

便色調カラーカード法による胆道閉鎖症のマスキング －栃木県および茨城県方式－

(分担研究：新しい対象疾患に関する研究)

松井 陽^{*1}、牧 たか子^{*2}、須磨崎 亮^{*1}、大崎 牧^{*1}、荒川 洋一^{*3}

要約：栃木県では便色調カラーカードを使って、胆道閉鎖症の早期発見・早期手術を目的とした、生後1か月乳児のマスキングを行った。この方法は、親にカラーカードを配布し1か月健診時に児の便色調に該当する番号を記入して持参させるもので、産院および1か月健診で本症に特有の淡黄色便を発見し、本症と診断された患児に対して生後60日以内に肝門部空腸吻合術を施行することを企図した。94年8月1日から97年7月31日までの3年間に、出生児58,396名のうち50,931名(87.3%)がこの検査を受けた。この間に発生した胆道閉鎖症の患児は10名で、うち8名が生後1か月までに便色調異常を申告したので、検査の感度は80.0%であった。この8名のうち7名は生後60日以内に肝門部空腸吻合術を受け、6名で黄疸の消失を認めた。検査の特異度は99.9%、陽性適中率は22.9%、陰性適中率は100%であった。以上から栃木県における便色調カラーカード法は、胆道閉鎖症の早期発見に有効なマスキング法と結論した。なお、感度を100%に近づけることが望ましいが、生後1か月以降に淡黄色便を呈する遅発例が存在することから、1か月健診時での感度をこれ以上に上げることは困難である。一方、茨城県では生後1か月の他に、遅発例の発見のため生後2か月時にも再検する方式で、98年からこのマスキングを開始した。

見出し語：マスキング、胆道閉鎖症、便色調カラーカード

*1 筑波大学臨床医学系小児科

*2 石岡市医師会病院小児科

*3 自治医科大学小児科

目的：便色調カラーカードを用いた胆道閉鎖症のマススクリーニングによって、胆道閉鎖症患児の手術成績および長期予後を改善できるか否かを推定する。

対象および方法：1. 栃木県方式

1) 便色調カラーカード¹⁾ (以下カード)：前年度に作成したカードを用いた。すなわち、生後約1か月の胆道閉鎖症患児および同月齢対照の健康乳児の便カラー写真のうち、患児のものを1～3番、健康児のものを4～7番と番号をつけた。そして、親が児の便色調に最も近いと思う色調番号を記入する欄を設けた。

2) スクリーニング・システム：各市町村で母子手帳を交付する際に「母と子の手帳」にカードを挟んで配布した。保護者が文書で検査を受けることに同意した場合に検査を受け付けた。産院入院中に便色調異常に気づいた場合は、担当産科医が自治医科大学小児科に電話連絡することにした。親は1か月健診の前日または当日に、児の便とカードの写真を比色して、該当する便色調番号および必要事項をカードに記入し、健診担当医に提出した。親が判定した色調番号が1～3番の場合は、担当医が視診で便色調を確認した。それでも異常なら、ただちに自治医科大学小児科へ電話し、親と相談の上、患児を紹介すべき専門医を決定した。4～7番は正常と判定した。カードは週末にまとめて、各健診担当医療機関から栃木県保健衛生事業団へ郵送され、回収された。

3) 対象：栃木県において94年8月1日から97年7月31日までに出生した児で、カードを回収できた児を対象とした。検査期間中の出生児総数は、同時期に先天性代謝異常症等のマススクリーニン

グを受けた児の数とした。また、胆道閉鎖症患児の発生総数は、栃木県への小児育成医療申請によって最終的に確認した。

2. 茨城県方式

茨城県では、98年1月1日以降に出生した児を対象に、栃木県と同様のカードを、各市町村で出生届提出時に1か月用と2か月用の2枚配布した。親は、1か月健診前および2か月時、または淡黄色便が3日以上続いた場合に、記入したカードを茨城県胆道閉鎖症マススクリーニング委員会宛に郵送した。親が判定した色調番号が1～3番の場合は、委員会からの連絡をうけた所轄保健所の保健婦が家庭訪問を行って便色調を確認し、それでも異常ならただちに親と相談の上、患児を紹介すべき専門医を決定した。

結果：1) 受検者：上述の検査期間中に栃木県で出生した児58,396名のうち50,931名(87.2%)が、このマススクリーニング検査を受けた。

2) 検査結果：1か月健診以前およびこのカードで便色調異常を報告した児は35名で、このうち再診又は精査の結果、胆道閉鎖症と診断された児は8名であった。一方、同時期に栃木県で発生した本症の患児はこの8名を含む10名で、2名は1か月健診時には便色調異常は認められなかった。したがって感度80.0%、陽性適中率22.9%、特異度99.9%、陰性適中率はほぼ100%であった。

