

厚生労働科学研究費補助金
難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業）
分担研究報告書

高位・中間位鎖肛

研究分担者 瀧本 康史 国際医療福祉大学医学部小児外科 主任教授
伊崎 智子 九州大学小児外科 講師

研究協力者 藤村 巧 慶應義塾大学小児外科 助教

【研究要旨】

高位・中間位鎖肛は小児期から移行期・成人期に至る希少難治性消化管疾患であり、失禁、難治性便秘など長期的な経過をとる。高位・中間位鎖肛では指定難病の4条件を満たしているが難病や小慢に指定されていない。したがってこれらの疾患に適切な医療政策を施行していただくためには、研究班を中心とした小児期から成人期を含む実態調査と疾患概要・診断基準・重症度分類・診療ガイドラインの整備が急務である。

A．研究目的

中間位・高位鎖肛は小児慢性特定性疾患、ならびに指定難病にも指定されていない。全国調査による現状の把握と診療のてびき等を作成し、難病・小慢指定をめざし、疾患の啓発と情報提供を目的とする。

B．研究方法

日本小児外科学会が行っている新生児アンケート調査では鎖肛の頻度は350例/年程度である。この内、中間位・高位鎖肛の割合は25%~30%程度と考えられる。一次調査では「中間位・高位鎖肛で、過去1年間に排便管理のために通院あるいは入院治療を必要とした患者の有無」とし、二次調査では2011年に直腸肛門奇形研究会が9施設で行った長期予後追跡調査 Japanese Study Group of Anorectal Anomalies Follow-up Project (JASGAP) を報告し、その結果からそれぞれのスコアにQOLの重み付けを付与した評価試案で1．排便管理状況、

2．失禁スコア、3．汚染スコア、4．便秘スコアで評価する。これに客観的評価法であるMRIや注腸検査、内圧検査を加えることを考えている。毎年、直腸肛門奇形研究会で施行している病型登録症例より、年齢6才、12才、18才の患児を抽出して調査を行う。

(倫理面への配慮)

臨床研究のうち、診療情報等の情報のみを用いる調査研究ですので、国が定めた指針に基づき「対象となる患者さまのお一人ずつから直接同意を得る必要はありません」が、研究の目的を含めて、研究の実施についての情報を公開し、さらに拒否の機会を「オプトアウト」にて保障します。

C．研究結果

高位・中間位鎖肛の術後長期フォローアップについて責任者施設での倫理委員会での承認が10月25日に得られた。12月に開催された

別添 4 - 1 2

田口班会議において、以下の二次調査案が決定した。

調査方法について：今まで行ってきた病型確認のための直腸肛門奇形研究会の登録事業で登録された症例のうち6,12,18歳の患児を抽出し、2次調査の依頼を行っていく方針となる。

D．考察

なし

E．結論

なし

F．研究発表

1. 論文発表

なし

2. 学会発表

なし

G．知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得 なし

2. 実用新案登録 なし

3. その他 なし