

乳幼児における濾紙血ホロセルプラスミン値の検討
(分担研究：マスキング対象疾患一次スクリーニングから
二次スクリーニングのあり方に関する研究)

畑 郁江*、重松陽介*

要約：平成8年7月より平成9年1月までに当科および協力の得られた福井県内の小児科を受診した6カ月以上、6才以下の児を対象に濾紙血ホロセルプラスミン濃度の測定を行った。保護者への説明用ポスター、同意書を作成し、主治医により同意を得た。検体は、診療のための採血時にガスリー用濾紙に採取して-80℃で保存し、1カ月以内にELISA法で測定した。48検体について検査し、ホロセルプラスミン濃度は、 8.1 ± 2.1 mg/dl (4.5~15.3mg/dl)であった。過去の報告、当科における測定では、Wilson病患者のホロセルプラスミン濃度はほぼ2mg/dl以下であり、今回の検討では明らかな異常低値と判断できる例はなかった。年齢別では、2才以上の群は、2才以下の群に比較して有意に高いホロセルプラスミン濃度を示し、全例が6mg/dl以上であった。Wilson病マスキングには、発症年齢と診断の確実性を考慮し、3才頃でのホロセルプラスミン測定が適当であることが考えられたが、今後、多数例での検討が必要である。

見出し語：乳幼児、ホロセルプラスミン、マスキング

研究方法：

1) 対象

平成8年7月より平成9年1月までに、何らかの理由で当科または協力の得られた福井県内の小児科を受診した生後6カ月以上、6才以下の児のうち、診療上の理由から採血が必要となった者とした。患児の基礎疾患、当日受診した理由、採血の目的などは問わなかった。

2) 保護者への説明、同意

Wilson病についての説明や検査の目的、実施の詳細などを記載したポスターおよび同意書を当科にて作成した。ポスターは、外来待合室などにあらかじめ貼付した。採血の必要性が生じた場合、採血の前に、主治医より保護者に対しWilson病や検査についての説明を行い、文書にて同意を得た。

なお、検査結果については、精査の必要のない

場合は、特に希望のない限り、保護者へ直接には通知しないこととした。

3) 検体の採取・保存

採血時、ガスリー用濾紙に全血1～2滴を滴下し、1日自然乾燥した後、-80℃で凍結保存した。他院にて採血し、当科への輸送までに1日以上を要する場合は、できる限り-20℃以下での保存を依頼した。

ホロセルプラスミン値の測定は、採血より1カ月以内に行った。

4) 濾紙血ホロセルプラスミン濃度の測定

血液の抽出は、血液濾紙を径3mmにpunch outし、PBS 5 mlにて4℃、overnightで行った。その後、ニッショーより供与された「活性型セルプラスミン測定キット」を用いてELISA法で測定した。

結果：

1) 症例

合計48名の児について検査を行った。児の年齢分布を表1に示す。

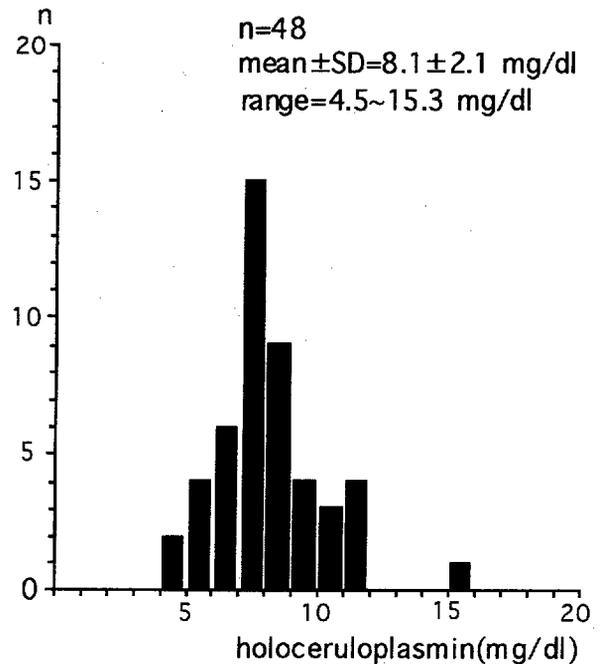
	男児	女児	合計
<1 y	10	6	16
1～2 y	7	5	12
2～3 y	5	3	8
3～4 y	3	1	4
4～5 y	2	2	4
5～6 y	4	0	4
合計	31	17	48

