

平成 29 年度厚生労働行政推進調査事業費補助金（地域医療基盤開発推進研究事業）

エコチル調査を活用した脳性麻痺発生率等に関する調査

（H29 - 医療 - 指定 - 005）

総括研究報告書

主任研究者 橋本 圭司 国立成育医療研究センター リハビリテーション科

1．研究目的

エコチル調査を活用し在胎週数別・出生体重別脳性麻痺の発生数や発生原因の分析により当該制度の補償対象となる重度脳性麻痺児数の推計を行う。

2．研究方法

平成 24 年～27 年に出生したエコチル調査参加児について、1 歳児調査票及び 3・4・5 歳時調査票において「脳性麻痺」との回答を得た事例について、児の分娩機関及び医療機関の診療録等から分娩時のデータ及び現在の肢体不自由の程度等の情報を把握する。

3．研究結果

2017 年 11 月 28 日現在、エコチル調査参加者の中で、2011 年出生が 9,684 人、2012 年出生が 28,219 人、2013 年出生が 35,587 人、2014 年出生が 26,658 人で、全体が 100,148 人であった。上記参加者の内、質問票にて「脳性麻痺」を選択されていた人数は 94 人であった。各対象者の出生年は、2011 年出生が 25 人、2012 年出生が 23 人、2013 年出生が 29 人、2014 年出生が 17 人であった。

脳性麻痺発生率は、母数を出生数とすると、対象者全体で 0.94 人/1000 出生、重症対象者で 0.69、旧基準対象者で 0.63、新基準対象者で 0.73、旧基準対象者（重症のみ）で 0.43、新基準対象者（重症のみ）で 0.52 であった。母数を 5 歳質問票回収数とすると、2011 年出生と 2012 年出生の一部のみとなるが、対象者全体で 2.28、重症対象者で 1.66、旧基準対象者で 1.47、新基準対象者で 1.66、旧基準対象者（重症のみ）で 0.95、新基準対象者（重症のみ）で 1.14 であった。母数を 3 歳質問票回収数とすると、対象者全体で 0.93、重症対象者で 0.70、旧基準対象者で 0.63、新基準対象者で 0.75、旧基準対象者（重症のみ）で 0.44、新基準対象者（重症のみ）で 0.53 であった。

4 . 考察

先行調査では、沖縄で 1988 年から 2009 年までに 696 例の脳性麻痺が発生し、その発生率は 1.9 であった。2005 年から 2009 年に絞ると沖縄県で 1.6 であり、同時期に行われた脳性麻痺発生調査では、栃木県では 2.1、三重県では 3.0 の発生率であった。今回の結果はその範囲が含まれているが低い傾向にある。4 歳、5 歳時の質問票で脳性麻痺と報告される例は一定数あり、5 歳までの情報を収集する必要がある。また、エコチル調査では軽症例が含まれることや分娩時低酸素状況の評価のための胎児心拍モニタリングがないため、産科医療補償制度と同様に実施することができない点があり、その点の調整の仕方を検討中である。

5 . 結論

エコチル調査内で脳性麻痺発生率を算定した。2011年出生と2012出生の一部の5歳までの累計脳性麻痺発生率は2.28程度で、全体の質問票の回収がおおよそ終わった3歳時までの累積脳性麻痺発生率は0.93程度であった。正確な人数を想定するためには、エコチル調査参加者が5歳になるまでのフォローアップが必要である。

(研究要旨)

1 . 脳性麻痺データの収集と解析、及び発生率の推計に関する検討

新田 裕史

脳性麻痺症例抽出のベースとなるエコチル調査における研究方法と調査内容・項目及び脳性麻痺症例抽出方法について報告した。

エコチル調査は公募で選定された全国15地域の大学等の研究機関がユニットセンターと呼ぶ地域組織を構築して、リクルート及び追跡調査を担当するものである。調査対象地区はユニットセンターが提案した対象地区(原則として市区町村単位)に基づいて選定され、各地区の調査対象予定人数(リクルート目標数)は該当期間の全出生数の概ね50%をカバーするように設定された。調査対象者は、出産予定日が平成23年8月からリクルート期間終了までの妊婦で、リクルート期間中(妊娠中)にユニットセンターが指定した調査地区に居住するなどの基準を満たし、インフォームド・コンセントを得た妊婦(母親)が出産した子ども、及びその子どもの父親である。エコチル調査における参加者のリクルートは平成23年1月から開始され、平成26年3月末で終了した。子どもの出産も平成26年12月で完了した。子どもの年齢幅は約3歳半あり、出生後6か月毎に、年齢に合わせて実施される質問票

