

マターナルPKU危険群の追跡状況に関する調査 (分担研究：スクリーニングの情報管理に関する研究)

島田司巳¹⁾、小山正彦²⁾、丸尾良浩¹⁾、小山栄子¹⁾

要約：我々は、医療機関に対し患者の追跡状況をアンケート調査したので報告する。医療機関が把握できない者は17%で、連絡できないものは21%であった。この内の女性で、医療機関を受診していない者は46名であり、これがマターナルPKUの高危険群と考えられた。さらに連絡不能な者が36名おり、回答のない者も加えると、80名になった。これは、今回の対象女性の約45%であり、16歳以上が35%もいることを考えると、早急な対策が必要であると考えられた。

すべての患者の状況を一元的に把握するためには、各医療機関での患者の把握状況に加えて、医療機関と研究班との間のコミュニケーションが問題となることが考えられた。

はじめに

マターナルPKUの発生を予防するためには、高フェニルアラニン血症のリスクを持つ母体に対し、妊娠前からフェニルアラニン制限を実施し、血中濃度を下げておくことが必要である。このためには高フェニルアラニン血症の危険者を把握し十分な情報を提供することが必要と考えらる。

しかし、フェニルケトン尿症や良性高フェニルアラニン血症などの遺伝性高フェニルアラニン血症の患者のなかには、すでに医療の手を離れているものもあると考えられる。その実態を明らかにすることを目的として、実際に各医療機関に対し患者の追跡状況をアンケートによって調査したので報告する。

対象と方法

アンケートは、各医療機関に送付し、対象患者が現在把握されているかどうか、いつごろまで把握されていたのか、さらに現在その患者と連絡することが可能か否かを検討した。同時に、今後他の方法で入手した情報との照合を容易にするため、個人データも可能な範囲で収集した。

対象者のリストとしては、遺伝性高フェニルアラニン血症の患者リストを、総合母子保健センターの青木先生のご好意によりご提供いただいた。

送付数と回収率

提供されたリストに基づき、136医療機関に対し360通のアンケートを送付した。この男女構成は男性184件、女性176件となっていた。

このうち回収されたものは106医療機関からの283通であり、回収率は医療機関数でもアンケート件数としてもほぼ78%となった(表1)。

1) 滋賀医科大学小児科

2) 滋賀医科大学小児科 現琵琶湖大橋病院小児科

表 1, 送付数と回収率

	施設数	患者数
送付数	136	360
回答数	106	283
回収率	78.0%	78.6%

回収された結果

回収できた結果を表2に示した。この中で、医療機関ですでに把握できなくなっているものの割合は17%であり、連絡をとれなくなっている者は21%であった。

表 2, 追跡状況 (回答分のみ)

把握状況 (%)	連絡の可否 (%)
通院中 191 (68)	連絡可能 222 (79)
所在判明 44 (16)	連絡不能 61 (21)
追跡不能 47 (17)	

追跡できなくなっている者を病型別に見ると、古典型では約15%が連絡不能となっているが、良性高フェニルアラニン血症では2倍以上の36%が連絡が取れない状態となっている (表3)。

表 3, 病型による追跡状況

	古典型 (%)	良性 (%)
連絡可能	167 (85)	55 (64)
連絡不能	29 (15)	31 (36)
計	196	86

未回収データの取り扱い

今回のアンケートの主旨に基づき、回答のなかった医療機関は、今後なんらかの連絡を取る際にも協力を期待できないと仮定し、把握不能の側に計上した。その結果を表4に示した。すると、追跡の途絶えている者の割合は更に増加し、35%が把握不能、38%が連絡不能となった。

表 4, 追跡状況 (未回答分を含む)

把握状況 (%)	連絡の可否 (%)
通院中 191 (53)	連絡可能 222 (62)
所在判明 44 (12)	連絡不能 138 (38)
追跡不能 125 (35)	

ハイリスク群の推定

これらの中でマターナルPKUの危険性を持ち、対策を講ずる必要がある対象としては、女性のみ注目すればよいと考えられる。また、現時点で医療機関を受診していることが明らかな者に対しては、随時主治医から情報を得られると考えられるので、これを除外してもよいと考えられたので、対象数は46名になった。これがマターナルPKUの高危険群であると考えられた。このうち、連絡可能な者を除外すると36名となり、さらに、回答のなかった者も加えると、80名になった (図1)。

