

図2 手術前後の経過
STEP術後に経腸栄養の割合が漸増し、経腸栄養を増やしても便量が減少している。

2) 症例 2

症例は5歳男児。胎児診断で小腸の拡張を指摘されていた。出生後も腹部膨満あり生後2日目に緊急手術が施行された。extensive aganglionosisと診断され、Treitz 鞘帯から60cmの部位に空腸瘻が作成され、以下の腸管を、直腸を残してすべて切除された。1歳時に、Duhamel-Ikeda法で根治術を施行された。2歳時に当院に転院となった。当院転院時、身長が79cm、体重が8.4kgであった。経腸栄養での投与エネルギー量は成分栄養剤と離乳食中期相当の食事を併用して18kcal/kg/日であった。以後、経腸栄養とPNを併用して栄養管理を行っていたが、4歳の時点で体重増加が停止していた。しかし、時間あたりの便量(便量/時)は3.2g/kg/hと多く、経腸栄養の増加は期待できなかった。また、PNのエネルギーを増加すると、肝機能障害が出現したため、投与エネルギー量を増加できない状態であった。手術直前の身長が97cm、体重が14.4kgで、経腸栄養では半消化態製剤と通常食を併用して27.5kcal/kg/日であった。手術前の血液検査では、軽度の貧血を認める以外明らかな異常を認めなかった(表2)。術中の実測値でSTEP施行前的小腸の長さはTreitz 鞘帯から65cmで、最大径は5cmに拡張していた。STEPによって小腸は99cmに延長された。術後経過は良好で、術後6ヶ月の時点で、経腸栄養は通常食のみとなり45kcal/kg/日に増加でき、便量/時は2.2g/kg/hに減少した。また、体重が15.0kgとなり、体重増加が再び認められるようになった。術後13ヶ月の時点で、経腸栄養は55kcal/kg/日で、便量/時は1.9g/kg/hに減少した。体重は16.8kgまで増加した(図2)。術後、身長は伸びているがcatch upには不十分である。一方、体重はcatch upが観察された。血液検査データは、コレステロールが軽度低値である以外、明らかな異常を認めなかった(表2)。

itz 鞘帯から 65 cm で、最大径は 5 cm に拡張していた。STEP によって小腸は 99 cm に延長された。術後経過は良好で、術後 6 ヶ月の時点で、経腸栄養は通常食のみとなり 45 kcal/kg/ 日に増加でき、便量/時は 2.2 g/kg/h に減少した。また、体重が 15.0 kg となり、体重増加が再び認められるようになつた。術後 13 ヶ月の時点で、経腸栄養は 55 kcal/kg/ 日で、便量/時は 1.9 g/kg/h に減少した。体重は 16.8 kg まで増加した(図2)。術後、身長は伸びているが catch up には不十分である。一方、体重は catch up が観察された。血液検査データは、コレステロールが軽度低値である以外、明らかな異常を認めなかつた(表2)。

III 考察

腸管機能不全は生存に必要な最小限の栄養を吸収できない程度の腸管吸収機能の低下と定義されている。その原因の多くは短腸症候群によるものであり、短腸症候群の予後は残存小腸の長さと経腸的な栄養摂取の能力に大きく影響される²⁾。このため、これまでにも様々な腸管延長手術が考案されてきた。

STEPはKimらによって2003年に報告された

表 2 症例 2 の身長、体重、血液検査データの推移

	normal range	症例 2			
		転院直後	STEP 直前	術後 6 ヶ月	術後 13 ヶ月
		79[-2.1]	97[-2.3]	100[-2.3]	104[-2.1]
Height (cm) [S.D.]		8.4[-2.8]	14.4[-1.3]	15.0[-1.4]	16.8[-1.1]
Total Protein (g/dl)	6.7 ~ 8.3	6.1	6.6	6.6	6.7
Albumin (g/dl)	3.8 ~ 5.3	3.5	3.7	3.5	3.6
BUN (mg/dl)	8 ~ 20	4.5	13.0	10.3	11
Creatinine (mg/dl)	0.2 ~ 0.8	0.23	0.28	0.29	0.25
AST (IU/l)	8 ~ 38	43	41	46	45
ALT (IU/l)	4 ~ 44	32	42	40	41
Total Bilirubin (mg/dl)	0.2 ~ 1.2	0.2	0.3	0.2	0.3
Choline Esterase (IU/l)	185 ~ 431		241	245	288
Total Cholesterol (mg/dl)	130 ~ 220	113	102	117	110
Hemoglobin (g/dl)	11.3 ~ 15.2	11.3	11.7	11.5	11.6
fibrinogen (mg/dl)	160 ~ 350	278	275		215
PT-INR	0.85 ~ 1.15	1.03	1.02		0.97

腸管延長術³⁾で、拡張した腸管に対して短軸方向にジグザグに切開を入れることで、拡張した腸管を細くすると同時に延長する術式である。Bianchi らの報告した Longitudinal intestinal lengthening (以下 LIL)⁴⁾は、STEP の発表以前に多く行われてきた術式であるが、STEP は LIL と比較して、手技が容易で合併症が少ないと報告されており、また拡張腸管を 2 倍以上に延長することが可能である⁵⁾。さらに繰り返し施行することも可能である⁶⁾。このため、PN から離脱できる可能性は STEP のほうが高いとされている⁵⁾。近年その施行例の報告が増加しており、我々の施行した症例でも、症例 1 では STEP により小腸を 15 cm から 32 cm に延長でき、腸管の延長率が高いことが証明できた。

extensive aganlionosis による腸管機能不全に対する STEP の報告は少ない。2007 年に報告された STEP の症例登録によると、38 例中 2 例が Hirschsprung 病に対して行われているとされているが、詳細は記載されていない⁷⁾。我々の症例では、65 cm から 99 cm に腸管を延長することが出来た。Hirschsprung 病において、残存小腸が 75 cm 以下の症例の死亡率は依然高い⁸⁾と報告されており、症例 2 で STEP を施行したことにより残存小腸が 75 cm を超えたことは有意義であつ

たといえる。事実、STEP の施行後、便量の減少が得られ、経腸栄養を增量することが可能で体重増加も回復した。我々の施設では、1 時間当たり体重 1 kgあたりの便量を 2 g 以下にすることを目標として経腸栄養を管理⁹⁾しており、術前の 3.2 g/kg/h から、経腸栄養を増加しても 1.9 g/kg/h に便量が減少したという点でも非常に有効であったと考えられた。

STEP の適応については、腸管を切開した後に適切な腸管径となるように、拡張部分の腸管径が少なくとも 4 cm 以上であることが求められる。手技上はこれを満たせば手術適応となるが、1 歳未満の症例、肝硬変、凝固異常を認める症例では術後の死亡リスクが高く、とくに肝硬変を伴う症例では小腸移植が推奨される⁵⁾。症例 1 では、当初フィブリノーゲンの低下を伴う凝固障害が見られ、STEP の適応外と思われたが、他の血液所見から、凝固障害が肝硬変による肝機能の低下によるものではなく、低栄養によるタンパク合成低下によるものと判断し、PN による栄養管理を強化したところ、凝固障害が改善したため、STEP を施行することが出来た。症例 2 においては、リスクとなる状態は認めなかった。

我々の施行した 2 例では、STEP の施行によって経腸栄養でのカロリー摂取が増加し PN への依

存度が低下した。現時点ではまだPNの補助を必要としているが、PNからの離脱に向けた栄養管理が可能な状態となっており、今後もSTEPの施行症例は増加していくであろうことが予測される。

