

## 科学研究費助成事業 研究成果報告書

令和元年5月29日現在

機関番号：11301

研究種目：挑戦的萌芽研究

研究期間：2015～2018

課題番号：15K15486

研究課題名(和文) 地域における食道アカラシア患者潜在に関する実態調査研究

研究課題名(英文) Research to find out how many undiagnosed esophageal achalasia patients exist in community population

研究代表者

石井 正 (Ishii, Tadashi)

東北大学・大学病院・教授

研究者番号：00650657

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 2,600,000円

研究成果の概要(和文)：宮城県の石巻赤十字病院の延べ789381名の外来患者のレセプトデータから、10-60歳、食道アカラシアを否定できないレセプト病名を持つ患者26736名を一次抽出し、さらに上部消化管内視鏡実施歴があり、食道透視未実施の患者543名を二次抽出した。これらの患者に対しカルテ調査を実施し、症状が遷延しかつ食道運動障害以外の確定診断がついていない症例39名を三次抽出した。このうち同意を得られた16名に対し食道透視検査を施行したところ、食道アカラシア類似疾患でアカラシアとともに食道運動障害に分類される食道胃接合部outflow obstruction患者、即ち地域に潜在する食道運動障害患者を1名発見した。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本研究結果から、第一に、食道障害症状を呈する患者に対しては食道透視検査を見落とすことなく実施することが食道運動障害を見落とさない観点から大変重要である、とのより適正な診断ストラテジーを提示することができたこと、第二に、このような見落とされがちな地域に潜在する希少疾患患者を掘り起こす新たな手法として、大きな母集団からレセプトデータや電子カルテデータを用いて機械的に当該患者を絞り込む手法を示すことができ、さらに言えばこのようなレセプトデータや電子カルテデータを活用した未来の検診方法の一つのモデルとして提案することができた、という点で大きな研究成果が上がったと考える。

研究成果の概要(英文)：Among the information of 789381outpatient's national medical insurance data, we extracted 26736 patients between 10 and 60 years old, who were given suspected diagnosis that can't be denied esophagus achalasia. Next, we extracted 543 patients with upper gastrointestinal endoscopy already performed and who never been performed barium swallow test.

Then, we conducted a medical chart survey on these patients, and picked up 39 patients among the 543 patients without improved symptoms and definitive diagnosis other than esophageal motility disorders. Finally, we performed barium swallow test on 16 patients who agreed to perform the test, and found one patient with esophagogastric junction (EGJ) outflow obstruction classified as disorders with EGJ outflow obstruction including esophagus achalasia, who had never been diagnosed with the disease before.

研究分野：消化器外科学、災害医療学、総合医療学

キーワード：レセプトデータ 食道運動障害 EGJ outflow obstruction 食道アカラシア 地域潜在 診断アルゴリズム 疾患抽出

## 様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19、CK - 19 (共通)

### 1. 研究開始当初の背景

東北大学移植再建内視鏡外科においては食道アカラシアと診断されて手術を施行した 2007 年から 2012 年までの症例 17 例中 2 例(いずれも 10 代の女性)が他医にて「神経性食欲不振症」と一旦診断されたものの、その後食道アカラシアであることが判明し、手術にて症状が軽快している。医療機関を受診している全摂食障害患者の 6%は原因の特定が不能であったとの報告(精神医学 681-683、51 巻 7 号 2009 年)や、柴田ら(日臨外会誌 2355-2358、74 巻 9 号、2013 年)による食道アカラシアと診断された症例の 10%に精神科通院歴があることの報告もあることから、地域の医療機関において、食思不振や嘔吐等の症状を呈する患者の中にも、食道アカラシア症例がある程度潜在している可能性は否定できない。

### 2. 研究の目的

本研究では、特定の地域の患者の診療報酬明細書(レセプト)データを詳細に解析して食道アカラシアの可能性のある患者群を抽出し、協力施設においてカルテ調査や追加検査依頼を行う等により、食思不振/嘔吐等の食道アカラシアを否定できない症状を呈する患者における食道アカラシア患者潜在の有無や診断経緯の実態について調査検討し、これらの症状を呈する患者に対するより適正な診断ストラテジーを提示することを研究目的とした。

### 3. 研究の方法

まず、東北大学病院において、2006/10 月から 2015/6 月までの期間に手術を施行した食道アカラシア 38 症例を検討した。食道アカラシアと診断するのに初診から 6 か月以上かかった症例、すなわち食道アカラシアであることがわかるまでに 6 か月以上を要した症例(診断遅延群)は 15 症例にのぼり、年齢は最も若い患者は 15 歳で、最も高齢の患者は 60 歳であった。診断遅延群全症例において、上部消化管内視鏡検査は 73.3%の患者に実施されていたが、初診から 6 か月以内に食道透視検査を実施していないことが判明し、ルーチンで行われる上部消化管内視鏡検査は実施するものの、食道透視検査を実施なかったことが診断遅延した理由の一つであることが推定された。そこで、食思不振/嘔吐等の消化器症状を呈する患者に対して上部消化管内視鏡検査は実施しているが食道透視検査を実施していない患者の中に食道アカラシアが潜在している、との仮説を立てた。この仮説に基づき、以下の方法で研究を行った。

