

Figure 3. Incidence per 100,000 population per 5-year age class in Wakayama prefecture between 1998 and 2002.

Table V. Prevalence of ALS per 100,000 population at 31 December 2002.

	No. of cases			Prevalence			95% CI
	Male	Female	Total	Male	Female	Total	
Region A	12	11	23	11.34	9.55	10.40	6.15-14.65
Region B	31	19	50	14.27	7.85	10.89	7.87-13.91
Region C	30	18	48	16.33	8.75	12.32	8.83-15.81
Region C(f)	3	2	5	70.70	38.28	52.81	6.53-99.08
Wakayama Prefecture	73	48	121	14.40	8.53	11.31	9.30-13.33

Table VI. The annual average mortality rate per 100,000 population for ALS in Wakayama Prefecture, 1998-2002.

Region#	Male			Females			Total			95% CI
	No. of deaths	Crude rate	Age adjusted rate*	No. of deaths	Crude rate	Age adjusted rate*	No. of cases	Crude rate	Age adjusted rate*	
A	6	1.13	0.82	4	0.69	0.55	10	0.90	0.68	
B	10	0.92	0.64	5	0.41	0.29	15	0.65	0.47	
C	12	1.31	0.76	9	0.87	0.61	21	1.08	0.69	
Total	28	1.10	0.72	18	0.64	0.44	46	0.86	0.58	0.13-1.04

* Rate adjusted to the Japanese 1990 population.

#:Region as shown in Fig. 1.

ALS patients was 59.5 ± 44.0 (months, mean \pm SD) in region A, 67.98 ± 64.43 in region B, and 80.33 ± 78.95 in region C, showing no significant difference. The disease duration of ALS cases diagnosed between 1998 and 2002 was 23.9 ± 13.25 (months, mean \pm SD) for region A, 22.07 ± 13.57 for region B, and 22.14 ± 14.83 for region C, showing no significant difference.

Discussion

The average annual incidence of ALS in Wakayama prefecture during the period 1998 to 2002 was 2.50

per 100,000 population (male 3.08, female 1.99), and 1.84 (male 2.19, female 1.51) adjusted to the 1990 Japanese population. The present results indicated a steady decline of the incidence rate compared to that of the 1960s survey in Wakayama prefecture, especially for females. Compared to those of the survey during 1989 to 1993, which reported 1.25 for total, 1.86 for male, and 0.61 for female, the present results showed a mild increase. They probably reflect the differences between survey methods, more careful case ascertainment, improvement of diagnostic skills, increased frequency of patients consulting hospitals, prevailing care

information of the disease, and aging of the population. Regarding the geographic regions, there was no significant difference in the incidence rate among the areas except for that of males in the focus area. In the Kozagawa and Koza areas, the crude annual incidence rate of ALS for males was significantly higher than that of Wakayama prefecture in general. The age-adjusted annual incidence in these focus areas was 5.24 (males 7.34, females 3.18) per 100,000 population adjusted to the 1990 Japanese population, showing a decline compared to the incidence in the survey during 1989 to 1993 (3). In other areas of the world, the crude annual incidence was reported 1.0 to 1.5 per 100,000 population in Japan (10, 11), 0.66 to 0.69 in Hokkaido, Japan (12), 1.7 in Minnesota between 1925 and 1998 (13), 0.6 to 2.6 in eight countries including the USA, northern Sweden, Finland, and Canada (14). These reported rates were similar to the present results for females in the total Wakayama prefecture. However, the incidence for males in Wakayama prefecture in all geographic regions including urban, level, and mountainous areas especially in Kozagawa and Koza areas, was higher than those in these reports.

The male/female ratio of ALS cases in the present study was significantly higher compared to that of the general population of the Wakayama prefecture, and the age-class incidence of ALS between 80 and 84 years of age was significantly higher in males than in females. Sample error caused by possibilities of inclusion of the same subject in both indices, 2 periods, and 2 populations on the results might occur. In this study, we used $Z = (r_s - r_L) \sqrt{n} / (r_L - r_L^2)$ (r_s : rates for smaller population; r_L : rates for larger population; n : total sample for smaller population) for analysis of significance of difference, assuming the presence of a sample error. However, the difference was statistically significant, indicating that even if there was a sample error, its influence may have been sufficiently small. Many published studies have reported a male predominance with a range between 1.2:1 and 2.0:1, but an exception is studies from middle-Finland (7) and from Modena, Italy (8). The reason for male predominance remains unknown. A possible explanation is that males are more likely to sustain physical injury, a suspected risk factor for the occurrence of MND (9), or the presence of a protective gene for the clinical manifestation of MND on the X chromosome.

Historically, a markedly higher frequency of MND was first recognized in a small village Mitogawa in Kozagawa town of Kii Peninsula in 1965 (2). The house-to-house survey of the entire population of 1307 people in Mitogawa village had documented four confirmed and six suspected cases. Over the following eight years, further surveys throughout the Kozagawa area had found a high

annual incidence of 14.4 and a crude prevalence rate of 96.9 per 100,000 population (six MND cases in a population of 6191). Over the following 15 years between 1965 and 1980 in the Kozagawa area and total Wakayama prefecture, a steady decrease in the incidence was reported (5). The decline in incidence was partly due to emigration of patients with ALS from the focus area, misdiagnosis, or concealment of the disease because the patient felt stigmatized. After 1980, newly diagnosed patients were found, and a subsequent survey from 1989 to 1993 indicated that the incident rate in Kozagawa area was 9.54. In the present study, the incidence rate in the focus area was 14.14 per 100,000 population for males (7.34 when age-adjusted to the 1990 population). Although the number of elderly people increased compared to that in 1968, the recent incidence rates were similar to those of the initial survey (4). It indicated that the high incidence of ALS still remained in the southern part of Wakayama prefecture, especially in males.

On the Guam islands, the incidence of ALS was higher than anywhere else in the world in the 1960s. From the late 1960s to the early 1980s, a decline in incidence on the islands was recognized. The recent survey also showed the incidence falling below 3 per 100,000 population for males and for females by 1999 (15). While it showed a decline in Wakayama prefecture as a whole similar to that of Guam, the average annual incidence for males in the Kozagawa and Koza areas remained higher than those in other areas of the world. Wakayama prefecture is a rather isolated region, especially the southern part of the prefecture, and the migration of ALS patients during the survey period was limited except for transfers within the same prefecture (one ALS patient transferred to another prefecture). In the Hobara area, where the markedly high incidence of ALS and Parkinsonian-dementia complex (PDC) was recently reported (16), a familial trait was demonstrated, as in the Guam islands, although genetic contribution to the pathogenesis remains unclear. There were five familial ALS cases in Wakayama prefecture (3.8%, one case in the Koza area), which was similar to the numbers reported elsewhere in the world. Considering the lack of familial trait and the decline in incidence in other areas of Wakayama prefecture, the high incidence of ALS in the Kozagawa and Koza areas may be due more to environmental than genetic factors. It may also be ascribed to some socio-economic factors and a possible unknown gender-specific risk factor.

The crude prevalence of ALS in Wakayama prefecture was 11.31 on 31 December 2002 in this study. It was 52.81 (males 70.70, females 38.28) in the Kozagawa and Koza areas, which was higher than the prevalence in other reports. The crude prevalence was 4.7 per 100,000 population in

Ireland (17), and 4.02 in Modena, Italy (8). It was reported to be 73.9 per 100,000 population in the Koza area in 1963(2), and 152.7 per 100,000 population in the Hobara area (4). The prevalence throughout Wakayama prefecture in the 1960s had been reported to be as high as 20.0 to 33.3 per 100,000 population (2). Compared to the rates in these previous reports, the present prevalence in the prefecture decreased; however, a markedly high rate in the focus areas still persisted. The age-adjusted mortality rate in Wakayama prefecture in the present survey was 0.58 per 100,000 population (males 0.72, females 0.44), which was lower compared to 0.93 reported between 1990 and 1994 in Wakayama prefecture (18) and to other reports from countries including Italy (8), Scotland, Canada (19), and the United States (20). The high prevalence and low mortality rate in the present survey may partly reflect an improvement in community care systems and care skills including mechanical ventilators, NIPPV and PEG. Thirteen cases (10.7%) with ALS in Wakayama prefecture, however, have survived without the use of mechanical ventilators for over 10 years. A long clinical duration was observed to be one of the characteristics of Kii ALS, and was similar to that of Guam ALS (21).

The average age at onset of ALS in the present study was 64.7 years old, and the age specific incidence for males per 100,000 population showed two peaks at 60 to 64, and 80 to 84 years old. The average age at onset in the present survey increased compared to that in previous Japanese reports, 54.2 years in Japan in 1982 (18), 58.2 in Hokkaido between 1980 and 1989 (12). The mean age at onset in the present survey was similar to that reported in other countries, 65 years in California between 1970 and 1986 (22), 63 years in Minnesota between 1925 and 1998 (13). In Israel, the age-specific incidence and the mean age of onset increased from 1959 to 1974 (23). The increase in age at onset may be partially explained by an increased elderly population with a high risk for ALS. Changes in living habits (e.g., dietary patterns) and environmental factors may have also played some role in the increased age at onset.