文献

- 1) Ching YA, Gura K, Modi B, et.al. : Pediatric Intestinal Failure : Nutrition, Pharmacologic, and Surgical Approaches. *Nutr Clin Pract* 22 : 653-663, 2007
- 2) Duro D, Kamin D, Duggan C : Overview of Pediatric Short Bowel Syndrome. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 47 : S33-S36, 2008
- 3) Kim HB, Fauza D, Garza J, et al. : Serial Transverse Enteroplasty (STEP) : A Novel Bowel Lengthening Procedure. *J Pediatr Surg* 38 : 425-429, 2003
- 4) A Bianchi : Intestinal Loop Lengthening-A Technique for Increasing Small Intestinal Length. *J Pediatr Surg* 15 : 145-151, 1980
- 5) Tompthon J, Sudan D : Intestinal Lengthening for Short Bowel Syndrome. *Adv Surg* 42 : 49-61, 2008
- 6) Morikawa N, Kuroda T, Kitano Y, et al. : Repeat STEP Procedure to Establish Enteral Nutrition in an Infant with Short Bowel Syndrome. *Pediatr Surg Int* 25 : 1007-1011, 2009
- 7) Modi BP, Javid PJ, Jaksic T, et al. : First Report of the International Serial Transverse Enteroplasty Data Registry : Indications, Efficacy, and Complications. *J Am Coll Surg* 204 : 365-371, 2007
- 8) Ieiri S, Suita S, Nakatsuji T, et al. : Total colonic aganglionosis with or without small bowel involvement : a 30-year retrospective nationwide survey in Japan. *J Pediatr Surg* 43 : 2226-2230, 2008
- 9) Utter S, Duggan C. Short-Bowel Syndrome. In *Manual of Pediatric Nutrition* 4th ed Hendrics KM, Duggan C (eds). BC Decker, London, 2005, p718-732

A report of two cases in when serial transverse enteroplasty was performed for short bowel syndrome.

Wataru Sumida, Yoshio Watanabe, Hidemi Takasu

Serial Transverse Enteroplasty (STEP) was first reported in 2003 as a bowel lengthening procedure for short bowel syndrome. We have performed this procedure on two patients with favorable results.

The first case was an 11-month-old girl. She had had a large amount of bowel resection due to an strangulated obstruction. Her small bowel was only 15 cm from the Treitz's ligament and her ileocecal valve was not left. She could take enterally only 3 kcal/kg daily. Her bowel was lengthened to 34 cm by STEP and she there after could tolerate 69 kcal/kg daily 15 months after the operation.

The second case was a 5-year-old boy. Due to a radical operation for extensive aganglionosis, his bowel had only a length of 60 cm from the Treitz's ligament. He could take enterally only 27 kcal/kg daily. His bowel was lengthened to 99 cm by STEP and he can tolerate 55 kcal/kg daily 13 months after the operation.

We can follow up both two cases as outpatients with favorable results so we expect they can be weaned off their parenteral nutrition.

short bowel syndrome, Hirschsprung's disease, serial transverse enteroplasty

■ 特集 小児における消化管機能障害の診断と治療

慢性便秘治療の概要

上野 滋* 平川 均 森川 信行
村上 研一 鄭英里

はじめに

正常な排便は健康の指標の一つである。子ども の排便状態が異常に感じられると、「重大な病気があるのでは」という不安を親に抱かせる原因となる¹⁾。便が大きくて硬い、排便時に痛みを伴う、 排便回数が少ないといったことが、多くの慢性便秘児の親の心配であるが、医療従事者のなかには便秘が患児や家族へ及ぼす影響を過小評価する傾向があるともいわれ、その結果、治療効果が不十分で、患児に長期にわたる社会心理的な後遺症をもたらす可能性がある^{2,3)}。便秘はその定義によつて治療法が異なると考えられるが、ここでは、排便回数の減少あるいは排便困難が2週間以上続くものを慢性便秘と定義し、その治療の概要について述べる。

I. 治療の流れ

治療目標は、「便秘でない状態」に到達あるいは復帰し、それを維持することである。もっとも重要なことは、ほとんどを占める器質的疾患を伴わない、いわゆる「特発性便秘 (idiopathic constipation)」児については、患児や家族との協調により排便状態を改善維持することと、Hirschsprung病や低位鎖肛などの外科的治療を必要とする疾患や甲状腺機能低下症などの代謝性疾患や神経筋疾患を見逃さないようにすることである。

そのためには、① Red flags (危険信号) の有無

表 1 Red flags (器質的疾患を疑わせる所見)

- 1. 胎便の排泄遅延
- 2. 発育遅延
- 3. 発熱
- 4. 嘔吐
- 5. 血性下痢
- 6. 肛門異常 (狭窄、位置異常)
- 7. 空虚で狭い直腸

を検討する、② Fecal impaction の有無を診断する、③ 便秘の病態・予後・治療について説明する、④ Fecal impaction のある児では、disimpaction を行う、⑤ 維持療法を行う、⑥ 維持療法を評価し、改善したのちも継続的に観察する、といった流れによる治療が望ましい。以下にそれぞれについて詳述する。

1. Red flags を見逃さない病歴聴取と身体診察

外来診療でまず行うべきことは、病歴聴取と身体診察により red flags を見逃さないことである。これには、胎便の排泄遅延、発育遅延、発熱、嘔吐、血性下痢、肛門異常 (狭窄、位置異常)、空虚で狭い直腸といったことがあげられる (表 1)¹⁾。Red flags は器質的疾患を疑わせる所見であり、初診時に見逃さないようにし、あれば精査を勧める。一方、十分な病歴聴取と丁寧な身体診察により多くで器質的疾患の有無を鑑別でき、精査の必要はない。

1) 病歴聴取

病歴聴取には十分な時間が必要である。red flags を見逃さないようにするだけでなく、後述の行動療法には、患児や家族の姿勢がかかわるから

Shigeru Ueno Hitoshi Hirakawa Nobuyuki Morikawa

Ken-ichi Murakami Eri Tei

* 東海大学医学部小児外科

(〒259-1193 伊勢原市下糟屋 143)

表 2 便秘患者で聴くこと (NASPGHAN)¹⁾

1. 年齢
2. 性
3. 主な症状
4. 便秘の病歴
1) 便の頻度と硬さ
2) 排便時の痛みと出血
3) 腹痛の有無
4) 症状の推移
5) 発症年齢
6) トイレットトレーニング
7) 便汚染 (下着の汚れ)
8) 便こらえの有無
9) 食欲の変化
10) 嘔気・嘔吐
11) 体重減少
12) 裂肛、皮膚炎、膿瘍、瘻孔の有無
13) 現在の治療 [食生活、薬剤 (便秘以外も含む) の有無と種類]
14) 以前の治療 食事、薬剤療法 (経口、浣腸、座薬、漢方), うまくいった治療法、行動療法、以前の検査結果、患児および家族の治療への密着度
5. 家族歴 significant illnesses, 消化管疾患 (便秘, Hirschsprung 病), その他の疾患 (甲状腺、副甲状腺、嚢胞性線維症, celiac disease)
6. 既往歴 在胎週数、胎便排泄の時期、出生時の状況、入院歴、予防接種歴、アレルギー、手術歴、発達歴、寒冷反応の有無、毛髪の状態、皮膚の状態、尿路感染症の有無、尿失禁の有無、
7. 発育歴 (Developmental history) 正常か遅延か、学力
8. 心理発達歴 (Psychosocial history) 家庭事情 (離婚、転居、別居など), きょうだいとの関係、性格、学校での排便

である。表 2 に NASPGHAN (North American Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition) の示す聴取項目を記す¹⁾。