調査が進行している。

データ管理システムへの最終的な登録状況に基づくエコチル調査への参加同意者数は103,097名で、母親同意率（調査の協力依頼を行った者に対する割合）は78.5%であった。父親の参加同意者数は51,909名となった。出生した子どもは100,078(暫定値)名であった。出生後6か月毎に実施する質問票調査の各調査時期における平成29年11月末時点の回収状況（全発送数に対する回収数の割合）は8～9割であった。また、1歳、3歳、4歳、5歳質問票の回収数はそれぞれ、90,448件80,377件、49,030件、21,086件であった。脳性麻痺症例は質問票における病歴調査項目へのチェックに基づいて抽出した。

さらに、抽出された脳性麻痺症例をもとに、母集団（日本全体）における脳性麻痺発症数の推定を行った。

エコチル調査は現在進行中の調査であり、本研究で用いたデータベースについても暫定のものであることに留意する必要がある。一方で、妊娠期から出産後、子どもが13歳に達するまで長期間追跡調査が継続される全国にわたる大規模調査であり、その調査内容は子ども健康に関する広範囲なアウトカムに関する情報収集とさまざまな環境化学物質を含む環境要因に関する分析等が含まれている。脳性麻痺についても、当初から質問票調査の項目に含まれていたものであり、本研究の目的に沿った解析が可能であると考えられる。

2. 脳性麻痺の診断、評価

目澤 秀俊

本研究の目的は、10万人の母子を対象とした、子どもの健康と環境に関する全国調査（エコチル調査）において、保護者から聴取された脳性麻痺の発生率の推計を行い、さらに産科補償制度が必要と考えられる重度脳性麻痺の発生率を推定することにある。

エコチル調査参加者の内、その質問票の中で、「脳性麻痺」と記載のあった参加者（1歳、3歳、4歳、5歳質問票ではチェック項目欄にチェックがあったもの）を対象に調査を実施した。一般審査基準である 在胎 33 週以上、かつ出生体重 2000g 以上（旧基準）、 在胎 32 週以上、かつ出生体重 1400g 以上（新基準）をそれぞれ満たすか検討した。個別審査基準に当てはまる参加者に関しては、在胎 28 週以上であり、かつ 臍帯血 pH が 7.1 未満、または前置胎盤、常位胎盤早期剥離の既往がある参加者（旧基準）、 臍帯血 pH が 7.1 未満、または前置胎盤、常位胎盤早期剥離、双胎間輸血症候群の既往、またはアプガースコ

ア 1 分値が 3 点以下の参加者（新基準）を満たすものを産科補償制度対象となる分娩状況とした。重症度は、1 歳時の Age & Stage Questionnaire third edition（ASQ）で粗大運動が 10 点以下、または微細運動が 10 点以下の参加者を重症とした。5 歳質問票では、脳性麻痺の有無のほか、独立した項目として、「肢体不自由による身体障害者手帳 1 級あるいは 2 級」の取得を質問し、肢体不自由児の抽出を行い、重症度評価の妥当性も検証した。

2017 年 11 月 28 日現在で、エコチル調査参加者の中で、2011 年出生が 9,684 人、2012 年出生が 28,219 人、2013 年出生が 35,587 人、2014 年出生が 26,658 人で、全体が 100,148 人であった。そのうち、全体で 1 歳質問票登録数は 2011 年出生が 8,760 人、2012 年出生が 25,306 人、2013 年出生が 31,981 人、2014 年出生が 24,209 人で、全体で 90,448 人の質問票が回収され、回収率は 90.3%であった。3 歳質問票登録数は 2011 年出生が 8,015 人、2012 年出生が 23,359 人、2013 年出生が 28,911 人、2014 年出生が 19,932 人で、回収率は 80.3%あった。先頭集団は 6 歳質問票の送付が終了している。質問票にて「脳性麻痺」を選択されていた人数は 94 人で昨年より 17 人増加した。産科補償制度対象候補者を算出すると、旧基準で 63 人(67.0%)、新基準で 73 人(77.7%)であった。重症を考慮に入れると、旧基準で 43 人(45.7%)、新基準で 52 人(55.3%)であった。出生年ごとの背景情報を見ると、2011 年出生では、出生週数、出生体重が低い傾向にあった。

