

NDB を用いた乳児股関節検診への超音波検査導入の効果に関する研究

研究分担者 野口 晴子（早稲田大学 政治経済学術院）

研究要旨

本研究の目的は、医療経済学的見地から、「先天性股関節脱臼（発達性股関節形成不全：Development Dysplasia of the Hip (DDH)）」を対象とした超音波検査によるスクリーニングを導入することの効果についての定量分析を行う。

研究の方法は、日本の市区町村による DDH の疑い症例に対する超音波検査によるスクリーニングプログラム導入の有無と導入時期の違いを「自然実験」とみなし、疑似的に randomization の環境を創出することによって、超音波検査導入の効果を定量的かつ因果的に検証する。本研究プロジェクトで聞き取り調査を行った結果、DDH 検診に新生児全数を対象にした超音波検査を導入している市区町村の存在する都道府県は 6 県（北海道 2 件、新潟 2 件、富山 2 件、長野 6 件、島根 1 件、徳島 5 件）で、うち、2010 以前からの実施件数が 6 自治体、2011 年からは 1 自治体、2014 年からは 6 自治体、2018 年から 5 自治体であった。ここでは、超音波検査を実施する市区町村が存在する当該 6 都道府県のみを分析対象とし、超音波検査が実施されている 18 市区町村を「処置群」、6 都道府県内の非実施市区町村を「対照群」と定義する。分析には、Difference-in-differences（差分の差分：DID）法と、DID 法により結果の因果性が担保されるための要件である平行トレンド（common trend）を確認するため、Event Study を用いた。

本研究の分析では、2011 年 4 月 1 日～2018 年 3 月 31 日までの 7 年間を観察期間として、『レセプト情報・特定健診等情報データベース（National Database：NDB）』の第三者提供（特別抽出）を用い、「股関節脱臼病名」傷病名コードを含むレセプト数（1,615,248 件）のうち、神経・筋疾患合併の股関節脱臼例を除外し（63,616 件）、残りの 1,551,632 件について、患者が受診した月ごとに「診断年月の月齢」による対応表を作成した。結果、6 都道府県で初診月齢が同定された 40 歳未満の患者 58,045 人（男性 22,685 人；女性 35,360 人）、うち、処置群が 12,782 人（約 26%）、対照群が 45,263 人（約 74%）を分析対象として抽出した。

分析の結果、因果性の特定には至らなかったものの、DDH 検診に超音波検査を導入することで、6 か月以下の適正な時期での発見確率の改善、初診月齢の早期化、診療実日数の短縮化の傾向が確認された。また、DDH の「初診」を受けた「疑い」事例の患者を対象に、selective に超音波検査を導入することを想定すると、6 都道府県全体では、約 4 億円の検査費用の投入により、DDH にかかる総医療費が約 46 億円、先天性 DDH のみを対象とすると、約 3 億円の検査費用の投入により、約 34 億円抑制されることから、DDH の「疑い」患者に対する selective な超音波検査の導入は、費用対効果の面から極めて有効であるということがわかる。とりわけ、先天性の患者に対する結果は、統計学的な有意性も確認されていることから、一定程度信頼性のある結果であると考えられる。他方で、2011 年-2018 年の 7 年間に当該 6 都道府県における出生児全数に対して超音波検診 screening を universal で導入する場合は、約 51 億円の費用がかかることになり、初診以降の医療費削減額である約 46 億円を大幅に上回ってしまうことになる。したがって、本研究の分析で得られた結果を見る限り、DDH に対する超音波検診による screening 導入の方針としては、universal は cost effective ではなく、「疑い」事例も含め「初診」を受けた患者に対し selective に実施する方が有効であると結論づけることが出来る。

A. 研究目的

本研究の目的は、医療経済学的見地から乳幼児健診の費用対効果に対する検証を行うことである。本研究では、乳幼児健診の一環として、「乳児股関節脱臼（発達性股関節形成不全：Development Dysplasia of the Hip

