

慢性腹壁痛の治療には、内服薬として消炎鎮痛薬や抗うつ薬などが用いられていることが多いが効果は限られている⁷⁾。局所麻酔薬の局所注射（トリガーポイント）は診断的治療となるが、効果は一定しない¹⁶⁾。ステロイドを併用することでその強力な抗炎症作用と膜安定化作用により神経の絞扼が解除され、多くの場合長期的に疼痛の消失を得ることが可能である¹⁷⁾。局所麻酔はいわゆる「慢性疼痛の悪循環」を遮断すると考えられているが、長期的な効果が得られる理由は不明である⁷⁾。複数回の局所注射を要する例はせいぜい30%程度に留まり、更に繰り返す場合はフェノールブロックや手術治療（筋膜切開による神経の絞扼解除）などが試みられる場合もある¹⁷⁾。

慢性腹壁痛の小児報告例は、自験例を含めて11例の報告があるのみである³⁾⁻⁶⁾（表2）。診断はACNESが多いが、手術による末梢神経損傷の症例も散見される⁴⁾。8例は特殊な部位のブロックを施行されており⁴⁾⁶⁾、症例数も少ないため断定はできないが治療成績は成人と遜色ないと思われる。

自験例でも、多くの報告と同様に1回だけの局所麻酔薬とステロイドの局所注射で長期間疼痛の消失を得ている。しかしながら腹壁痛という疾患概念の欠如のため診断に苦慮し、多くの時間とコストを要した。慢性腹痛の診療においては、常に腹壁痛を念頭に置いておく必要があると考えられた。

（本論文の概要は、第105回東京小児外科研究会にて報告した。）

文 献

- 1) Lindsetom RO, Stulberg J: Chronic abdominal wall pain—A diagnostic challenge for the surgeon. *Am J Surg*, 198; 129-134, 2009.
- 2) Costanza CD, Longstreth GF, Liu AL: Chronic abdominal wall pain: Clinical features, health care costs, and long-term outcome. *Clin Gastroenterol Hepatol*, 2: 395-399, 2004.
- 3) Peleg R: Abdominal wall pain caused by cutaneous nerve entrapment in an adolescent girl taking oral contraceptive pills. *J Adolesc Health*, 24: 45-47, 1999.
- 4) Skinner AV, Lauder GR: Rectus sheath block: Successful use in the chronic pain management of pediatric abdominal wall pain. *Paediatr Anaesth*, 17: 1203-1211, 2007.
- 5) Ivens D, Wojciechowski M, Vaneerdeweg W, et al: Abdominal cutaneous nerve entrapment syndrome after blunt abdominal trauma in an 11-year-old girl. *J Pediatr Surg*, 43: E19-E21, 2008.
- 6) Simpson DM, Tyrrell J, De Ruiter J, et al: Use of ultrasound-guided subcostal transversus abdominis plane blocks in a pediatric patient with chronic abdominal wall pain. *Paediatr Anaesth*, 21: 88-90, 2011.
- 7) Srinivasan R, Greenbaum DS: Chronic abdominal wall pain: A frequently overlooked problem. Practical approach to diagnosis and management. *Am J Gastroenterol*, 97: 824-830, 2002.
- 8) Carnett JB: Intercostal neuralgia as a cause of abdominal pain and tenderness. *Surg Gynecol Obstet*, 42: 625-632, 1926.
- 9) Abdominal wall tenderness test: Could Carnett cut costs? *Lancet*, 337: 1134 (editorial), 1991.
- 10) Applegate WV: Abdominal cutaneous nerve entrapment syndrome. *Surgery*, 71: 118-124, 1972.
- 11) Greenbaum DS, Greenbaum RB, Joseph JG, et al: Chronic abdominal wall pain, diagnostic validity and costs. *Dig Dis Sci*, 39: 1935-1941, 1994.
- 12) Peleg R, Gohar J, Koretz M, et al: Abdominal wall pain in pregnant women caused by cutaneous nerve entrapment. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*, 74: 169-171, 1997.
- 13) Takada T, Ikusaka M, Ohira Y, et al: Diagnostic usefulness of Carnett's test in psychogenic abdominal pain. *Intern Med*, 50: 213-217, 2011.
- 14) Thomson H, Francis DM: Abdominal-wall tenderness: A useful sign in the acute abdomen. *Lancet*, 2: 1053-1054, 1977.
- 15) Gray DW, Dixon JM, Seabrook G, et al: Is abdominal wall tenderness a useful sign in the diagnosis of non-specific abdominal pain? *Ann R Coll Surg Engl*, 70: 233-234, 1988.
- 16) McGarrity T, Peters DJ, Thompson C, et al: Outcome of patients with chronic abdominal pain referred to chronic pain clinic. *Am J Gastroenterol*, 95: 1812-1816, 2000.