これは、今回の対象女性の45%であり、その年齢分布上、16歳以上の者が35%もいることを考え合わせると、早急な対策が必要であると考えられた。

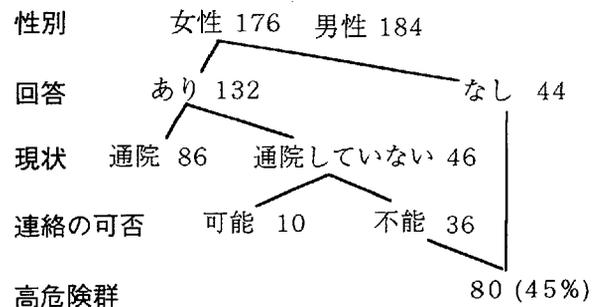


図 1, マターナルPKUの高危険群

考察

本年度は、マターナルPKUの高危険群の実態調査の手始めとして医療機関における追跡状況の調査をアンケート方式で実施した。この調査からはある程度の情報が得られたが、不十分な点も多く残されている。

まず、回答を得られなかった分のデータの解釈であるが、約22%が無回答であったことから、この取り扱いに問題がある。今回の検討では、協力していただけなかったという事実を重視し、これらの医療機関の患者は現在連絡不能として処理した。しかし今回、回答がなかった医療機関の中には、おそらく十分な管理を行っていると思われる施設も含まれていることから、今回の見積りが過大なものとなっている可能性も否定できない。

このことは、従来より議論されている、患者情報を一元管理し追跡するシステムを構築する際に、ここに見られたような医療機関と研究班との間の連絡の不確実性が問題となり、必要な情報の集積がかなり困難であることを示唆していると思われる。

次に対象患者の不足が問題となる。今回使用させていただいたリストでは360人を対象とすることができた。しかし、無症候性の高フェニルアラニン血症は、スクリーニング開始前には発見できなかったため、リストには入っていない。その数を35歳までに限って推計すると、1994年における人口が約5600万人であることと、発生率が22万に1であることから、約250人の患者がいると考えられ、このうちリストアップされているのは106人にすぎない。

今後の展望

マターナルPKUの発生を予防するための、将来的な展望としては次のようなことが考えられた。

まず患者の会や親の会などの患者組織との関係を図ることが挙げられる。医療機関で把握されていなくても、患者組織と連絡を取っている患者に関しては、十分な情報を得ることも可能であると考えられる。この組織を活用するためには患者情報の集積点として、医療機関だけではなく、これらの患者組織も検討する必要があるのではないかと考えられた。

次に、情報の管理機構についてであるが、現状では総合母子保健センターが治療用のミルクとの関係で、情報の集積を行っている。しかし、患者の転居や転院に際しては、追跡しきれないことが多く、情報の発信機関として機能しているとは言い難い。また、末端の医療機関においてはマターナルPKUのことを正しく認識していないことが昨年の我々の調査によって明らかになっており、これらに対する情報提供や広報の不足が示唆される。

今後新しい対象疾患が増えたり、より広い範囲に情報を供給することを考えると、これらのスクリーニング情報を集積・管理・統合する新しい機関が必要になると考えられる。この組織の概念図を図2に示した。

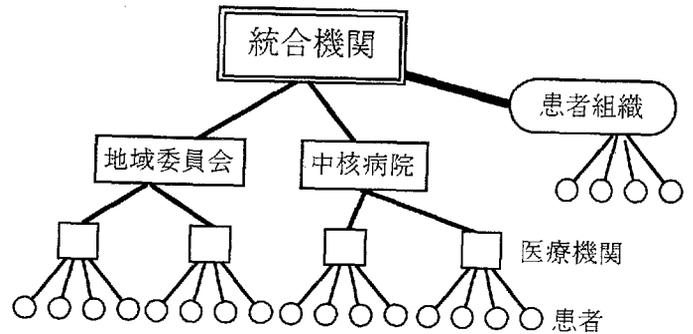


図2. 新しい組織の概念図

結語

すでにマターナルPKUの高危険群は結婚、出産年齢に到達している。

実際に情報から取り残された患者を把握し、サポートすることでマターナルPKUの発生を防ごうとするならば、広範囲の啓蒙や、成人のスクリーニング検査等も考慮にいれた積極的な行動を開始する時期は一刻も早いほうがよいと思われる。

そして、情報の統合管理や情報提供を行う機関が必要になるのならば、その設立を検討する時期が来ているように思われた。



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:我々は、医療機関に対し患者の追跡状況をアンケート調査したので報告する。医療機関が把握できない者は 17%で、連絡できないものは 21%であった。この内の女性で、医療機関を受診していない者は 46 名であり、これがマターナル PKU の高危険群と考えられた。さらに連絡不能な者が 36 名おり、回答のない者も加えると、80 名になった。これは、今回の対象女性の約 45%であり、16 歳以上が 35%もいることを考えると、早急な対策が必要であると考えられた。

すべての患者の状況を一元的に把握するためには、各医療機関での患者の把握状況に加えて、医療機関と研究班との間のコミュニケーションが問題となることが考えられた。