

## 先天性副腎過形成症スクリーニングの費用－便益分析

久繁哲徳\*, 楠田聡\*\*

**要約** 先天性副腎過形成症スクリーニングの経済的評価を実施した。評価方法としては、費用－便益分析を用いた。120万人の新生児を対象として、疾患の発生率を1/1,9800、検査の有効性を、感度100%、特異度99.98%とした。スクリーニングの健康結果としては、死亡が43%、精神遅滞が9%回避できるものとした。また、割引率を7%に設定した。判断分析により、問題を構造化し分析した結果、1患者発見当たり、費用は1681万円、便益は2049万円であった。したがって、スクリーニング実施により、純便益は368万円、費用－便益比は1.22となった。

**見出し語**：先天性副腎過形成症，費用－便益分析，純便益，費用－便益比

### 目的

わが国で実施されている新生児マス・スクリーニング<sup>1)</sup>の中で、クレチン症およびフェニルケトン尿症を除き、臨床的有効性は世界的に未確立であり、また経済的効率もほとんど評価されていない<sup>1-4)</sup>。

とくに、わが国のように、多様なスクリーニング・プログラムが全国的なレベルで実施されている国は、世界的にもまれである。その意味では、わが国で実施されている新生児マス・スクリーニングの臨床的有効性と経済的効率の総合的な評価は、極めて重要な意味を持っている。

そこで、米国予防医学特別委員会の基準に基づく効果の批判的吟味の結果を基礎として<sup>3, 4)</sup>、先天性副腎過形成症スクリーニングの経済的効率に関する評価を実施した。

### 対象と方法

#### 1) 分析モデルの設定

先天性副腎過形成症のマス・スクリーニングの経済的分析を行うために、方法として費用－便益分析 (cost-benefit analysis, CBA) を用いた<sup>5, 6)</sup>。スクリーニング・プログラムの構成と経過、健康結果とともに分析のための情報を把握するために、図1に示すような判断樹を設定した<sup>7)</sup>。

まず、出生状況から、対象集団として新生児12

0万人を設定し、先天性副腎過形成症の発生率を1/1,9800とした<sup>8, 9)</sup>。

スクリーニング実施の代替案では、まずスクリーニング検査の有効性 (感度、特異度) を表1に示した。感度は、従来の調査結果から100%、また特異度は、主なスクリーニング実施機関に対する調査結果から99.983%とした<sup>4, 8, 9)</sup>。

したがって、スクリーニングで正常となった場合は疾患の可能性はないが、異常となった場合は偽陽性例が存在する。その場合、さらに精密検査を行い疾患の確定を行う。

スクリーニングによる健康結果 (表1) は、現在までの報告<sup>1, 9)</sup>によって、早期発見により死亡および精神遅滞の発生が、それぞれ0.7%、0%まで低下する。発見患者については、治療を実施するが、治療と検査の内容および実施頻度については、従来の報告・指針と専門家に対する調査により把握した<sup>1, 10)</sup>。

スクリーニング非実施の代替案の健康結果では、過去の報告から、死亡と精神遅滞が、それぞれ43.1%、8.5%発生することとした<sup>1, 11-13)</sup>。このスクリーニング実施・非実施の差を、スクリーニングの効果として表1に示した。ただし、死亡率は、

\* 鈴鹿医療科学技術大学：医用工学部

\*\* 大阪市立総合医療センター

塩喪失型と単純型の比から、塩喪失型の死亡を推定したものであり、明確な根拠に欠ける。そこで、死亡率の差が20%の場合を想定した感度分析を行った。

## 2) 費用

スクリーニングの費用については以下の項目が挙げられる<sup>5, 6)</sup>。まず、スクリーニング検査費用であり、検査を行うための試薬代および人件費、検査機器の減価償却費、検体の郵送料が含まれる。また患者あるいは偽陽性例の確定診断のための精密検査費が必要となる。これらの費用については主な医療機関および専門家に対して調査を実施した。

次に、患者の治療に関しては、当初1ヵ月間は入院治療を行い、その後、通院治療を終生まで実施することとした。治療の内容については、治療指針と治療機関の調査、専門家の意見に基づいて治療モデルを設定した<sup>1, 10)</sup>。医療費については、診療報酬点数から算定した<sup>14-16)</sup>。

なお、副腎皮質ホルモンの投与量については、年齢別・体重別の投与量を求めた<sup>17, 18)</sup>。また、女兒の場合は、陰核形成術および腔形成術を実施することとした。

治療期間中の検査としては、血中17-OHP, ACTH, レニン, 血中ガラクトース, 血液学的検査, 血液化学一般検査, 超音波検査, 手根骨レントゲン検査などを実施する。