(DDH)）」を対象として、超音波検査によるスクリーニングを導入することの効果についての定量分析を行う。

日本の先天性脱臼の発生率は、かつてアジア諸国の中で最も高く、1970年代以前の新生児千対11-35であったが、国をあげての予防活動が功を奏し、1980年代には2.0-3.1まで大幅に減少した¹⁾。本研究では、まず、2012年～2017年までの6年間の『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB)』を用い、直近の発生率について確認しておくことにする。当該年に誕生した新生児千人のうち、脱臼・亜脱臼・白蓋形成不全についてそれぞれ、観察期間内に診断が確定した新生児数を男女別に示したのが、図1～図3である。図によれば、脱臼では、男児が1.3-1.9、女児が3.7-4.7、亜脱臼では、男児が0.1-0.2、女児が0.3-0.5、白蓋形成不全では、男児が0.8-1.5、女児が2.7-6.2であった。こうした直近のデータを見ても、服部(2018)がDDH全国他施設調査の結果から指摘しているように、昨今、当該疾病の発生率は若干増加傾向にあるようにみえる。さらに、同研究は、健診等での見逃しとそれに伴う発見遅延の事例も、全国的に増加傾向にあると指摘している²⁾。

B. 研究方法

B-1. DDH に焦点を当てた根拠

本研究においてDDHを対象疾患として選択した理由は、第1に、疫学的な発生頻度が

比較的高く³⁾、日本の居住者全数

(population)を対象としたNDBを用いることで、分析に必要な観察数が確保できること。第2に、発見や治療の臨界期が比較的明確で、出生後適切な時期での早期発見に比べ、歩行開始後に症状が出現してからの発見遅延により、変形性股関節症による歩行困難や慢性的な痛み等が発生し、長期入院を伴うギブスによる固定や手術が必要となる等、患者の中・長期的な生活の質 (quality of life: QOL) を著しく引き下げる可能性が高いこと⁴⁾⁻⁷⁾。第3に、未歩行の乳児期における自他覚症状が乏しく乳幼児健診やスクリーニングでの発見が必要であること、である⁸⁾。この点に関しては、Graf (1980) によって超音波検査が提唱されて以来、数十年間にわたり、スクリーニング方法の妥当性と信頼性をめぐって数多くの研究がなされ、その結果、重症度の高いDDHのハイリスク群については、ある程度、特定可能であることが判明している⁹⁾⁻¹⁰⁾。しかし、皮肉なことに、DDHに対する急速な介入や革新的技術の普及が、かえって、ゴールドスタンダードな「無作為化比較対照試験 (randomized controlled trial: RCT)」による質の高い科学的エビデンスの創出を妨げ¹¹⁾、いまだにDDHのスクリーニングに対する純粋な効果を同定出来ず、一致した見解が得られていないことが課題である。

B-2. Difference-in-differences (差分の差分：DID)法

本研究では、DDH検診への超音波検査の導入効果を推定するため、差分の差分法 (difference-in-differences : DID) 法を用いる¹²⁾。本研究プロジェクトで聞き取り調査を行った結果、DDH検診に新生児全数を対象にした超音波検査を導入 (universal screening) し

ている市区町村の存在する都道府県は6県（北海道(2件：美瑛町・陸別町)・新潟(2件：新潟市・胎内市)・富山(2件：砺波市・射水市)・長野(6件：下諏訪町・阿南町・下條村・売木村・天龍村・泰阜村)・島根(1件：江津市)・徳島(5件：美馬市・三好市・那賀町・美波町・つるぎ町)）で、うち、2010以前からの実施件数が6自治体、2011年からは1自治体、2014年からは6自治体、2018年から5自治体であった。本研究では、超音波検査を実施する市区町村が存在する当該6都道府県のみを分析対象とし、超音波検査が実施されている18市区町村を「処置群 (treatment group)」、6都道府県内の非実施市区町村を「対照群 (control group)」と定義する。各市区町村では、精密検査治療機関である1つないしは複数の医療機関に対し、超音波検査の実施を委託しており、検査の実施に当たっては、整形外科医・看護師・保健師・助産師が携わっている。

本研究における「処置群」と「対照群」は、各市区町村がそれぞれ独自に導入に対する意思決定を行った結果であり、RCTではない。しかし、受診する患者（裨益者）にとって、当該市区町村の医療機関への超音波検査機器の導入は、完全に外生的な需要ショック (external demand shock) であるとみなし、ここでは、それを「自然実験」として活用する。推定式は下記の通りである。

$$Y_{st} = \beta_0 + \beta_1 Ultra_{st} + \tau_s + \gamma_t + X_{st}\alpha' + \varepsilon_{st} \dots(1)$$

推定式(1)において、従属変数である Y_{st} は、市区町村 s で t 年に受診した患者のアウトカム変数を示す。二値変数と連続変数の2種類がある。まず、二値変数については、適正な DDH

