平成2年度厚生省心身障害研究 「代謝疾患・内分泌疾患等のマス・スクリーニング、 進行阻止及び長期管理に関する研究」

マススクリーニングの効果―1歳以上の神経芽腫発生の検討(分担研究:現行マススクリーニングの問題点に関する研究)
山本圭子\* 高橋久代

要約 神経芽腫マススクリーニング(MS)によって1歳未満の早期例が多数発見されているがMS受診後に発症する神経芽腫もかなり存在する。MS発見例と受診後に発症する神経芽腫は異なる生物学的特性をもつ可能性も示されている。我々はマススクリーニングの効果を知るため埼玉県における患者発生を調査し現在のところMSによって1歳以上の神経芽腫は減少していないとの結果を得た。

見出し語 神経芽腫、マススクリーニング、効果、発生率

研究方法 MSによって1歳以上の神経芽腫が減少したか否かを明らかにするため、埼玉県難病研究班の協同研究として小児慢性特定疾患申請により埼玉県における神経芽腫の年別、年齢別発生を調査した。調査にあたっては患者氏名、医師及医療機関名をのぞくことによりプライバシイに配慮した。診断後の転入は診断書の文面により判断して削除した。埼玉県のMS実施数と埼玉県の年齢別人口をもとに人口中の受診率を推定した。人口の社会増については県内と同率で受診しているものとした。

人口対患者発生率をMSが始まって間もない昭和57年から59年の前期と昭和60年から63年の後期と比較した。

ニングは昭和56年に試行として開始され実施率は次第に上昇し平成1年度には0歳児の85%が受診した。受診者の合計は昭和56年度から平成1年度までで334,222名となり、36名の患者が発見された。方法は平成1年9月まではSPOT法それ以後はHPLCが用いられている。発見率はSPOT法で1/11000、HPLCで1/5000である。埼玉県の昭和57年から63年の14歳までの小児人口は平均139万で、各年齢において1~5%の増加がみられる。MS実施率と小児人口から小児人口のMS受診率を計算すると前期においては1~6歳で7.1%、1~14歳で2.7%となり、後期では1~6歳で38.4%、1~14歳で13.6%となる。

昭和57年から63年までの神経芽腫数は107 名で1歳未満50名、1歳以上57名であり、1

**結果** 埼玉県における神経芽腫マススクリー

<sup>\*</sup>埼玉県立小児医療センター( Saitama Children's Medical Center )

歳未満は前期で13名(4.3/年)に比し、後期では37名(9.3/年)で後期で増加している。一方1歳以上では前期25名(8.3/年)、後期32名(8.0/年)でありほぼ同様である(表1)。

MS受診率と人口対神経芽腫発生率を表2 に示す。1~14歳では前期においては受診率 は2.7%であるが、患者数は25で、神経芽腫 発生率は人口年100万対で6.0となる。後期 では受診率 13.6% で患者数32、発生率 6.2 である。つまり、1~14歳ではMSの受診率 が前期から後期で2.7%から13.6%に上昇 しているにかかわらず神経芽腫発生率は減少 していない。1~6歳では、前期においては 受診率は7.1%であるが、患者数は18で、神 経芽腫発生率は人口年 100 万対で 11.7 とな る。また後期では受診率 38.4% で患者数26、 発生率14.3である。つまり、1~6歳ではM Sの受診率が前期から後期で7.1%から38.4 %に上昇しているにかかわらず神経芽腫発生 率は減少していない。

考察 HPLCの導入後MSによって、1歳 未満の患者が1/5000 という高率で発見さ れている。MS発見例の予後がきわめて良好 であり、当センターの経験でも病期Ⅲの2例

表 1 埼玉県における神経芽腫患者数 (昭和57~63年)

	<1歳	1歳≦	計
昭和 5 7 年 5 8 5 9 6 0 6 1 6 2 6 3	1 5 7 1 3 6 1 2	6 1 0 9 7 6 1 0	7 1 5 1 6 2 2 1 3 1 8 1 6
計	5 0	5 7	107

を含む37例で局所再発の1例を除きすべて再発なく生存している。一方MS受診の有無にかかわらずその後発症する神経芽腫は進展例が多く予後不良である。MS発見例の多くは腫瘍の染色体所見で数の異常のみをしめし癌遺伝子Nmycの増幅はなく、その後に発症する進展神経芽腫は染色体所見上1P異常などの構造異常をもちNmycの増幅をみとめることがあり両者はおよそ異なるSubgroupである可能性がある(2)。極言すれば現行のMSによって、多数の早期例が発見されているに関わらず、それ以後に発症する予後不良の進展神経芽腫は減少しないと予測される。

今回の Preliminary な疫学的検討では現在のところ、MSによって1歳以上の神経芽腫は年間発生数、1~6歳のおよび1~14歳の人口対発生率は減少していなかった。しかし、未だ1~6歳人口においてもMSを受診していた率が38.4%にすぎず、かつ方法がSpot法であることから十分な差がでていない可能性もある。今後、HPLCによって発見率が高まりかつ大部分の小児が受診の既往をもつ時点での検討が必要であり、今回の結果は少なくともそのコントロールとしての意味をもつものと思われる。

表2 マススクリーニング受診率と1歳以上 の神経芽腫発生(埼玉県)

年 齢		受診率(%)	患者数	発生率 100 万・年
1 - 6	前期	7. 1	18	11. 7
	後期	38. 4	26	14. 3
1 -14  -	前期	2. 7	25	6. 0
	後期	13. 6	32	6. 2

前期:昭和57年~59年 後期:昭年60年~63年 現行のMSが進展神経芽腫を減少させる効果がないとすれば多数発見されている神経芽腫の自然退縮の可能性も考慮する必要があり、その上でもこのような疫学的検討は示唆を与えるものと思われる。

文献 (1) 山本ほか:小児がん

25:257-259

(2) Hayashi, et al.: J. Pediatr.

112 : 567 - 571

## ABSTRACT

EFFECT OF NEUROBLASTOMA MASS SCREENING IN SAITAMA

PREFECTURE. JAPAN

Between June 1981 and March 1989, 334,222 infants at 6 months of age were screened using a qualitative test of VMA in urine, and 36 cases of neuroblastoma (NB) were identified in Saitama prefecture, Japan. Between 1982 and 1988, 107 patients were diagnosed as having NB. Number of cases per year was 4.3 among infants under 12 months of age, and 8.3 among children over 12 months of age from 1982 to 1984, and 9.3 and 8.0 in each age group from 1985 to 1988. There was no decrease in number of cases in older age in spite of increase in younger age due to mass screening (MS). Among children aged from 1 to 6 years, annual incidence of NB patients (rate of screenees was 7.1%) was 11.7 per million children 1982 and 1984, that of NB patients (rate of screenees was 38.4%) was 14.3 per million children between 1985 and 1988. There was no decline of the incidence in the latter period where more children had received MS.

## 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 神経芽腫マススクリーニング(MS)によって1歳未満の早期例が多数発見されているが MS 受診後に発症する神経芽腫もかなり存在する。MS 発見例と受診後に発症する神経芽腫は異なる生物学的特性をもつ可能性も示されている。我々はマススクリーニングの効果を知るため埼玉県における患者発生を調査し現在のところMSによって1歳以上の神経芽腫は減少していないとの結果を得た。