(2011年3月29日受付)

(2011年5月30日採用)

A Case of Difficult Diagnosis for Chronic Abdominal Wall Pain:
Abdominal Cutaneous Nerve Entrapment Syndrome (ACNES)
Long-Term After the Definitive Operation for Cloacal Anomaly

Hirofumi Tomita*, Naoki Shimojima*, Atsuhiko Arisue*, Fumika Takasato*,
Masaharu Mori*, Yuki Yamamoto*, Yasushi Fuchimoto*, Ken Hoshino*,
Kouichi Tsuzaki**, and Yasuhide Morikawa*

Departments of *Pediatric Surgery, and **Anesthesiology, Keio University School of Medicine

Chronic abdominal pain is a common complaint in children. Pain originating from the abdominal wall is a relatively unknown and often overlooked cause, although it may account for about 10-30% of patients with chronic abdominal pain. Sharply localized pain and superficial tenderness are suggestive of chronic abdominal wall pain. The most common cause of chronic abdominal wall pain appears to be abdominal cutaneous nerve

entrapment syndrome (ACNES). Carnett's test (accentuated localized tenderness with abdominal wall tensing) is a helpful diagnostic sign. In this report, we describe a 7-year-old girl with ACNES long-term after an operation for cloacal anomaly. As a result, an anesthetic/corticosteroid local injection gave complete pain relief for prolonged periods. However, we expended a lot of time and cost for this difficult diagnosis because we had no concept of this disease. For the clinical care of chronic abdominal pain, it appears to be necessary to take abdominal wall pain into consideration.

Key words: chronic abdominal pain, chronic abdominal wall pain, ACNES, Carnett's test, pediatric

* 35, Shinanomachi, Shinjuku-ku, Tokyo, 160-8582 JAPAN

小児慢性便秘における evoked-HAPC 測定の有用性

富田 紘史* 星野 健* 有末 篤弘* 高里 文香*
 森 昌玄* 山本 裕輝* 下島 直樹* 淵本 康史*
 田波 穰** 森川 康英*

はじめに

現在、大腸の機能検査には manometry, barostat, wireless pressure and pH capsule などが用いられているが、伝播性運動の評価には manometry がもっとも適している¹⁾。大腸の運動のなかで、“mass movements” とよばれる多くの内容物を長い範囲にわたって運ぶ大きな伝播性運動は 20 世紀の初めに放射線科医により初めて報告された^{2,3)}。1971 年にはこの伝播性運動を引き起こして

いる大腸内圧所見が初めて報告され⁴⁾、のちに high amplitude propagate contractions (HAPC)⁵⁾ や giant migrating contractions (GMC)⁶⁾ とよばれるようになった。近年では、ヒトの臨床においては HAPC という言葉が定着しており、GMC は主に動物実験での記述に用いられている。

健常人における HAPC は、収縮圧が平均 100~120 mmHg、出現頻度が 1 日 6 回程度の順行性に伝播する収縮波であり、起床および食事の刺激により増加し、腹鳴・排便刺激・排便などの腹部徴

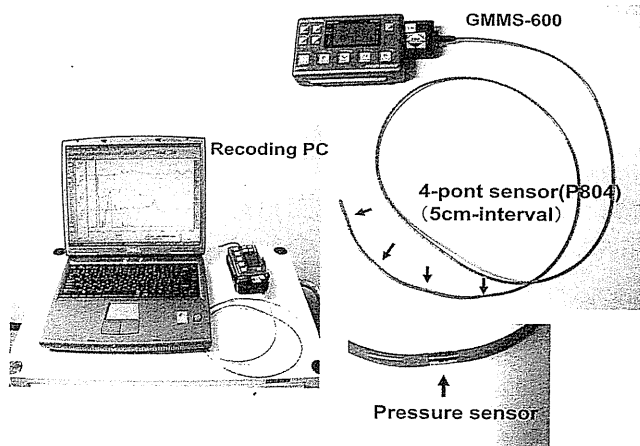


図 1 4-point manometry (GMMS-604DEU/1A, STAR MEDICAL, INC)
 4 点 (5 cm 間隔) に圧センサーが置かれており、記録用コンピュータにデータが転送される。

