Epidemiologic Aspects of the problem of congenital malformation. Birth Defects vol. 3. no. 2; December 1967.
3. Ho N.K. : Congenital malformations in Tao Payoh Hospital ( 1972 - 1981 ) J. Sing Pedia Soc. 36 : 98 - 104 1984

Pediatric Surgery

Chukiat Sakuntanaga

Pediatric surgery was founded in Chulalongkorn Hospital as a unit in the department of Surgery. It has grown up considerably and can cope with any operation in neonate to 15 year old patients. Our record in dealing with neonate is as good as anyone.

We have 4 surgeons to take care of the patients, to train our residents in the field of pediatric surgery and to instruct 5<sup>th</sup> and 6<sup>th</sup> year medical students. We also have had a number of research work, many of them have been presented in the international meeting.

Our most notable work was successful separation of ischiopagus tetrapers conjoined twins. Both are well after 5 year operation.

We have 35 bed ward, 6 of them for the neonate. During the past 12 months, we have operated upon 75 neonate, 69 of them had congenital abnormality.

They were :-

Imperforate anus	19	abdominal wall defect	8
Hirschsprung disease	9	T.E. fistula	4
Diaphragmatic hernia	8	Congenital band	2
Biliary atresia	7	eventration of diaphragm	1
Duodenal atresia	4	pyloric stenosis	1
Jejunal atresia	5	gastric perforation	1

We are now joining the joint research in congenital abnormality setting up by our dean. Our parts are clinical research and surgical treatment. To be ready for the research, we must have a good medical record and a better treatment to deal with operating upon low and very low birth weight neonates with minimal

mortality and morbidity.

What we need are :-

1. Personal development

Our project is to send our doctors and nurses to modern neonatal surgical units for training. Since many of the units locate in Japan, it would be better to send them to Japan.

2. Modernized our unit;

- 2.1 neonatal ward.

- 2.2 set up special baby care unit.

- 2.3 equipments for transportation.

- 2.4 good medical record.

- 2.5 new surgical equipment and instrument to cope with low and very low birth weight neonates.

To fulfil our requirement we need :-

1. to Co - operate with Japan in training program.
2. instruments and equipments.

RESEARCH ON CONGENITAL  
CLUBFOOT

---

Manit Limpaphayom

Current State-of-the-Art

A clubfoot is defined as a foot persistently turned inward and downward with the front part of the foot angulated toward the midline of the body. If not corrected the deformity may worsen with growth and, if corrected, may recur. The incidence of this birth defect is one per 1,000 live births and is almost twice as common in males. Some hereditary factor is believed to be operating in 20 percent of instances. Clubfoot may appear in association with congenital dislocation of the hip. Presently, criteria are being developed to define the type of clubfoot deformity that may be successfully treated by nonsurgical means and to define the timing and type of procedure that should be performed when surgical treatment is indicated. It is presently believed that if indicated, surgical correction should be performed very early in life to prevent secondary severe soft tissue and bone changes associated with growth.

Goals of Current Research and Development

A goal of current interest continues to be collection of data referable to the intrauterine effects of such extrinsic factors as trauma, vitamins, nutrition, drugs, alcohol, smoking and radiation on the production of birth defects. Accurate data will allow the elimination of harmful factors on a scientific basis in order to decrease the incidence of birth defects.



Incidence studies of birth defects must be continued to identify variations in differing subgroups to attempt to identify high risk groups and possible etiological factors. Incidence studies may also be expected to serve as a guide as to where renewed research emphasis is needed.

Traditionally manual testing has been the main method utilized in testing muscle strength.

More recently electromyographic gait recordings have revealed major inconsistencies between manual testing and actual performance. Gait analysis studies with responsive instruments are currently being pursued to display motion, muscle action of multiple muscles, weight-bearing forces, energy expenditures and composite walking ability to contribute more objective information useful for diagnosis, surgical planning, evaluation of management programs and efficacy of orthoses. Stride analysis, dynamic electromyography, cinematography, force plate analysis and measurement of energy expenditures are the major techniques being used presently.