の発見時期であるとされる6か月を threshold として13)、①初診が生後6か月以前であった場合を1、7か月以降であった場合を0；②観察期間中に診断が確定された場合を1、確定されなかった場合を0の2変数であり、これらについては、logistic 回帰分析を行い、odds ratio (オッズ比：OR) を求める。次に連続変数については、③初診月齢；観察期間中における初診以降の④診療実日数；⑤総診療報酬点数（以下、合計点数）；⑥1日当たり診療報酬点数（以下、1日当たりの平均点数）を投入し、それぞれを従属変数とする最小二乗法 (Ordinary Least Square：OLS) による推定を行った。ここで医療費の proxy として用いられる診療報酬点数として算出される項目は、指導管理／医学管理、在宅医療、リハビリテーション、精神科専門療法、処置、手術、麻酔、放射線治療、検査、画像診断、投薬、注射である。独立変数である $Ultra_{st}$ は、市区町村 s が t 年に超音波検査を導入していた場合は1、導入していなかった場合は0の値をとる二値変数であり、当該推定式において最も重要な変数である。 τ_s と γ_t は、市区町村ダミーと年ダミーであり、市区町村と時間の固定効果を表している。 X_{st} は、市区町村 s で t 年に受診した患者のNDBによって観察可能な属性（女性ならば1、男性ならば0；年齢；股関節脱臼が先天性ならば1、非先天性ならば0；亜脱臼病名ならば1、それ以外は0；臼蓋形成不全病名ならば1；それ以外は0として、脱臼病名は除外変数とした）を示す。 β_0 は定数項、 α は各属性に対する係数、 ε_{st} は誤差項を表している。前述したように、この推定式において最も注目すべきは、 $Ultra_{st}$ に対する係数である β_1 で、これが超音波検査のアウトカム変数に対する効果を表している。

B-3. Event study

DID法を用いる場合、推定結果の内的妥当性を確保するためには、ある政策や介入前におけるアウトカムの推移について、平行トレンドの仮定 (common trends assumption) が満たされていることが要件となる¹⁴⁾。本研究の分析では、仮に、DDH 検診に超音波検査が導入されなかったとしたら、前段で触れた①～⑥のアウトカム変数について、「処置群」と「対照群」の違いには統計学的な有意性がなく、両群におけるアウトカムは、時間経過とともに平行に推移するはずである仮定である。

平行トレンドが満たされているかどうかを確認するため、ここでは、event study の手法を用いる¹⁵⁾。

$$Y_{st} = \mu_0 + \sum_{k=-7}^7 \mu_k Ultra_{s(t+k)} + v_t + \epsilon_{st} \dots(2)$$

推定式(2)において、各市区町村が超音波検査を導入した年を $t = 0$ とし、導入前トレンドダミーを $Ultra_{s(t-1)} \sim Ultra_{s(t-7)}$ 、導入後トレンドダミーを $Ultra_{s(t+1)} \sim Ultra_{s(t+7)}$ として、前後7期分のlagダミー変数を回帰分

析に投入した。 v_t は年ダミーであり、時間の固定効果を表している。 μ_0 は定数項、 ϵ_{st} は誤差項を表している。ここで注目すべきは、導入前後におけるトレンドダミー変数の係数 μ_k であり、平行トレンドの仮定を満たすためには、導入前の μ_k に、統計学的有意性が観察されないことが要件となる。

B-4. データ

本研究の分析では、NDBの第三者提供 (特別抽出) を用いた。特別抽出は機密性が高く、セキュリティ要件を満たす作業環境が必要とされたため、分析対象となるデータの抽出作業は外部業者に委託して行った。尚、観察期間は、2011年4月1日～2018年3月31日までの7年間である。

NDBは、患者が医療機関を受診した月ごとの記録が蓄積されたデータである。したがって、未受診の月を除けば、1人の患者を月単位の時系列で追跡可能なlongitudinal/panel dataの構造になっている。まず、研究目的に照らして、「股関節脱臼病名」傷病名コードを含むレセプト数(1,615,248件)のうち¹⁾、神経・筋疾患合併の股関節脱臼例を除外し(63,616件)²⁾、残りの1,551,632件について、患者が受診した月ごとに「診断年月の月齢」による