表1 年齢分布

2) 濾紙血ホロセルプラスミン濃度

濾紙血ホロセルプラスミン濃度は、 8.1 ± 2.1 mg/dl (全血表示) で、最低値は4.5mg/dlであった(図1)。

図1 ホロセルプラスミン濃度の分布



年齢別の平均値は、1才以下； 7.5 ± 1.4 、1～2才； 7.1 ± 1.4 、2～3才； 8.8 ± 2.2 、3～6才； 9.6 ± 2.5 mgであった。1才以下および1～2才と3～6才の間には統計的有意差が認められたが、2～3才と3～6才の間には有意差を認めなかった(図2)。

そこで、年齢を1才以下、1～2才、2～6才に区分し、ホロセルプラスミン濃度の分布を図3に示した。

1才以下と1～2才の群は類似したホロセルプラスミン濃度の分布を示したが、2才以上の群は、全体により高濃度に分布していた。

6mg/dl以下の比較的低値を示した者は、1才以下で3名、1～2才で3名で、2才以上には存在しなかった。

図2 ホロセルプラスミン濃度の年齢による平均値の比較

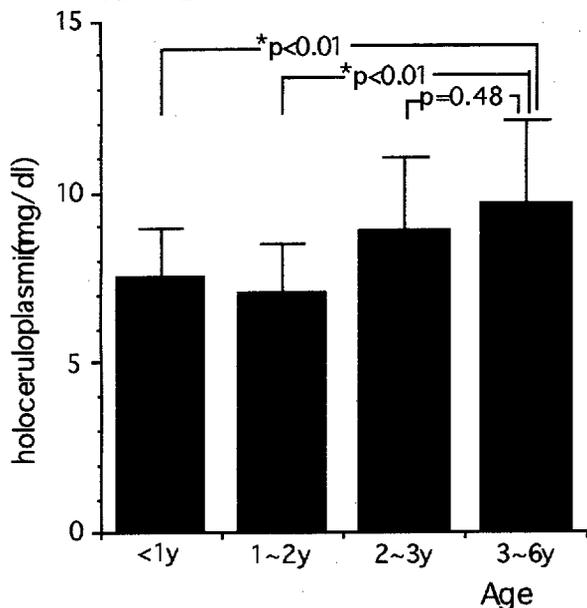
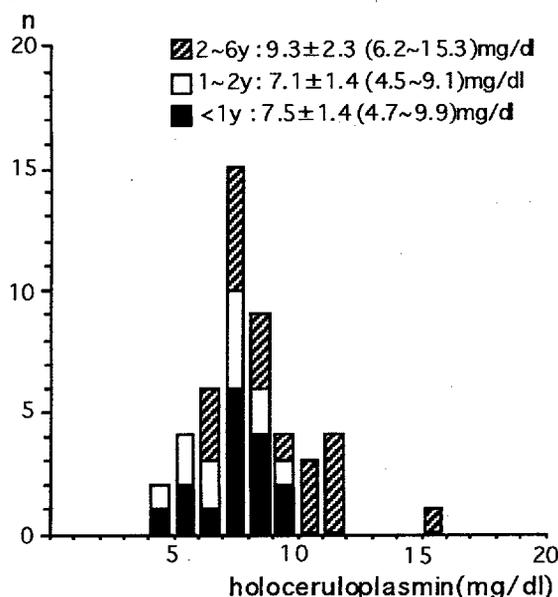