Attention is now being directed toward the use of ultrasound and CAT-scanning as additional diagnostic tools. Emphasis is now being directed toward collecting information to attempt to explain why certain ethnic groups carry a higher risk for congenital clubfoot.

A goal of current research is to intensify the investigation of muscle and nerve alterations in children born with clubfeet. Study of muscle typing, evaluation of muscle structure by electron microscopy and the histochemistry of muscle segments is essential for consistently effective treatment results. A biomechanical and histochemical method of assessing collagen would allow more predictive surgical correction and would assist in establishing a

classification of clubfoot more realistically related to treatment outcome.

#### RESEARCH STRATEGY

##### Science Base

- \* Conduct studies designed to identify a collagen index in infants born with clubfeet.
- \* Support longitudinal studies of gait patterns and gait alterations designed to identify the natural course of foot function mechanics from infancy to adulthood.
- \* Pursue studies designed to study biomechanical effects of running and altered gait patterns.
- \* Encourage studies to increase knowledge of the muscle metabolic cycle and factors governing muscle endurance and fatigue.
- \* Support studies to measure the effect of immobilization on bone density, collagen strength, joint motion and blood flow as they might relate to the restoration of foot function.
- \* Pursue studies designed to identify measures or techniques to improve circulatory capability in persons with vascular deficient limbs.

##### Application

Information developed in the science base will be used by orthopaedic surgeons to develop treatment programs that are efficient, cost effective and based on scientific evidence. Close collaborative effort between bioengineers, biomaterials scientists, cellular biologists and orthopaedic surgeons will help insure success of research efforts.

### Technology Transfer

Information developed in the science base that can be readily utilized in treatment programs would be widely disseminated to physicians, allied health professionals, orthotists and appropriate representatives of the shoe industry by continuing education courses, scientific presentations and publication in appropriate scientific and lay journals. New information developed in the science base must be rapidly incorporated into the educational curriculum of residents being educated in orthopaedic surgery.

### Training

Support must be forthcoming to assist biomechanical engineers, muscle physiologists and those educated in microsurgical techniques to be assistive to orthopaedic scientists in the development of controlled and long term studies required to meet musculoskeletal research needs in the area of the foot.

"CLUBFOOT"

Current Research Needs

1. Collagen index.
2. Muscle characteristics (electron microscopy, histochemistry).
3. Gait Biomechanic lab (force plate analysis, foot print, computerization and photography) strain gauge).
4. Risk factors (prospective studies)

M. Limpaphayom

SINGLE GENE DEFECT AS A PUBLIC HEALTH PROBLEM

Samarlee Srivuthana  
Pediatric department,  
Faculty of medicine,  
Chulalongkorn University

Genetic disease is one of the public health problems in Thailand. All general practitioners in their medical practices have encountered numerous patients with genetic disorders. In many Western countries, advances in medicine and public health have resulted in a gradual decline in childhood mortality. With the great reduction in childhood mortality caused by infection and nutritional problems, genetic diseases now contribute significantly to infant mortality and morbidity. Infectious disease and nutritional problems constitute the major health problems in Thailand. No doubt with improvement in living conditions and health care the pattern of diseases in the country will gradually change and eventually become similar to that in advanced countries.

Genetic disease can be divided into three major groups : single gene disorders, chromosomal aberrations, and polygenic or multifactorial disorders. The number of single gene disorders so far described in man are as listed in McKusick's latest catalogs in 1982. These include 1827 autosomal dominant, 1298 autosomal recessive and 243 sex-linked disorders. With regard to the overall incidence of single gene disorders, these have been the subjects of many investigations. However several of the disorders are not present until later life and have various clinical manifestations. Compared to congenital malformation, the estimation of incidence is in general more reliable in a population where the majority of babies are delivered in the hospitals. It is agreed that there is considerable ethnic and geographic variation in the incidence of genetic

disease in each country. In Thailand, the outstanding lists of genetic disease such as hemoglobinopathies, hemophilia and G6PD deficiency have been mentioned and accepted as national health problems. Other genetic diseases which have several systemic involvements, including inborn error of metabolism and congenital malformation, should also be recognized and considered as being problems. It is unfortunate that there is as yet no general public awareness of medical genetics. It is even more unfortunate that the medical professions, in particular, family physicians, pediatricians, obstetricians, and internists do not look upon genetic counseling as an essential part of primary health care.

