分担研究：効果的なマススクリーニング事業の実施に関する研究

乳幼児期以降を対象としたウイルソン病マススクリーニング　その2

研究要旨

本年度は乳幼児期以降を対象に濾紙血セルロプラスミンを測定してウイルソン病マススクリーニングを行った。愛知県および三重県の2病院の協力のもと、採血機会のあった児または検査希望者を対象に、保護者の同意書を得てから濾紙採血を行った。濾紙を郵送後、－80℃に保存し、セルロプラスミンをELISA法で測定し10mg/dl未満を再検として再検後も10mg/dl未満の時、再採血を依頼した。'97年5月から'98年6月までの13カ月間で、対象者数は873名、年齢の平均は3.4歳であった。濾紙血セルロプラスミン値は17.1±5.2mg/dl、範囲は2.6～39.2mg/dlで初回検査陽性数は35名、4.0%であった。その内、再採血ができたのは5名であった。再検者の再採血の機会がなかなか得られなかったことが問題点であった。

研究協力者

坂　京子　(名古屋市立大学医学部小児科)
小林正紀　(名古屋市立守山市民病院小児科)
杉山成司　(市立四日市病院小児科)
一木　貴　(愛知県厚生連海南病院)

研究目的

ウイルソン病のマススクリーニングを目的に昨年度に引き続き本年度も乳幼児期以降を対象に濾紙血セルロプラスミンを測定し検討した。

研究対象および方法

対象者の保護者への説明用ポスター、説明文、同意書を作成し愛知県の海南病院および三重県の市立四日市病院の協力を得て採血機会のあった児または検査希望者を対象に、同意書を得てから濾紙採血を行った。セルロプラスミンの測定方法は、濾紙を郵送後、－80℃に保存し、採血後、1ヶ月以内にニッショウ株式会社の作成したキットを用いてELISA法で測定した[1)]。セルロプラスミン値が10mg/dl未満を再検として同じサンプルの再検後も同様に10mg/dl未満の時、再採血を依頼した。

研究結果

検討期間はセルロプラスミン測定の準備ができた'97年5月から'98年6月までの13カ月間で、対象者数は873名であった。対象年齢の平均は3.4歳で範囲は24日から23歳までであった（図1）。

濾紙血セルロプラスミン値は17.1±5.2mg/dl、範囲は2.6～39.2mg/dlであった。セルロプラスミン測定値のヒストグラムを図2に示す。対象数873名中、初回検査陽性数、すなわち再検例は35名、4.0%であった。図3に対象年齢とセルロプラスミン値を示す。昨年度と同様、低年齢ほど再検者が多いことはなかった。また再検者の平均年齢は6.8歳で1ヶ月未満の児は3名のみであった。35名の再検者の内、34名は追跡調査の結果、現時点ではウイルソン病の可能性は少ない。なお、日令24の児はセルロプラスミン値が2.6mg/dlと低値であったが生後2カ月の再検で16mg/dlへ上昇した。再採血ができたのは5名で2回とも低値であったのは1名でクレチン症で治療中の患児でその後のセルロプラスミン値は22mg/dlへ上昇した。

考察とまとめ

対象年齢が24日から23歳までと幅があったがカットオフ値を10mg/dl未満としたところ再検率は4.0%であった。また低年齢者ほど再検率が高いこともなかった。しかし、再検者の再採血の機会がなかなか得られなかったことは問題点であった。肝障害以外でセルロプラスミン低値例も多くみられ、濾紙の保存、測定までの期間なども影響したと思われた。

文献

1) 池田英紀、他：抗ヒト活性型セルロプラスミンモノクローナル抗体キットの基礎的検討．平成8年度厚生省心身障害研究「効果的なマススクリーニングの施策に関する研究」p135~ 137、1977.