Hirofumi Tomita Ken Hoshino Atsuhiko Arisue Fumika Takasato Masaharu Mori Yuki Yamamoto
 Naoki Shimojima Yasushi Fuchimoto Yutaka Tanami Yasuhide Morikawa

* 慶應義塾大学医学部小児外科 [〒160-8582 東京都新宿区信濃町 35]

** 同 放射線科

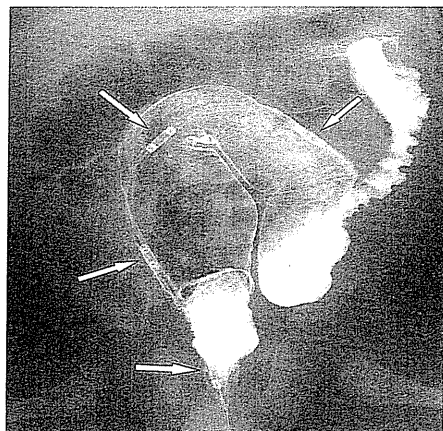


図2 プローブ位置
経肛門的にS状結腸までプローブを留置する。

候と関連するとされる^{7,8)}。HAPCの完全に統一された定義は存在しないのが現状であるが、過去の報告における基準値は最低でも収縮圧 50 mmHg、伝播範囲 10 cm となっている⁹⁾。

HAPCは慢性便秘、とくに slow transit constipation において、出現頻度の減少、収縮圧の低下などを認めることが報告されており¹⁰⁻¹²⁾、有用な消化管機能検査法の一つであると思われる。しかしながらその評価には下部消化管内視鏡により全結腸にプローブを留置し、24時間以上の測定を行う必要があるとされ¹³⁾、簡便な検査とはいえず、とくに小児への利用には困難を伴う。

われわれは検査を簡便化、低侵襲化するべく、

浣腸刺激により排便を誘発し、遠位結腸から直腸に留置した multi-point manometry を用いて内圧測定を行ってきた。排便に関連して測定された圧の高い収縮波を evoked-HAPC と定義したが、慢性便秘症例や Hirschsprung 病術後症例では同時性の収縮が観測される例があり、浣腸や坐薬、緩下剤の使用が多く、排便機能が不良な傾向にあることを報告してきた¹⁴⁻¹⁶⁾。2009年からは注腸造影を併用して evoked-HAPC を測定しており、視覚的にも大腸の運動を把握しやすくなった。この方法を用いて Hirschsprung 病の病型診断、Hirschsprung 病類縁疾患など、対象を増やして検討を加えているところである。本稿では、小児慢性便秘における排便機能評価法としての evoked-HAPC 測定の有用性について述べる。

I. 対象と方法

2004年から2010年の間に、便秘を主訴に来院し、基礎疾患がなく直腸肛門反射陽性であった19例を対象とした。

検査前日に入院し、便貯留が多い場合はグリセリン浣腸による preparation を行う。検査ではまず、とくに左半結腸以下に造影剤が貯留するように注腸造影を施行する。次に、propofol による静脈麻酔下にマノメトリー測定装置 GMMS-604DEU/1A (スターメディカル製、図1) を経肛門的に主にS状結腸以下に留置する(図2)。体重×2 ml のグリセリン浣腸により排便を誘発し、evoked-HAPC の測定とX線透視による観察を行

