

## 神経線維腫に対して入院し外科的切除を行った神経線維腫症1型患者の 医療費および患者背景に関する検討

研究分担者 今福信一 福岡大学医学部皮膚科

### 研究要旨

神経線維腫症1型（以下 NF1）では、皮膚の神経線維腫（以下 cNF と略す）が、思春期ごろから発現し、整容面で問題となる。またびまん性神経線維腫（以下 dNF と略す）も幼小児期より発現し加齢とともに徐々に増大し機能障害による Quality of life の低下や、将来的には悪性末梢神経鞘腫への移行も懸念される。現在、分子標的薬など多くの臨床試験が行われているが、これら NF に対する治療は未だ外科的切除が主である。しかしながら一般の皮膚良性腫瘍と異なり多発する cNF の切除は大変な労力を要し、また dNF においては術中および術後の出血のリスクが高く、高度な再建術が必要としすることも少なくない。

医療費は、医療の質を保つのに重要な要素であるが、NF1患者における皮膚腫瘍に関する医療費の調査は、本邦では報告がない。本研究では、2007年から2017年までに福岡大および鳥取大で入院して手術を行った96例の患者（217件の手術）を対象に患者背景、医療費を含めた詳細について調べた。その結果、手術を受けた患者は平均37.5歳で女性に多かった。治療前のcNFの数は、1000個を超える症例が14.6%であったが、一方で100個未満の少数の症例も33.3%みられた。またcNFに対する1人あたりの平均手術回数は2.2回で、1回の手術で平均して38個の腫瘍が切除されていた。1患者あたりの手術費用の平均は98,430円で、入院費用は467,870円であった。dNFの症例に限って解析すると、手術費用の平均は136,600円で入院費用は679,080円であった。公費の経済的補助を受けている患者は、全体の38.5%であった。以上よりcNFに関しては、腫瘍数や経済的補助の有無に関わらず手術治療に対して高い需要があり、およそ2~3回の手術で一定の満足が得られている可能性がある。dNFに関しては、術後出血および高度な再建術を行い入院期間が長期となった症例において入院費用が高額となる傾向であった。

### A . 研究目的

神経線維腫症1型患者に発生した皮膚の神経線維腫（cNF）および、びまん性神経線維腫（dNF）に対して入院して外科的切除を行った症例について、患者背景および医療費（手術手技請求点数、入院総費用）の詳細を明らかにする。

### B . 研究方法

**対象：** 2007年～2017年までに福岡大、鳥取大皮膚科で入院し皮膚の神経線維腫（および nodular plexiform neurofibroma を含め；以下 cNF）もしくはびまん性蔓状神経線維腫（diffuse plexiform NF；以下 dNF）を切除した NF1 患者。

**方法：** 後ろ向き患者集積研究。(1)患者背景、難病申請の有無（小児は小児慢性疾患）、(2)施行した手術の内訳、(3)術前のcNFの個数、切除した腫瘍の個数、(4)1症例に対する手術回数、(4)1症例における手術を受けた頻度、(5)手術手技に関する診療報酬請求点数、入院総費用、入院期間について、診療カルテおよび臨床写真を用いて解析を行った。

**統計方法：** 2群の比較には Student's t test を用いて検討した ( $p < 0.05$  を有意とした。) 入院期間と総費用との相関を見るために pearson の積率相関を用い、 $r > 0.7$  を有意な相関と判断した。

**倫理的配慮：** 本研究の遂行にあたり、両大学の倫理審査委員会の承認を得た

### C . 研究結果

- (患者背景)96症例(男性28例、女性68例)平均年齢:  $37.5 \pm 17.4$  歳 (3歳~83歳) 公的補助を受けている症例の割合: 38.5%
- (施行した手術の内訳)214件の手術の中で、全体の87.3%(188件)はcNFを対象としており、9.8%(22件)がdNFを対象としていた。2.8%(6件)は、cNFとdNFの両者を対象に行われていた。
- (cNFの腫瘍数について)全体の患者数の33.3%(32症例)が100個未満であった。39.5%(38症例)の患者が100個から999個で、14症例(14.6%)において1000個を超えていた。
- (1症例に対する手術回数)手術を受けた頻度が1回だけという症例は全体の58.3%(56症例)で、2

回は 13.5% (13 症例) 3 回もしくはそれ以上の回数を受けていたのは 28.1% (27 症例) であった。平均すると 1 症例あたり 2.2 回の手術を受けていた。

5. (手術費用; a、入院総費用;b) cNF に対して、全身麻酔下に行われた症例では、a. 98590±62438 円、b.487500±11443 円、dNF に対して、全身麻酔で行われた症例では、a. 101160±62992.2 円、b. 660008±286753.4 円であった。手術費用においては、両者に有意差はなく( $p = 0.843$ )であったが、入院総費用では有意差があり( $p < 0.05$ ) 入院総費用と入院日数は Pearson's の相関係数  $r = 0.757 > 0.7$  と有意な相関を示した。

#### D . 考察

cNF に関しては、腫瘍数が少ない症例や経済的補助を受けていない症例も多く、腫瘍数や経済的援助の有無に関わらず手術治療に対して高い需要があることが推測された。また、およそ 2~3 回の手術で一定の満足が得られている可能性がある。対象は 30 台後半の女性が多く、整容面の改善を期待していることが示唆された。

dNF に関しては、cNF よりも入院総費用は有意に高額であった。しかしながら、手術手技請求点数においては dNF 群(再建を行った一部の症例は高額であったが)と cNF 群との間に有意差はなかった。入院日数は、入院総費用と強い相関が見られた。

#### E . 結論

以下の 2 点がわかった。 cNF の手術治療の需要は高い。 dNF 群では入院総費用は cNF 群に比べて高値であったが、手術費用に関しては有意差はなかった。dNF 群で入院費用が高値となったのは、入院期間が cNF 群よりも長期であったことが影響していた。

#### F . 健康危険情報

なし。

#### G . 研究発表

##### 1. 論文発表

a. Koga M, Yoshida Y, Imafuku S.: Clinical characteristics of the halo phenomenon in infants with neurofibromatosis 1: A case series. Acta Derm Venereol 98(1): 153-154, 2018

b. 吉田雄一, 倉持 朗, 太田有史, 古村南夫, 今福信一, 他. 神経線維腫症 1 型 (レックリングハウゼン病) 診療ガイドライン 2018. 日皮会誌 128(1): 17-34, 2018

c. Yoshida Y, Ehara Y, Koga M, Imafuku S., Yamamoto O.: Epidemiological analysis of major complications requiring medical intervention in patients with

neurofibromatosis 1. Acta Derm Venereol 98(8): 753-756, 2018

##### 2. 学会発表

a. 古賀文二, 吉田雄一, 江原由布子, 今福信一: 神経線維腫に対して入院し外科的切除を行った神経線維腫症 1 型患者の医療費および患者背景に関する検討. 神経皮膚症候群に関する診療科横断的な診療体制の確立研究班 班会議 (12 月 14 日)

b. 古賀文二, 吉田雄一, 今福信一. 神経線維腫症 1 型 (NF1) 患児にみられる halo 現象の臨床的特徴について. 第 10 回日本レックリングハウゼン病学会 2 月 24 日 2019 年 名古屋

c. Yoshida Y, Koga M, Imafuku S., Yamamoto O. Epidemiological analysis of major complications requiring medical intervention in patients with neurofibromatosis 1. Joint global neurofibromatosis conference Nov 2-6, 2018, Paris, France

#### H . 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む。)  
予定なし。