The vast majority of genetic diseases are serious, none are curable, and relatively few are treatable. The principle approach to the control of genetic disease is, therefore, prevention through genetic counseling. The basic information needed for genetic counseling include : a precise and fully confirmed diagnosis in the index case, an accurate pedigree of the family and the mode of inheritance of the disease. The research study on genetic epidemiology in conjunction with advanced technology to detect the high risk individual, prenatal diagnosis, neonatal screening for inborn error of metabolism and carrier detection will help provide quality genetic health services to consumers. From the perspective of the individual, the family, and society-at-large, this would seem a most worthy goal to pursue and it could make the theme "HEALTH FOR ALL BY THE YEAR 2000" possible.

Cytogenetic Service in Chulalongkorn Hospital

Cytogenetic Service was first developed in genetic unit, Department of Anatomy, Faculty of Medicine, Chulalongkorn University since 1971. But the result was unsatisfactory due to technical error. The Technique has been developed and satisfactory result was obtained in 1976. These are the results of cytogenetic studies from short-term lymphocyte culture from peripheral blood, B.M. and also from Amniotic fluid culture between 1980 - 1984.

Table I

Indications referred for chromosome study

	1980 (2523)	1981 (2524)	1982 (2525)	1983 (2526)	1984 (2527)	Total
1. Confirmation of chromosome aberration syndromes	47	54	57	69	93	330
2. Multiple congenital malformations	17	8	12	27	24	85
3. Mental Retardation with or without congenital malformations	2	6	5	10	4	27
4. Parent of individual with chromosome aberration offsprings	2	10	14	26	17	69
5. Primary amenorrhea, Infertility	9	11	16	12	13	63
6. Ambiguous sex	9	9	17	22	12	69
7. Malignant disease	4	1	8	13	18	44
8. Couples with Repeated abortion, stillbirth, congenital malformation	2	6	11	11	21	51
9. Delayed Puberty	-	-	1	1	4	6
10. Short stature of Unknown etiology	2	5	3	5	1	16
11. Miscellaneous	9	13	30	41	70	163
Prenatal Diagnosis	4	4	16	25	59	
Various Syndrome	5	9	14	16	11	
Total	101	125	184	237	277	924



Table II

Results

I Confirmation of chromosome aberration Syndrome

	Normal Karyotype	Abnormal Karyotype	Total
2523	18	24	42
2524	19	32	51
2525	24	35	59
2526	27	39	66
2527	52	40	92
Total	141	170	310

Abnormal Karyotype

( 137 cases )

Down Syndrome (129)	=	68.983%
Trisomy 18 Syndrome (17)	=	9.090%
Trisomy 13 Syndrome (4)	=	2.139%
5 p - Syndrome (2)	=	1.069%
Turner's Syndrome (15)	=	8.021%
Klinefelter Syndrome (9)	=	4.812%
Structural aberration (11)	=	5.882%

Congenital malformations 76 cases

0q<sup>-</sup> = 1

Abnormal Karyotype :

0q<sup>+</sup> = 1

18<sup>+</sup> = 2

tD / C<sup>?</sup> = 1

XO / XX = 1

= 6/76

Total 6 cases

Table III  
 Indication for Prenatal Diagnosis

	1980	1981	1982	1983	1984	Total
1. Advanced maternal Age						
35 - 40 yrs	-	4	10	14	26	54
41 - 48 yrs	1	2	5	3	13	24
2. Previous child with chromosome aberration syndrome						
Trisomy 21	1	3	3	8	13	28
Trisomy 18	-	-	-	1	2	3
3. Previous child with congenital malformations, Mental retardation and Previous abortion	1	1	-	3	8	13
4. Translocation carrier parent	1	1	-	1	1	4
5. Family with Down Syndrome baby	-	1	2	-	-	3
6. Miscellaneous	-	-	1	2	1	4