筆者は、①排便異常がいつどのように始まり、これまでの治療を含めどのように経過したか、②現在の排便回数と便量および硬さ、排便時の痛みや出血の有無、③便失禁や下着の便汚染の有無、④排便習慣や食習慣、好き嫌いの有無、⑤家族がもっとも気にしていることを明らかにすること、⑥ネグレクトや虐待の有無、といった点について

情報を聴取するように努めている。一度にすべての情報を収集する必要はないが、診療のなかで家族と情報を交換することが重要である。

2) 身体診察

身体診察では、腹部診察、とりわけ会陰部および肛門部周囲の視診と直腸肛門の指診所見がもっとも重要である。肛門部視診では、位置と形態の異常、肛門周囲や衣服への便の付着の有無、周囲の発赤 (おしりの荒れ) の有無、skin tag (見張りいぼ) (図 1A) の有無を観察する。位置と形態異常は低位鎖肛でみられる (図 1B, C)。便による汚れや「荒れ」は遺糞症の所見で、見張りいぼは裂肛の所見で硬便によって生じる。

直腸指診は、心理的影響を考慮して、静かにゆっくりとした所作で小指を用いて行う。幼児や学童で激しく抵抗するときは行うべきではない。肛門鏡による観察は裂肛、痔核、潰瘍性大腸炎などが疑われたときに行うが、便秘の診断には不要で、児が抵抗するときは行わない。指診により肛門・直腸狭窄の有無と程度、肛門括約筋収縮の有無と程度、便塊の有無とその硬さ、直腸周囲の腫瘍の有無、爆発的な便の噴出 (指を抜いたとき)、血便の有無が判断できる。直腸に便塊がなく便秘を訴えるときは器質的疾患を疑う。

ほかの身体診察で重視すべきは腹部所見で、腹部膨満の有無、肝脾腫の有無、下腹部の便塊の有無を判断する。下腹部腫瘍と便塊は、直腸指診や画像検査で鑑別すべきである。ほかに、三分脊椎や代謝性疾患、神経筋疾患を疑わせる腰仙部の外観、皮膚、下肢の筋力や緊張、腱反射の有無にも注意する。

2. Fecal impaction

大量の便貯留を fecal impaction というが、便貯留の有無、程度を判断することは慢性便秘治療において重要である。NASPGHAN によると、①腹部触診で便が下腹部に硬い腫瘍として触れる、②直腸指診で拡張した直腸が大量の便で満たされている、③腹部 X 線写真で結腸に過量の便が認められる、ときを fecal impaction ありとしている¹⁾。腹部 X 線写真による確認は、直腸指診で大量の便塊が確認できたときは必要ないが、下腹部に腫瘍がふれても直腸指診で便の貯留が少ないときは、

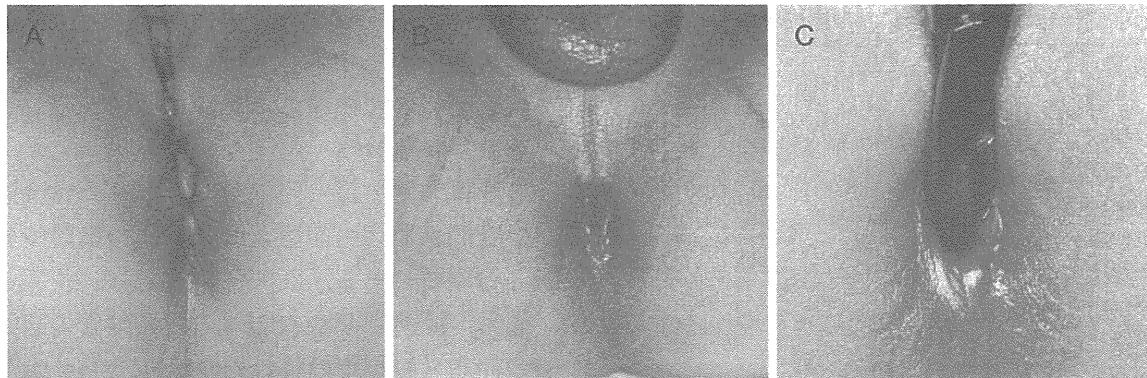


図 1 肛門の形態異常

A. 見張りいぼ（外観），B，C. 低位鎖肛（肛門皮膚瘻）C：鉗子を挿入したところ、肛門襞がみられない。

画像により鑑別する。

3. 患者家族への説明と disimpaction

1) 患者家族への説明

治療の第一歩は、便秘の病態、予後、治療について、患者家族に十分に説明することである。説明の要点は、便秘の悪循環、原因や悪化因子、予後、遺糞症児では、遺糞症の病態の説明、長期にわたる適切な治療の必要性を強調することである。

筆者は、以下のことを理解してもらえるよう説明している²⁾。①便秘の契機として考えられるここと、②社会のなかでの排便は、子どもでは生活、食事、排便環境などさまざまな因子の影響を受けること、③遺糞症があればその病態とその治療方法、④治療の目標は、患児が気分よく、社会的に許容される排便行動ができるようになること、⑤治療が長期にわたり、粘り強いかかりが必要であること、である。

2) Disimpaction（便塊除去）

Fecal impaction のある例では、disimpaction を行う。経口薬投与、経肛門的治療、あるいは両者の組み合わせで行うのが一般的であるが、いずれの方法がより有効かについては比較対照試験が行われておらず、家族と十分に話し合ってから決めるのが最良とされる¹⁾。

経口薬としてはポリエチレンゴリコール、ミネラルオイルによるものが効果的とされているが、酸化マグネシウム、ラクトロース、ソルビトール、センナも有効である。経肛門的な disimpaction と

しては、グリセリン浣腸やビサコジル（テレミンソフト）、摘便、浣腸療法といったものがある。まれに難治性の児では全身麻酔下の摘便が行われる。欧米では、心理的悪影響を考慮して、経口法を勧める文献が多い^{1,3)}。

筆者は、家族との話し合いのうえで適切と考えられる方法により行うが、すでに1カ所以上の医療機関での治療を経て紹介される児が多く、外来でグリセリン浣腸により disimpaction を試みることが多い。家庭では、できうる5日程度の disimpaction を行う。

4. 維持療法

Disimpaction 後、fecal impaction のない児では直ちに、維持療法を開始する。慢性便秘のきっかけとして、食事内容の変化（離乳食の開始）、痛みを伴う多量の便や硬い便の排出、トイレットトレーニングなどがあげられる⁴⁾。食事の変化により便量が減少して排便運動が起こらず、硬便が蓄積して「痛い大きいウンチ」を経験し、「痛い」排便を回避しようとすることが悪循環を生じて慢性便秘となると考えられる。後者では、排便の手がかりが生じても慣れない環境でがまんし、排便できないと、円滑な排便行動が妨げられ、便が固くなり慢性便秘をきたすという機序が考えられる。

このように、便量の減少や心理的な反応が背景にあり、その治療は薬物治療とともに行動療法（behavioral therapy）をあわせ行うほうが有効である^{5,6)}。その治療の骨格は、①排便日誌による家族との協調、②食事指導、③薬物治療である。



小児外科ウンチ日誌

患者氏名：

出力日：
日付：
診療科：小児外科
発行者：上野 滋



図 2 当院における排便日誌

1) 排便日誌による家族との協調

便秘治療には、患児および家族との協調が不可欠である。われわれは患児の排便や投薬状況をできるだけ客観的に把握するため、簡便な「ウンチ日誌」(図2)を記載してもらう。生活状況、家族の負担も考慮した協調関係を築くことも重要な目的である。適切なトイレットトレーニング指導が必要な家族には、排便行動の心理的な背景を理解させ、「ごほうび」やシールなどを利用した無理のないトイレットトレーニングを指導する。安心できる環境での快適な排便是、患児の歓びであることを強調し、家族による過度の干渉や無関心について注意を喚起する。