Conclusions

The present results indicated that the incidence of ALS in Wakayama prefecture decreased compared to that reported in 1968, and for females the incidence of ALS in Wakayama prefecture was similar to those reported in other parts of the world. However, a high incidence of ALS persisted among males in the Kozagawa and Koza areas of Wakayama prefecture. Some environmental factors and gender specificity may be related to the development of ALS in Wakayama prefecture.

Acknowledgements

The authors especially thank Professor Yoshiro Yase, Kansai College of Oriental Medicine for reviewing the manuscript and for generous encouragement. We also thank Dr. Hisao Oka, Wakayama Medical Association, and Dr. Yushiro Uebayashi for helpful advice.

References

1. Kusui K. Epidemiological study on amyotrophic lateral sclerosis (ALS) and other neighboring motor neuron diseases in Kii Peninsula. *Psychiat Neurol Jpn*. 1962;65:86-99.
2. Kimura K. Studies of amyotrophic lateral sclerosis in the Kozagawa district in the Kii Peninsula. *Jpn Wakayama Med J*. 1965;9:177-92.
3. Yoshida S, Uebayashi Y, Kihira T, Kohmoto J, Wakayama I, Taguchi S, Yase Y. Epidemiology of motor neuron disease in the Kii Peninsula of Japan, 1989-1993: active or disappearing focus? *J Neurol Sci*. 1998;155:146-55.
4. Yase Y, Matsumoto N, Yoshimasu F, Handa Y, Kumamoto T. Motor neuron disease in the Kii Peninsula, Japan. *Proc Aust Assoc Neurol*. 1968;5:335-9.
5. Yase Y, Yoshida S, Kihira T, Wakayama I, Komoto J. Kii ALS dementia. *Neuropathology*. 2002;21:105-109.
6. World Federation of Neurology Research Group on Motor Neuron Diseases: El Escorial revisited: revised criteria for the diagnosis of amyotrophic lateral sclerosis. A Consensus Conference held at Airlie House, Warrenton, Virginia April 2-4, 1998.
7. Murros K, Fogelholm R. Amyotrophic lateral sclerosis in middle-Finland: an epidemiological study. *Acta Neurol Scand*. 1983;67:41-7.
8. Mandrioli J, Faglioni P, Merelli E, Sola P. The epidemiology of ALS in Modena, Italy. *Neurology*. 2003;60:683-9.
9. Kondo K, Tsubaki T. Case-control studies of motor neuron disease: association with mechanical injuries. *Arch Neurol*. 1981;38:220-6.
10. Kondo K, Tsubaki T. Changing mortality patterns of motor neuron disease in Japan. *J Neurol Sci*. 1977;32:411-24.
11. Kondo K. Population dynamics of motor neuron disease. In: Tsubaki T, Yoyokura Y, eds. *Amyotrophic Lateral Sclerosis*. Baltimore: University Park Press; 1979. pp 61-1031.
12. Tashiro K, Okumura H, Morikawa F, Fujiki N, Hamada T, Yanagihara T, et al. The geographic distribution of ALS in Hokkaido Island multi-Institutes-collaborating study. In: *Annual Report of the Research Committee of CNS Degenerative Diseases*, The Ministry of Health and Welfare of Japan. 1990. pp 113-6.
13. Sorenson JE, Stalker AP, Kurland LT, Windebank AJ. Amyotrophic lateral sclerosis in Olmsted County, Minnesota, 1925 to 1998. *Neurology*. 2002;59:280-2.
14. Chancellor AM, Warlow CP. Adult onset motor neuron disease: worldwide mortality, incidence and distribution since 1950. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1992;55:1106-15.
15. Plato CC, Garruto RM, Galasko D, Craig U-K, Plato M, Gamst A, et al. Amyotrophic lateral sclerosis and Parkinsonism-dementia complex of Guam: changing incidence rates during the past 60 years. *Am J Epidemiol*. 2003;157:149-57.
16. Kuzuhara S, Kokubo Y, Sasaki R, Narita Y, Yabana T, Hasegawa M, Iwatsubo T. Familial amyotrophic lateral sclerosis and Parkinsonism-dementia complex of the Kii peninsula of Japan: clinical and neuropathological study and tau analysis. *Ann Neurol*. 2001;49:501-11.
17. Traynor BJ, Codd MB, Corr B, Forde C, Frost E, Hardiman O. Incidence and prevalence of ALS in Ireland, 1995-1997. A population-based study. *Neurology*. 1999;52:504-9.

18. Uebayashi U, Yase Y, Tanaka H, Shimada Y, Toyokura Y. Prognosis of motor neuron disease in Japan. *Neuroepidemiology*. 1983;2:243-56.
19. Hudson AJ, Davenport A, Hader WJ. The incidence of amyotrophic lateral sclerosis in southwestern Ontario, Canada. *Neurology*. 1986;36:1524-8.
20. Riggs JE. Longitudinal Gompertzian analysis of amyotrophic lateral sclerosis mortality in the USA, 1977-1986: evidence for an inherently susceptible population subset. *Mech Ageing Dev*. 1990;55:207-20.
21. Kihira T, Yoshida S, Mitani K, Yasui M, Yase Y. ALS in the Kii Peninsula of Japan, with special reference to neurofibrillary tangles and aluminum. *Neuropathology*. 1993; 13:125-36.
22. Norris F, Shepherd R, Denys E, UK, Mukai E, Elias L, Holden D, Norris H. Onset, natural history and outcome in idiopathic adult motor neuron disease. *J Neurol Sci*. 1993;118:48-55.
23. Kahana E, Zilber N. Changes in the incidence of amyotrophic lateral sclerosis in Israel. *Arch Neurol*. 1984;41:157-60.

特定疾患治療研究事業医療受給者の経年変化

受給者調査リンケージデータを用いた解析

シバサキ トモミ ナガイ マサキ フチガミ ヒロシ ニシノ モトコ
 柴崎 智美* 永井 正規* 淵上 博司^{2*} 仁科 基子*
 オオタ アキヨ カワムラ タカシ オオノ ヨシユキ
 太田 晶子* 川村 孝^{3*} 大野 良之^{4*}

目的 過去に実施された4回の医療受給者全国調査で入手された情報をリンケージし、最長13年間にわたる受給継続状況を、疾患別、性年齢別、医療保険の種類別、都道府県別に明らかにする。また性別・疾患別の受給継続率を推計し、特定疾患治療研究事業対象者の医療受給者証交付継続状況を明らかにする。

方法 1992年度給付対象であった34疾患の受給者について、過去4回(1984年度、88年度、92年度、97年度)実施した医療受給者全国調査の各年度のデータを、疾患毎に①性、生年月日と居住地都道府県が一致した場合に同一者とみなす②受給者番号と居住地市町村が年度間で一致した場合は、性、生年月日の年号、年、月と日の5つのなかで4つが一致すれば同一者とみなすとする方法で個人単位のリンケージを行った。各調査年度に観察された受給者がそれ以降に実施された全国調査の時点でも受給しているか否かで継続状況を区分した。この区分方法で、疾患毎に各年度の受給者のその後4(または5)、8(または9)、13年間の継続率を算出した。さらに、受給継続率の推計値を単年毎に算出し、84、88、92年度受給者から得られた単年毎の継続率を平均した平均受給継続率も算出した。

結果 受給者全体では、約70%が4年、約55%が8~9年受給を継続し、25~30%程度が受給を4年以内に中止している。疾患別には、全身性エリテマトーデスやベーチェット病などのいわゆる自己免疫疾患で長期に受給を継続する者の割合が高く、劇症肝炎、アミロイドーシス、筋萎縮性側索硬化症など生命予後の比較的不良な疾患で継続する割合が低い。また男より女の方が長期継続者の割合が高い。

受給継続率は、受給者全体よりも各調査年度の新規受給者で低く、給付対象となった年度が古い疾患では、男の受給継続率が女よりも低くなっているが、最近給付対象となった疾患では男の方が女よりも高い傾向がある。

結論 過去4回の医療受給者調査のリンケージデータを利用することによって、性・年齢別、都道府県別、疾患別、保険の種類別に特定疾患医療受給者の受給継続状況、最長13年後までの受給継続率の特徴を明らかにすることができた。特定疾患に関する医療制度を始めとする医療・保険制度の改革が行われていく中で、これらの社会的な要因によって受給継続状況は変化することが予測され、今後も注意深い観察が必要である。

Key words : 特定疾患治療研究事業, 医療受給者, 全国調査, リンケージデータ

I 目 的

* 埼玉医科大学公衆衛生学

^{2*} 埼玉県健康づくり事業団

^{3*} 京都大学・保健管理センター

^{4*} 独立行政法人・労働者健康福祉機構旭労災病院
 〒350-0495 埼玉県入間郡毛呂山町毛呂本郷38
 埼玉医科大学公衆衛生学教室 柴崎智美

特定疾患治療研究事業は、対象疾患(2004年4月現在45疾患)に罹患した患者が申請により医療費の自己負担分を公費で補助している。厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班(現特定疾患の疫学に関する研究班)では、1984年度(昭和59年

