

# I 平成 30 年度 総括研究報告書

平成 30 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研究

(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

2018 年 10 月 14 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 28,217 人、2013 年出生が 35,583 人、2014 年出生が 26,658 人で、全体が 100,142 人であった。そのうち、全体で3歳質問票登録数は2011年出生が8,017人、2012年出生が23,380人、2013年出生が29,000人、2014年出生が21,768人で、回収率は82.0%であった。4歳質問票登録数は2011年出生が7,630人、2012年出生が22,147人、2013年出生が27,153人、2014年出生が17,583人で、回収率は74.4%であった。5歳質問票登録数は2011年出生が7,162人、2012年出生が20,635人、2013年出生が16,536人であった。エコチル調査参加者の内、旧基準で98,073人(97.9%)、新基準で99,211人(99.1%)が一般審査基準該当者であり、旧基準で1928人(1.9%)、新基準で689人(0.7%)が個別審査基準該当者であった。出生時の背景情報では、2011年出生者において、他の出生年と比較し、出生週数・出生体重が小さい傾向にあった。

脳性麻痺発生率は、母数を出生数とすると、対象者全体で0.55人/1000出生、2011年出生者

で 1.45、2012 年出生者で 0.43、2013 年出生者で 0.51、2014 年出生者で 0.41 であった。

産科医療補償制度脳性麻痺対象者に絞り、一般審査基準(旧基準)、個別審査基準(旧基準)、一般審査基準(新基準)、個別審査基準(新基準)での脳性麻痺発生率は出生数全体で、0.34、5.19、0.39、5.81 であった。

3 歳時質問票回収数、4 歳時質問票回収数、5 歳時質問票回収数で見ると、個別審査基準の発生率の上昇が認められた。出生年別に見ると、2011 年出生での脳性麻痺発生率が他の出生年と比較し高い傾向を示した。

脳性麻痺発生数を元に、2016 年出生数での一般審査基準(旧基準)対象出生数 957,615 人、個別審査基準(旧基準)対象出生数 16,663 人での脳性麻痺発生数を推計した。

全体では、一般審査基準(旧基準)での該当者が 258 人、質問票回収数により 209～441 人の幅を認めた。個別審査基準(旧基準)では、69 人が該当し、質問票回収数により 63～128 人の幅を認めた。

#### 4. 考察

エコチル調査における 4 歳まではほぼすべての参加者に配布が終了し、5 歳までに関しては半数以上が回収している。一般審査基準該当者は妥当な人数が集まっていると想定されるが、個別審査基準の対象者は、エコチル調査に参加していない、もしくは脱落している可能性があり、過小評価の可能性もある。

#### 5. 結論

エコチル調査における脳性麻痺発生率とそこからの推計に値は安定してきている。来年度さらなる質問票回収により結果は強固になると考える。

## (研究要旨)

### 1. 質問票による児の重症度評価

橋本 圭司

子どもの健康と環境に関する全国調査（エコチル調査）は、保護者から収集した身障者手帳 1 級あるいは 2 級取得状況により重症度判定をしている。その一方、発達の評価として保護者による自記式の発達遅滞スクリーニングツールである Ages and Stages Questionnaire (ASQ) を使用している。今回、身障者手帳 1 級あるいは 2 級相当のお子さんの ASQ 入力パターンから傾向を抽出し、保護者から収集した情報では漏れてしまっている可能性のあるお子さんを抽出しうる方法となるか、を検討する。

エコチル調査参加者 100,142 人から、その質問票の中で、「身障者手帳 1 級あるいは 2 級取得者」と記載のあった参加者（3 歳、4 歳、5 歳質問票）の中で、Ages and Stages Questionnaire の粗大運動項目に関して、6 ヶ月から 5 歳までの質問票の結果を、Linear Quantile Mixed Methods (LQMM) を使用し、トラジェクトリー解析を実施した。