2) 食事指導

慢性便秘の成因として便量の減少や硬い便は大きな要因である。軟らかい便が十分量排泄されるように食事内容を工夫することは、便秘治療の根幹である。食事中の水分、炭水化物の量が便中の水分量を増加させ、便を軟らかくするとされる。食物繊維量と便秘患者のあいだの関連については一定の報告がないとされるが、筆者の経験では、食事指導を積極的に行った患児の便秘改善率が良好であった。一般に、1,000kcal 摂取に 10 g の食物繊維が必要とされ、十分量の食物繊維の摂取により便量が増え便性は軟化することから、食物中の食物繊維量を記載した表を手渡して目安を示し、積極的に野菜、海草、きのこ類などを食事内容に含めるよう指導している。

3) 薬物治療

(1) 内服薬

排便を容易にするために緩下剤を投与する。酸化マグネシウム（乳酸菌製剤を混じてもよい）を第一選択とするが、水薬しか飲めない児にはピコスルファート（ラキソベロン）、^{だいげんちゅうとう}大建中湯なども処方する。食物の好き嫌いで便量を増やせないときは塩類下剤を処方する。薬剤選択では飲みやすさも考慮する。

(2) 浸脇または坐薬

硬便が直腸に充満しているときは、浸脇または坐薬により強制的に排便させることが必要となる。患者家族が受け入れられるときには効果的に使用できるが、児が抵抗するときは心理的な悪影響を考慮して必要最小限とする。

4) 維持療法の効果判定と終了時期

患者家族が便秘の病態を理解し、食事・生活・排便状況に問題がなく、適切な薬物療法を加えても「便秘でない状態」に到達しないときは、維持療法は無効と判定し、器質的疾患の有無を再度検討する必要がある。しかし、改善しない児には、食事、生活、排便状況に何らかの問題があることが多く、排便日誌などを活用しながら、粘り強く家族と話し合いながら治療効果を判定し、より適切な薬物療法や行動療法を行うことが求められる。また、発達障害を伴っていることもあり、精神医学的検討も考慮する。さらに、維持療法が成功した後も、再発率が高いことを考慮し、便秘でない状態が達成されても長期に経過を観察することが望ましい。

筆者の経験では、通院が不要となるか、一定の治療で便秘が改善した例は、男児より女児、より早期に治療が開始された児、食事指導をより積極的に行った児が多く、汚染・遺糞症児の転帰はより難治であった。

5. 手術による慢性便秘の治療

器質的疾患による慢性便秘には、疾患に応じた治療が行われる。注腸造影で明らかな caliber change を認めず、直腸肛門反射が欠如する児について、直腸粘膜生検で神経線維の増生や神経細胞、

神経叢の異常がみられれば ultrashort Hirschsprung 病や Intestinal neuronal dysplasia (IND) と診断し、内肛門括約筋切除 (Lynn 手術) が行われる。異常所見はないが、慢性便秘が続き、長期にわたる保存的治療が必要な児に対し、積極的には外科的治療を行わない。

おわりに

異なる育児習慣や食文化のもとで生活している他国籍の子どもたちが便秘外来を訪れ、各国で治療ガイドラインが作られることは、小児の慢性便秘が洋の東西、人種を問わない問題であることを示している。排便の生理は複雑で多因子である。家庭環境や生活習慣、トイレの環境が時代とともに変わり、好きな食材を自由に手に入れられる飽食の時代に育つ子どもたちが、生来備わっている排便機能を生かせず、慢性便秘に苦しむ姿はみてつらいものである。安心して快適な排便行為が継続してできることが慢性便秘症児の治療目標と考え、患者家族と協調し、丁寧で粘り強い診療を行うことの重要性を強調したい。

文 献

- 1) Evaluation and treatment of constipation in infants and children : recommendations of the North American Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition. J Pediatr Gastroenterol Nutr 43 : e1-13, 2006
- 2) 上野 滋, 平川 均, 桧 友也 : 便が出にくいのですが。小児外科 39 : 441-443, 2007
- 3) Constipation in children and young people : Diagnosis and management of idiopathic childhood constipation in primary and secondary care. (<http://www.nice.org.uk/guidance/CG99>)
- 4) Levine MD : Children with encopresis : A descriptive analysis. Pediatrics 56 : 412-416, 1975
- 5) Borowitz SM, Cox DJ, Tam A, et al : Precipitants of constipation during early childhood. J Am Board Fam Pract 16 : 213-218, 2003
- 6) Nolan T, Debelle G, Oberklaid F : Randomised trial of laxatives in treatment of childhood encopresis. Lancet 338 : 523-527, 1991

患者のQOLに与える影響を考慮した 新たな排便機能評価試案の検討

—第1報—

上野 滋^{*.*.*}, 森川 康英^{*}, 岩井 潤^{*}, 奥山 直樹^{*}
 越永 従道^{*}, 鈴木 則夫^{*}, 高松 英夫^{*}, 田口 智章^{*}
 渕本 康史^{*}, 松藤 凡^{*}, 八木 誠^{*}

要旨

【目的】直腸肛門奇形研究会では、登録症例の長期予後追跡調査（JASGAP）を計画し、適切な臨床的機能評価法を検討している。術後評価する際は、QOLに影響する排便状態や必要な治療に関して重み付するほうが状態をより正確で妥当に推論できると考えられることから、この問題点を解決するため、新たな機能評価案を作成し検討した。

【方法】患者97例（Cloaca 8、高位型34、中間位型18、低位型37例）および専門医38名を対象とし、排便状況および排便管理がQOLに与える影響をFacial Rating Scale（FRS）で表現した15の質問調査を行った。回答に基づき、失禁、便秘、汚染、便意、排便管理の5領域でスコア化し、患者と専門医の回答を比較した上で、評価案を作成、患者の病型毎に比較検討した。

【結果】試案は、上記5領域各3点満点とし、患者と専門医間で認識に差のある項目では、患者回答に基づき評価した。患者の病型毎のスコアの比較では、汚染スコアを除き、失禁、便意、便秘、排便管理スコアいずれも、低位、中間位、高位、Cloaca型の順に低スコアとなった。患者全体の状態をスコアの単純和、各領域の最低スコアで患者の病型毎に比較するといずれも上記順に低スコアとなった。

【考察】本機能評価試案は、QOLに与える影響を考慮した新たな評価法である。今後、JASGAPの評価法として用いるため、研究会試案と比較検討するなど、さらに妥当性を検証した上で、直腸肛門奇形研究会からの排便機能評価案として提案したい。

索引用語：直腸肛門奇形、手術、小児、QOL、排便機能

Iはじめに

直腸肛門奇形（以下鎖肛）患者では、病型に応じて手術治療が行われるが¹⁾、手術によって治療が完結するわけではない。長期にわたり排便に関する問題や心理社会的問題を抱えている患者も多いが²⁾⁽³⁾、長期予後に關する報告は限られ、大規模な追跡調査は報告されていない。

い。

直腸肛門奇形研究会では、1976年より続けられている登録事業を基盤とする登録症例の大規模追跡調査（JASGAP）が計画されている。JASGAP遂行には、適切な臨床的機能評価法を用いた分析が必要であるが、術後患者の病態を考えると、患者の生活の質（QOL）を含めた評価法であることが望ましい。

一般に、健康に関するQOL評価は多領域から構成され、評価に基づく臨床判断にあたっては、各領域をいかに重み付して一次的にスコア化するかが課題となる⁴⁾。鎖肛術後患者の状態を評価する上でも、QOLに大きく