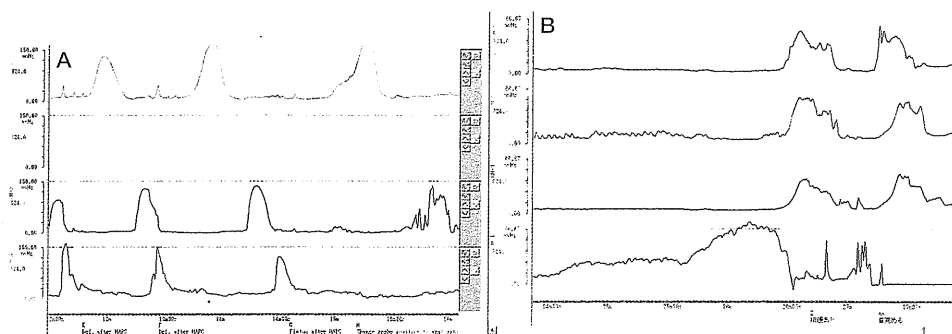


図3 evoked-HAPC
A. 伝播性, B. 同時性。

表 慢性便秘症例における evoked-HAPC

evoked-HAPC	伝播性	同時性	
症例数	10	9	
男児	4	5	(p=0.50) χ^2 test
年齢 (年, median, range)	1.4 (0.1~3.5)	2.7 (0.8~13.4)	(p=0.09)
病悩期間 (月, median, range)	11.8 (0.7~37.1)	27.8 (8.3~148.2)	(p=0.10)
Amplitude (mmHg, mean±SE)	107.9±11.4	71.8±8.8	(p=0.02)
Duration (秒, mean±SE)	12.4±1.2	17.0±3.4	(p=0.14)
Velocity (cm/秒, mean±SE)	0.48±0.05		
観察期間 (月, median, range)	3.8 (0~32.9)	46.6 (0~70.3)	(p<0.01)

n=19

う。evoked-HAPC の波形を解析し、収縮圧 (amplitude)、持続時間 (duration)、伝播速度 (velocity) を算出する。

X線透視の時間はおよそ20分であるが、コマ数を少なくする、視野を絞るなどの工夫でなるべく被曝が少なくなるようにしており、1歳児の検査モデルを用いた検討では0.187 mSv/秒の被曝量であった。検査全体にかかる時間はおよそ30分である。

II. 結果

19例中10例で伝播する収縮波が観測され (伝播性群, 図3A), 残りの9例では同時性の収縮波が観測された (同時性群, 図3B)。それぞれの群での波形の解析結果を表に示す。同時性群では伝播性群に比べて年齢が高く, 病悩期間が長い傾向にあった。収縮圧は伝播性群で有意に高く (p=0.02), 持続時間に関しては有意差を認めなかった (p=0.14)。

検査後の観察期間は同時性群で有意に長く (p<0.01), 洗腸・坐薬からの離脱が同時性群で有意に遅かった (図4, p=0.04)。

III. 考察

前述のとおり慢性便秘, とくに slow transit constipation における HAPC の過去の報告では, 出現頻度の減少, 収縮圧の低下などを認めることが報告されている¹⁰⁻¹²⁾。われわれの行っている方法では洗腸刺激による誘発と短時間の観察のみであるため, 出現頻度の評価は不可能である。一方, HAPC の誘発に関しては, bisacodyl などの刺激に

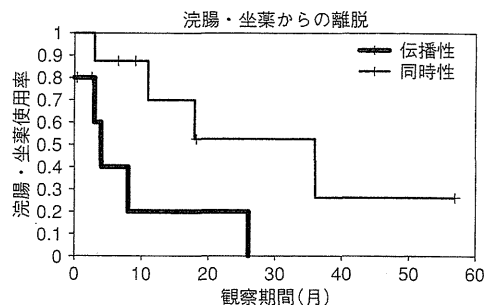


図4 洗腸・坐薬の使用率

同時性の evoked-HAPC を認めた群では伝播性の evoked-HAPC を認めた群よりも有意に洗腸・坐薬からの離脱が遅かった。
p=0.04, Logrank test.

より HAPC が誘発されると報告されており^{17,18)}, この反応が起らないものを abnormal と定義している報告もみられる¹⁹⁾。

今回のわれわれの検討では, 同時性の evoked-HAPC が測定された群では伝播性の evoked-HAPC が測定された群に比べて洗腸・坐薬からの離脱が有意に遅く, 便秘としての重症度が高い可能性が考えられた。観察期間は伝播性群で有意に短かったものの, 当科で Hirschsprung 病の否定のみを行いフォローを他院に依頼した症例もあり, 観察中止に関する一定の基準を設けていないことから必ずしも予後良好であることを反映していない。疾患の性質上, 繰り返し検査を行うことはやや困難な状況ではあるが, 1例のみ同時性の evoked-HAPC が観測された1年後の再検査で伝播性の evoked-HAPC が観測された例があり, 洗腸の