図1：対象者の年齢分布

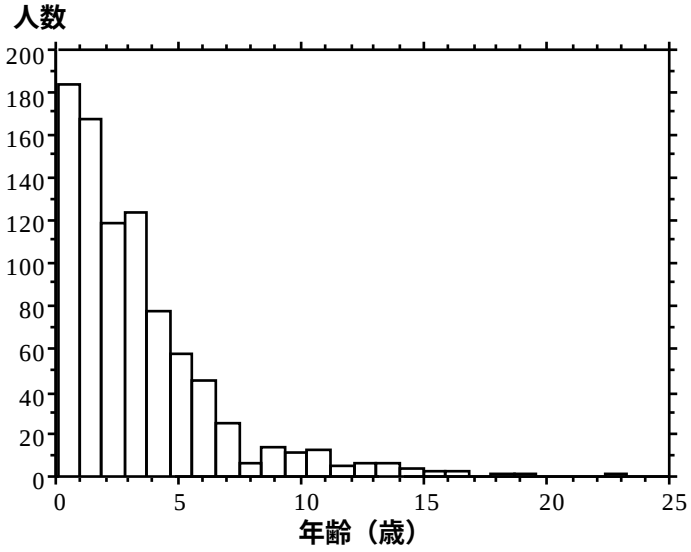

図2：セルロプラスミン値のヒストグラム

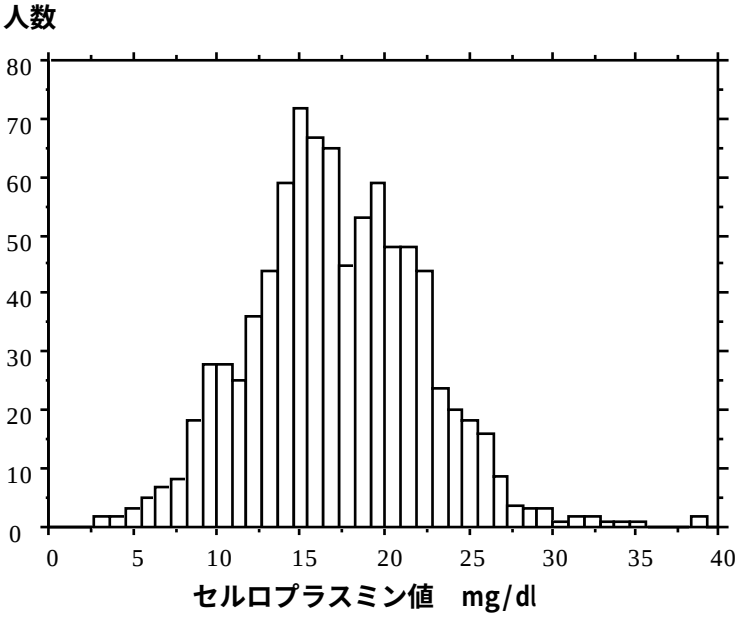
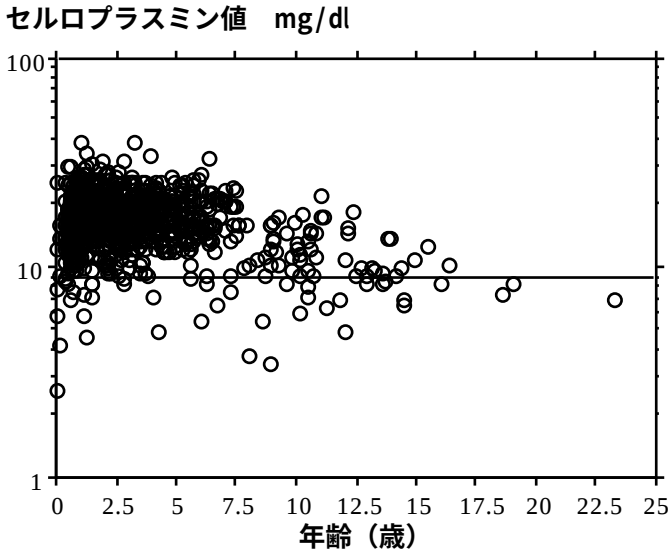
図3：対象年齢とセルロプラスミン値