様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９　（共通）

科学研究費助成事業　　研究成果報告書

令和　元 年　 ６ 月 ２１ 日現在

機関番号：３２６２０
研究種目：若手研究(B)
研究期間：2016～2018
課題番号：１６Ｋ１９２６０

研究課題名（和文）携帯メールを利用した胆道閉鎖症の便色スクリーニングシステムの構築

研究課題名（英文）Screening for biliary atresia using digital photos with stool color card.

研究代表者
済陽　寛子（WATAYO, Hiroko）

順天堂大学・医学部・非常勤助教

研究者番号：６０５８９５３９

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費）　　3,100,000円

研究成果の概要（和文）：当施設において対象期間中に172人（当研究を開始した2014年から227人）の母のうち、103人が写真を送付し、計121点の写真を医師が判定した。対象者に胆道閉鎖症と診断されたものはなかった。対象者は適切に写真の送付ができ、メールの送受信での不具合等は生じなかった。
対象とする母親世代にとって当手法は簡便であり有用と考えられた。写真の送付から判定や判定通知に時間差など、改良の余地があるが写真としてデータを蓄積できることは侵襲がなく客観性が得られ有効である。携帯電話、スマートフォンの機能は年々向上しており、医療の場において遠隔診断の一助になることが示唆された。

研究成果の学術的意義や社会的意義
胆道閉鎖症は診断されれば葛西手術（肝門部空腸吻合）を行うことで予後の改善が期待できるが、その後肝移植を要する例も少なくない。黄疸や白色便を呈することで異常の診断に至るが、便色異常と判断しがたい例も多く、肝機能障害が顕著になって診断される例も散見される。発見が遅れることできわめて予後不良になる可能性があるため適切に診断されることが望まれている。当法は希少疾患で診断に難渋する本症例において、啓発するとともに客観的に便色を判定でき有用と考える。

研究成果の概要（英文）：In this study, we conducted mothers after delivery to send their babies stool photo two weeks after their babies' birth. We announced 172 mothers and investigated the 121 photos attached mail by 103 mothers. There was no significant error in this system using the mobile phone.
It was reasonable for mothers though it is supposed to have been adjusted as the adequate time of notification and sending the result.
This procedure is less invasive and seems to have an advantage in objectivity and an inexpensive screening system for rare diseases.

研究分野：小児外科

キーワード：胆道閉鎖症　スクリーニング　便色判定　便色調カラーカード　写真判定

様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９、ＣＫ－１９（共通）

１．研究開始当初の背景

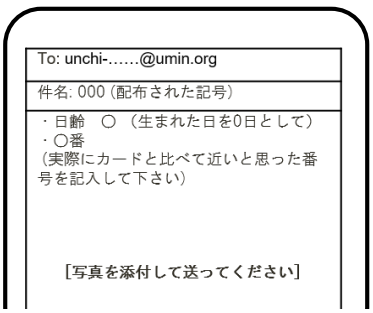
胆道閉鎖症（本疾患）は眼球や皮膚の黄染、灰白色便などを呈する胆汁うっ滞を主体とする新生児期・乳児期の疾患である。出生直後は症状が明らかではないことが多く、多くは新生児期～生後 3 か月ごろまでに診断される。発症当初は哺乳や全身状態が良好であることが多く、異常に気づかれずに経過する例が散見される。便色異常は徴候の１つであるが、出産直後の母親にとって便色の変化のみでは異常に気づくことは難しく、また排便状況にも個人差があることより、医療者が確認することも難しいため、診断の遅れが問題となる。未だ原因が不明である本疾患は葛西手術（肝門部空腸吻合）を施行しても黄疸や胆管炎を繰り返し、肝硬変から肝不全に至り、成人期までにおよそ半数～2/3 の症例が肝移植を要する。2012 年 4 月より、母子手帳に便色調カラーカードが綴じられ全国配布されることになった。

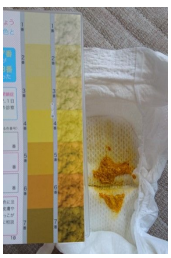
２．研究の目的

本症は発症時期が不明瞭であるため診断が難しく、また健診において血液検査などの精査を受ける例は稀で、あるものの、便色のみで異常に気づくことは難しい例がしばしばみられる。排便状況や便の性状は在宅でも確認できるものの、新生児、乳児期の便は日齢とともに変化し、異常について認識されがたい一面がある。また本症は徴候がみられていてもしばらくは哺乳状況や活気が良好であることも多く、医療者に相談しても精査の必要性が低いと判断され、適切な時期に治療介入がされない例が散見される。見逃し例においては肝機能異常が進み肝硬変となっていることより出血傾向や頭蓋内出血により診断され、治療に難渋する。すでに便色異常を呈していた例があることより、適正な時期の受診と診断の一助のため、便写真による判定を行うことの有用性を検討する。

