

分担研究：効果的なマスキング事業の実施に関する研究

新生児マス・スクリーニング実施後のフォローアップ（追跡）に関する研究

研究要旨

新生児マス・スクリーニングが開始された当初から、発見された症例に対する追跡調査が今日まで継続されてきたが、最近個人情報保護の立場から追跡調査が次第に困難になりつつある。そこで、改めてこれまでに追跡調査に協力を得られた医師を対象に、追跡調査の必要性などについてアンケート調査を実施した。その結果、追跡調査の必要性には98%の支持が得られ、同時に個人情報保護への配慮が96%の医師から求められた。

研究協力者

青木菊麿 (女子栄養大学小児保健学)

研究目的

我が国の疾病予防対策としての新生児マス・スクリーニングが開始されてから、発見されてくる先天性代謝異常症の患児についての追跡調査はスクリーニング開始当初から継続されてきた。スクリーニング開始初期に発見された症例については、現在まで20年に及ぶ調査が続けられてきたことになるが、最近になって追跡調査に伴う個人情報の問題が議論されるようになり、次第に追跡調査そのものが困難になりつつある。しかし、新生児マス・スクリーニングの実施は国の方針でもあり、発見された症例の健全育成が重要な課題である。新生児すべてを対象として、国の費用で発見されてくる症例は、費用・便益の立場からの評価を行うためにも長期追跡調査の必要性が強調されている。スクリーニングの実施と追跡調査は、車の両輪のごとき関係にあるともいわれているが、これまでも追跡調査の資料に基づいてヒスチジン血症のスクリーニングからの除外、フェニルケトン尿症の治療指針の見直し、など、様々な課題の解決に追跡調査の資料が十分に活用されてきた。又、これからはマタ・ナルPKUへの対応が重要視されている。

これまで母子愛育会を事務局として、厚生省心身障害研究の課題の一つとして実施されてきた追跡調査の方法は、毎年全国自治体のスクリーニングセンターあるいは民間の検査センターに依頼して、当該年度のスクリーニング陽性例についての報告をお願いし、それに基づいてそれぞれの主治医に調査表を送付し、記入されたデータを母子愛育会総合母子保健センターにデータベースして厳重に保管・管理されてきた。

一方、一部の自治体によっては患児の個人情報保護の立場からスクリーニングに関する情報の提供は

不可能であるとのことで、スクリーニングの情報提供が望めなくなり、その割合は全国のスクリーニングの25%に達している。このような状況から、今後の追跡調査をどのように考えたらよいか、これまで追跡調査を依頼してきた全国の主治医を対象に、倫理面も含めて追跡調査の在り方について、アンケート調査を実施した。

研究方法

現在スクリーニングで発見される先天性代謝異常症、クレチン症、及び先天性副腎過形成症に対して、母子愛育会が追跡調査を依頼している医師に、別紙に示すような内容のアンケート調査用紙を送り、回答を求めた。それぞれの項目に対して「はい」、「いいえ」の記入を依頼し、記入のないものは無回答として分類した。調査期間は平成11年1月から2月にかけてであり、回答の内容を単純集計して百分率を求めた。

発送数は855通、33通が宛先不明であり、419通の回答が寄せられた。回答率は51%であった。

研究結果

追跡調査の必要性は98%の医師から支持されており、その必要性は十分に認められていることになる。調査は自治体単位ではなく、全国レベルとする意見が92%であった。追跡を実施する組織の在り方については、全国を対象に国あるいは母子愛育会のような組織とする意見が多かったが、母子愛育会がこのような組織として適切であるか否かについての疑問を抱く回答も30%であり、国が管轄すべきであるという意見が多かった。現在の追跡システムはあくまでも厚生省心身障害研究によるものであり、母子愛育会は正式に国から依頼されていない組織であることも原因と考えられた。しかし現状の母子愛育会での追跡調査の方法については74%の支持が得られている。母子愛育会ではこれまで特殊ミルク事業との

関連でスクリーニングで発見される先天性代謝異常症についての追跡調査を実施してきたが、その他にもクレチン症、先天性副腎過形成症についての追跡が1995年以来厚生省心身障害研究の立場から求められている。これに関しては両群を別々に追跡するのではなく、まとめて追跡する方がよいという意見が多く、それぞれに専門の委員会を設置してデータの管理などを行う必要があると考えられ、データの管理は中央でという意見が多かった。