*直腸肛門奇形研究会 JASGAP委員会

**連絡先：東海大学医学部外科学系小児外科学
 (〒259-1193 伊勢原市下糟屋143)

影響すると考えられる失禁の程度や必要な治療に関して重み付するほうが状態をより妥当に推論でき、適切な術式や術後管理法の検討といった臨床的判断ができると考えられる⁵⁾。従来、代表的な臨床的機能評価法として、Kellyスコアが知られ⁶⁾、直腸肛門奇形研究会からは「直腸肛門奇形術後排便機能の臨床的評価法試案」(研究会試案)が提案されている⁷⁾。しかし、各スコアに重み付はされず、排便管理のQOLへの影響についても評価されていなかった。

今回、この問題点を解決する新たな排便機能測定法を策定することを目的に、統一的な質問調査を行い、調査結果から評価法を作成、結果を解析したので報告する。本研究は、すべての研究参加施設で臨床研究に関する倫理委員会の承認を得、患者あるいはその家族から調査前に文書による研究参加への同意を得た。

II 対象と方法

1. 対象

本研究の対象は、鎖肛と診断された明らかな精神発育遅延を認めない4歳以上の術後患者あるいはその家族(以下患者)で、他の消化管疾患を合併する患者、入院中患者、常時ケアを行っているもののいない患者は除外した。12歳以上の自律的な患者から回答を得ることを認めた。また、鎖肛患者の診療にあたる参加施設所属の日本小児外科学会専門医(以下専門医)も参加した。

2. 調査方法

1) 排便状況および排便管理がQOLに与える影響の評価

患者と専門医に対し、便失禁、汚染、便意の有無、便秘、排便管理の5つの領域15項目からなる質問票1により、日常生活への影響について回答を求めた。各項目について頻度あるいは排便時間別に3または4段階について訊ね、評価項目は計46となった(表1)。回答は、4段階のFacial Rate Scale(FRS)を用いて行った。0から100の値をもつ7表情のうち、およそ10, 40, 70, 100の値に相当する4表情を用い、それぞれ日常生活に全く困らない(3点)、いやだが生活には困らない(2点)、生活にとても困る(1点)、日常生活ができない(0点)とし、わからないも加えた。

2) 患者の現状の把握

質問票1に対応する質問票2(表2)を用いて、患者の現在の排便に関する状態について回答を得た。

なお、調査用紙の配布・回収は著者らが各施設で行った。

3. 排便機能評価試案の作成と解析

表1 質問票1の調査項目一覧：領域と質問項目の内容

領域	項目
便失禁	ガス(おなら)のもれ*
	水様便のもれ*
	ふつうのかたさの便のもれ*
	多量の便のもれ*
汚染	わざかな下着の汚れ*
便意の有無	便意を感じない(便がたまつても出そうな感じがない)こと*
	便が出にくく感じること*
	便が硬くて排便がつらいこと*
便秘	排便に必要な時間**
	浣腸(かんちょう)の使用*
	(排便をもよおす)坐薬の使用*
	下剤(便秘のための薬)の使用*
	下痢止めの薬の使用*
	てき便(おしりから便をかき出すこと)の実施*
	浣腸(腸にたまつた便を水で洗い流すこと)の実施*

* 各項目について、たまに(2, 3か月に1回ぐらい)、ときどき(月に1回ぐらい)、毎日のように(週に2回以上)の3段階の頻度に分けた。

** 排便に必要な時間は、10分以内ですむ、10から30分かかる、30から60分かかる、1時間以上かかるの4段階に分けた。用いたFacial Rate Scale(FRS)とスコア:



日常生活に全く困らない(3点)



いやだが生活には困らない(2点)



生活にとても困る(1点)



日常生活ができない(0点)

各研究参加施設で連結可能匿名化した上でデータを集計、質問票1の回答をもとに排便機能評価試案を作成し、質問票2の回答から得た各患者の評価結果を分析した。

1) 排便機能評価試案の作成

a. 患者と専門医のスコアの比較

患者と専門医からの各項目への回答スコアの最頻値、中央値を比較し、平均値についてはMann-Whitney U-testにより比較して有意差の有無を検定、p値0.05未満

表2 質問票1および2の一部

質問票1

次の質問は、排便に関してお子さんや家族の日常生活にどのくらいさしさわりがあるかどうかたずねるものです。あてはまる表情に○をつけてください。



日常生活ができない



生活にとても困る



いやだが生活には困らない



日常生活に全く困らない



わからない

問い合わせ1. 次のようなことがあったとしたら、あなた（お子さん）や家族の生活はどのくらい影響を受けますか？ あてはまる表情に○をつけてください。

例. ガス（おなら）が、

たまにもれる（2, 3か月に1回ぐらい）



ときどきもれる（月に1回ぐらい）



毎日のようにもれる（週に2回以上）



例. 排便に必要な時間が、

10分以内ですむ



10から30分かかる



30から60分かかる



1時間以上かかる



問い合わせ2. 次のような治療をしたとき、あなた（お子さん）や家族の生活はどのくらい影響を受けますか？ あてはまる表情に○をつけてください。

例. 浣腸（かんちょう）を

たまにする（2, 3か月に1回ぐらい）



ときどきする（月に1回ぐらい）



毎日のようにする（週に2回以上）



質問票2

次の質問は、排便（ウンチをすること）に関するあなた（お子さん）の状態をたずねるもので、最も近いとおもわれる状態に○をつけてください。

例1. ガス（おなら）について、

- () まったくない
- () たまにもれる（2, 3か月に1回）
- () ときどきもれる（月に1回ぐらい）
- () 毎日のようにもれる（週に2回以上）

例3. 浣腸（かんちょう）による治療は、

- () まったくしていない
- () たまにおこなっている（2, 3か月に1回）
- () ときどきおこなっている（月に1回ぐらい）
- () 毎日のようにおこなっている（週に2回以上）

例2. 排便に必要な時間が、

- () 10分以内ですむ
- () 10から30分かかる
- () 30から60分かかる
- () 1時間以上かかる

を有意差ありとした。

b. 評価試案の作成

項目毎に両者の回答の中央値、平均値に基づくスコア換算表を作成し、委員会での検討を経て、評価試案を作成した。

2) スコアの算出と病型毎のスコアの比較

評価試案に基づき、質問票2に答えた各患者の失禁、汚染、便意、便秘、排便管理の5領域毎のスコアを決定した。項目が複数の領域については、領域内で最低となった項目値を各領域スコアとした。現在の状態のQOLを表す指標として、各領域スコアの合計値（15点満点）とその最低値（3点満点）を求めた。患者の病型毎に上記スコアについて、イエーツ補正m×nカイ二乗検定により比較して有意差の有無を検定、p値0.05未満を有意差ありとした。

以上の結果をふまえ、試案としての妥当性について委員会で検討した。

III 結 果

1. 質問票回答者

質問票に回答した患者は97名で、病型は、Cloaca 8、高位型34、中間位型18、低位型37例であった。また、専門医38名から回答を得た。なお、患者1名の質問票1の回答が著しく不合理なため評価試案作成から除外した。

2. 排便機能評価試案の作成

1) 質問票1の回答からスコアへの換算（表3-1から3-5）

患者と専門医による回答のスコア分布を表3-1から3-5に示す。有意差のあったスコアは、ふつう便のものれ、多量の便のものれ、わずかな汚れ、摘便の実施についての項目でいずれも専門医より患者によるスコアのほうが高かった。

