ウィルソン病の生活の質の評価
（分担研究：スクリーニングの評価に関する研究）

久繁哲徳[a]，伊藤道徳[b]，三笠洋明[a]

要約
ウィルソン病スクリーニングの有効性を評価するための指標として，生活の質（効用）による評価が可能か否か，検討を行った。方法としては，評点尺度法（RS），時間得失法（TTO），基準的賭け法（SG）を用いた。その結果，生活の質（死亡０，健康１）は，専門医による効用値（SG）を見ると，肝型（前期）0.99，肝型（中期）0.99，肝型（後期）0.90，神経型（前期）0.97，神経型（中期）0.40，肝神経型0.40であった。その他の方法では，一部の例外を除き，効用値は比較的低い傾向を示していた。また，医学研究者による効用評価もこの結果と同様な値を示していた。

見出し語：ウィルソン病，健康結果，生活の質，効用（utility）

目的

保健医療の臨床的有効性および経済的効率を評価する上で，健康結果の測定は重要な意味をもつ。スクリーニングにおいても同様であり，臨床的有効性の指標としては，最終的な有効性として，健康結果が基本的な条件であることが指摘されている[1]。

しかしながら，最近，健康結果の指標として，生命の量である効果（effectiveness）を用いるだけでは十分でなく，生命の質（quality of life）および効用（utility）もあわせて用いることが不可欠であることが認められるようになった2)。こうした動向は，経済的効率を評価する場合も同様であり，生活の質を指標とした，費用－効用分析（cost-utility analysis）が注目されている[3]。

そこで，今回は，ウィルソン病のスクリーニングの有効性を評価するための健康結果の指標として，生活の質を適用できるかどうか，その可能性について検討を行いたいと考えた。

対象と方法

生活の質を測定するウィルソン病の健康状態については，肝型，神経型，肝神経型の３種類に分類して用いた[4-6]。また，それぞれの種類毎に，発見・治療開始時期にしたがって，前期（乳児期に発見），中期（学童期－思春期に発見），後期（青春期－成人期に発見）の時期に該当する健康状態を分けて，測定を行った。

なお，生活の質を測定する上では，患者が対象となるが，それが困難な場合，保護者を対象とすることになる。しかしながら，生命倫理上の問題が関連するため，本調査を実施する前段階として，測定の可能性を検討することが求められる。そこで，今回は，当該疾患の専門家１名と，医学研究者１名を対象として調査を実施した。

[a]徳島大学医学部・衛生，[b]同・小児科

測定方法としては，現在，国際的に標準化が行われている，評点尺度法（rating scale），時間得失法（time-trade off），基準的賭け法（standard gamble）の３方法[3, 7]を用い，面接調査を実施した。

健康状態については，その特徴を箇条的に要約したシナリオを作成し，標準化した測定が可能となるように試みた。また，効用の測定に際しては，視覚的な補助手段として，健康温度計，得失評価板，回転確率板を用いた[3, 7]。

結果

ウィルソン病の生活の質（効用）の評価結果を表１，２に示した。専門医による効用値（SG）は（表１），肝型の前期および中期，後期，それぞれ0.999，0.999，0.90であった。また，神経型の前期および中期では，それぞれ0.97，0.40であった。肝神経型では0.40であった。

また，TTOの効用値は，肝型の前期および中期，後期で，それぞれ0.71，0.70，0.68であった。また，神経型の前期および中期では，それぞれ0.80，0.39であった。肝神経型では0.39であった。この値は，上記のSGの効用値と比べ低い傾向を示していたが，ほぼ一致していた。

RSの効用値は，いずれの健康状態でも，他の２つの方法に比べてさらに低い傾向を示していた。

一方，医学研究者での評価結果を表２に示した。SGによる効用値では，一部の例外を除き専門医とほぼ同じ値を示していた。また，TTOおよびRSでも同様な値を示していた。

考察

ウィルソン病の健康状態について，生活の質（効用）による評価を試みた。今回の測定は，評価可能性を検討するものであり，対象者としてまずウィルソン病の治療経験のある専門医を選んで実施した。その結果，面接による測定が可能であることが示された。

専門医は，疾患の病状，経過，治療内容など，疾患の全般にわたって十分な理解と知識を持っているため，正確な評価が可能と考えられる。ただし，自分自身が患者となったことを前提として評価を行うため，患者（ないし家族）と異なり，直接的経験をしていない点に問題が残される。