度)^{1~3)}, 1988年度(昭和63年度)^{4~7)}, 1992年度(平成4年度)^{8~11)}, 1997年度(平成9年度)^{12~15)}の計4回にわたり, この制度を利用する患者(受給者)についての悉皆調査を実施した。これらの調査は, 対象とする特定疾患医療受給者の性, 年齢, 給付開始年度, 医療保険の種類, 受診医療機関, 診療科などについての状況を断面的に明らかにし, 特定疾患対策及び特定疾患治療研究の発展に役立てることを目的として行われ, 疫学的, 行政的に重要な資料を提供してきた。一方, 医療受給者を継続的に観察し受給継続状況を把握することは, 疾患の予防, 治療研究等の発展に役立つだけでなく, 今後の医療対策の課題を明確にする上でも重要であり, これを全国規模で把握することの意義は大きい。橋本らは, 84年度から92年度までの医療受給者について, 同様の方法で3回の全国調査データをレコードリンケージし, 医療費受給の最長8年間の開始・中止状況を報告した¹⁶⁾。その後97年度にも同様の全国調査が実施されたため, 本報告は84, 88, 92, 97年度の4回の医療受給者全国調査で入手された情報を個人単位でレコードリンケージし, 最長13年間における受給状況を, 疾患別, 性・年齢階級別, 医療保険の種類別, 都道府県別に明らかにするものである。さらに, 性別・疾患別の受給継続率を推計し, 特定疾患治療研究事業対象者の医療受給者証交付継続状況を明らかにする。

II 方 法

1. 資料

過去4回(1984年度, 1988年度, 1992年度, 1997年度)実施した医療受給者全国調査データを用いた。この資料には, 受給者番号(疾患番号を含む), 受給者の性別, 生年月日, 居住地, 医療保険の種類, 給付開始年度, 受療医療機関の所在地, 診療科等の項目が含まれている。各調査年度の受給者数は, 84年度104,771人, 88年度173,637人, 92年度247,726人, 97年度399,719人(84年度の3.8倍)である(表1)。

2. レコードリンケージ方法

医療受給者全国調査の調査項目の中には個人が特定できる氏名や詳しい住所は含まれていない。また, 受給者番号も年度間で異なる場合があるため各年度の受給者を厳密にリンクすることはでき

表1 調査年度別医療受給者数

調査年度	医療受給者数	対象疾患数
1984年度	104,771	26
1988年度	173,637	30
1992年度	247,726	34
1997年度	399,719	39

ない。ここでは, 橋本らの方法¹⁶⁾に準じて, 疾患毎に, 各年度間で①性, 生年月日と居住地都道府県が一致した場合に同一者としてリンクする, ②受給者番号と居住地市町村が年度間で一致した場合は, 性, 生年月日の年号, 年, 月と日の5つのなかで4つが一致すれば同一者としてリンクする, とする方法で個人単位のレコードリンケージを行った。このような方法を採用した理由は, 大阪府では84年度市町村コードが他の年度で使用している市町村コードと異なっておりそのコードがどの市町村に対応するかが不明なこと, 京都府では92年度市町村コードが未回答であること, 性, 生年月日の記載に若干の誤りの可能性があること等のためである。

各年度間のリンク状況をみると, 1984年度と1988年度のデータがリンクされたのは72,375人であるが, これは84年度の受給者104,771人の69.1%, 88年度の受給者173,637人の41.7%に相当する。リンクされた患者の中で, 受給者番号, 居住地市町村が両方一致した患者は, 84年度と97年度のリンクでは最も低く55.8%であるが, 他の年度間ではおよそ6~8割程度であった(表2)。また, 表としては示さないが, 疾患と受給者番号, 居住地市町村が年度間で一致した者で, さらに性, 生年月日の年号, 年, 月と日の5つの中の4つが一致したことにより同一患者とみなした者の割合はリンクしたデータの約0.6%であり, 頻度としては低かった。

3. 解析方法

1) 受給者の継続状況

84, 88, 92年度の各調査年度に観察された受給者が, それ以降に実施された全国調査の時点でも受給しているか否かで継続状況を区分した。

84年度受給者については, 84年度以降に実施されたすべての調査で受給していた者(13年継続: 84889297と示す。以下同様), 88年度と92年度は

表2 各調査年度間のリンク状況

リンクに用いた項目 受給者番号	居住地市町村	リンクした年度					
		84年度 と88年度	84年度 と92年度	84年度 と97年度	88年度 と92年度	88年度 と97年度	92年度 と97年度
○	○	55,546 (76.7%)	38,510 (63.5%)	27,622 (55.8%)	97,315 (77.9%)	67,428 (68.7%)	132,840 (77.1%)
○	×	3,767 (5.2%)	5,942 (9.8%)	5,033 (10.2%)	10,533 (8.4%)	9,693 (9.9%)	13,662 (7.9%)
×	○	7,013 (9.7%)	9,750 (16.1%)	9,945 (20.1%)	14,518 (11.6%)	16,388 (16.7%)	21,766 (12.6%)
×	×	6,049 (8.4%)	6,414 (10.6%)	6,932 (14.0%)	2,574 (2.1%)	4,624 (4.7%)	4,031 (2.3%)
リンクされた受給者数		72,375 (100%)	60,616 (100%)	49,532 (100%)	124,940 (100%)	98,133 (100%)	172,299 (100%)
調査年度の全受給者（括弧内）に対するリンクされた受給者の割合							
1984年度 (104,771)		69.1%	57.9%	47.3%	—	—	—
1988年度 (173,637)		41.7%	—	—	72.0%	56.5%	—
1992年度 (247,726)		—	24.5%	—	50.4%	—	69.6%
1997年度 (399,719)		—	—	12.4%	—	24.6%	43.1%

注：2回の全国調査のデータを個人毎にリンクする際に用いた受給者番号と居住地市町村の一致状況別（○：一致，×：不一致）に，リンクした年度別の受給者数を示した。

表3 受給継続率の推計方法

各調査年度の受給者数(Z)，継続率(P)，継続年数(y)を以下のように示す。

84年度受給者	88年度受給者	92年度受給者
Z10 84年度受給者数	Z20 88年度受給者数	Z30 92年度受給者数
X11 4年継続率	X21 4年継続率	X31 5年継続率
X12 8年継続率	X22 9年継続率	
X13 13年継続率		
y11 継続年=4	y21 継続年=4	y31 継続年=5
y12 継続年=8	y22 継続年=9	
y13 継続年=13		

各調査年度の年単位の受給継続率の式を以下に示す。

84年度受給者	88年度受給者	92年度受給者
0年継続率 P10=1	P20=1	P30=1
P'11 = (X11) ^{1/y11}	P'21 = (X21) ^{1/y21}	P'31 = (X31) ^{1/y31}
1年継続率 P11 = P10 * P'11	P21 = P20 * P'21	P31 = P30 * P'31
2年継続率 P12 = P11 * P'11 = P10 * P'11 ²	P22 = P21 * P'21 = P20 * P'21 ²	P32 = P31 * P'31 = P30 * P'31 ²
3年継続率 P13 = P12 * P'11 = P10 * P'11 ³	P23 = P22 * P'21 = P20 * P'21 ³	P33 = P32 * P'31 = P30 * P'31 ³
4年継続率 P14 = P13 * P'11 = P10 * P'11 ⁴ = X11	P24 = P23 * P'21 = P20 * P'21 ⁴ = X21	P34 = P33 * P'31 = P30 * P'31 ⁴
P'12 = (X12/X11) ^{1/(y12-y11)}	P'22 = (X22/X21) ^{1/(y22-y21)}	
5年継続率 P15 = P14 * P'12	P25 = P24 * P'22	P35 = P34 * P'31 = P30 * P'31 ⁵ = X31
6年継続率 P16 = P15 * P'12 = P14 * P'12 ²	P26 = P25 * P'22 = P24 * P'22 ²	
7年継続率 P17 = P16 * P'12 = P14 * P'12 ³	P27 = P26 * P'22 = P24 * P'22 ³	
8年継続率 P18 = P17 * P'12 = P14 * P'12 ⁴ = X12	P28 = P27 * P'22 = P24 * P'22 ⁴	
P'13 = (X13/X12) ^{1/(y13-y12)}		
9年継続率 P19 = P18 * P'13	P29 = P28 * P'22 = P24 * P'22 ⁵ = X22	
10年継続率 P1a = P19 * P'13 = P18 * P'13 ²		
11年継続率 P1b = P1a * P'13 = P18 * P'13 ³		
12年継続率 P1c = P1b * P'13 = P18 * P'13 ⁴		
13年継続率 P1d = P1c * P'13 = P18 * P'13 ⁵ = X13		

注：各調査年度のデータをリンクした結果から得られた4(5)年継続率，8(9)年継続率，13年継続率(P')を用い，その区間における単年毎の継続率は指数関数的に減少していると仮定し，年単位の受給継続率(P)を推計した。下線が引いてあるのは継続率の推計式である。

