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

（分担研究：マススクリーニ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）

松井　陽、佐々木暢彦、桃谷孝之、石川孝志、荒川洋一、五十嵐恵子[*1]、塚越典子[*2]

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渡し、１か月健診の時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９６年７月３１日までの２年間に、出生児 38,926名のうち 33,966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６名で、うち５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83.3%だった。この６名はすべて生後６０日以内に肝門部空腸吻合術を受け、黄疸の消失を認めた。検査の特異度は99.9%、陽性適中率は16.1%、陰性適中率は 100%だった。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発症する遅発例が少数あることから、感度を90%以上に上げることは困難である。しかし本症のマスクリーニングは１か月健診時に行うのがもっとも現実的であり、またこのマススクリーニング自体による親への啓蒙効果によりこうした遅発例の発見を期待できる。以上から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。

見出し語：マススクリーニング、胆道閉鎖症、便色調、カラーカード

[*1] 自治医科大学小児科
[*2] 自治医科大学臨床病理部

研究方法：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（改訂第４版）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年齢対照の健康乳児の便のカラー写真のうち、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もっと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：保護者がこのパイロット・スタディに参加することを文書で承諾した場合、助産婦は産院でカードを分娩後の母親に手渡した。ただし９６年４月からは、各市町村で母子手帳を交付する際に、「母と子の手帳」にカードを挟んで渡した。産院で便色調異常に気付いた場合は、自治医科大学小児科に電話連絡することにした。親は１か月健診の前に、児の便とカードのカラー写真を比色し、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。親が判定した便色調番号が１から３番の時、担当医は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て、患児を紹介すべき専門医を親と相談の上、決定した。番号が４から７番なら正常と判定した。カードの回収は月末に自治医科大学小児科宛てであったのを、９６年４月から週末にまとめて栃木県保健衛生事業団宛てに郵送とした。

③対象：栃木県において９４年８月１日から９６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。検査期間における出生児総数は、この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。

結果：①受検者：上述の期間中に出生した児 38,926 名のうち 33,966 名（87.3%）が、このマススクリーニング検査を受けた。

②検査結果：１か月健診前に便異常色調を報告した児は全部で３１名（0.09%）であった。再診または精査の結果、胆道閉鎖症と診断された患児はこのうち５名であった。一方、同時期に栃木県で発症した本症の患児は、上記の５名を含む６名であった。したがって感度は83.3%、陽性反応適中率は16.2%、特異度は99.9%、陰性反応適中率はほぼ100%であった。

		胆道閉鎖症 あり	胆道閉鎖症 なし	
便色異常	あり	5	26	31
	なし	1	33,934	33,935
		6	33,960	33,966

③胆道閉鎖症患児：検査期間中に栃木県で発生した６名の患児の概略を表に示す。

症例	生年月	結果	術日齢	黄疸
1	9412	陽性	45	消失
2	9502	陽性	58	消失
3	9503	陽性	42	消失
4	9507	陽性	56	消失
5	9507	陰性	54	消失
6	9511	陽性	42	消失

考察：この２年の集計期間中に栃木県で出生した児は 38,926 名であった。この間に本県で出生した胆道閉鎖症の患児は６名であったので、本症は 6,487 人に１人の頻度で発生したことになる。栃木県での本症の発症頻度は 8,900人に１人[2]、前回の報告[3]では 4,893人に１人、一般には１万人に１人とされているので、この２年間に患児が集中して発生したものと思われる。

この間、全出生児の 87.3%に相当する 33,966 名がこのスクリーニングに参加した。前回の報告での受検率が 86.4 %であったので、この増加は若干に留まった。受検率を100 %近くに上げる目的で、９６年４月からはカードを「母と子の手帳」に挟んで、母子手帳と共に配布している。それでもカードを１か月健診の際に持参し忘れる親があり、予備のカードを充てている。同じ目的で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の封筒を共用したが、受検率を著明に上げる効果は認められていない。１か月健診の時にカードを配るのは疾患の啓蒙には好ましくないので、この上は母子手帳にカードを「綴じ込む」ことが望ましい。

マススクリーニングの感度は、前回が８０％、今回が８３％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、症例５がそれであった。しかしその他の５例は生後３０日までに便色調異常を申告して発見された。そして６例全例が生後６０日以内に葛西手術を施行され、黄疸の消失を見た。陽性適中率は前回の22.2%に対し、今回が16.1%だった。患児以外の児の便はほとんどの場合、担当医の視診によって正常色調と判定され、この中から後に胆道閉鎖症と診断された児は出なかった。

解決すべき最大の問題はやはり、１か月健診時にスクリーニングを行うことによって生じる偽陰性患児の、健診以降における発見である。この解決には、①生後２か月時に再度、本法によるスクリーニングを行う、②１か月健診時に黄疸のある児に尿中サルフェート型胆汁酸[4]を測定するなどが考えられる。しかし便色調カラーカード法は、生後３０日までに発症している患児を発見するのに極めて有効で、かつ経済的効率の高い方法[5]である。したがって①の変形として、１か月健診の機会に遅発例があることを警告するもう１枚のカードを親に渡すことを考えたい。これには正常な便色調の番号が何番であるかといういわば正解も、異常発見時の連絡先とともに印刷しておく。

最後に便色調カラーカードをさらに良質のものに改良する努力を怠ってはなるまい。その上でマススクリーニングのフィールドを、栃木県の他に埼玉県、北海道（札幌市を除く）に拡大して、対象患児数を増やす予定である。さらに各県において発見された児が、手術成績のよい小児外科医に紹介され、かつ術後の経過が長期的に観察できるようなシステムを構築しなければならない。

文献：

1) Matsui A et al. Lancet 1995,345:1181.
2) Matsui A et al. Screening 1993,2:201-9.
3) 松井　陽、他. 平成７年度本報告書,p76-8.
4) Matsui A et al. J Pediatr 1996,129:306-8.
5) 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渡し、1 か月健診の時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 96 年 7 月 31 日までの 2 年間に、出生児 38,926 名のうち 33,966 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 6 名で、うち 5 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 83.3%だった。この 6 名はすべて生後 60 日以内に肝門部空腸吻合術を受け、黄疸の消失を認めた。検査の特異度は 99.9%、陽性適中率は 16.1%、陰性適中率は 100%だった。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発症する遅発例が少数あることから、感度を 90%以上に上げることは困難である。しかし本症のマスクリーニングは１か月健診時に行うのがもっとも現実的であり、またこのマススクリーニング自体による親への啓蒙効果によりこうした遅発例の発見を期待できる。以上から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。