¹⁾ 「股関節脱臼病名」傷病名として抽出したICD-10コードは、Q650 (一側性先天性股関節脱臼)、S730 (股関節脱臼)、Q652 (先天性股関節脱臼・先天性股関節脱臼遺残変形・先天性股関節脱臼後遺症)、M167 (先天性股関節脱臼治療後亜脱臼)、Q658 (発育性股関節形成不全)、Q651 (両側性先天性股関節脱臼)、Q653 (一側性先天性股関節亜脱臼)、S730 (股関節亜脱臼)、Q655 (先天性股関節亜脱臼)、Q654 (両側性先天性股関節亜脱臼)、Q658 (臼蓋形成不全)の12症例である。

²⁾ 除外したのは、アテトーシス型脳性麻痺、運動失調性脳性麻痺、混合型脳性麻痺症候群、弛緩型脳性麻痺、ジスキネジア性脳性麻痺、脳性麻痺、脳性両麻痺、髄膜瘤、髄膜瘤を伴う水頭症、脊髄脂肪髄膜瘤、脊髄髄膜瘤、脊髄瘤、延髄空洞症、脊髄空洞症、筋骨格系先天奇形、先天性多発性関節拘縮症、ラーセン症候群、骨形成不全症、骨形成不全症1-3型、軟骨形

成不全症、点状軟骨異形成症、軟骨異形成症、彎曲肢骨異形成症、軟骨無形成症、軟骨無発生症、エメリー・ドレイフス型筋ジストロフィー、遠位型筋ジストロフィー、眼咽頭筋型筋ジストロフィー、顔面肩甲上腕型筋ジストロフィー、筋ジストロフィー、偽肥大型筋ジストロフィー、肢帯型筋ジストロフィー、小児型筋ジストロフィー、進行性筋ジストロフィー、成人偽肥大型筋ジストロフィー、先天性筋ジストロフィー、デュシェンヌ型筋ジストロフィー、福山型先天性筋ジストロフィー、ベッカー型筋ジストロフィー、三好型筋ジストロフィー、分娩時中枢神経系合併症、分娩時脳障害、遺伝性神経筋障害、マルファン症候群、エーラス・ダンロス症候群、血管型エーラス・ダンロス症候群、点頭てんかん、難治性てんかん、乳児重症ミオクロニーてんかん、PCDH19関連症候群、ウエスト症候群、大田原症候群、早期ミオクロニー脳症、ドラベ症候群、ミオクロニー欠神てんかん、ミオクロニ

対応表を作成した。したがって、この時点では、1人の患者に対して複数の月単位のレコードが存在している。本研究では、これらの中から、観察期間中で「初診料」コードにフラグが立っている診療行為（以下、「初診コード」）を含むレセプトの中で、対応表における最も古い診療年月の月齢を、DDHに係る傷病名（脱臼・亜脱臼・白蓋形成不全）が付された「初診（診療開始）月齢」として同定した³。その上で、各患者について、観察期間中に確定診断を受けたかどうか、確定診断を受けた場合は確定診断月齢、初診以降の診療実日数と総医療費を算出した。したがって、最終的なデータの構造は、1人の患者について1レコードが記録されている cross-section data となっている。

全年齢を対象とした場合、初診月齢が同定された患者数が424,500人（男性が120,219人（約28%）；女性が304,281人（約72%））、うち、確定診断を受けたDDHの該当者数の最頻値が30～40歳代であったことから、対象年齢を0歳0か月から40歳未満と設定し、40歳以上の患者173,727人を分析から除外した。したがって、40歳未満の患者数は、250,773人（男性が95,337人（約38%）；女性が155,436人（約62%））で、初診時の月齢が6か月以下の患者（適切な時期に発見された群）が約66%で165,093人（男性が64,749人；女性が100,344人）、7か月以上の患者（発見遅延群）が約34%で85,680人（男性が30,588人；女性が55,092人）であった。

さらに、前段の分析手法で述べたように、

一脱力発作を伴うてんかん、レノックス・ガストー症候群、ラスムッセン脳炎、脳炎後てんかん、遊走性焦点発作を伴う乳児てんかん、ウンフェルリヒト・レントボルグ病、ミオクローヌステんかん、ラフォラ病、進行性ミオクローヌステんかん、難治頻回部分発作重積型急性脳炎の67症例である。

本研究の分析では、超音波検査を実施する市区町村が存在する当該6都道府県のみを分析対象とするため、当該都道府県にレセプトが存在した58,045人（男性22,685人；女性35,360人）、処置群が12,782人（約26%）、対照群が45,263人（約74%）に対する回帰分析を行う。

尚、本研究での分析は全て、Stata 16.0で行った。

（倫理面への配慮）

「個人情報保護法」に関する諸規則を遵守し、医学研究に関わる部分は「ヘルシンキ宣言」等に従った。その他については、「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針