表4 平均受給継続率の計算方法

各調査年度の継続受給者数(Z), 継続年数(y), i年後推計受給者数(W)を以下のように示す。

84年度受給者	Z10	84年度受給者数	88年度受給者	Z20	88年度受給者数	92年度受給者	Z30	92年度受給者数	平均受給継続率
1年後受給者数	Z11	4年継続受給者数	Z21	4年継続受給者数	Z24	4年継続受給者数	Z31	5年継続受給者数	$K0 = S0/S0$
2年後受給者数	Z12	8年継続受給者数	Z22	8年継続受給者数	Z29	9年継続受給者数	W31	i年後推計受給者数	$K1 = K0 * S1/S0$
3年後受給者数	Z13	13年継続受給者数	W21	i年後推計受給者数	Y21	継続年 = 4	y31	継続年数 = 5	$K2 = K1 * S2/S1$
4年後受給者数	P'11	$(X11)^{1/y11}$	W22	i年後推計受給者数	Y22	継続年 = 9	W32	$W31 * P'31$	$K3 = K2 * S3/S2$
5年後受給者数	W11	$Z10 * P'11$	W23	$W22 * P'21$	Y24	継続年 = 13	W33	$W32 * P'31$	$K4 = K3 * S4/S3$
6年後受給者数	W12	$W11 * P'12$	W24	$W23 * P'21$	P'22	$(X22/X21)^{1/(y22-y21)}$	W34	$W33 * P'31$	$K5 = K4 * S5/S4$
7年後受給者数	W13	$W12 * P'13$	W25	$Z24 * P'22$	W26	$W25 * P'22$	W35	$W34 * P'31$	$K6 = K5 * S6/S5$
8年後受給者数	W14	$W13 * P'14$	W27	$W26 * P'22$	W28	$W27 * P'22$	S5'	$W15 + W25 + Z35$	$K7 = K6 * S7/S6$
9年後受給者数	P'12	$(X12/X11)^{1/(y12-y11)}$	W28	$W27 * P'22$	W29	$W28 * P'22$	S6'	$W16 + W26$	$K8 = K7 * S8/S7$
10年後受給者数	W15	$Z14 * P'12$	W29	$W28 * P'22$	W30	$W29 * P'22$	S7'	$W17 + W27$	$K9 = K8 * S9/S8$
11年後受給者数	W16	$W15 * P'12$	W31	$W30 * P'31$	W32	$W31 * P'31$	S8'	$W18 + W28$	$K10 = K9 * S10/S9$
12年後受給者数	W17	$W16 * P'13$	W32	$W31 * P'31$	W33	$W32 * P'31$	S9'	$W19 + Z29$	$K11 = K10 * S11/S10$
13年後受給者数	W18	$W17 * P'13$	W33	$W32 * P'31$	W34	$W33 * P'31$	S10'	$W19 + Z29$	$K12 = K11 * S12/S11$
	P'13	$(X13/X12)^{1/(y13-y12)}$	W34	$W33 * P'31$	W35	$W34 * P'31$	S11'	$W19 + Z29$	$K13 = K12 * S13/S12$
	W19	$Z18 * P'13$	W35	$W34 * P'31$			S12'		
	W1a	$W19 * P'13$					S13'		
	W1b	$W1a * P'13$							
	W1c	$W1b * P'13$							
	W1d	$W1c * P'13$							

注：表3で示した方法で各調査年度の継続率から推計した単年毎の継続率より単年毎の受給者数を推計する。推計された84年度、88年度、92年度の受給者数の総和を単年毎に算出し、各調査年度の継続率が一律であったと仮定した場合の平均受給継続率(K)を推計した。

受給していたが、97年度は非受給であった者（8年継続：848892×）、88年度は受給していたが、以後非受給であった者（4年継続：8488××）、88年度以降いずれの年度も非受給であった者（継続なし：84×××）、一度受給を中止したが、再び受給を開始した者の計5区分で示した。同様に88年度受給者は9年継続（889297）、4年継続（8892×）、継続なし（88××）、中止後再開（88×97）の4区分、92年度の受給者は、5年継続（9297）、継続なし（92×）の2区分でそれぞれ示した。

また、84年度受給者に関しては、全受給者、新規受給者別に疾患別、性・年齢階級別、都道府県別、保険の種類別の継続状況を示した。なお、集計の際の年齢としては、起点となる調査年度の年齢を用いた。

2) 受給継続率の推計

前記の区分方法を用いて、疾患毎に各年度の受給者のその後4（または5）、8（または9）、13年間の継続率を算出した。さらに、その区間の継続率は単年度毎に指数関数的に減少していると仮定し、単年毎の受給継続率の推計値を算出した（表3）。また、調査年度によるデータのばらつきを考慮して、84、88、92年度受給者から得られた単年毎の継続率を平均した平均受給継続率を以下のように推計した（表4）。まず各調査年度の継続率から推計した年単位の継続率より、年単位の受給者数を推計した。推計された84、88、92年度受給者の総和を年単位で求め、得られた年単位の受給者の総和から平均受給継続率を推計した。ここで84年度に受給対象者であったベーチェット病（1972年4月1日給付対象）から特発性拡張型心筋症（1985年1月1日給付対象）までの26疾患は13年後までの平均受給継続率、その後給付対象となったシャイドレーガー症候群から広汎性脊椎管狭窄症（1989年1月1日給付対象）の4疾患は9年後まで、原発性胆汁性肝硬変から混合性結合組織病（1993年1月1日給付対象）の4疾患は5年後までの平均受給継続率を観察した。

Ⅲ 結 果

1. 1984年度受給者の継続状況

84年度に受給した104,771人のうち、13年継続した者は44,552人（42.5%）、8年継続は12,484人

（11.9%）、4年継続は13,892人（13.3%）、中止後再開は6,113人（5.8%）である（表5）。つまり84年度受給者の約70%が、4年後まで継続して受給しており、約55%が8年後、40%が13年間継続して受給している。これらは、88年度受給者、92年度受給者でも同じような傾向がみられた。

新規受給者に絞ってみると、84年度の新規受給者35,738人のうち、13年継続は14,394人（40.3%）、8年継続は3,907人（10.9%）、4年継続は4,577人（12.8%）、継続なしは10,590人（29.6%）、中止後再開は2,270人（6.4%）であり、継続して受給する患者の割合は全受給者よりもやや低い。

1) 疾患別継続状況

84年度受給者の疾患別継続状況を図1に、84年度新規受給者の疾患別継続状況を図2に示す。13年継続受給者の割合が最も多いのは、全身性エリテマトーデスで58.7%、ついでベーチェット病56.1%、大動脈炎症候群54.3%である。また、継続なしが最も多いのは劇症肝炎85.9%、アミロイドーシス66.7%、筋萎縮性側索硬化症66.1%である。中止後再開は、劇症肝炎の0.5%から特発性拡張型心筋症の15.6%となっている。新規受給者でも同様の傾向がみられる。

2) 性年齢階級別継続状況

84年度受給者の性年齢階級別受給継続状況を図3に示す。女は13年継続者が46.4%と男（34.2%）に比べて高く、継続なしの割合が低い。年齢階級別にみると、男女ともに30歳代、40歳代で13年受給継続者の割合が高く、女の85歳以上を除き年齢が高くなるほど、年齢が低くなるほど継続なしの者の割合が高くなっている。これは新規受給者でも同じ傾向がみられる。

3) 都道府県別継続状況

84年度受給者で13年継続受給者の割合が最も高いのは、栃木県（52.9%）、ついで神奈川県（52.8%）、新潟県（52.0%）で、低いのは岐阜県（27.7%）、三重県（29.7%）、山口県（30.4%）である。また、福井県（40.8%）、岐阜県（38.7%）、山形県（38.4%）では継続なしの割合が高い。

4) 保険の種類別継続状況

84年度受給者で、継続なしの割合が最も高いのは、老人保健（48.0%）で、ついで国保（28.1%）、退職者医療（27.2%）である。健康保険は本人（21.9%）、家族（24.4%）ともに継続なしが少な

表5 84, 88, 92年度受給者の各調査年度までの継続状況

調査年度別継続状況	調査年度				全受給者数	新規受給者数	新規受給者割合(%)
	84	88	92	97			
1984年度受給者全体	○	?	?	?	104,771(100%)	35,738(100%)	34.1
13年継続	○	○	○	○	44,552(42.5%)	14,394(40.3%)	32.3
8年継続	○	○	○	×	12,484(11.9%)	3,907(10.9%)	31.3
4年継続	○	○	×	×	13,892(13.3%)	4,577(12.8%)	32.9
継続なし	○	×	×	×	27,730(26.5%)	10,590(29.6%)	38.2
中止後再開 (小計)					6,113(5.8%)	2,270(6.4%)	37.1
(再掲)	○	○	×	○	1,447(1.4%)	523(1.5%)	36.1
	○	×	○	○	2,447(2.3%)	875(2.4%)	35.8
	○	×	○	×	1,133(1.1%)	429(1.2%)	37.9
	○	×	×	○	1,086(1.0%)	443(1.2%)	40.8
1988年度受給者全体	?	○	?	?	173,637(100%)	32,221(100%)	18.6
9年継続	?	○	○	○	94,217(54.3%)	14,199(44.1%)	15.1
4年継続	?	○	○	×	30,723(17.7%)	5,780(17.9%)	18.8
継続なし	?	○	×	×	44,781(25.8%)	11,394(35.4%)	25.4
中止後再開	?	○	×	○	3,916(2.3%)	848(2.6%)	21.7
1992年度受給者全体	?	?	○	?	247,726(100%)	41,230(100%)	16.6
5年継続	?	?	○	○	172,299(69.6%)	24,552(59.5%)	14.2
継続なし	?	?	○	×	75,427(30.4%)	16,678(40.5%)	22.1