脳性麻痺発生率は、母数を出生数とすると、対象者全体で 0.94 人/1000 出生、重症対象者で 0.69、旧基準対象者で 0.63、新基準対象者で 0.73、旧基準対象者（重症のみ）で 0.43、新基準対象者（重症のみ）で 0.52 であった。母数を 5 歳質問票回収数とすると、2011 年、2012 年出生のみとなるが、対象者全体で 2.28、重症対象者で 1.66、旧基準対象者で 1.47、新基準対象者で 1.66、旧基準対象者（重症のみ）で 0.95、新基準対象者（重症のみ）で 1.14 であった。

エコチル調査内で脳性麻痺発生率を算定した。2011 年出生と 2012 年出生以降は、発生率に違いがある可能性があるため、引き続きの調査が必要である。

3 . 脳性麻痺発症児の妊娠分娩情報の収集・解析に関する報告

梅原永能

産科医療補償制度は、分娩時の医療事故訴訟を原因とした産科医不足などの社会事情への対応策として、紛争の防止・早期解決及び産科医療の質の向上を目的として、

平成 21 年 1 月に創設された制度である。この制度の補償対象基準は、「通常の妊娠・分娩にもかかわらず、脳性麻痺となった場合」のうち「出生体重 2,000 g 以上かつ在胎週数 33 週以上、または在胎週数 28 週以上かつ所定の要件に該当する場合の重度（障害 1 級・2 級）の脳性麻痺児」として開始された。この制度の資金源は掛金を出産育児一時金に上乘せし、契約者である運営組織（（公財）日本医療機能評価機構）が民間の損害保険会社へ収めた保険料から補償金を支払う仕組みであるが、その対象者数の試算根拠が一部の地域における脳性麻痺の発生数に基づいている。そのため、試算者数と実際の補償対象者数の大幅な乖離による多額の剰余金が社会問題となっていた。産科医療補償制度の充実のためには、一部地域における脳性麻痺の発生数のみの把握では制度の補償体系の脆弱性だけでなく、「原因究明」と「再発防止」に係る国の施策の効果を評価する上でも不十分であり、全国的な規模で脳性麻痺児の発生状況を把握する必要性は極めて高いと考えられている。

そこで本研究は、環境省が企画・立案の上、（独）国立環境研究所が中心となって平成 23 年より開始された「子どもの健康と環境に関する全国調査（以後、エコチル調査）」の仕組みを活用し、全国約 10 万人の児のデータから脳性麻痺児数や分娩時の状況等を調査し、脳性麻痺の発生原因の分析・検討、産科医療補償制度において補償対象となる重度脳性麻痺児数の推計を行うことを目的とした。

一方、産科医療補償制度が開始された H21 年出生児が H26 年に 5 歳の誕生日をむかえ、H21 年度の産科医療補償対象者が 419 人と確定したことから、対象補償金と剰余金から収支状況の再推定が行われた。その結果をもとに第 73 回社会保障審議会医療保険部会において、平成 27 年 1 月からの補償対象基準の見直しが決定され、H27 年に出生した児から新産科医療補償制度の補償対象の拡大と補償料金の減額が行われることとなった。今後も産科医療保障制度の補償対象変更による対象者数の確定と収支状況は 5 年ごとに明らかとなり、産科医療補償制度の随時見直しが行われることで制度の適正化と充実化が図られることとなる。

これまでの本研究では、エコチル調査（2016 年中途情報まで採用）を用いて脳性麻痺を疑う症例を抽出し、一般審査基準における旧制度保障（出生体重 2000g 以上かつ在胎週数 33 週以上）対象者および新制度保障（出生体重 1400g 以上かつ在胎週数 32 週以上）対象者、一般基準において旧制度から新制度への変更による保障対象者増加を明らかとした。一方ではエコチル調査を利用した脳性麻痺児の推定は、アンケート調査であることによる脳性麻痺診断の曖昧さ、その障害重症度の評価の困難さも明ら

かとなっている。特に産科医療保障制度の対象であるか否かの判定に必要な不可欠な分娩時情報がエコチル調査では不十分であるため、分娩時情報が不十分である症例に対し個別に分娩時情報の追加調査を行ったが、その回収率や回収内容の不備を考慮すると今後のアンケート継続調査は困難で有効性に乏しいことも明らかとなった。

以上のことから、本年度はエコチル調査を用いた脳性麻痺児や産科医療保障制度対象者の推定を継続的に行うとともに、エコチル調査を用いたこの推定が実際の臨床現場に見合ったものであるかを確認するため、当院における成育コホートデータを用いた脳性麻痺症例の検討を行った。