		胆道閉鎖症		
		有	無	
便色異常	有	8	27	35
	無	2	50,894	50,896
		10	50,921	50,931

3) 胆道閉鎖症患児：検査期間中に栃木県で発生した10名の胆道閉鎖症患児の概略を表に示す。症例6、9は偽陰性であった。

症例	生年月日	便色調番号	手術日齢	黄疸（転帰）
1	941210	3	45	消失
2	950207	3	58	消失
3	950307	3	42	消失
4	950711	3	56	消失
5	950718	3 or 4	64	持続→肝移植
6	950720	5	54	消失
7	951109	3	42	消失
8	960121	1	39	消失
9	960329	5	78	消失
10	961006	3	18	消失→再燃→死亡

考察：この3年間に栃木県で出生した児は58,396名、この間に発生した胆道閉鎖症患児は10名であったので、本症は5,840人に1人の頻度で発生したことになる。この3年間に栃木県内で出生した児の87.2%がこのマススクリーニングに参加した。この受検率は昨年が87.3%³⁾であった。受検率を上げる目的で97年4月からカードの回収先を栃木県保健衛生事業団とし、先天性代謝異常等検査の乾燥ろ紙血液と郵送用封筒を共用するようにしたが効果はなかった。

これは簡便な検査であるので、母親あるいは1か月健診担当医がカードを返送しなくて良いと判断している可能性も考えられる。また母親がカードを1か月健診の場に持参しなかった場合に備えて、予備のカード担当医に送っているが、これが不足していることも考えられる。将来、カードを母子手帳に挟むのではなく、「綴じ込む」ようにしたとしても、1か月健診担当医の協力が十分でなければ受検率を100%にすることはできないだろう。

マススクリーニングの感度は、一昨年は80%⁴⁾、昨年は83%³⁾、今年が80%だった。胆道閉鎖症には

生後1か月を過ぎてから淡黄色便を呈する遅発例が15%程度あるとされる。栃木県における生後1か月での偽陰性例2例を調べたところ、生後30日での便は黄色だったが、生後60日までにそれは淡黄色になった。

茨城県では98年初頭からやはり便色調カラーカードを用いた胆道閉鎖症のマススクリーニングを開始したが、ここではカードを1人の児に2枚配布して、生後1か月と2か月の2回、または淡黄色便発見時には上記の日齢にかかわらず回収することにした。また、カードを出生届提出時に配布する、回収を郵送とし親が郵送費を自己負担する、便色調異常を申告された児を保健婦がまず家庭訪問するなどの新しい方策をとった。これにも新しい問題が今から予想されるが、栃木県方式と比べてよりよい方式を作り上げなければならない。便色調カラーカード法による胆道閉鎖症のマススクリーニングは感度、特異度に優れているばかりでなく、費用便益効果にもおいてフェニルケトン尿症、クレチン症のマススクリーニングに勝るとも劣らない⁴⁾ことがすでに示されている。1日も早い全国の実施を目指したい。

結論：便色調カラーカードを用いた胆道閉鎖症のマススクリーニングによって、胆道閉鎖症患児の手術成績および長期予後を改善できる。

文献：

- 1) Matsui A et al. Lancet 1995, 345:1181.
- 2) 松井 陽、他.平成7年度本報告書、p76-8.
- 3) 松井 陽、他.平成8年度本報告書、p214-6.
- 4) 久繁哲徳、他.平成7年度本報告書、p103-6.



検索用テキスト OCR(光学的文字認識)ソフト使用

論文の一部ですが、認識率の関係で誤字が含まれる場合があります



要約: 栃木県では便色調カラーカードを使って、胆道閉鎖症の早期発見・早期手術を目的とした、生後1か月乳児のマススクリーニングを行った。この方法は、親にカラーカードを配布し1か月健診時に児の便色調に該当する番号を記入して持参させるもので、産院および1か月健診で本症に特有の淡黄色便を発見し、本症と診断された患児に対して生後60日以内に肝門部空腸吻合術を施行することを企図した。94年8月1日から97年7月31日までの3年間に、出生児58,396名のうち50,931名(87.3%)がこの検査を受けた。この間に発生した胆道閉鎖症の患児は10名で、うち8名が生後1か月までに便色調異常を申告したので、検査の感度は80.0%であった。この8名のうち7名は生後60日以内に肝門部空腸吻合術を受け、6名で黄疸の消失を認めた。検査の特異度は99.9%、陽性適中率は22.9%、陰性適中率は100%であった。以上から栃木県における便色調カラーカード法は、胆道閉鎖症の早期発見に有効なマススクリーニング法と結論した。なお、感度を100%に近づけることが望ましいが、生後1か月以降に淡黄色便を呈する遅発例が存在することから、1か月健診時での感度をこれ以上に上げることは困難である。一方、茨城県では生後1か月の他に、遅発例の発見のため生後2か月時にも再検する方式で、98年からこのマススクリーニングを開始した。