2018 年 10 月 14 日現在で、エコチル調査参加者 100,142 人のうち、「身障者手帳 1 級あるいは 2 級取得」をチェックされていた人数は 72 人であった。そのうち、5 歳時質問票の回収が終了した 51 人を対象とした。「身障者手帳 1 級あるいは 2 級取得」をチェックされていた児において各質問票での ASQ の分布は全ての質問票において 0 の頻度が最も高く、右に裾を引く分布を示していた。どの質問票においても、20%前後の欠損値を認めた。ASQ の粗大運動項目に関して、LQMM 解析にて 50, 90%タイル値を示した。50%タイル値は 1 歳時にもっとも高く 1.2 点、5 歳時に 0 点であった。90%タイル値は 1 歳時にもっとも高く 4.0 点、5 歳時に 2.1 点であった。

「身障者手帳 1 級あるいは 2 級」にチェックをしたエコチル調査参加者は、ASQ の粗大運動項目に関して、非常に低いトレンドを取ることが示された。

### 2. 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103,095名で、母親同意率は78.5%であった。父親の参加同意者数は51,908名で、父親同意率（母親が同意した者に対する割合）は50.3%であった。調査の協力依頼を行うことができた父親に対する割合としては約95%であった。出生した子どもは100,323（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30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割弱～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、90,650件、82,390件、76,945件、49,113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。

### 3. 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、さらに産科医療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 100,142 人から、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）を脳性麻痺児とし、「身障者手帳1級あるいは2級取得者」と記載のあった参加者（3歳、4歳、5歳質問票）を産科医療補償制度対象重症度対象者とした。その両方にチェックのある参加者を「産科医療補償制度対象脳性麻痺児」とした。

2018年10月14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28,217人、2013年出生が35,583人、2014年出生が26,658人で、全体が100,142人であった。そのうち、全体で3歳質問票登録数は2011年出生が8,017人、2012年出生が23,380人、2013年出生が29,000人、2014年出生が21,768人で、回収率は82.0%であった。4歳質問票登録数は2011年出生が7,630人、2012年出生が22,147人、2013年出生が27,153人、2014年出生が17,583人で、回収率は74.4%であった。5歳質問票登録数は2011年出生が7,162人、2012年出生が20,635人、2013年出生が16,536人であった。エコチル調査参加者の内、旧基準で98,073人（97.9%）、新基準で99,211人（99.1%）が一般審査基準該当者であり、旧基準で1928人（1.9%）、新基準で689人（0.7%）が個別審査基準該当者であった。質問票にて「脳性麻痺」を選択されていた人数は103人で昨年より9人増加した。質問票にて「身障者手帳1級あるいは2級取得者」を選択されていた人数は72人であった。どちらにも該当した人数は、全体で55人であった。これらの内、どちらにも該当し、かつ出生週数が28週以降の対象児数は43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0.55人/1000出生、2011年出生者で1.45、2012年出生者で0.43、2013年出生者で0.51、2014年出生者で0.41であった。産科医療補償制度脳性麻痺対象者に絞り、一般審査基準（旧基準）、個別審査基準（旧基準）、一般審査基準（新基準）、個別審査基準（新基準）での脳性麻痺発生率は出生数全体で、0.34、5.19、0.39、5.81であった。

脳性麻痺発生数を元に、2016年出生数での脳性麻痺発生数を推定した。一般審査基準（旧基準）での該当者が質問票回収数により209～441人の幅を認めた。個別審査基準（旧基準）では、質問票回収数により63～128人の幅を認めた。

エコチル調査全体の参加者データから産科医療補償制度での脳性麻痺発生率と発生数を推計した。個別審査対象者数に関しては、推計人数が少なくなっている可能性があり、参考値として取り扱うべきである。

#### 4. 脳性麻痺発症児の妊娠分娩情報の解析に関する報告

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（身体障害者等級 1 級・2 級相当）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乗せし、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保険料金の減額が行われることとなった。今後も産科医療補償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。

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ることから、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。これまでにエコチル調査（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補償（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補償（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補償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。特に産科医療補償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補償制度対象者の推定を継続的に行うとともに（他分担報告書参照）、エコチル調査を用いた脳性麻痺児をもとに脳性麻痺発生の臨床像を明らかにすることを目的とし、分娩週数別と出生体重別の脳性麻痺発生頻度について検討を行った。