## 3) 便益

スクリーニングの便益については、以下の項目が挙げられる<sup>5, 6)</sup>。まず、<直接便益>は、障害にともなう施設費・養育費・特別教育費が回避されたことにより得られる。

精神遅滞とその後の経過モデルの設定に関しては、福祉事務所、職業安定所などの機関の電話調査を実施した。養護および特殊教育については、通常の義務教育費との差額が便益と計上されるため、厚生省および文部省の資料を分析するとともに、電話調査を行った。また、それと並行して治療機関に対するアンケート調査も実施した。

また<間接便益>として、死亡を防ぐことにより、患者の生産損失の回避が得られる。また、患者自身の精神遅滞による生産損失、および患者の

介護あるいは管理による母親の生産損失が含まれる。

患者の生産損失については、生涯稼働額を新ホフマン方式により算出した<sup>19)</sup>。賃金については、賃金センサスの全産業および企業規模計、学歴計の平均賃金を用いた<sup>20)</sup>。母親の生産損失については、患者と同様の方法を用いて評価を行った。ただし、生産損失の程度については50%と仮定した。

スクリーニング・プログラムでは、費用と便益の発生に時期の違いが認められる。したがって、時間選好 (time preference) が存在するため、すべての費用と便益については、時期の違いを調整するために割り引き (discounting) を行った。すべての費用と便益は、1993年の現在価値に割り引いた<sup>5, 6)</sup>。

## 結果

### 1) プログラム費用

先天性副腎過形成症スクリーニング・プログラムの検査費用は平均449円であり、発見患者1人当たりのスクリーニング検査費用は889万円であった。また、1患者当たりの検査陽性者は4.96人となり、精密検査費用25万円、経過観察費用23万円が追加され、表2に示すように、患者当たりのスクリーニング検査費用は937万円となった。

治療費用は、食事療法、検査・入院・管理費用を総計すると、総額744万円であった(表2)。

以上の結果から、スクリーニング・プログラムの費用は、1681万円となる。

### 2) プログラム便益

直接便益である、回避された施設費・養育費・特別教育費は、表2に示すように、総額66万円であった。

一方、間接便益である、患児および母親の回避された生産損失は、それぞれ1834万円、149万円であり、総額1983万円となる(表2)。

以上の結果から、スクリーニング・プログラムの便益は2049万円となる。

### 3) 費用-便益の統合評価

上記の1患者発見・治療当たりの費用-便益を統合的に評価すると、表2に示すように、便益か

ら費用を差し引いた純便益は368万円、費用に対する便益比の比は、1.22であった。

一方、死亡率の低下を20%とした場合は、便益は1217万円となり、純便益は負となり、-464万円、費用-便益比は、0.72となった。

## 考察

今回の分析結果から、先天性副腎過形成症のスクリーニングは、費用-便益比は1を上回り純便益が正となるため、効率的なプログラムと推定された。

しかしながら、大規模な先天性副腎過形成症スクリーニングが実施されているわが国で見ても、スクリーニングの効果を示す根拠は、米国予防医学特別委員会の基準に基づく先の評価結果ではII-3<sup>4)</sup>、さらに再吟味の結果はIIIに該当することが明らかとなった。その意味では、今回の効果および上記の推定については、過大評価の可能性が否定できない。

その意味では、効果を低めに設定した条件下では、純便益は負、費用-便益比は1を下回り、非効率的であると推定された。したがって、経済的評価の結論は、設定する効果にともない変化すると考えられる。