注：調査年度別に継続期間別の受給者数，調査年度の受給者全体に対する割合を示した。各年度の受給状況を，「○：受給」，「×：非受給」，「?：受給または非受給」と表した。継続状況別に全受給者に占める新規受給者の割合を新規受給者割合*：(新規受給者数)/(全受給者数)×100で示した。

い。13年継続者の割合は，健康保険本人が最も多く49.5%，ついで健康保険家族46.2%，国保39.8%，退職者医療31.5%，老人保健13.8%となっている。

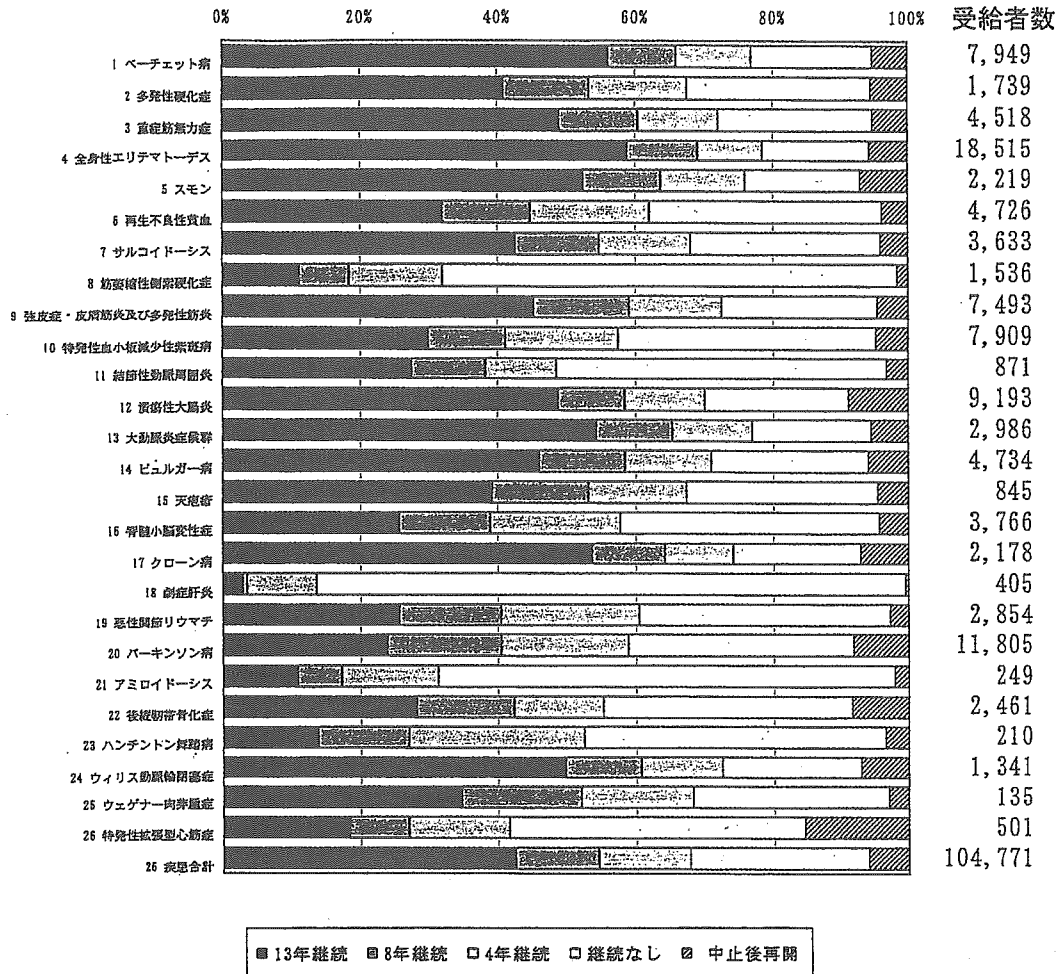
2. 受給継続率

全疾患の各調査年度における単年毎の受給継続率および，平均受給継続率を受給者と新規受給者別に示す(図4)。全受給者の受給継続率は84年度が最も低く，88年度，92年度で高くなっている。新規受給者の継続率は全受給者と比較して，どの年度でも低く，年度別にみると，88年度受給者の受給継続率が最も低く，次いで，84年度，92年度の順となっている。3年度の平均受給率は，2年後まで継続する患者はおおよそ85%，7年後は60%，10～11年後まで継続する患者はおおよそ50%である(表6)。

疾患別性別の平均受給継続率を表6に示した。13年後平均受給継続率ではビュルガー病，筋萎縮性側索硬化症を除き，いずれの疾患も男の平均受

給継続率が女よりも低かった。平均受給継続率が最も高いのは，男ではベーチェット病(0.571)，女では全身性エリテマトーデス(0.625)で，最も低いのは男女ともに劇症肝炎(男0.039，女0.093)，次いで男ではアミロイドーシス(0.074)，女では筋萎縮性側索硬化症(0.112)である。それに対して，85年以降に受給対象となった疾患の平均受給継続率をみると，9年後平均受給継続率では，広範性脊柱管狭窄症を除く疾患で男の方が女よりも高く，5年後平均受給継続率では原発性胆汁性肝硬変を除き，男の方が女よりも高くなっており，男の方が受給継続率が高い疾患が多い。9年後受給継続率では，シャイドレーガー症候群が低く，男では0.064，女では0.048である。5年後受給継続率では，0.1未満の疾患は男女ともに無い。全体的にみると，ベーチェット病，重症筋無力症，全身性エリテマトーデス，スモン，潰瘍性大腸炎，大動脈炎症候群，クローン病，ウイリス動脈輪閉塞症では比較的継続率が高

図1 84年度受給者の各調査年度までの継続状況，疾患別



く、筋萎縮性側索硬化症，劇症肝炎，パーキンソン病，アミロイドーシス，ハンチントン舞踏病は継続率の低い疾患と考えられる。

特徴的な疾患としては、パーキンソン病とハンチントン舞踏病は、年次を追うに従ってほぼ一定で受給継続率が低下しているのに対し、筋萎縮性側索硬化症，劇症肝炎，アミロイドーシスでは、継続年数 2～3 年での受給継続率の低下が大きい。