（2015年4月施行予定）に従って本研究を実施した。連結不可能匿名化がなされた状態で提供される全国調査については、個人が同定される可能性は極めて低いが、例えば、クロス集計等の表彰に関しては、表のセル内の集計数が10を下回らない等、個人が識別されないような配慮を行った。尚、本研究についての倫理審査は、あいち小児保健医療総合センターにおいて一括的に実施された。

C. 研究結果

C-1. 記述統計量

表1は、分析で用いる変数に対する記述統計量を総数・対照群・処置群の別に示した表である。まず、アウトカム変数を見ると、初診が生後6か月以前である確率は、全体では74%だが、対照群の約71%に対して、処置群では約82%と、記述統計量を見る限り、超音

³ 分析対象の抽出に当たって、1人の患者で初診コードが複数存在しないか、逆に初診コードが全く存在しないか、別の傷病名の初診を乳幼児股関節脱臼と同定していないか、1人の患者を追跡する際別の患者と判断していないか等に留意してデータの抽出を行った。

波検査による universal screening の導入によって、約 11%も適切な時期に発見される確率が高い。同様に、初診月齢についても、全体の平均が約 52 か月（約 4 歳）なのに対して、対照群では約 57 か月（約 5 歳）と平均よりも遅く、処置群では約 35 か月（約 3 歳）と、対照群と比較すると、約 22 か月早く初診を受けていることがわかる。他方、観察期間中に診断が確定される比率は全体が約 26%で、対照群の約 27%に対し、処置群では約 22%と、確定確率についても約 5%高い傾向が観察された。初診以降の観察期間中における診療実日数、合計点数、1 人当たり合計点については、対照群がそれぞれ約 51 日、約 56、792 点、約 979 点、処置群が約 61 日、約 64、209 点、982 点と、若干、処置群の方が、日数が長く、点数が高い傾向にあることがみてとれる。最後に、患者の個人属性については、対照群と比べ、処置群の方が、女性患者の比率が低く、先天性である確率が高い傾向にあることがわかる。

C-2. Event Study の結果

第 1 に、アウトカムとして定義した①～⑥の各変数について、DID 分析における平行トレンドの仮定が満たされているかどうかを確認する必要がある。図 4 は、Event Study による推定式(2)から得られた係数をプロットしたものである。これらの図から、アウトカム変数のうち、導入前の 7 期間全てにおいて μ_k に統計学的有意性が観察されず、common trend が確認出来るのは合計点数のみである。5 期間で common trend が確認できるのが 1 日当たりの平均点数、4 期間で確認できるのが診断確定率、かろうじて 3 期間で確認できるのが初診月齢と診療実日数、6 か月以下初診については、2 期間であった。したがって、分析

では、これらのアウトカム変数全てについて DID 法による分析を行うが、導入前の過半数の 4 期間において common trend の要件を満たしているのは、上記の 3 変数のみということになる。

C-3. DID の結果

表 2 は、①～⑥のアウトカム変数についてそれぞれ推定式(1)の解析を行った結果である。全ての回帰分析は、年ダミー・市区町村ダミー・患者属性によって統制されている。超音波検査の導入効果 ($Ultra_{st}$ に対する係数である β_1) を示しているのが、「screening 導入以降ダミー」の係数である。

まず、6 か月以下初診については、対照群と処置群とのオッズ比が 1.321 (95%CI : 1.044-1.671) であることから、時間や市区町村の固定効果や患者属性を統制した上でも、超音波検査の導入は、適正な時期に発見する確率を高める可能性があることが確認された。他方、観察期間中に診断が確定される確率に関しては、対照群と処置群との間に統計学的に有意な関連性は観察されなかった。連続変数について、初診月齢では、対照群と比べ、処置群では約 12 か月早期に DDH が発見され、診療実日数を約 5 日短縮化する傾向にある。また、合計点数については、対照群と比較すると、処置群では約 7,912 点低い傾向にあることがみてとれるが、 $P>t$ 値が 0.11 と 0.1 を若干上回っていることから、統計学的な有意性が明確には確認出来なかった。1 日当たりの平均点数についても、対照群と比べ、処置群で約 7 点低いが、統計学的有意性は観察されなかった。