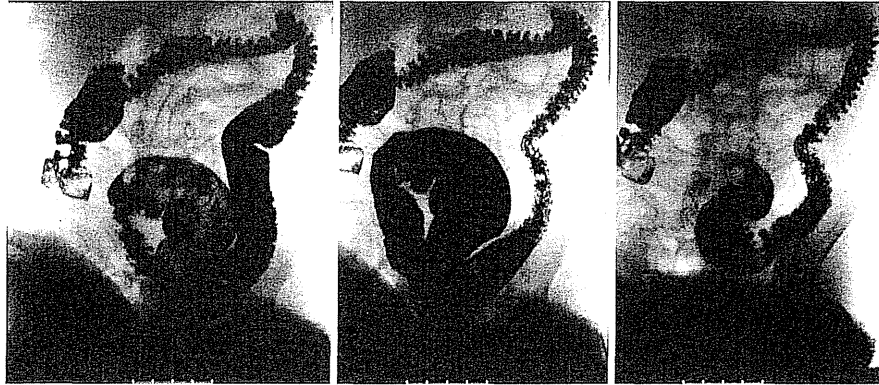


図 5 一卵性双生児第一子の造影所見
左から順に、下行結腸から S 状結腸、排便へといたる伝播性の収縮が観測された。

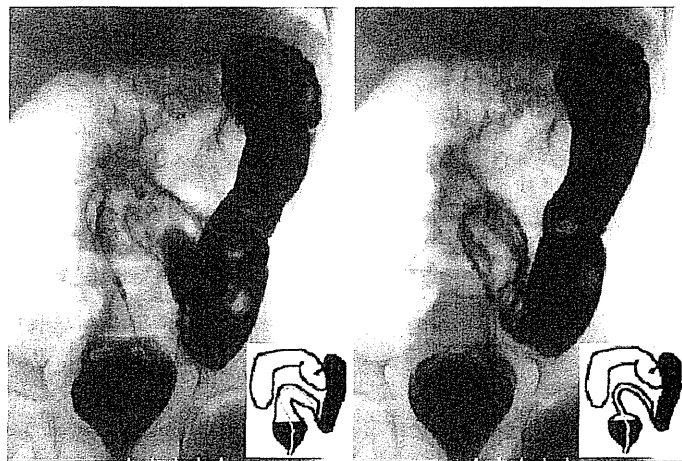


図 6 一卵性双生児第二子の造影所見
S 状結腸から直腸上部にかけてほぼ同時に収縮した。右下は scheme。

使用頻度が減少していた。同時性群では年齢が高く病悩期間が長い傾向にあったことと併せて考えると、同時性の evoked-HAPC はいわゆる便秘の悪循環²⁰⁾に入っていることを表しているものと考えられる。

最近の X 線透視での観察により、同時性 evoked-HAPC を観測した場合にもプローブ留置位置よりも近位結腸から収縮が伝播してくることが確認された。文献的にも全結腸の manometry で上部結腸における HAPC、下部の拡張した結腸にお

る low amplitude simultaneous contractions (LASC) というパターンが報告されているが、その臨床的意義については明確に述べられていない^{19,21)}。われわれの検査は遠位結腸以下に限定されており、全結腸の観察で初めて明らかとなる上部結腸における HAPC、下部結腸における LASC というパターンのうち、後者のみが観察されて同時性 evoked-HAPC となっている可能性がある。一方で、上部結腸からの伝播を認めない症例も経験した。自験例で同様の症状を認めた一卵性双生

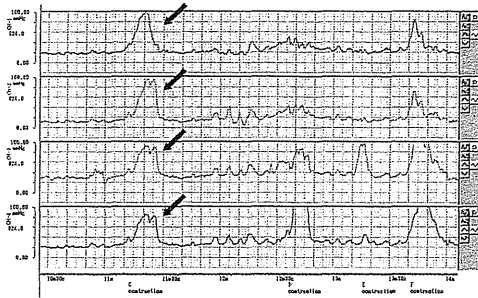


図7 一卵性双生児第二子の内圧所見
4 point で同時性の evoked-HAPC が観測された(矢印)。

児の慢性便秘症例において evoked-HAPC の測定を行ったところ、第一子で圧の低い伝播性 evoked-HAPC を観測したが(図5)、第二子では同時性 evoked-HAPC が観測され、X線透視で収縮はほぼ segmental にみえた(図6, 7)。今のところこのような収縮が観察されたのはただ1例のみで、その臨床的意義は不明であり、これを HAPC という範疇に入れてよいのかという問題もある。今後の症例の蓄積によりさらなる検討を加えていきたいと考えている。