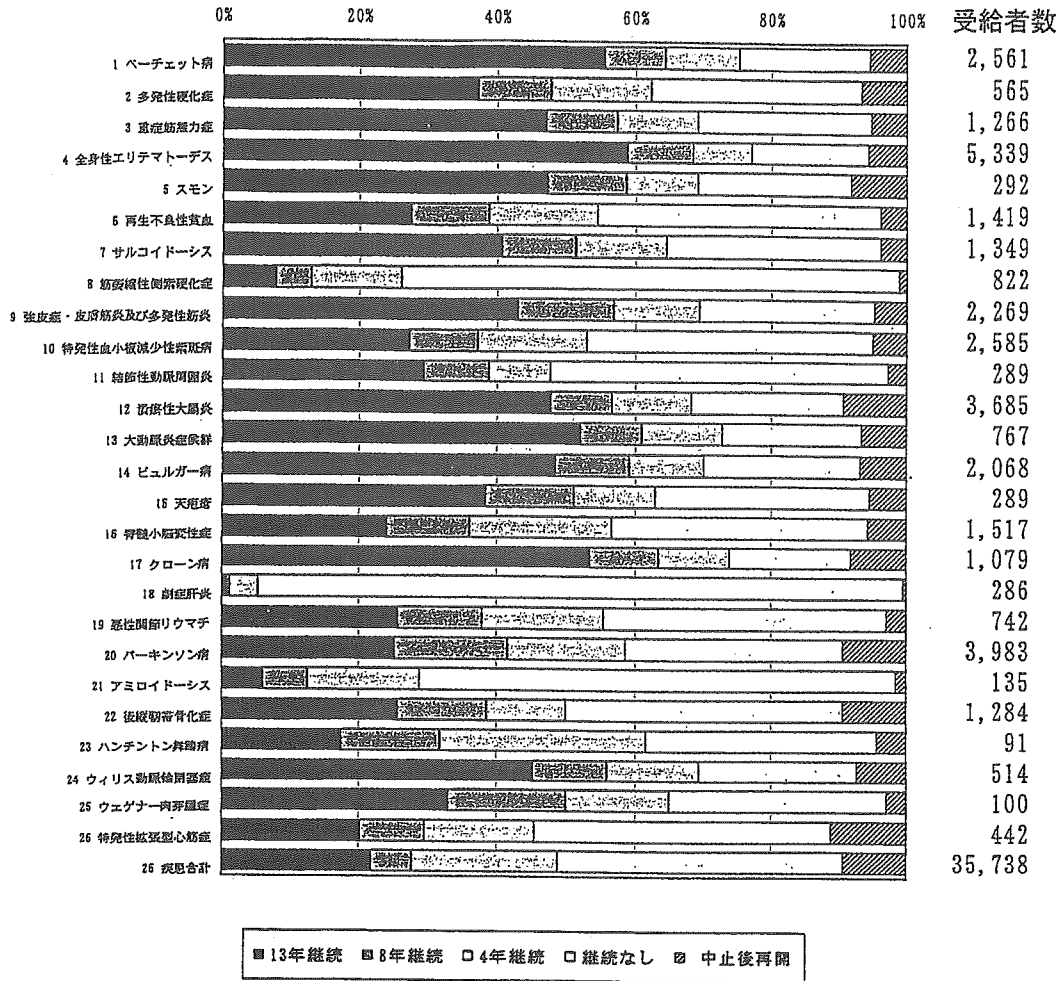
IV 考 察

過去の調査結果を個人単位でリンケージして受給者の経年変化をみることにより、これまでの単年度毎の横断調査では明らかにならなかった特定疾患医療受給者の継続状況を示すことが出来、これまで新規受給者として扱われてきた受給者の中には中止後再開者が含まれていることも確認された。さらに、医療受給者の継続率を推計し、疾患別、性別の継続状況の特徴を明らかにすることが

できた。

今回用いたデータは、4～5 年間隔で実施された受給者調査のデータである。医療受給の有無は年度毎に定められ、その中止・開始が繰り返されている。このため調査の時点をもって中止や開始、継続を定める今回の方法では、正確に中止・開始を観察できていない。このため調査のない年度に受給を開始したり、中止、再開を繰り返した場合でも、調査年度に受給していれば、継続受給と判断されて継続受給者に数えられていることを考慮して結果を解釈する必要がある。また、既に橋本らの報告で、方法論の検討は行われているが、今回も同様のレコードリンケージ方法を用いているため、異なる患者を同一患者と誤ってリンクしてしまったり、受給者が居住地都道府県外へ転出した場合や、性、生年月日の入力ミスがある場合にリンク漏れが生ずるという欠点がある。異なる患者を同一患者と誤ってリンクしてしまうこ

図2 84年度新規受給者の各調査年度までの継続状況，疾患別



とは、難病患者が少ないことから、その割合は少ないと推察されるが、都道府県外への転出や、性・生年月日の記載の誤りによるリンク漏れについては、その頻度は不明であり、多い場合には継続者が減り、中止、開始に分類されるため中止者数と開始者数の過大評価となるおそれがあることも念頭に置く必要がある。2003年10月より受給申請時に提出された臨床調査個人票がデータベース化され、更新時にも予後や現状の調査が行われることから、より正確な継続状況が観察されるようになることが期待される。

特定疾患全体の受給継続状況を、受給継続期間の割合と受給継続率を推計することで明らかにした。受給継続率の推計値からは、調査年度に該当しない年度についても受給状況を推測することができる。受給者全体の受給継続状況は、約70%が4年、約55%が8~9年受給を継続し、継続しない者は25~30%程度であることが明らかになっ

た。また新規受給者では、継続なしの者の割合が高くなっており、新規受給者ほど受給を継続しない者や中止後再開する者が多い。受給継続率をみても、全受給者に比べ新規受給者で継続率が低く、劇症肝炎や重症急性膵炎など、比較的全受給者に対する新規受給者の割合が高く、受給継続率が低い疾患の影響を受けていると考えられる。疾患別には、全身性エリテマトーデスやベーチェット病、大動脈炎症候群などのいわゆる自己免疫疾患で長期に受給を継続する者の割合が高く、受給継続率も高い。また、劇症肝炎、アミロイドーシス、筋萎縮性側索硬化症は長期に受給する者の割合が低く、受給継続率も2~3年で急激にさがっているなど、生命予後を反映した結果が得られている。

性別には、男より女の方が長期継続者の割合が高く、全身性エリテマトーデスや、大動脈炎症候群など、性比(男/女)が低い疾患で受給継続率

図3 84年度受給者の各調査年度までの継続状況，性・年齢階級別

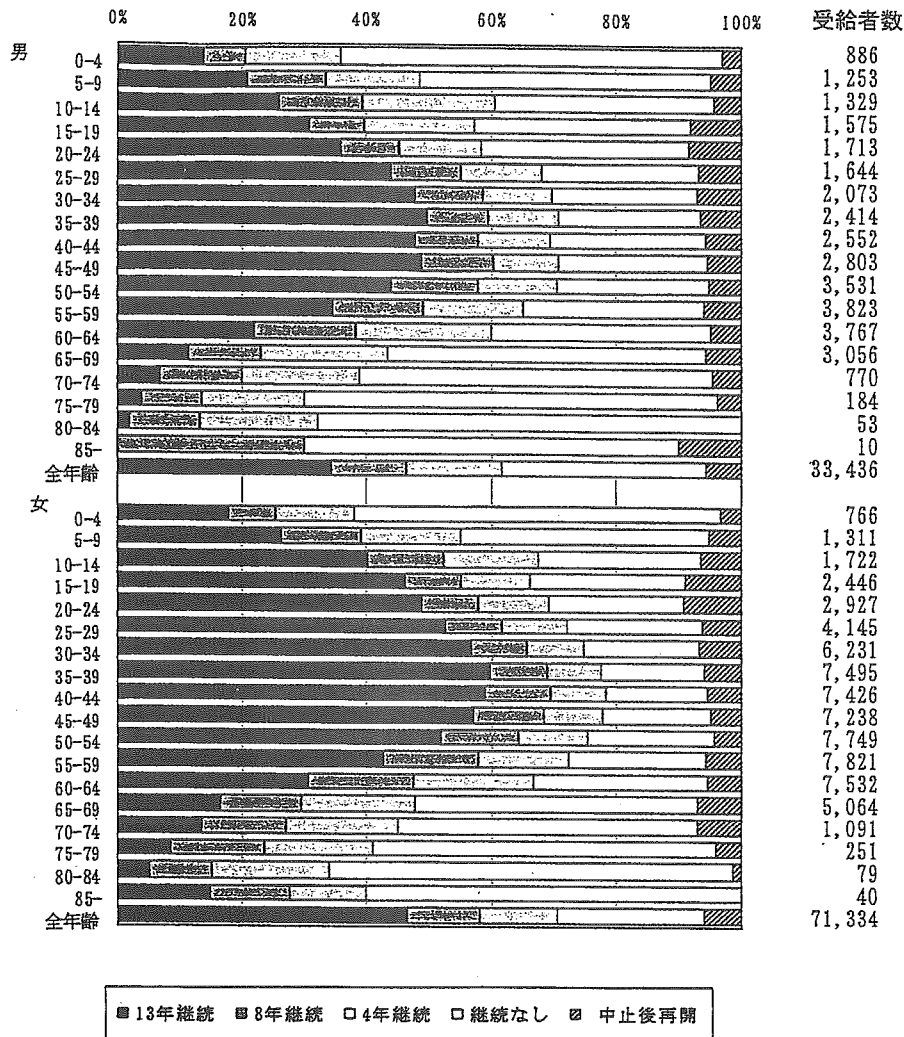
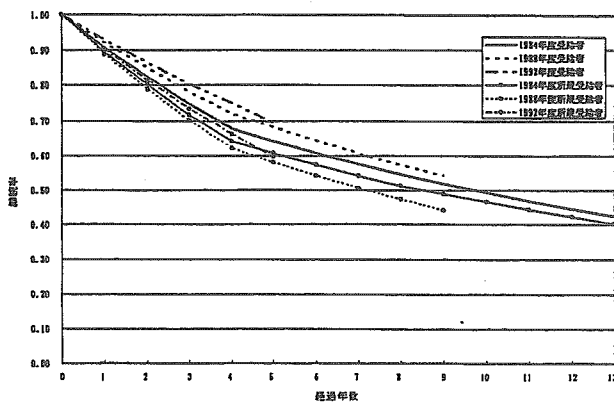


図4 84, 88, 92年度受給者受給継続率（全体，新規の別）



が高いことが関係していると考えられる。とくに、受給開始年度の古い疾患では、男の受給継続率が女よりも低くなっているが、最近受給が開始

された疾患では、男の方が女よりも高い傾向がみられており、近年受給者調査の結果で報告されているように、特定疾患患者、特に新規受給者に顕著にみられる性比（男/女）の増加との関連が示唆され、今後、詳細な検討が必要である。都道府県別には、栃木県、神奈川県をはじめとする関東地方が高く、地域差が認められる。認定の際の手続きや基準については、これまでも都道府県毎に異なることが知られており、今後認定に際しての手続きの標準化が進むことによって、格差がどう変化するのか継続した観察が必要である。保険の種類別には、年齢の高い老人保健や退職者医療では長期の継続者の割合が低く継続なしが多くなっている。また、健康保険本人では長期受給継続者の割合が高くなっているが、医療保険制度改革により、2003年（平成15年）4月から本人の自己