C-4. 頑健性の確認としての「先天性」versus 「非先天性」

サブグループに分けた分析においても、前節までと整合的な結果が得られるかどうか、結果の頑健性を確認するために、分析対象者を、「先天性」と診断された患者と、それ以外の患者とに分けて、DIDによる分析を行う。ここでは、導入前の7期間のうち、先天性と非先天性の双方のサブグループに分けた Event Study において、少なくとも3期間で common trend の要件を満たしたアウトカム変数に限定して結果を紹介する（表3参照）⁴。

まず、観察期間中に診断が確定されたかどうかについては、両サブグループで超音波検査導入前の4期間において common trend が満たされているが、導入効果については、統計学的に有意な結果は観察されなかった。次に、診療実日数では、導入前の7期間中、先天性で3期間、非先天性では6期間について common trend が確認され、導入効果については、対照群と比べ処置群において、先天性で約4日、非先天性で約20日短縮化する傾向にあることがわかる。合計点数では、導入前の7期間中、先天性では過半数の4期間、非先天性では全期間にわたり common trend が確認されたが、先天性においてのみ、対照群と比較して処置群において、統計学的に有意に約9,666点低い傾向にある。最後に1日当たりの平均点数では、先天性では5期間、非先天性では全期間において common trend が確認されたが、対照群と処置群との間に統計学的に有意な差は観察されなかった。

また、本研究の分析では、男女別のサブグループでの分析も行ったが、対照群と処置群とで、統計学的に有意な結果が得られたのが、女性でのみ6か月以下初診のオッズ比が1.677（95%CI：1.256-2.241）、男性でのみ診

療実日数が約8日間短縮化されたという2点であり、その他のアウトカム変数では、男女の違いはほとんど観察されなかった⁵。尚、男女別のこれらの結果については、7期間中過半数の4期間で common trend の要件が満たされている。

D. 考察

D-1. 費用対効果の検討

本研究で得られた結果に基づき、超音波検査導入に対する簡単な費用対効果分析を行ってみることにする。前節で述べた通り、6都道府県を対象とした場合、導入前の7期間全てに common trend が確認出来、DID法による回帰分析で因果性を主張出来るのは合計点数のみであった。DIDの結果、合計点数については、統計学的有意性が0.1を若干上回っていることから（ $P > t$ 値が0.11）、10%の有意水準をかりうじて満たしてはいることを十分念頭におきながら、当該結果を用いた考察を試みよう。表2の推定によれば、時間や市区町村の固定効果や患者属性を統制した場合の、患者1人当たりの初診以降の合計点数の平均は定数項で示される。表2によれば、合計点数をアウトカム変数とする回帰分析の定数項は、統計学的有意水準1%で有意に推定されており、約112,963点である。これを6都道府県の患者数にかけると、112,963点×56,045人=6,556,954,749点となり、つまり、観察期間中、6都道府県全体の40歳未満の初診を受けたDDH患者に投入する医療費の総額は約656億円と試算される。このDIDの結果から、超音波検査を導入した場合、 $Ultra_{st}$ に対する係数である β_1 は約-7,912点であるので、112,963点から7,912点抑制されることに

⁴ 先天性と非先天性の Event Study の結果については、付録図1を参照のこと。

⁵ 男女別の DID の結果については、付録表1を参照のこと。

なり、結果、1人当たりの初診以降の医療費は112,963点-7,912点=105,051点となる。したがって、超音波検査を導入した場合の医療費総額は、105,051点×56,045人=6,097,687,965点、約610億円(1点=10円)と試算され、当該検査の導入により、医療費総額が約46億円抑制されることになる。他方、本研究プロジェクトで聞き取り調査から、股関節検診委託料1人当たりの委託料について明確な回答があった長野県の1自治体の事例に基づき、1人当たりの検査費用が7,300円とすると⁶、単純計算で、対象者全員に超音波検査を実施した場合の費用総額は、7,300円×56,045人=406,315,000円、つまり、約4億円と試算される。

さらに、表3の先天性と非先天性のサブグループに分けて分析した結果から、比較的common trendの要件が満たされている先天性の結果に着目すると、1人当たりの初診以降の医療費は、超音波検査の導入により、統計学的に1%水準で有意に約-9,666点抑制されるという結果が得られている。表3から、時間や市区町村の固定効果や患者属性を統制した場合の1人当たりの合計点数は同じく1%水準で統計学的に有意に約97,191点と推定されていることから、これを6都道府県の先天性の患者数にかけると、97,191点×35,625人=3,462,412,631、つまり約346億円と試算される。仮に、超音波検査が先天性のDDHの患者全員に導入されたとすると、1人当たりの初診以降の医療費は、97,191点-9,666点=87,524点となるため、医療費総額は、87,524点×35,625人=3,118,054,434点、約312億円と試算され、当該検査の導入により、医療費総