おわりに

小児慢性便秘患者に対する遠位結腸から直腸における evoked-HAPC の測定で、同時性の収縮が観測された群では伝播性の収縮が観測された群よりも浣腸・坐薬の使用が長期にわたることが示された。HAPC の測定は、排便障害における病態の相違、重症度や予後の推定、治療方針の決定などに関して、有用な情報を与えてくれる検査であると考えられる。

文 献

- 1) Camilleri M, Bharucha AE, di Lorenzo C, et al : American Neurogastroenterology and Motility Society consensus statement on intraluminal measurement of gastrointestinal and colonic motility in clinical practice. *Neurogastroenterol Motil* 20 : 1269-1282, 2008
- 2) Hertz AF : The passage of food along the human alimentary canal. *Guy's Hosp Rep* 61 : 389-427, 1907
- 3) Holzknecht G : Die normale Peristaltik des Colon. *Munch Med Woehenschr* 56 : 2401-2403, 1909
- 4) Torsoli A, Ramorino ML, Ammaturo MV, et al : Mass movements and intracolonic pressures. *Dig Dis Sci* 16 : 693-696, 1971
- 5) Narducci F, Bassotti G, Gaburri M, et al : Twenty four hour manometric recording of colonic motor activity in healthy man. *Gut* 28 : 17-25, 1987
- 6) Karas M, Sarna SK : Giant migrating contractions during defecation in the dog colon. *Gastroenterology* 92 : 925-933, 1987
- 7) Bassotti G, Germani U, Morelli A : Human colonic motility : physiological aspects. *Int J Colorectal Dis* 10 : 173-180, 1995
- 8) Bassotti G, Iantorno G, Fiorella S, et al : Colonic motility in man : features in normal subjects and in patients with chronic idiopathic constipation. *Am J Gastroenterol* 94 : 1760-1770, 1999
- 9) De Schryver AM, Samsom M, Smout AJ : In search of objective manometric criteria for colonic high-amplitude propagated pressure waves. *Neurogastroenterol Motil* 14 : 375-381, 2002
- 10) Bassotti G, Gaburri M, Imbimbo BP, et al : Colonic mass movements in idiopathic chronic constipation. *Gut* 29 : 1173-1179, 1988
- 11) Rao SS, Sadeghi P, Beatty J, et al : Ambulatory 24-hour colonic manometry in slow-transit constipation. *Am J Gastroenterol* 99 : 2405-2416, 2004
- 12) Stanton MP, Hutson JM, Simpson D, et al : Colonic manometry via appendicostomy shows reduced frequency, amplitude, and length of propagating sequences in children with slow-transit constipation. *J Pediatr Surg* 40 : 1138-1145, 2005
- 13) Bassotti G, de Roberto G, Castellani D, et al : Normal aspects of colorectal motility and abnormalities in slow transit constipation. *World J Gastroenterol* 11 : 2691-2696, 2005
- 14) 森川康英, 星野 健, 渡辺稔彦, 他 : 腹腔鏡併用ヒルシュスプルング病根治手術 prolapsing technique による extra-anal mucosectomy. *日小児外会誌* 36 : 572, 2000
- 15) 中尾志生子, 森川康英, 岡村 淳, 他 : ヒルシュスプルング病の手術方法と成績 High amplitude propagated contraction (HAPC) を用いた Hirschsprung 病術後に対する客観的排便機能評価. *日小児外会誌* 43 : 334, 2007
- 16) 小森広嗣, 星野 健, 岡村 淳, 他 : 直腸肛門奇形・排便の生理学 小児慢性特発性便秘に対する evoked-HAPC 測定の有用性の検討. *日小児外会誌* 43 : 303, 2007
- 17) Bassotti G, Chiarioni G, Germani U, et al : Endoluminal instillation of bisacodyl in patients with severe (slow transit type) constipation is useful to test resid-

- ual colonic propulsive activity. Digestion 60 : 69-73, 1999
- 18) Hamid SA, Di Lorenzo C, Reddy SN, et al : Bisacodyl and high-amplitude-propagating colonic contractions in children. J Pediatr Gastroenterol Nutr 27 : 398-402, 1998
- 19) Pensabene L, Youssef NN, Griffiths JM, et al : Colonic manometry in children with defecatory disorders. role in diagnosis and management. Am J Gastroenterol 98 : 1052-1057, 2003
- 20) Nelhans N, Williams R : Education key in tackling childhood constipation. Practitioner 254 : 22-26, 2010
- 21) van den Berg MM, Di Lorenzo C, Mousa HM, et al : Morphological changes of the enteric nervous system, interstitial cells of cajal, and smooth muscle in children with colonic motility disorders. J Pediatr Gastroenterol Nutr 48 : 22-29, 2009