表3-1 失禁に関する質問に対するQOL評価

（太字は最頻値。■は患者と医師で中央値差あり、*は患者と医師で平均値有意差あり。（p<0.05））

		ガス（おなら）のものれ			水様便のものれ			ふつう便のものれ			多量の便のものれ		
		たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう
患者による評価	回答数	84	84	84	85	84	79	85	80	79	83	79	80
	3	58	52	24	19	10	1	24	10	2	9	5	2
	2	21	24	33	47	43	8	40	35	9	29	21	3
	1	5	7	19	17	26	37	14	27	31	31	29	25
	0	0	1	8	2	5	33	7	8	37	14	24	50
	平均値	2.63	2.51	1.87	1.98	1.69	0.71	1.95*	1.59*	0.70	1.40*	1.09*	0.46*
	中央値	3	3	2	2	2	1	2	2	1	1	1	0
専門医による評価	回答数	38	38	38	38	38	38	38	38	38	37	38	38
	3	24	18	7	11	3	0	3	1	0	1	0	0
	2	12	16	11	19	17	3	18	11	3	9	1	0
	1	2	4	14	8	18	18	17	21	11	21	25	5
	0	0	0	6	0	0	17	0	5	24	6	12	33
	平均値	2.58	2.37	1.50	2.08	1.61	0.63	1.63*	1.21*	0.45	1.14*	0.71*	0.13*
	中央値	3	2	1	2	2	1	2	1	0	1	1	0

表3-2 汚染に関する質問に対するQOL評価
 (太字は最頻値。■は患者と医師で中央値差あり。*は患者と医師で平均値有意差あり。 $p < 0.05$)

		わずかな下着の汚れ		
		たまに	ときどき	毎日のよう
患者による評価	回答数	86	83	83
	3	39	30	8
	2	41	42	29
	1	6	10	34
	0	0	1	12
	平均値	2.38	2.22*	1.40
	中央値	2	2	1
	回答数	38	38	38
	3	19	8	2
	2	14	20	11
専門医による評価	1	5	9	15
	0	0	1	10
	平均値	2.37	1.92*	1.13
	中央値	2.3	2	1

表3-3 便意に関する質問に対するQOL評価
 (太字は最頻値)

		便意を感じない(便がたまっても出そうな感じがない)こと		
		たまに	ときどき	毎日のよう
患者による評価	回答数	79	79	78
	3	26	17	2
	2	36	37	19
	1	16	18	33
	0	1	7	24
	平均値	2.10	1.81	0.99
	中央値	2	2	1
	回答数	38	38	38
	3	15	11	1
	2	16	13	11
専門医による評価	1	7	13	15
	0	0	1	11
	平均値	2.21	1.89	1.05
	中央値	2	2	1

表3-4 便秘に関する質問に対するQOL評価
 (太字は最頻値。■は患者と医師で中央値差あり)

		便が出にくく感じる			便が硬くて排便がつらいこと			排便に必要な時間			
		たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	10分以内	10から30分	30から60分	1時間以上
患者による評価	回答数	83	82	80	75	74	70	78	70	69	68
	3	36	28	4	18	11	1	66	21	1	1
	2	41	38	28	46	40	5	8	35	20	4
	1	6	14	35	9	20	42	4	10	34	31
	0	0	2	13	2	3	22	0	4	14	32
	平均値	2.36	2.12	1.29	2.07	1.80	0.79	2.79	2.04	1.12	0.62
	中央値	2	2	1	2	2	1	3	2	1	1
	回答数	38	38	38	36	36	36	36	36	36	36
	3	23	13	1	15	6	1	30	6	0	0
	2	11	18	13	18	22	7	4	21	9	1
専門医による評価	1	4	7	19	3	7	19	2	8	18	15
	0	0	0	5	0	1	9	0	1	9	20
	平均値	2.50	2.16	1.26	2.33	1.92	1.00	2.78	1.89	1.00	0.47
	中央値	3	2	1	2	2	1	3	2	1	0

表3-5 治療に関する質問に対するQOL評価
 (太字は最頻値。■は患者と医師で中央値差あり、*は患者と医師で平均値有意差あり。 $(p<0.05)$)

		浣腸の使用			坐薬の使用			下剤の使用			下痢止めの使用			摘便の実施			浣腸の実施		
		たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう	たまに	ときどき	毎日のよう
患者による評価	回答数	78	76	82	73	72	73	75	74	77	75	74	74	63	63	63	66	65	65
	3	54	49	11	52	43	8	54	43	21	49	43	14	16	12	1	18	12	2
	2	18	21	40	17	25	36	19	26	25	24	23	33	28	27	9	27	23	5
	1	5	5	24	3	3	22	2	4	22	2	8	15	18	15	32	19	20	32
	0	1	1	7	1	1	7	0	1	9	0	0	12	1	9	21	2	10	26
	平均値	2.60	2.55	1.67	2.64	2.53	1.62	2.69	2.50	1.75	2.63	2.47	1.66	1.94	1.67	0.84*	1.92	1.57	0.74
	中央値	3	3	2	3	3	2	3	3	2	3	3	2	2	2	1	2	2	1
専門医による評価	回答数	38	38	38	38	38	38	38	38	38	38	38	38	36	36	36	36	36	36
	3	28	18	2	29	21	5	32	26	5	30	21	2	7	3	0	7	3	1
	2	8	17	15	7	14	17	4	8	22	6	14	20	18	15	2	15	12	0
	1	2	3	16	2	3	10	2	4	9	2	3	13	11	12	14	11	14	16
	0	0	0	5	0	0	6	0	0	2	0	0	3	0	6	20	3	7	19
	平均値	2.68	2.39	1.37	2.71	2.47	1.55	2.79	2.58	1.79	2.74	2.47	1.55	1.89	1.42	0.50*	1.72	1.31	0.53
	中央値	3	2	1	3	3	2	3	3	2	3	3	2	2	1,2	0	2	1	0

2) 評価試案の作成(表4)

患者と専門医からの回答に基づき、各項目のスコア換算表を作成し、これを評価試案とした。換算にあたっては、最頻値、中央値、平均値のいずれを採用するか、患者と専門医いずれの評価を採用するか検討され、患者によるQOL評価を重視するとともに、整数スコアとなるよう、患者からの回答の中央値で行った。

3. 病型毎のスコアの比較と試案の評価

各患者の病型毎のスコア分布を表5-1から5-7に示す。汚染スコアを除き、失禁、便意、便秘、排便管理、いずれの領域も、低位、中間位、高位、Cloaca型の順に低スコアとなったが、排便管理の領域ではほとんど差がなかった。しかし、失禁スコアでは $p=0.0501$ であったが、いずれも統計学的有意差は認められなかった。

患者全体の状態を、各領域の最低スコアおよび各領域スコアの単純和で患者の病型毎に比較すると、いずれも低位、中間位、高位、Cloaca型の順に低スコアとなっ

た。いずれも統計学的有意差は認められなかった。

委員会では、以上の結果をふまえて試案の妥当性を検討した結果、試案は、排便状態に研究会試案になかった排便管理を加え、QOLへの影響度により重み付したもので、表6に示す10の質問的回答を得ることでスコア化されるものと認識された。

IV 考 察

1. 従来の排便機能評価法

鎖肛術後患者の排便機能については、今までに様々な評価法が提唱されている。Kellyスコアは最も頻用される臨床的機能評価法と考えられ、便失禁(accident)、汚染(staining)、括約筋の収縮(sphincter squeezing)の3項目について、それぞれ2点満点で評価したもので、満点は異常なあるいは強い収縮とし、0点をそれぞれ毎日あるいは収縮なしとし、その中間を1点としたものである⁶⁾。研究会試案は、便意、便秘、失禁、