表6 性別, 疾患別平均受給継続率

			i年後受給継続率												
			0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12
全疾患	男	1	0.906	0.821	0.744	0.674	0.623	0.581	0.543	0.506	0.474	0.446	0.420	0.395	0.372
	女	1	0.931	0.868	0.808	0.753	0.712	0.677	0.644	0.613	0.584	0.558	0.533	0.510	0.487
1 ベーチェット病	男	1	0.945	0.893	0.844	0.797	0.764	0.734	0.706	0.679	0.655	0.633	0.612	0.591	0.571
	女	1	0.951	0.904	0.860	0.818	0.788	0.761	0.735	0.710	0.687	0.666	0.646	0.626	0.607
2 多発性硬化症	男	1	0.916	0.839	0.769	0.705	0.656	0.615	0.577	0.541	0.510	0.483	0.458	0.434	0.411
	女	1	0.930	0.864	0.804	0.748	0.707	0.671	0.636	0.603	0.573	0.543	0.516	0.489	0.464
3 重症筋無力症	男	1	0.925	0.856	0.793	0.734	0.689	0.650	0.614	0.579	0.547	0.518	0.491	0.465	0.440
	女	1	0.942	0.888	0.837	0.789	0.754	0.723	0.694	0.665	0.638	0.614	0.591	0.568	0.547
4 全身性エリテマトーデス	男	1	0.934	0.873	0.815	0.762	0.721	0.686	0.652	0.620	0.590	0.561	0.533	0.507	0.482
	女	1	0.956	0.914	0.874	0.835	0.806	0.780	0.756	0.732	0.708	0.686	0.665	0.644	0.625
5 スモン	男	1	0.936	0.876	0.820	0.767	0.728	0.693	0.659	0.627	0.597	0.568	0.541	0.515	0.490
	女	1	0.942	0.888	0.837	0.789	0.756	0.726	0.698	0.670	0.646	0.623	0.601	0.580	0.559
6 再生不良性貧血	男	1	0.886	0.785	0.696	0.617	0.558	0.508	0.461	0.420	0.385	0.355	0.327	0.301	0.278
	女	1	0.912	0.833	0.760	0.694	0.645	0.603	0.563	0.527	0.494	0.465	0.438	0.412	0.388
7 サルコイドーシス	男	1	0.902	0.813	0.734	0.662	0.611	0.571	0.533	0.498	0.465	0.437	0.410	0.384	0.360
	女	1	0.937	0.879	0.824	0.772	0.732	0.696	0.662	0.629	0.599	0.572	0.546	0.521	0.497
8 筋萎縮性側索硬化症	男	1	0.788	0.621	0.489	0.386	0.326	0.287	0.252	0.222	0.197	0.177	0.160	0.144	0.129
	女	1	0.763	0.583	0.446	0.341	0.283	0.245	0.212	0.184	0.163	0.148	0.135	0.123	0.112
9 強皮症・皮膚筋炎および多発性筋炎	男	1	0.907	0.823	0.747	0.678	0.624	0.579	0.537	0.497	0.463	0.432	0.403	0.376	0.351
	女	1	0.939	0.882	0.829	0.778	0.738	0.702	0.669	0.637	0.606	0.576	0.547	0.520	0.494
10 特発性血小板減少性紫斑病	男	1	0.849	0.721	0.613	0.521	0.459	0.411	0.368	0.329	0.298	0.271	0.246	0.223	0.203
	女	1	0.909	0.827	0.753	0.685	0.635	0.595	0.557	0.521	0.490	0.463	0.438	0.414	0.392
11 結節性動脈周囲炎	男	1	0.880	0.778	0.689	0.612	0.562	0.518	0.477	0.440	0.405	0.371	0.340	0.311	0.285
	女	1	0.914	0.837	0.766	0.703	0.660	0.625	0.591	0.560	0.528	0.500	0.474	0.449	0.425
12 潰瘍性大腸炎	男	1	0.930	0.865	0.805	0.749	0.708	0.677	0.646	0.617	0.592	0.570	0.549	0.529	0.510
	女	1	0.940	0.883	0.830	0.780	0.744	0.713	0.684	0.657	0.631	0.609	0.587	0.566	0.546
13 大動脈炎症候群	男	1	0.913	0.834	0.763	0.697	0.656	0.620	0.587	0.555	0.528	0.507	0.487	0.468	0.449
	女	1	0.950	0.902	0.857	0.814	0.782	0.752	0.723	0.695	0.670	0.646	0.623	0.601	0.579
14 ビュルガー病	男	1	0.934	0.873	0.815	0.762	0.721	0.686	0.653	0.621	0.592	0.565	0.539	0.514	0.491
	女	1	0.931	0.868	0.809	0.753	0.710	0.671	0.635	0.600	0.566	0.535	0.505	0.477	0.450
15 天疱瘡	男	1	0.911	0.831	0.758	0.692	0.643	0.602	0.564	0.528	0.495	0.468	0.442	0.418	0.395
	女	1	0.927	0.860	0.797	0.739	0.694	0.653	0.616	0.580	0.546	0.513	0.482	0.453	0.426
16 脊髄小脳変性症	男	1	0.880	0.775	0.682	0.601	0.538	0.484	0.436	0.393	0.356	0.327	0.301	0.276	0.254
	女	1	0.894	0.800	0.715	0.640	0.580	0.530	0.484	0.442	0.405	0.373	0.344	0.318	0.293
17 クロウン病	男	1	0.945	0.892	0.843	0.796	0.761	0.735	0.709	0.684	0.660	0.636	0.613	0.591	0.569
	女	1	0.946	0.894	0.846	0.800	0.766	0.738	0.710	0.684	0.660	0.639	0.618	0.598	0.578
18 劇症肝炎	男	1	0.604	0.367	0.225	0.139	0.100	0.081	0.066	0.055	0.049	0.046	0.043	0.041	0.039
	女	1	0.683	0.470	0.325	0.226	0.180	0.155	0.135	0.118	0.109	0.105	0.100	0.096	0.093
19 悪性関節リウマチ	男	1	0.872	0.761	0.664	0.579	0.514	0.458	0.408	0.363	0.321	0.278	0.241	0.209	0.181
	女	1	0.899	0.808	0.726	0.652	0.594	0.543	0.495	0.452	0.415	0.381	0.350	0.321	0.295
20 パーキンソン病	男	1	0.878	0.771	0.677	0.595	0.528	0.470	0.418	0.372	0.330	0.291	0.258	0.228	0.201
	女	1	0.896	0.803	0.720	0.646	0.587	0.536	0.490	0.448	0.407	0.369	0.335	0.304	0.276
21 アミロイドーシス	男	1	0.788	0.621	0.491	0.388	0.311	0.252	0.204	0.166	0.135	0.116	0.100	0.086	0.074
	女	1	0.808	0.654	0.530	0.430	0.371	0.331	0.294	0.262	0.238	0.223	0.208	0.195	0.182
22 後縦靭帯骨化症	男	1	0.892	0.796	0.711	0.635	0.578	0.532	0.490	0.451	0.413	0.376	0.343	0.312	0.284
	女	1	0.909	0.827	0.752	0.684	0.633	0.593	0.555	0.520	0.486	0.454	0.425	0.397	0.372
23 ハンチントン舞踏病	男	1	0.850	0.723	0.614	0.522	0.441	0.372	0.313	0.264	0.222	0.188	0.160	0.135	0.115
	女	1	0.867	0.752	0.652	0.566	0.491	0.421	0.361	0.310	0.272	0.246	0.222	0.200	0.181
24 ウィリス動脈輪閉塞症	男	1	0.940	0.884	0.831	0.781	0.741	0.703	0.667	0.633	0.602	0.571	0.542	0.514	0.488
	女	1	0.947	0.896	0.849	0.804	0.770	0.742	0.715	0.690	0.666	0.644	0.623	0.603	0.583
25 ウェゲナー肉芽腫症	男	1	0.907	0.823	0.747	0.677	0.617	0.566	0.519	0.477	0.435	0.395	0.359	0.325	0.295
	女	1	0.923	0.852	0.786	0.726	0.683	0.646	0.612	0.579	0.546	0.509	0.475	0.443	0.413
26 発性拡張型心筋症	男	1	0.885	0.784	0.695	0.617	0.556	0.503	0.455	0.411	0.372	0.339	0.309	0.281	0.256
	女	1	0.894	0.801	0.718	0.644	0.589	0.542	0.500	0.460	0.427	0.409	0.391	0.374	0.358
27 シャイ・ドレーガー症候群	男	1	0.731	0.535	0.391	0.286	0.212	0.157	0.116	0.086	0.064				
	女	1	0.719	0.518	0.373	0.270	0.196	0.138	0.098	0.069	0.048				
28 表皮水疱症	男	1	0.945	0.893	0.843	0.797	0.753	0.711	0.671	0.634	0.598				
	女	1	0.934	0.872	0.814	0.760	0.698	0.631	0.571	0.517	0.468				
29 膿疱性乾癬	男	1	0.944	0.891	0.841	0.793	0.755	0.729	0.703	0.678	0.655				
	女	1	0.926	0.857	0.794	0.735	0.698	0.674	0.651	0.630	0.608				
30 広範脊柱管狭窄症	男	1	0.902	0.814	0.734	0.662	0.599	0.556	0.517	0.480	0.446				
	女	1	0.901	0.812	0.731	0.659	0.597	0.555	0.516	0.479	0.445				
31 原発性胆汁性肝硬変	男	1	0.939	0.882	0.829	0.779	0.731								
	女	1	0.941	0.886	0.834	0.785	0.739								
32 重症急性膵炎	男	1	0.703	0.494	0.348	0.244	0.172								
	女	1	0.679	0.461	0.313	0.213	0.144								
33 特発性大腿骨頭壊死症	男	1	0.908	0.824	0.748	0.679	0.616								
	女	1	0.904	0.817	0.739	0.668	0.603								
34 混合性結合組織病	男	1	0.966	0.934	0.902	0.872	0.842								
	女	1	0.965	0.931	0.898	0.866	0.835								