額が約34億円抑制されることになる。先天性の疑いのある患者に限れば、検査費用は、7,300円×35,625人=260,062,500円、つまり、約3億円と試算される。先天性に対するこうした結果は、common trendの要件が満たされ、かつ、DID法による分析結果が統計学的に有意であることから、一定の信頼性が担保された結果であると考えられる。

いずれにしても、上記の試算によれば、DDHの「初診」を受けた「疑い」事例の患者を対象に、selectiveに超音波検査を導入することを想定すると、当該6都道府県全体では、約4億円の検査費用の投入により、DDHにかかる総医療費が約46億円、先天性DDHのみを対象とすると、約3億円の検査費用の投入により、約34億円抑制されることから、DDHの「疑い」患者に対するselectiveな超音波検査の導入は、費用対効果の面から極めて有効であるということがわかる。

他方、仮に、2011年-2018年の7年間に当該6都道府県における出生児全数(693,983(全国の出生数の約9%))に対して超音波検診screeningをuniversalで導入する場合は、7,300円×56,045人=5,066,075,900円、つまり、約51億円の費用がかかることになり、前段で示した初診以降の医療費削減額である約46億円を大幅に上回ってしまうことになる。したがって、本研究の分析で得られた結果を見る限り、DDHに対する超音波検診によるscreening導入の方針としては、universalはcost effectiveではなく、「疑い」事例も含め「初診」を受けた患者に対しselectiveに実施する方が有効であると結論づけることが出来る。

⁶ Elbourne, Dezateux, Arthur, et al.(2002)によれば、UKでの超音波検査の費用は、2000年の価格で£42(当時の為替レートで日本円に換算すると、約

7,000円)であることから、本節の分析での仮定は国際的にみても妥当であると考えられる16)。

D-2. 本研究の限界

前節で論じたように、統計学的有意性を確認することが出来た、6か月以下初診、初診月齢、診療実日数のいずれのアウトカム変数についても、DID法におけるcommon trendの要件が完全に満たされているとはいえず、本節の分析結果をもって、超音波検査の導入との間に明確な因果性の存在を主張することは難しい。

この要因としては、本節での分析に用いたデータの観察期間が2011年4月～2018年3月であるのに対し、処置群の中には、観察期間以前に既に超音波検査を導入していた自治体（観察期間中、 $Ultra_{st}$ 変数は全て「1」とコーディング）と観察期間終了時点で導入した自治体（観察期間中、 $Ultra_{st}$ 変数は全て「0」とコーディング）が数多く存在し、期中に導入した自治体（観察期間中に、 $Ultra_{st}$ 変数が「0」から「1」にswitch）が6自治体しかなかったために、導入前のcommon trendの要件をうまく満たすことが出来なかったためと考えられる。期中に導入した自治体だけを抽出すると、回帰分析に十分な観察数を確保することが出来ず、こうしたデータの制約が、本節の分析の限界である。したがって、今後の課題としては、期末である2018年に導入した自治体について、データをupdateし、フォローアップすることによって、より精緻な結果を導出する必要があるだろう。

E. 結論

本研究では、NDBに自然実験の手法を応用することにより、DDHへの超音波検査導入の効果に対する定量的検証を行った。結果、因果性の特定には至らなかったものの、6か月以下の適正な時期での発見確率の改善、初診月齢の早期化、診療実日数の短縮化の傾向が

確認された。DDHの「初診」を受けた「疑い」事例の患者を対象に、selectiveに超音波検査を導入することを想定すると、6都道府県全体では、約4億円の検査費用の投入により、DDHにかかる総医療費が約46億円、先天性DDHのみを対象とすると、約3億円の検査費用の投入により、約34億円抑制されることから、DDHの「疑い」患者に対するselectiveな超音波検査の導入は、費用対効果の面から極めて有効であるということがわかる。とりわけ、先天性の患者に対する結果は、統計学的な有意性も確認されていることから、一定程度信頼性のある結果であると考えられる。