Results

Abnormal karyotype	4 cases
Trisomy 21: 47, XX, + 21	(Previous child with mental retardation) 1 cases
Translocation carrier : 45; XY, - 14, - 21, + t 14/21	1 cases
45; XX, - 21, - 22, + t 21/22	1 cases
Triploid 69, XXX (fetal death in utero)	1 cases
<u>Normal karyotype</u>	123 + cases
male 69 female	54 *
<u>Culture failure</u>	7 cases = 5.22%

\* Misdiagnosis as 46; XX baby is 46; XY.

+ 1 cases is Dizygotic twins 46; XX  
46; XY

Prenatal Diagnosis of Hereditary disease  
and congenital malformation

Pairoj Witonpanich

1. Congenital anomalies account for 10.5 per 1000 live birth in Chulalongkorn Hospital during the past decade 1975 - 1984 and still birth rate in department of OB - GYN is  $(42 \frac{7.12\%}{588})$  between 1979 to 1984.

2. In contrast to congenital anomalies of live births most of affected still births are Hydrocephaly, Anencephaly and Hydrops - fetalis.

3. The following procedures are in need indeed :-

- 1) Amniocentesis with ultrasound biopsy needling transducer
- 2) Ultrasonography
  - 2.1. Real time ultrasound
  - 2.2. Electronic sector scanning
  - 2.3. Doppler detection of blood flow
- 3) Fetoscopy
- 4) Chorion biopsy for D.N.A. determination

4. The advantages of prenatal diagnosis are as follows :

1. For genetic counselling
2. To prevent secondary congenital malformation and perhaps to terminate the pregnancy by the second trimester
3. To improve the management of congenital malformations.
4. To screen the high risk population in the community e.g. frontoethmoidal meningoencephalocele.

5. Prenatal diagnosis will certainly brought about not only new dimension of management of congenital malformation but also the betterment of socioeconomic status of Thailand at large.

Experimental Teratology in Faculty of Medicine

Chulalongkorn University

The study of congenital malformations by experimental means in this faculty appears to be first undertaken in 1970. The main purpose was to study the teratogenic effects of various kinds of drugs and chemicals used in the country.

In 1971, the study was planned in order to find out the possible cause of one of the common types of malformations, that is the fronto-ethmoidal meningoencephalocele. After reviewing the literature and having several meetings and discussions among anatomists and pathologists, nutritional factor was thought to be responsible for this anomaly. The chemical, monosodium glutamate has received a great deal of attention due to its similar uses in cooking in Asian countries.

A result of the study revealed that only 1.6% of the surviving fetuses were abnormal. However, the anomalies observed were those involving the cephalic region especially the brain tissue. The low incidence of fetal death and abnormalities may be due to the susceptibility of the animals and the route of administration. Further investigations should be made in order to find out the possible role of this chemical in developing fetuses.

The existing facilities

- Space
1. Animal housing  
size 4 x 5 meters without temperature and lighting system control.
  2. Tissue preparation laboratory in the Anatomy Department.

Equipments

1. Equipments for tissue preparation in Histology

Laboratory

2. Chemicals for tissue preparation

Assistance required

1. Animal housing with temperature and lighting system control

2. Animal dissecting laboratory with dissecting equipments

3. Tissue preparation equipments

4. Research assistants

Report of the Epidemiological study at KLUNG,  
CHAN-THA-BURI. October, 1981.  
SCHOOL OF MEDICINE, SCHOOL OF DENTISTRY.  
CHULALONGKORN UNIVERSITY, BANGKOK, THAILAND.

Title:

Introduction to the Health Problems and Health Care delivery systems  
in the Eastern region of Thailand.