小児内科

第 43 卷 6 号 (2011 年 6 月号) 定価 2,730 円

特集 胆汁うっ滞—診療の最先端

- 序：胆汁うっ滞—診療の最先端……………藤澤知雄
〔総論〕
- 胆汁生成と分泌……………滝川 一
胆汁うっ滞の定義, 症候, 診断……………松井 陽
胆道系の発生とその異常……………佐藤保則
胆道系の発生と Notch シグナル……………須磨崎 亮
胆汁酸, ビリルビンの肝細胞内輸送……………木村昭彦
胆汁うっ滞の病理……………谷川 健
胆汁うっ滞の画像診断……………野坂俊介
〔各論〕
- 低出生体重児にみられる胆汁うっ滞……………東海林宏道
生理的胆汁うっ滞……………村上 潤
新生児肝炎は今どこへ?……………虻川大樹
胆道閉鎖症……………仁尾正記
新生児肝炎から独立したシトリン欠損症……………梶 俊策
遺伝性肝内胆汁うっ滞の病態……………杉浦時雄
良性反復性肝内胆汁うっ滞……………日衛嶋栄太郎
先天性胆汁酸代謝異常……………水落建輝
症候性・非症候性肝内胆管低形成症……………清原由起
- 完全静脈栄養 (PN) による胆汁うっ滞……………窪田昭男
薬剤性胆汁うっ滞……………河島尚志
内分泌疾患 (下垂体, 甲状腺) に伴う
胆汁うっ滞……………恵谷ゆり
胆汁うっ滞症に対する
内視鏡的逆行性胆管造影法……………十河 剛
胆道感染症の原因と治療……………鍵本聖一
皮膚癢痒症の病態と内科的・外科的療法……………窪田 満
胆汁うっ滞症に対する肝移植の問題点……………笠原群生
〔コラム・トピックス〕
- 胆道閉鎖症に対する便色
カラースクリーニングのその後……………守島亜季
熊胆ものがたり……………入野 博
ミトコンドリア肝疾患と胆汁うっ滞……………村山 圭
新生児ヘモクロマトーシスの治療
—ET/IVIG (交換輸血/ガンマグロブリン)
療法を含めて……………丸山憲一
JaundiceChip……………別所一彦

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^{*}
淵本 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⁾、長期予後に関する報告は限られ、大規模な追跡調査は報告されてい

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、この課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)、生活にとっても困る(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	わずかな下着の汚れ*
便意の有無	便意を感じない(便がたまっても出そう感じがしない)こと*
便秘	便が出にくいと感じること*
	便が硬くて排便が辛いこと*
	排便に必要な時間**
排便管理	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*
	下痢どめの薬の使用*
	てき便(おしりから便をかき出すこと)の実施*
	洗腸(腸にたまっ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)
-  生活にとっても困る(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解析した。

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つ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



生活にととも困る



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

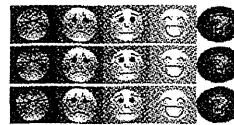
問い1. 次のようなことがあつたとしたら、あなた（お子さん）や家族の生活はどのくらい影響を受けますか？あてはまる表情に○をつけてください。

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）



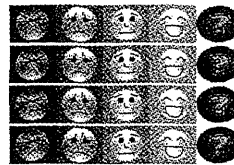
例. 排便に必要な時間が、

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



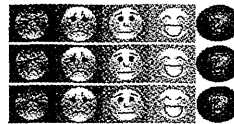
問い2. 次のような治療をしたとき、あなた（お子さん）や家族の生活はどのくらい影響を受けますか？あてはまる表情に○をつけてください。

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す。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、イェーツ補正 $m \times n$ 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、ふつう便のもれ、多量の便のもれ、わずかな汚れ、排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、罫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)のもれ			水様便のもれ			ふつう便のもれ			多量の便のもれ		
		たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように
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	2	2	2	2	1	2	1	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	2	2	2	1	2	1	1	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。罫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	毎日のように
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	
専門医による評価	回答数	38	38	38
	3	19	8	2
	2	14	20	11
	1	5	9	15
	0	0	1	10
	平均値	2.37	1.92*	1.13
中央値	2	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しない)こと		
		たまに	ときどき	毎日のように
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	
専門医による評価	回答数	38	38	38
	3	15	11	1
	2	16	13	11
	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。罫は患者と医師で中央値差あり)