３．研究の方法

出産後の母に本研究への参加を得て、生後 2 週間以降に児の便写真をメールで送るように指示した。送信先は unchi-project@umin.org（または unchi-project@umin.ac.jp）とし、同意説明資料に QR コードを付記した。
対象者は当施設で出生し、生後に何らかの治療介入を要するものは除外し、生後 2 週間以内に退院できる児とした。
参加者したものは期間中の判定回数の制限はなく、発症する可能性のある生後 3 か月までは何度でも送付可能とした。便写真を医師が判定し、便色の異常、または受診不要の是非について文書で通知した。参加者は当院の 1 か月健診を受診する体制となっており、健診時の児の健康状態、黄疸の有無、その他肝胆道系疾患の徴候の有無について調査した。





４．研究成果

(1) 当施設において対象期間中に 172 人（当研究を開始した 2014 年から 227 人）の母のうち、103 人が写真を送付し、計 118 点の写真を医師が判定した。メール送信した時期は日齢 12～122 日でありうち 6 名で反復（2～7 回）して便写真を送られていた。
添付された写真は機種を問わず色調の評価が可能と考えられたが、色調の判定についてはカラーカードで提示される色調に一致しないものが散見された。研究者は、これまでに本症と診断された児においてカラーカード 4 番を呈する症例もみられることを注意喚起として報告しているが、便の性質上、均一でないことも多く 3～4 番を呈する例で区別しがたい例が散見された。また十分の濃色と考えられる 5，6、7 番において色調は正常と判定されるものの、母と医師、また 2 人の医師同士での判定の相違がみられた。3 者の判定番号がすべて一致するのは全体の 61.0%、母のみ番号が異なるのは 13.5%であった。一方、医師 2 人の間でも相違があったのは 25.4%みられた。母は直接的に目視できており、必ずしも医師の判断より信憑性に欠けるとは言い難く、撮影条件等の影響が示唆された。配布されたカラーカードを用いることで撮影条件の統一と写真の安定化を図っているが、撮影環境（明るさ）や便そのものの色調が均一ではないこと、わずかでも淡い部位があれば 8 段階のスケールのうち低い番号を申告する場合や、ま

たは逆に高い番号で申告する場合もあり、主観による差異が生じると考えられた。
期間中、対象者および当院での出生した児に胆道閉鎖症と診断されたものはなかった。
(2) 今回、対象者は適切に写真の送付ができており、メールの送受信においても不具合等は生じなかった。母親世代にとって携帯電話で写真を撮る手技は日常的に行う機会の多い操作であり、判定手段として用いる当手法は簡便であり有用と考えられた。受診の手間が省け、写真としてデータを蓄積できることで客観性においては有効であるが、写真の送付から判定や判定通知に時間差が生じることにより、さらなる改良の余地があると考えられた。
(3) 医療制度の社会的背景として、生後の児が最初に受診することになる１か月健診は保険診療ではなく､特定の症状や疾患への精査治療を目的としていない｡本症では血清ビリルビン値、尿中硫酸抱合型胆汁酸（USBA）などが診断に有用とされているが、健診時は対応困難であることも診断の遅れの要因として推測される。この状況を補う方法として、本法はメールを用いた判定方法であり侵襲を伴わず試薬や特殊機材を必要とせず、希少疾患である本疾患の診断において有用と考えられた。またツールとして用いる携帯電話、スマートフォンの機能は年々向上しており、医療の場において遠隔診断の一助になることが示唆された。

５．主な発表論文等

〔雑誌論文〕（計 0 件）

〔学会発表〕（計 4 件）

The Pacific Association of Pediatric Surgeons 50th Annual Scientific Meeting: PAPS, 2017.5.29

第 55 回　日本小児外科学会学術集会　2018.5.30

第 54 回　日本小児外科学会学術集会　2017.5.11

第 44 回　日本胆道閉鎖症研究会　2017.10.22

〔図書〕（計 0 件）

〔産業財産権〕
○出願状況（計 0 件）

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
出願年：
国内外の別：

○取得状況（計 0 件）

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
取得年：
国内外の別：

〔その他〕
ホームページ等

６．研究組織

(1)研究分担者

研究分担者氏名：

ローマ字氏名：

所属研究機関名：

部局名：

職名：

研究者番号（8 桁）：

(2)研究協力者

研究協力者氏名：

ローマ字氏名：

※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。