注: シャイドレーガー症候群, 表皮水疱症, 膿疱性乾癬, 広範脊柱管狭窄症は1988年以降に受給対象となったため受給継続率は9年までしか観察できない。原発性胆汁性肝硬変, 重症急性膵炎, 特発性大腿骨頭壊死症, 混合性結合組織病は1992年以降に受給対象となったため受給継続率は5年までしか観察できない。

負担率が高くなったことや、2003年（平成15年）10月から特定疾患医療受給について所得による自己負担率の格差が導入されたことにより、特定疾患医療受給者数の動向ならびに、保険の種類による受給状況、継続状況が今後変化することが予想される。

本論文では、特定疾患医療受給者全疾患について、初めて最長13年後までの受給継続率を明らかにすることができた。難病は稀少疾患が多く含まれ、その予後を明らかにすることは、難病といわれるそれぞれの疾患の重症度や治療研究事業の成果を明らかにする上では大変重要である。受給継続率は、受給者の性、年齢、病気の予後や医療制度等の社会的要因の影響を受けていると考えられるが、筋萎縮性側索硬化症や劇症肝炎では、その受給継続率の推移は生命予後を反映していると考えられ、継続率を今後も継続して観察することによって得られる知見は、難病対策の成果を明らかにすることができる重要な情報となると考えられた。

V ま と め

過去4回の特定疾患治療研究事業医療受給者調査のリンケージデータを利用することによって、性・年齢別、都道府県別、疾患別、保険の種類別に受給者の受給継続状況、最長13年後までの受給継続率の特徴を明らかにすることができた。この制度についての知識・情報が周知され、多くの患者が長期間にわたって医療費公費負担制度を利用していることが明らかになった。一方、特定疾患に関する医療制度を始めとする医療・保険制度の改革が行われていく中で、これらの社会的な要因によって受給継続状況は変化することが予測され、今後も注意深い観察が必要と考えられた。

本報告の詳細については、厚生科学研究特定疾患対策研究事業特定疾患の疫学に関する研究班報告書¹⁷⁾としてまとめられている。

(受付 2004. 9.30)
(採用 2005. 9.21)

文 献

- 1) 柳川 洋, 中村好一, 長谷川央子編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告. 厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班, 1986.
- 2) 中村好一, 長谷川央子, 永井正規, 他: 難病医療

費公費負担制度(特定疾患治療研究事業)による医療費受給者の実態. 日本公衛誌 1987; 34: 328-337.

- 3) 中村好一, 柳川 洋, 永井正規, 他: 難病患者の受療動向に関する研究. 日衛誌 1988; 42: 1083-1091.
- 4) 柳川 洋, 中村好一, 橋本 勉, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1988年度分)その1. 基本的な集計解析. 厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班, 1990.
- 5) 柳川 洋, 中村好一, 橋本 勉, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1988年度分)その2. 受療動向に関する集計解析. 厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班, 1991.
- 6) 中村好一, 坂田清美, 藤田委由, 他: 難病医療費公費負担制度による医療費受給者の疫学像. 日本公衛誌 1991; 38: 525-533.
- 7) 橋本修二, 中村好一, 永井正規, 他: 難病医療費公費負担制度による医療費受給者の受療動向. 日衛誌 1992; 47: 831-842.
- 8) 永井正規, 中村好一, 阿相栄子, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1992年度分)その1. 基本的集計. 厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班, 1995.
- 9) 永井正規, 中村好一, 阿相栄子, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1992年度分)その2. 受療動向に関する集計解析. 厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班, 1996.
- 10) 柴崎智美, 永井正規, 阿相栄子, 他: 難病患者の実態調査—難病医療費公費負担制度による医療費受給者の解析. 日本公衛誌 1997; 44: 33-46.
- 11) 柴崎智美, 永井正規, 阿相栄子, 他: 難病患者の受療動向—難病医療費公費負担制度による医療費受給者の解析—. 日衛誌 1998; 52: 631-640.
- 12) 永井正規, 洲上博司, 仁科基子, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1997年度分)その1. 基本的集計. 厚生科学研究特定疾患対策研究事業特定疾患の疫学に関する研究班, 2000.
- 13) 永井正規, 洲上博司, 仁科基子, 他編: 特定疾患治療研究医療受給者調査報告書(1997年度分)その2. 受療動向に関する集計解析. 厚生科学研究特定疾患対策研究事業特定疾患の疫学に関する研究班, 2000.
- 14) 洲上博司, 永井正規, 仁科基子, 他: 難病患者の実態調査—1997年度特定疾患医療受給者全国調査の解析—. 日本公衛誌 2002; 49(8): 774-789.
- 15) 洲上博司, 永井正規, 仁科基子, 他: 難病患者の受療動向—1997年度特定疾患医療受給者全国調査の解析—. 日衛誌 2003; 58(3): 357-368.
- 16) 橋本修二, 永井正規, 中村好一, 他: 難病医療費公費負担制度による医療費受給の開始・中止状況. 日本公衛誌 1996; 43: 974-981.

- 17) 瀧上博司, 仁科基子, 太田晶子, 他: 医療受給者の経年変化—リンケージデータを用いた集計—. 厚生科学研究特定疾患対策研究事業特定疾患の疫学に関する研究班平成13年度 研究業績集. 2002; 150-171.

CHRONOLOGICAL ANALYSIS OF INDIVIDUALLY LINKED DATA FOR PATIENTS WITH INTRACTABLE DISEASE RECEIVING PUBLIC FINANCIAL AID FOR TREATMENT

Satomi SHIBAZAKI*, Masaki NAGAI*, Hiroshi FUCHIGAMI^{2*}, Motoko NISHINA*, Akiko OHTA*, Takashi KAWAMURA^{3*}, and Yoshiyuki OHNO^{4*}

Key words : intractable disease, nationwide survey, patients receiving financial aid for treatment, linked data

Purpose Nationwide surveys of intractable disease patients receiving public financial aid for treatment were performed by Research Committee for Epidemiology of Intractable Disease (Ministry of Health and Welfare, Japan) 4 times in the past, in 1984, 1988, 1992 and 1997. The purpose of the present study was to clarify the features of continuance with intractable disease patients receiving public financial aid for treatment.

Methods Individual information collected by each nationwide survey was linked using the disease, the residence, the sex, and the birth date. The proportion of intractable disease patients according to receipt duration, kind of medical insurance, sex and age was calculated with reference to the disease and an estimation of the receipt persistence rate was calculated for every year. Moreover, in consideration of variation in the data, average receipt persistence rates over years were also calculated.

Results According to observation on individual patient's follow up, the proportion for which financial aid was discontinued within four years was 25%, while 70% continued receiving aid for at least four years and some 55% for eight or nine years.

The proportion of those who continue receiving support long-term is high about the so-called autoimmune diseases, such as systemic lupus erythematosus, Behçet's disease, and the aortic syndrome. In contrast, with diseases having a poor prognosis, such as fulminant hepatitis, amyloidosis, and amyotrophic lateral sclerosis, periods of continuance are short. The proportion needing long-term continuation is higher in women than in men, especially with diseases which have long been eligible for support. However, with diseases for which receipt was started recently, there is a tendency for persistence to be higher in men than in women.

Conclusion With reform of insurance systems, including the medical system for intractable diseases, it is predicted that receipt continuation will change with alteration of social factors, and it is necessary to monitor receipt continuation carefully from now on.

* Department of Public Health, Saitama Medical School

^{2*} Saitama Health Promotion Corporation

^{3*} Kyoto University Center for Student Health

^{4*} Japan Labour Health and Welfare Organization, Asahi Rosai Hospital

厚生労働科学研究難治性疾患克服研究事業
特定疾患の疫学に関する研究班
平成17年度総括・分担研究報告書

2006年3月発行

主任研究者 永井 正規

事務局 〒350-0495 埼玉県入間郡毛呂山町毛呂本郷 38
埼玉医科大学公衆衛生学

電話：049-276-1171 ファクス：049-295-9307

担当者 柴崎 智美