個人情報保護は当然のことであり、患児や家族の不利益にならないような配慮が求められることには96%が賛同しているが、スクリーニングのインフォームドコンセントを得る際に追跡調査の了解を得ることがよいという意見も76%みられた。個人情報を保護しながら自治体は情報を提供すべきであるという意見は71%であり、反対は15%であった。

#### 考察

新生児マス・スクリーニングの対象は遺伝性疾患

であり、個人情報の保護という点では特に慎重でなければならない。従って追跡調査を実施する場合は収集したデータの取り扱いなどに関する規定を作成しておく必要がある。アンケート調査の対象は追跡調査に協力を得ている医師ということで偏りが存在するかもしれないが、追跡調査の必要性は十分に認識されている。医師はスクリーニングで発見された症例に対しては医師対患者の関係で生涯に及ぶ治療・管理の継続を考えるのであるが、発症前に発見して健全育成を目的とする場合、生涯の管理が必要になる。そのため全国レベルでの追跡調査は当然求められるべきであり、これまで継続されてきた調査体制は今後も維持されていくことが必要である。

#### 結論

個人情報を保護しながら、全国レベルでの追跡調査の必要性が確認された。国あるいは特定の組織での追跡調査の体制の確立が、今後の追跡調査の在り方に求められた。

アンケート調査用紙の内容と回答結果（数字は回答率%を示す）

1. 新生児マス・スクリーニングで発見される症例に対する追跡調査について	はい	いいえ	無回答
追跡調査の必要性	98	1	1
全国を網羅する追跡調査の必要性	92	5	3
自治体単位での追跡調査の必要性	53	38	9
2. 追跡調査を実施する組織の在り方について			
国（厚生省）が追跡調査の管轄をする	61	24	15
国が民間の団体に委託するのがよい	23	62	15
地域で自治体が追跡調査を実施する	27	56	17
国からの正式な依頼を受けて母子愛育会が実施すべきである	57	30	13
3. 現状の母子愛育会（特殊ミルク事務局）から主治医宛の追跡調査の依頼について			
妥当である	74	18	8
4. 新生児スクリーニングの内容は大きく先天性代謝異常症と内分泌疾患に分けられますが、両者の追跡調査について			
いずれも母子愛育会で実施する	45	36	19
愛育会にそれぞれ専門委員会を置いて追跡資料を検討する	51	31	18
両者を別々に、異なる組織で追跡すべきである	22	56	22
学会が中心になって追跡する	36	45	19
先天性代謝異常症については「特殊ミルク情報」誌によりスクリーニングの結果などを報告しているが、この中に内分泌疾患の情報も入れる	66	21	13
5. 追跡調査の目的で収集したデータの取り扱いについて			
国（厚生省）が管理すべきである	58	30	12
各自治体で管理していくのがよい	18	63	19
全国のデータを母子愛育会に集めて管理するのがよい	52	33	15
先天性代謝異常症は発見頻度が低いので全国レベルで、内分泌疾患は発見頻度が高いので地域でデータを管理するのがよい	16	64	20
6. 個人情報の問題について			
個人情報の保護が重要であり、そのため追跡調査は中止すべきである	2	86	12
個人情報の保護に配慮しながら追跡調査をする	96	1	3
個人情報に関係なく追跡する	2	83	15
個人情報を保護しながら自治体は追跡調査の情報を提供すべきである	71	15	14
スクリーニング採血時のインフォームドコンセントに追跡調査の必要性の承認を含める	76	14	10
7. 現行の追跡調査を今後も引き続き実施する場合の問題点について			
現在の方法では個人情報の保護が不十分である	28	54	18
現在の方法で特に問題はない	60	28	12
追跡調査の資料が十分に活用されていない	56	26	18
8. 個人情報保護の目的で情報の提供が得られないことについて			
情報提供を拒否する都道府県の増加は致し方ない	34	50	16
各自治体にはそれぞれの事情があるので、条例などには従う	47	35	18
追跡が可能な症例だけを集めて追跡調査をすればよい	37	49	14