効用の評価方法について，全ての測定法の基準とされているのは，基準的賭けである。というのも，効用には妥当性に対する絶対的な基準，すなわち黄金律存在しないため，最も論理的整合性が高い方法が基準として用いられるからである。

ただし，基準的賭けは，死亡の危険を想定した評価を行うため，測定上判断が困難なことが多い。そのため，その代替法として開発されたのが，時間－得失法である。この方法では，生命を賭けての評価を含まないため，測定はより容易であるが，妥当性の点で問題が残される。また，評点尺度法は，妥当性が低いため，健康状態の順位を大まかに評価を行うことを目的としており，上記２方法の前段にオリエンテーションとして実施されることが多い。

今回の測定結果では，基準的賭け法と時間－得失法とは，ほぼ一致した結果が得られた。前者は，前にも述べたように，死亡の危険を基準として，健康状態の評価を行うため，相対的に値は高い傾向を示していることが認められた。

一方，専門家でない対象に，健康状態に関する説明を行い同様の測定を行った結果，ほぼ同様な結果が得られたことは，専門的な知識の無い患者あるいは一般の人でも，効用の測定は可能であることを示唆するものと考えられる。ただし，この対象の場合も，患者ではないため，健康状態を直接経験していない点に問題が残される。

なお，多様な健康状態に関する既存の効用値の情報を表５に示した[8]。肝型では，前期・中期は望ましい健康状態１に近い値を示していた。後期では軽度の低下が認められ，軽度狭心症と同様な値を示していた。神経型の前期は上記と同じ値であったが，中期は極めて低く，重度狭心症と同様な値を示していた。また，肝臓神経型は，神経型中期と同一であった。

以上のように，今回の調査により，ウィルソン

病の生活の質の評価可能性が示されたことから，今後，さらに対象者を増してその有効性を確認するとともに，より詳細な健康状態の評価を試みる必要があると考えられる。また，生命倫理上の問題，とくにインフォームド・コンセントが得られるならば，患者ないしその家族に対して調査を実施し，今回の結果との差異についても検討を行うことが望まれる。

文献

1) 久繁哲徳：マス・スクリーニングのテクノロジー・アセスメント，日本マス・スクリーニング学会誌，4:21-29,1994

2) Hyatt GH, et al: Measuring health-related quality of life, Ann Intern Med, 118: 622-629,1993

3) 久繁哲徳，西村周三，監訳：ドラモンドら，臨床経済学，篠原出版，1990

4) 青木継稔，他：Wilson 病，小児科診療，55:2305-2312,1992

5) 青木継稔，他：Wilson 病のマススクリーニングの実施と問題点，小児科，35:1079-1091,1992

6) Yarze JC, et al: Wilson's disease: Current status, AJM, 92:643-654,1992

7) 久繁哲徳，編：臨床判断学，篠原出版，1989

8) Torrance GW: Social preferences for health states, Scio-Econ Plan Sci, 10:129-136,1976

表1　ウィルソン病の生活の質（効用）の評価（専門医）

健康状態	RS	TTO	SG
肝型			
前期（ 5歳－75歳）	0.86	0.71	0.999
中期（10歳－60歳）	0.81	0.70	0.999
後期（15歳－50歳）	0.57	0.68	0.90
神経型			
前期（10歳－60歳）	0.67	0.80	0.97
中期（15歳－40歳）	0.38	0.39	0.40
肝神経型			
（15歳－40歳）	0.38	0.39	0.40

表2　ウィルソン病の生活の質（効用）の評価（医学研究者）

健康状態	RS	TTO	SG
肝型			
前期（ 5歳－75歳）	0.90	0.93	0.999
中期（10歳－60歳）	0.70	0.80	0.999
後期（15歳－50歳）	0.50	0.71	0.99
神経型			
前期（10歳－60歳）	0.40	0.60	0.90
中期（15歳－40歳）	0.20	0.40	0.50
肝神経型			
（15歳－40歳）	0.10	0.20	0.45

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

ウィルソン病スクリーニングの有効性を評価するための指標として,生活の質(効用)による評価が可能か否か,検討を行った。方法としては,評点尺度法(RS),時間得失法(TTO),基準的賭け法(SG)を用いた。その結果,生活の質(死亡 0,健康 1)は,専門医による効用値(SG)を見ると,肝型(前期)0.99,肝型(中期)0.99,肝型(後期)0.90,神経型(前期)0.97,神経型(中期)0.40,肝神経型 0.40 であった。その他の方法では,一部の例外を除き,効用値は比較的低い傾向を示していた。また,医学研究者による効用評価もこの結果と同様な値を示していた。