図3 年齢別ホロセルプラスミン濃度



その6名の採血の理由は、2名が貧血のフォロー（インクレミン内服後）、2名がC型肝炎母子感染の可能性にてフォローのため、1名がアレルギー（蕁麻疹）検査、1名が血液型検査希望であった。血球数を検査していた4名について、ヘマトクリット値は正常で、また、肝炎のフォローのため肝機

能検査を行った2名について、肝機能は正常であった。

考察：本年度は、6カ月以上、6歳以下の児において、ホロセルプラスミン濃度の検討を行ったが、ガスリー用濾紙の入手可能な産科・小児科を中心に検体採取を依頼したためもあり、年齢は2才以下の低年齢の割合が比較的多くなった。

今回の検討でのホロセルプラスミン濃度は 8.1 ± 2.1 mg/dl であり、昨年度に当科にて測定した新生児濾紙血ホロセルプラスミン濃度 7.8 ± 3.5 mg/dl に比較してやや高値であった。

最低値は4.5 mg/dl で、5 mg/dl 以下を示す者は2例であった。過去の報告によると、Wilson病患者のホロセルプラスミン値はほぼ2 mg/dl 以下をとっており、また、以前に当科で測定したWilson病患者2例（11才女児および成人女性）のホロセルプラスミン濃度はそれぞれ2 mg/dl、3.1 mg/dl（いずれも血清表示）であったことから、今回の2例が明らかな異常低値とは判断できず、再検査は行っていない。今後さらに検体数を増やしてカット・オフ値を決定していく必要があると考えられる。

ホロセルプラスミン濃度の分布を年齢別に比較すると、2才以上の群は、2才以下の群に比較して有意に高値をとり、全例が6 mg/dl 以上であった。この結果より、Wilson病マスキングを実際に効率よく確実に施行するためには、発症年齢も考慮して、以前より言われているように3才頃（3才児健診など）での実施が適当であるかと考えられた。しかし、今回の検討は少数例のみでの検討にすぎないため、健診などの機会を利用して各年齢層における分布を比較検討していく必要があると考える。

文献：

1. 青木継稔、藤岡芳実、他：Wilson病のマスキューニングの実施と問題点. 小児科 35 : 1079-1091, 1994
2. 青木継稔：ウイルソン病. 小児内科 26 : 107-113, 1994
3. F. Endo, K. Taketa, et.al. : Measurement of blood holoceruloplasmin by EIA using a mouse monoclonal antibody directed to holoceruloplasmin. Implication for mass screening of Wilson disease. J Inher Merab Dis 17 : 616-620, 1994
4. 山口之利、青木継稔、他：Wilson病マスキューニングの実施時期の再検討に関する研究－幼児期の推奨と方略について－. 日本マスキューニング学会誌 6 : 90, 1996

*福井医科大学小児科 (Department of Pediatrics,
Fukui Medical School)



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:平成 8 年 7 月より平成 9 年 1 月までに当科および協力の得られた福井県内の小児科を受診した 6 カ月以上、6 才以下の児を対象に濾紙血ホロセルロプラスミン濃度の測定を行った。保護者への説明用ポスター、同意書を作成し、主治医により同意を得た。検体は、診療のための採血時にガスリー用濾紙に採取して-80 で保存し、1 カ月以内に ELISA 法で測定した。48 検体について検査し、ホロセルロプラスミン濃度は、 8.1 ± 2.1 mg/dl (4.5 ~ 15.3mg/dl)であった。過去の報告、当科における測定では、Wilson 病患者のホロセルロプラスミン濃度はほぼ 2mg/dl 以下であり、今回の検討では明らかな異常低値と判断できる例はなかった。年齢別では、2 才以上の群は、2 才以下の群に比較して有意に高いホロセルロプラスミン濃度を示し、全例が 6mg/dl 以上であった。Wilson 病マスキングには、発症年齢と診断の確実性を考慮し、3 才頃でのホロセルロプラスミン測定が適当であることが考えられたが、今後、多数例での検討が必要である。