食道で宮城県石巻市の拠点病院である石巻赤十字病院において、2014/8/1~2015/8/31(前期)、2015/9/1~2017/6/30(後期)の 2 期に分けそれぞれの期間ごとに、同院を受診した 10 歳以上 60 歳以下の外来患者のレセプトデータから、食道アカラシアを否定できない病名:神経性食欲不振症、神経性無食欲症、神経性食思不振症、思春期やせ症、拒食症、アルコール依存症/乱用、胃食道逆流症(逆流性食道炎含む)、統合失調症、うつ病、身体表現性障害、咽喉頭異常感覚、先天性食道狭窄、心身症、不安神経症のうちいずれかのレセプト病名を持つ患者を抽出するソフトを作成し、これにより当該症例を抽出する。

で抽出した症例のうち、上部消化管内視鏡実施歴があり、食道透視未実施の症例を抽出する。

で抽出した症例に対し、カルテ調査にて、症状が遷延し、かつ食道運動障害以外の確定診断(癌など)がついていない症例をさらに抽出する。

で抽出した患者のうち、食道透視検査実施について同意を得られた患者に対し、食道透視検査を実施し、食道アカラシアを罹患していないか調査する。

### 4. 研究成果

のべ 789381 名の外来患者データから上記の方法にて前期 8922 名、後期 17814 名を一次抽出、さらにの方法にて前期 186 名、後期 526 名を抽出し、このうち前期と後期で重複する 169 名を除き、合計 543 名を二次抽出した。この 543 名に対し、カルテ調査を実施し(上記) 39 名を三次抽出した。このうち同意を得られた 16 名に対し食道透視検査を施行したところ、食道アカラシアとともに食道運動障害に分類されるアカラシア類似疾患の食道胃接合部 outflow obstruction 患者を 1 名発見することができた。このことは、第一に、食道障害症状を呈する患者に対しては食道透視検査を見落とすことなく実施することは食道運動障害を見落とさない観点から大変重要である、とのより適正な診断ストラテジーを提示することができたこと、第一に、食道障害症状を呈する患者に対しては食道透視検査を見落とすことなく実施することが食道運動障害を見落とさない観点から大変重要である、とのより適正な診断ストラテジーを提示することができたこと、第二に、このような見落とされがちな地域に潜在しうる希少疾患患者を掘り起こす新たな手法として、大きな母集団からレセプトデータや電子カルテデータを用いて機械的に当該患者を絞り込む手法を示すことができ、さらに言えばこのようなレセプトデータや電子カルテデータを活用した未来の検診方法の一つのモデルとして提案することができた、という点で大きな研究成果が上がったと考える。

### 5. 主な発表論文等

[雑誌論文](計 1 件)

Tadashi Ishii, Tetsuya Akaishi, Michiaki Abe, Shin Takayama, Ken Koseki, Takashi Kamei, Toru Nakano. Importance of Barium Swallow Test and Chest CT Scan for Correct Diagnosis of Achalasia in the Primary Care Setting. *The Tohoku journal of experimental medicine* **247**, 41-49,

doi:10.1620/tjem.247.41 (2019)

[学会発表](計1件)

Tadashi Ishii, Tetsuya Akaishi, Michiaki Abe, Shin Takayama, Ken Koseki, Takashi Kamei, Toru Nakano. Significance of chest CT scans and barium swallow tests in avoiding a delayed diagnosis of achalasia. 7th World Congress of Clinical Safety (7 (Fri) - 8 (Sat) September 2018 Best Western Hotel Bern, Switzerland)

## 6. 研究組織

### (1)研究分担者

研究分担者氏名：亀井 尚

ローマ字氏名：Takashi Kamei

所属研究機関名：東北大学

部局名：大学院医学系研究科

職名：教授

研究者番号(8桁): 10436115

研究分担者氏名：中野 徹

ローマ字氏名：Toru Nakano

所属研究機関名：東北大学

部局名：大学院医学系研究科

職名：大学院非常勤講師

研究者番号(8桁): 50451571

研究分担者氏名：藤森 研司

ローマ字氏名：Kenji Fujimori

所属研究機関名：東北大学

部局名：大学院医学系研究科

職名：教授

研究者番号(8桁): 80264539

研究分担者氏名：大内 憲明

ローマ字氏名：Noriaki Ohuchi

所属研究機関名：東北大学

部局名：大学院医学系研究科

職名：客員教授

研究者番号(8桁): 90203710

### (2)研究協力者

研究協力者氏名：阿部 倫明

ローマ字氏名：Michiaki Abe

研究協力者氏名：赤石 哲也

ローマ字氏名：Akaishi Tetsuya

研究協力者氏名：庄子 睦美

ローマ字氏名：Mutsumi Shoji

研究協力者氏名：小関 健

ローマ字氏名：Ken Koseki

研究協力者氏名：庄子 睦美  
ローマ字氏名：Mutsumi Shoji

研究協力者氏名：高山 真  
ローマ字氏名：Shin Takayama

研究協力者氏名：大原 勝人  
ローマ字氏名：Masato Ohara

研究協力者氏名：中山 雅晴  
ローマ字氏名：Masaharu Nakayama

科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。