		便が出にくいと感じること			便が硬くて排便がづらいこと			排便に必要な時間			
		たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	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	0	
専門医による評価	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
	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	2	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. 罫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			下痢どめの使用			排便の実施			洗腸の実施		
		たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように	たまに	ときどき	毎日のように
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	2	2	2	2
専門医による評価	回答数	38	38	38	38	38	38	38	38	38	38	38	36	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	3	2	3	3	2	3	3	2	3	3	2	2	2	2	2	2	2

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 の質問の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、満点は異常なしあるいは強い収縮とし、0 点をそれぞれ毎口あり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)			
便が出にくいと感じること			
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
便が硬くて排便がづらいこと			
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
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
摘便もしくは洗腸			
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

病型 \ スコア	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 5-4 病型別便秘スコア

病型 \ スコア	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 5-2 病型別汚染スコア

病型 \ スコア	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 5-5 病型別排便管理スコア

病型 \ スコア	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 5-3 病型別便意スコア

病型 \ スコア	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 5-7 病型別最低スコア

病型 \ スコア	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

表 5-6 病型別合計スコア

病型 \ スコア	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⁾, Templeton⁹⁾, Rintala¹⁰⁾, Stephens¹¹⁾, Bai¹²⁾, Brandt¹³⁾ などにより、本邦では、長崎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

否か、便のトイレ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、洗腸）、洗腸使用の有無、といった排便に関連するもののほか、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る

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す。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*
2. 水様便あるいはふつう便のもれはありますか？		
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*
3. 多量の便のもれはありますか？		
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*
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. 便が出にくいと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. 便が硬くて排便が辛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. 浣腸、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. 摘便もしくは洗腸はしていますか？		
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、症例数が少ないこと、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⁾、山口ら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る。

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⁾。最近では、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、排便、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、洗腸の使用、排便・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点の評価点を得られる。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, Stragholz 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 を一次元的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, インターメディアカ, 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: 鎖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)

A QOL-Based Clinical Assessment Scale for Bowel Functions in Patients With Anorectal Malformation (ARM)—First Report—

Shigeru Ueno^{*,**}, Yasuhide Morikawa^{*}, Jun Iwai^{*}, Naoki Okuyama^{*},
Tsugumichi Koshinaga^{*}, Norio Suzuki^{*}, Hideo Takamatsu^{*}, Tomoaki Taguchi^{*},
Yasushi Fuchimoto^{*}, Hiroshi Matsufuji^{*}, and Makoto Yagi^{*}

** Japanese Study Group of Anorectal Anomalies (JSGA), JASGAP Committee*

*** Correspondence: Department of Pediatric Surgery, Tokai University School of Medicine*

Purpose: In treating patients with ARM, it is indispensable to evaluate their postoperative quality of lives (QOLs) affected by their bowel functions. This study was carried out by the committee members to probe the degree of QOL impact of each status by questioning both patients and surgeons and to propose a new clinical scale for assessing the postoperative status in the long-term follow-up study project (JASGAP).

Methods: Ninety-seven ARM patients (cloaca 8, high 34, intermediate 18, low 37) and 38 pediatric surgeons were asked about the degree of impact on QOL of bowel functions which were categorized as incontinence, soiling, awareness of defecation, and constipation, as well as supportive treatments. A facial rating scale was used

Key words: imperforate anus, child, quality of life, postoperative care, outcome assessment

*** 143 Shimo-Kasuya, Isehara-shi, Kanagawa, 259-1193 JAPAN*

to quantitate the degree in the questionnaire. Collected data were analyzed and a QOL-based clinical scale was prepared by score-weighting the data. A pilot assessment with the scale was done through another questionnaire to the same respondents.

Results: (1) An overview of the impact on QOL of each condition of bowel status was obtained through the questionnaires. (2) There are some differences between assessments by patients and those by surgeons. (3) Scores by patients were adopted in the proposed scale and mean scores of each field were highest in patients with low type and intermediate, high and cloaca type anomaly were in descending order in rank. However, the soiling score did not correlate to the ARM subtype.

Conclusion: A QOL-based clinical assessment scale for bowel functions in patients with ARM can be proposed based on the questionnaires.