Purposes of the studies:

1. To find the appropriate methods in evaluating public health and effective health services.
2. To explore the community health problems in the Eastern region of the country.
3. To collect the data on sociocultural and economic status which have impacts on health.
4. To testify the health care systems utilization.

Procedure:

The research committee are faculty members of Chulalongkorn Medical School, School of Dentistry, local medical and public health personnels at CHAN-THA-BURI.

Steps of processing:

1. incorporate with local health personnels.
2. mapping and purposively sampling the study households.
3. assess the available local health recording and reporting systems.
4. assemble epidemiological data by direct household surveys.



5. conduct the village health examination for enhancing the health care information.
6. establish a unified conceptual center for compiling formal health information in assessing the medical need.

Results:

This introductory survey is intended to provide the background for investigating in epidemiology at Eastern part of the country; however the two purposively sampling villages may partially represent the major health problems in this region. Demographic structure of the two villages Kwien-Huk and Trok-Nong are almost similar in population density profile and also the economic contexts, such as the number of population are 628 and 739 respectively. Men and women ratio are almost equal in proportion. The proportion of dependent persons are 67.6 % and 61.5 % in the first and second villages. The sources of income are mainly the products of tropical orchards which supply the average income of 42,183.70 bahts at Kwien-Huk village and 48,277.80 bahts at Trok-Nong. Relatively the bottom income distribution is 48.3 % and 39.1 % respectively.

Relating to the environmental studies, one aspect is to determine the biological ( infectious agents of diseases, reservoirs of infection, vectors that transmit diseases ), social ( occupation, economic, housing conditions, family planning ), and physical environments ( water supply, chemical agents, sewage ). These factors and agents recognized as hazards to health are questioned in the interviews. From the close observation and direct interviews of 130 households in each village disclose that 25 % of the indoor home environment is over crowded and decreased in ventilation. About one-third of the houses does not possess latrine, 62.2 % use primitive latrine pits and 18.9 % do not care for any shelter type.

The morbidity and mortality studies demonstrate the crude birth rate of 25.6 per 1000 population and 6.6 crude death rate. The prevalence of disabilities is 19 per 1000 persons which are mostly caused by traumatic accidents, and some congenital malformations. There are 401.8 per 1000 who identify themselves as sick stricken, predominantly malaria, common cold, food poisoning, injuries and pesticide intoxication. Causes of death are by and large, accidental injuries, cancer and malarial fever. On the other hand, preschool children and infants are considered malnourished in the proportion of 22.2 % and 41.7 % in the Kwien-Huk and Trok-Nong villages. In addition, the hematologic evaluations demonstrate anemic conditions ( hemoglobin concentration < 11 gm % ) in children and elderly people, while malarial parasites are identified in their blood films ; also causally linkage to the hookworm infestation.

In addition to the general health assessment, a cross-sectional survey of tuberculosis risk and infection rate by examining the previous BCG vaccination scars and the positive response to tuberculin skin tests. As a result, the infection rate is 4.7 % in children 0 to 14 years of age, and 16.3 % in adults. Consequently, the annual risk of infection is estimated to be 2.3 % for the study areas.

Conversely to the regular health examination, oral hygiene and dental conditions are thoroughly inspected and identified by research dentists. As a result, 22 % of cases required urgent teeth filling and pulling of decayed teeth, some need immediate management for oral and gum infection. Those who are subjected to partial or full denture placing are in the average of 50 % and 30 % respectively.

Conceptually, in addition to having limited financial resources and restricted access to medical care, the poor and illiterated tend to under-

utilize available preventive or curative health services. As far as, the findings on the utilization of health care delivery systems at both villages concerned, those who recognize themselves as mild grade of illnesses, 80 % get the medical supplies from local grocery counters. Where as, 70 % of the seriously ill come to medical attention at the government health services.

In conclusion, with respect to the over-view data collection by field observation and directly interviewing the household leaders and villagers at two rural areas of Chan-Tha-Buri province, may shed some insights on epidemiological concepts and socioeconomic status which intensify variety of reasons for the future health care planning. Furthermore, a unified rural health information center for an appropriate epidemiological approach is needed to fulfill the prospective goals in the contexts of cost-benefits and cost-effectiveness in health management and care delivery systems.