本来、経済的評価の前提として、臨床的効果が求められるため、こうした点を考慮して、今後さらに、スクリーニング有効性の根拠を確立することが必要と考えられる。

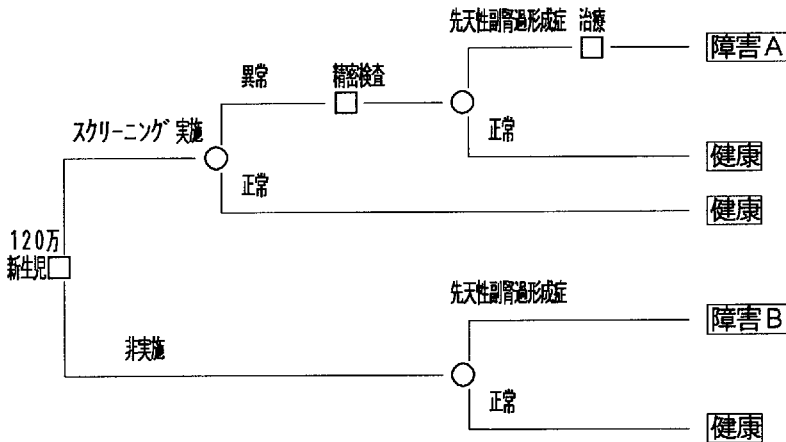
## 文献

- 1) 成瀬 浩, 松田一郎 監修: 新生児マススクリーニングハンドブック, 南江堂, 1989
- 2) Canadian Task Force on the Periodic Health Examination: Task Force report, Can Med Assoc J, 121:1193-1254, 1979
- 3) US Preventive Services Task Force: Guide to Clinical Preventive Services, William & Wilkins, New York, 1989
- 4) 久繁哲徳, 他: マス・スクリーニングシステムのテクノロジー・アセスメントに関する研究, 厚生省心身障害研究: マス・スクリーニングシステムの評価方法に関する研究, 平成4年度研究報告書, 63-136, 1993
- 5) Drummond MF: Principles of economic

appraisal in health care, Oxford Univ Press, 1980

- 6) Drummond MF, et al: Methods for the economic evaluation of health care programmes, Oxford Univ Press, 1989
- 7) 久繁哲徳 編: 臨床判断学, 篠原出版, 1990
- 8) 厚生統計協会: 国民衛生の動向, 厚生指標, 40(9), 1993
- 9) 諏訪城三, 他: マススクリーニングで見えられた21-水酸化酵素欠損症の頻度と管理状況に関する調査成績, 厚生省心身障害研究班: 代謝疾患・内分泌疾患等のマス・スクリーニング, 進行阻止及び長期管理に関する研究, 平成3年度報告書, 71-74, 1992
- 10) 諏訪城三, 他: 先天性副腎過形成症の治療指針, 日児誌, 88:162-164, 1984
- 11) 諏訪城三, 他: 先天性副腎過形成症の障害に関するアンケート調査結果, 厚生省心身障害研究班: マススクリーニングに関する研究, 昭和60年度研究報告書, 274-277, 1986
- 12) 諏訪城三, 他: 先天性副腎過形成症の実態調査, 日児誌, 85:204-210, 1981
- 13) 近藤琢磨, 他: 先天性副腎皮質疾患35例の身体発育および知能発達について, 日児誌, 89:217-218, 1985
- 14) 社会保険研究所: 診療報酬点数表, 社会保険研究所, 1993
- 15) 厚生省: 点数表の解釈, 社会保険研究所, 1993
- 16) 社会保険研究所: 薬価基準, 社会保険研究所, 1993
- 17) 厚生省: 平成2年国民栄養調査, 1991
- 18) 厚生省: 平成2年乳幼児身体発育調査, 1991
- 19) 大蔵省保険第2課: 自賠責保険のすべて, 保険毎日新聞社, 1989
- 20) 労働省: 平成2年賃金構造基本統計調査, 賃金センサス, 1991

図1 先天性副腎過形成症マス・スクリーニングの判断樹



障害A：早期発見・早期治療による軽度の障害

障害B：症状発症後の治療による障害

表1 先天性副腎過形成症マス・スクリーニングの有効性

検査の有効性  
 感度：100%  
 特異度：99.99%

健康結果  
 スクリーニング実施による  
 死亡の回避：42.4%  
 精神遅滞の回避：8.5%  
 IQ：71-85 (6.1%)  
 51-70 (2.4%)

表2 先天性副腎過形成症スクリーニングの費用-便益

発生率：1/1,9800  
 受検者：120,000人 (設定人口)  
 純便益：368万円 (費用-便益比：1.22)  
 (-464) (0.72)

費用：1681万円  
 スクリーニング検査費用：937万円  
 検査・治療・入院・管理費用：744万円  
 便益：2049万円 (1217)  
 直接便益 (施設・養育費)：66万円 (93)  
 間接便益 (生産損失)：1992万円 (1124)  
 患児1834万円, 母親149万円  
 (914) (210)

(1患者発見・治療当り)  
 割引率=7%  
 ( )内は、スクリーニングによる死亡率の差が20%と仮定した場合の数値



## 検索用テキスト OCR(光学的文字認識)ソフト使用

論文の一部ですが、認識率の関係で誤字が含まれる場合があります



要約 先天性副腎過形成症スクリーニングの経済的評価を実施した。評価方法としては、費用-便益分析を用いた。120万人の新生児を対象として、疾患の発生率を 1/1,9800,検査の有効性を、感度 100%,特異度 99.98%とした。スクリーニングの健康結果としては、死亡が 43%,精神遅滞が 9%回避できるものとした。また、割引率を 7%に設定した。判断分析により、問題を構造化し分析した結果、1 患者発見当たり、費用は 1681 万円、便益は 2049 万円であった。したがって、スクリーニング実施により、純便益は 368 万円、費用-便益比は 1.22 となった。