表4 排便機能評価試案

失禁スコア（いずれか最も低いスコア）			
ガスのものれ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア		3	2
水様便あるいはふつう便のものれ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1
多量の便のものれ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	1	0
汚染スコア			
わずかな下着の汚れ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1
便意スコア			
便意を感じないこと			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1
便秘スコア（いずれか最も低いスコア）			
便が出にくく感じるこ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1
便が硬くて排便がつらいこ			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1
排便に必要な時間			
時間	10分以内	10から30分	30分以上
スコア	3	2	1
排便管理スコア（いずれか最も低いスコア）			
浣腸、坐薬、下剤、下痢止の使用			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア		3	2
摘便もしくは浣腸			
頻度	まったくない	ときどき（週1回以下）	毎日のように（週2回以上）
スコア	3	2	1

表5-1 病型別失禁スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型	0	3	4	1	8	1.25
高位型	1	18	13	2	34	1.53
中間位型	6	9	3	0	18	2.17
低位型	15	16	4	1	36	2.25

表5-2 病型別汚染スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型	0	4	4	0	8	1.50
高位型	2	25	7	0	34	1.85
中間位型	4	11	3	0	18	2.06
低位型	6	24	6	0	36	2.00

表5-3 病型別便意スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型	1	5	2	0	8	1.88
高位型	14	12	8	0	34	2.18
中間位型	11	4	3	0	18	2.44
低位型	22	12	2	0	36	2.56

表5-6 病型別合計スコア

スコア 病型	15	14	13	12	11	10	9	8	7	6	5	総計	平均
Cloaca型	0	0	0	0	1	0	2	3	1	0	1	8	8.25
高位型	1	1	1	5	3	8	4	5	4	1	1	34	9.21
中間位型	0	3	2	1	3	4	5	0	0	0	0	18	11.39
低位型	2	3	4	10	9	5	1	1	1	0	0	36	11.61

汚染の4領域からなり、おのおのについて患者の状態を点数化したものである⁷⁾。いずれの評価法も通常スコアの単純和により患者の状態が把握される。

この他にも、欧米では Holschneider⁸⁾、Templeton ら⁹⁾、Rintala ら¹⁰⁾、Stephens ら¹¹⁾、Bai ら¹²⁾、Brandt ら¹³⁾などにより、本邦では、長崎ら¹⁴⁾、間¹⁵⁾による点数化されたスコアが提唱された。評価項目としては、ガスと便の区別の可否、においの有無、便を我慢できるか

表5-4 病型別便秘スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型		3	5	0	8	1.38
高位型	4	22	8	0	34	1.88
中間位型	2	14	2	0	18	2.00
低位型	6	27	3	0	36	2.08

表5-5 病型別排便管理スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型	1	7	0	0	8	2.13
高位型	10	23	1	0	34	2.26
中間位型	7	10	1	0	18	2.33
低位型	25	11	0	0	36	2.69

表5-7 病型別最低スコア

スコア 病型	3	2	1	0	総計	平均
Cloaca型	0	1	6	1	8	1.00
高位型	1	13	18	2	34	1.38
中間位型	0	10	8	0	18	1.56
低位型	2	22	11	1	36	1.69

否か、便のトイレットトレーニングの成否、肛門部のかぶれの有無、排便頻度、便の硬さ、排便時痛の有無、直腸の感覚の有無、便秘治療の種類（食事のみ、下剤、浣腸）、浣腸使用の有無、といった排便に関連するものほか、尿禁制の有無、学校の欠席の有無、（社会）活動制限の有無などを含めたものもある。著者らは、おのおのの評価法に従い、病型毎、術式毎に術後評価を行っているが、全体評価は各スコアの単純和により行われてい

表6 排便機能質問票

排便機能（ウンチについての）質問票		
次の質問は、排便（ウンチをすること）に関するあなた（お子さん）の状態をたずねるもので、最も近いとおもわれる状態に○をつけてください。		
1. ガスのものはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
2. 水様便あるいはふつう便のものはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
3. 多量の便のものはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
4. わずかな下着の汚れはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
5. 便意を感じないことはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
6. 便が出にくく感じることはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
7. 便が硬くて排便がつらいことはありますか？		
まったくない	ときどきある*	毎日のように（週2回以上）ある*
8. 排便に必要な時間はどのくらいですか？**		
10分以内	10から30分	30分以上
9. 浸脇、坐薬、下剤、下痢止は使っていますか？		
まったくない	ときどき使う*	毎日のように（週2回以上）使う*
10. 摘便もしくは洗脇はしていますか？		
まったくない	ときどきする*	毎日のように（週2回以上）する*

*：頻度について週2回未満（週1回以下）の場合はときどきとしてください。

**：排便に必要な時間について：平均的な時間を答えてください。

る。

これに対し、Holschneider らは、術式による成績を比較した総説の中で、症例数が少ないと、スコアシステムが異なること、瘻孔の高さや術式の詳細が記載されていないことなど、共通の基盤ができていないとしてスコアを排し、治療状態を加味して、禁制、部分禁制（この中で A, B, C 型に分類）、失禁の3つの領域に分類することを提唱している¹⁾。Pena¹⁶⁾、山田ら¹⁷⁾、佐伯ら¹⁸⁾による評価法も、同様に治療を含めて機能評価しスコアを求めていない。

2. QOL 評価

鎖肛術後患者のQOLに関しては、心理社会的問題を抱えている患者が多いことが報告されているが、多くは

患者への質問により問題点が挙げられたものである¹²⁾¹⁹⁾²⁰⁾。Ludman らは、精神医学的なアプローチによりおよそ20%の患者が問題を抱えているとし、早期からの心理的支援を推奨している²⁾。最近は、正当化されたQOL測定ツールを用いたものも報告され、多くの術後患者が心理社会的障害を持ち²¹⁾、家族への影響が大きいとされるが¹³⁾。報告により、年齢によりQOL評価は必ずしも一定でない²²⁾²³⁾。多くの報告は排便機能障害即ちQOL低下と自明のこととしてQOLが評価されてきたが、Goyal らは広い年齢にわたる小児に適切なQOL評価法がないとし²²⁾、排便状態がどのようにQOLに反映するかは相反する報告があり、明らかでない。

3. 排便機能評価の重み付

一般に、健康に関するQOL評価は多領域から構成され、評価に基づく実際の臨床判断にあたっては、それぞれの領域をいかに重み付してスコア化するかが課題となる²⁾。しかし、Kellyスコアも研究会試案も異なる項目における各スコアの重症度が同一であるか否かは考慮されず、通常合計点により患者の状態が評価される。たとえば研究会試案では、汚染、便意領域が2点満点、便秘と失禁領域が4点満点で、後二者ではどちらか低いほうのスコアが全体の合計点に加えられるが、点数配分の重み付の根拠は示されていない。

Rockwoodによると、成人の便失禁の重症度評価では、便失禁の頻度と質および量、対処法、ライフスタイルの変化を評価指標として適切に重み付することを推奨している⁵⁾。小児の排便機能がQOLに及ぼす影響については、適切な指標の報告は見られず、報告されたQOLスコアには汚染、失禁項目が含まれるものがあるが、重み付はされていない¹²⁾¹³⁾。

今回の機能評価試案作成にあたっては、対象年齢、質問項目やその頻度などを検討したが、従来の研究会試案にならって対象年齢を4歳以上とし、試案に含まれる失禁、汚染、便意、便秘領域に排便管理を加えて日常生活への影響を問う質問票を作成した。各領域の質問項目、頻度は各施設で行ってきた質問をもとに合議で決定し、患者や家族にとって理解しやすいと思われるFRSによりQOLへの影響を訊ねた。

FRSは、認知能力の乏しい小児などを対象として言語に表しにくい痛みの程度を測定する尺度として、臨床や研究に広く用いられている²⁴⁾。今回は、言語化しにくい排便機能のQOLへの影響をFRSで回答することでスコア化できると考えた。