CHA-CHOENG-SAO Province.

Location: eastern province of Thailand.  
 Area : 5,442 sq.km; 78 km. from Bangkok.

Population:

year	total population.	birth rate	death rate
1977	482,726	22.3	5.7
1978	474,442	20.5	4.5
1979	487,347	21.0	5.1
1980	498,148	20.3	4.9

Religion:

Buddhists	85%
Islamic	10%
Christian	5%

Race: The majority of the people are Thai, some Chinese and Cambodian minorities.

Economy:  
 Average annual income is 8447 Baht per person. Rice is the chief crop in an agricultural economy with coconuts and other fruits also grown. Water buffalos are the principle livestock.

An Epidemiology study

at BAN-HIN-DAD in RAJA-SAN Sub-province , 1980.

Communities and families characteristics.

Reports from 54 household interviews. ( 60% coverage )

Total population 535, male 278, female 257.

		number	%
Sex	male	21	38.9
	female	33	61.1
Age	0-14	0	0
	15-19	1	1.8
	20-24	3	5.6
	25-29	4	7.4
	30-34	3	5.6
	35-39	5	9.2
	40-44	8	14.8
	45-49	6	11.1
	50-54	3	5.6
	55-59	13	24.1
	>60	8	14.8
Marital status	Married	37	68.5
	Single	8	14.8
	Widow	5	9.2
	Separate	3	5.6
	Divorce	1	1.8

	number	%
<b>Occupation</b>		
Rice farming	28	51.8
Trader	12	22.2
Labour	8	14.8
Unemployed	3	5.6
Livestock	1	1.8
Antique repair	1	1.8
Handicraft	1	1.8
<b>Income (Baht)</b>		
< 2000	3	9.7
2000-4000	4	12.9
4000-6000	2	6.4
6000-8000	6	19.4
10000-30000	6	19.4
30000-50000	3	9.7
50000-70000	1	3.2
> 100000	3	9.7
no income	3	9.7
<b>Causes of illnesses</b>		
Abdominal pain	5	33.3
Chickenpox	3	20.0
Trauma	2	13.3
Old age	2	13.3
Hernia	1	6.7
Paralysis	1	6.7
Diarrhea	1	6.7
<b>Characteristic of disables</b>		
Paralysis of limbs	2	40.0
Paresthesia	3	60.0
<b>Age of onset of the malformation</b>		
Since birth	1	20.0
10 yr.	2	40.0
15 yr.	1	20.0
34 yr.	1	20.0
<b>Mortality data (age of death)</b>		
7 mo.	1	20.0
18 yr.	1	20.0
30 yr.	1	20.0
48 yr.	1	20.0
58 yr.	1	20.0
<b>Causes of death</b>		
Stillbirth	1	20.0
Accidents	1	20.0
Malaria	2	60.0



3 ) 報 道 記 事





วันพุธที่ 16 ตุลาคม พ.ศ. 2528



สมเด็จพระเทพรัตนราชสุดาฯ สยามบรมราชกุมารี ทรงรับเสด็จศาสตราจารย์ ดร.สุวรงค์ วงศ์ศิริ รองอธิการบดีมหาวิทยาลัยเทคโนโลยีพระจอมเกล้าพระนครเหนือ พร้อมด้วยคณะผู้บริหารโรงพยาบาลจุฬาลงกรณ์ นำคณะผู้สื่อข่าวญี่ปุ่น จำนวน 6 คน เฝ้าฯ พระตำหนักจิตรลดารโหฐาน ในโอกาสที่เดินทางมาประชุมหารือเพื่อวางแผนดำเนินการเกี่ยวกับการศึกษาโรคที่การแต่กำเนิดในคนไทย (สำนักพระราชวัง)

10月14日 シリントン王女との謁見 報道記事

JICA