各領域の状態と頻度毎に得られた回答をそれぞれのQOLへの影響度としてスコア化した結果、概略としては、汚染、便意、便秘領域に比べ失禁領域がより厳しく評価され、摘便、洗腸が他の治療法に比べ厳しく評価された。これに従って、排便機能評価の重み付としたものが本評価試案である。

4. 患者と専門医による評価差について

従来の評価法は、主に医師が考案した排便状態を記す各評価項目について診療時やアンケートによって評価したものである¹⁾²⁾⁶⁾⁻¹⁸⁾。QOLについては、小児用あるいは成人に対する標準的な評価法や独自に考案した評価法が用いられてきた²⁾¹²⁾¹³⁾¹⁹⁾⁻²³⁾。今回、患者と専門医による排便状態および排便管理のQOLへの影響についてFRSで評価を求め、比較した。

その結果、項目により患者と専門医の間でスコアに有

意差が見られた。ガスのもれ、ふつう便のもれ、排便時間、浣腸の使用、摘便・洗腸の実施については、患者にはQOLの損なわれ方がより少なく、わずかな汚れ、便の出にくさは医療者の想像以上にQOLを損ねると考えられる。評価試案では、患者によるQOL評価が本来のものとして、患者が感じるQOLへの影響をスコア化した。

5. 評価試案の評価について

評価試案では10の質問の回答を得ることで、各項目のスコアが算出できる(表6)。その結果、失禁、汚染、便意、便秘に加え、従来の直腸肛門奇形研究会試案になかった排便管理を加えた各領域3点満点、合計15点の評価点が得られる。今回行った調査結果から得られた患者の病型毎のスコア分布は従来と同様、病型と排便機能の関連が示唆されたが、統計学的有意差は認められなかった。特に排便管理の領域ではスコア平均は2点台ではほとんど差がなかった。これは、各施設で長期に経過観察されている患者では、QOLに影響の少ない排便管理がなされ、その結果、QOLについて病型による差が少なくて維持されていると解釈もできるが、詳細な検討が必要である。

患者全体の状態はスコアの単純和でも評価できると考えられるが、本評価案による重み付を生かすには、各領域の最低点を全体の評価とすることにより、患者の状態を3から0点、あるいは優、良、可、不可の4段階に区分することができる。Holschneiderら¹⁾やPena¹⁶⁾、山田ら¹⁷⁾、佐伯ら¹⁸⁾により示された方法に類似した、排便機能と排便管理を含めた評価法と位置付けられる。また、各スコアの積算で評価するのも一法であろう。

6. 今後の課題と利用について

本評価試案は、研究会試案と同じ4歳以上を対象とし、各領域の測定項目、頻度は合議により決定したが、年齢、測定項目や頻度についてさらに検討が求められる。今後、研究会試案と比較検討するなど、妥当性を検証した上で、JASGAP遂行のための機能評価法として用いる、直腸肛門奇形研究会からの排便機能評価法として提案したい。

(本研究の一部は難病のこども支援全国ネットワーク平成19年度いのちの輝き実践研究奨励賞により行い、第25回日本小児外科学会秋季シンポジウム(鹿児島、2009年10月)において発表した。)

文 献

- 1) Holschneider AM, Jesch NK, Stragholt E, et al:

- Surgical methods for anorectal malformations from Rehbein to Pena—Critical assessment of score systems and proposal of a new classification. Eur J Pediatr Surg. 12: 73-82, 2002.
- 2) Ludman L, Spitz L: Psychosocial adjustment of children treated for anorectal anomalies. J Pediatr Surg. 30: 495-499, 1995.
- 3) Hamid CH, Holland AJA, Martin HCO: Long-term outcome of anorectal malformations: The patient perspective. Pediatr Surg Int. 23: 97-102, 2007.
- 4) 池田俊也, 上村隆元: 効用値測定尺度. PART-1 QOL 研究領域概論. QOL を一次元のスコアで評価する方法. QOL 評価法マニュアル: 評価の現状と展望. 萬代隆監修, pp 56-65. インターメディカ, 東京, 2001.
- 5) Rockwood TH: Incontinence severity and QOL scales for fecal incontinence. Gastroenterology, 126 (Supplement 1): 106-113, 2004.
- 6) Kelly H: The clinical and radiological assessment of anal continence in childhood. Aust N Z J Surg. 42: 62-63, 1972.
- 7) 直腸肛門奇形研究会: 直腸肛門奇形術後排便機能の臨床的評価法試案. 日小外会誌, 18: 1458-1459, 1982.
- 8) Holschneider AM: Treatment and functional results of anorectal continence in children with imperforate anus. Acta Chirurgica Belgica, 82: 191-204, 1983.
- 9) Templeton JM, Ditesheim JA: High imperforate anus: Quantitative result of long term fecal continence. J Pediatr Surg. 20: 645-652, 1985.
- 10) Rintala R, Lindahl H: Is normal bowel function possible after repair of intermediate and high anorectal malformations? J Pediatr Surg. 30: 491-494, 1995.
- 11) Stephens FD, Smith ED, Paul NW: Anorectal Malformations in Children: Update 1988, March of Dimes Birth Defect Foundation. Original Series, Vol. 24, Alan R. Liss Inc., New York, 1988.
- 12) Bai Y, Yuan Z, Wang W, et al: Quality of life for children with fecal incontinence after surgically corrected anorectal malformation. J Pediatr Surg. 35: 462-464, 2000.
- 13) Brandt ML, Daigneau C, Graviss EA, et al: Validation of the baylor continence scale in children with anorectal malformations. J Pediatr Surg. 42: 1015-1021, 2007.
- 14) 長崎 彰, 池田恵一, 大神 浩, 他: 鎮肛術後症例の排便機能評価法. 日小外会誌, 9: 263-267, 1973.
- 15) 間 浩明: 直腸肛門奇形症例における術後排便機能評価法に関する研究. 日小外会誌, 19: 863-891, 1983.
- 16) Pena A: Anorectal malformations. Semin Pediatr Surg. 4: 35-47, 1995.
- 17) 山田亮二, 角田昭夫, 西 寿治, 他: 直腸肛門奇形の術後排便機能. 小児外科, 11: 669-676, 1979.
- 18) 佐伯守洋, 秋山 洋, 小方 卓: 直腸肛門奇形の遠隔成績—排便機能の面より—. 小児外科, 11: 677-683, 1979.
- 19) Hassink EA, Rieu PN, Brugman AT, et al: Quality of life after operatively corrected high anorectal malformation: A long-term follow-up study of patients aged 18 years and older. J Pediatr Surg. 29: 773-776, 1994.
- 20) Ditesheim JA, Templeton Jr JM: Short-term v long-term quality of life in children following repair of high imperforate anus. J Pediatr Surg. 22: 581-587, 1987.
- 21) Diseth TH, Emblem R: Somatic function, mental health, and psychosocial adjustment of adolescents with anorectal anomalies. J Pediatr Surg. 31: 638-643, 1996.
- 22) Goyal A, Williams JM, Kenny SE, et al: Functional outcome in correction of perineal fistula in boys with anoplasty versus posterior sagittal anorectoplasty. J Pediatr Surg. 22: 961-965, 2006.
- 23) Poley MJ, Stolk EA, Tibboel D, et al: Short term and long term health related quality of life after congenital anorectal malformations and congenital diaphragmatic hernia. Arch Dis Child. 89: 836-841, 2004.
- 24) Bieri D, Reeve R, Champion GD, et al: The Faces Pain Scale for the self-assessment of the severity of pain experienced by children: Development, initial validation and preliminary investigation for ratio scale properties. Pain, 41: 139-150, 1990.

(2010年6月28日受付)

(2010年11月5日採用)