【参考文献】

- 1) Yamamuro T, Ishida K. "Recent advances in the prevention, early diagnosis, and treatment of congenital dislocation of the hip in Japan". *Clinical Orthopaedics and Related Research*, 1984; 184: 34-40.
- 2) 服部義. 「特集 小児整形外科疾患と装具 - 先天性股関節脱臼（発育性股関節形成不全）」. 日本義肢装具学会誌, 2018; 34(3): 186-191.
- 3) Bialik V, Bialik GM, Blazer S, Sujov P, Wiener F, Berant M. "Developmental dysplasia of the hip: a new approach to incidence". *Pediatrics*, 1999; 103(1): 93-99.
- 4) 皆川靖子・関谷勝・弦巻正樹・風間清子・関川高志・伊賀敏明・蔡篤儀. 「乳幼児股関節検診における超音波健診の有用性」. 日本放射線技術学会雑誌, 2005; 262 : 868-873.
- 5) Reijman M, Hazes JMW, Pols HAP, Koes BW, Bierma-Zeinstra SMA. "Acetabular dysplasia predicts incident osteoarthritis of

- the hip: the Rotterdam study". *Arthritis Rheum*, 2005; 52(3): 787-793.
- 6) Fujii M, Nakashima Y, Jingushi S, Yamamoto T, Noguchi Y, Suenaga E, Iwamoto Y. "Intraarticular Findings in Symptomatic Developmental Dysplasia of the Hip". *Journal of Pediatric Orthopaedics*, 2009; 29(1): 9-13.
- 7) Kotlarsky P, Haber R, Bialik V, Eidelman M. "Developmental dysplasia of the hip: What has changed in the last 20 years?" *World Journal of Orthopedics*, 2015; 6(11): 886-901.
- 8) Godward S, Dezateux C, MRC Working Party on Congenital Dislocation of the Hip. "Surgery for congenital dislocation of hip in the UK as a measure of outcome of screening". *The Lancet*, 1998; 351(9110): 1149-1152.
- 9) Graf R. "The diagnosis of congenital hip-joint dislocation by the ultrasonic Compound treatment". *Archives of Orthopaedic and Trauma Surgery*, 1980; 97(2): 117-33.
- 10) Shipman SA, Helfand M, Moyer VA, Yawn BP. "Screening for Developmental Dysplasia of the Hip: A Systematic Literature Review for the US Preventive Services Task Force". *Pediatrics*, 2006; 117 (3): e557-e576.
- 11) Dezateux C, Rosendahl K. "Developmental dysplasia of the hip". *The Lancet*, 2007; 369(9572): 1541-1552.
- 12) Imbens GW, Wooldridge JM. "Recent Developments in the Econometrics of Program Evaluation". *Journal of Economic Literature*, 2009; 47 (1): 5-86.
- 13) Vitae MG, Skaggs DL. "Development dysplasia of the hip from six months to four years of age". *Journal of the American Academournal of Orthopedicsy of Orthopaedic Surgeons*, 2001; 9(6): 401-411.
- 14) Angrist J, Pischke JS. "Mostly Harmless Econometrics". 2008; Chapter 5.2: 169-182. Princeton University Press, NJ. <http://www.mostlyharmlesseconometrics.com/> (2020-02-24 アクセス確認)
- 15) Autor DH. "Outsourcing at Will: The Contribution of Unjust Dismissal Doctrine to the Growth of Employment Outsourcing". *Journal of Labor Economics*, 2003; 21(1): 1-42.
- 16) Elbourne D, Dezateux C, Arthur R, Clarke NMP, Gray A, King A, Quinn A, Gardner F, Russell G on behalf of the UK Collaborative Hip Trial Group. "Ultrasonography in the diagnosis and management of developmental hip dysplasia (UK Hip Trial): clinical and economic results of a multicentre randomised controlled trial". *The Lancet*, 2002; 360(9350): 1541-1552.
- F. 研究発表**
- 1. 論文発表**
専門誌へ投稿予定
- 2. 学会発表**
国内外の学会にて発表予定
- G. 知的財産権の出願・登録状況**
- 1. 特許取得**
特に無し
- 2. 実用新案登録**
特に無し
- 3. その他**
特に無し

表 1: 記述統計量

変数の定義	総数			対照群 (screening 無)			処置群 (screening 有)		
	観察数	平均値	標準偏差	観察数	平均値	標準偏差	観察数	平均値	標準偏差
初診 6 か月以内=1	58,045	0.737	0.440	45,263	0.715	0.452	12,782	0.815	0.388
観察期間中の確定率=1	58,045	0.256	0.436	45,263	0.265	0.442	12,782	0.222	0.416
初診月齢	58,045	52.161	114.419	45,263	56.965	119.325	12,782	35.149	93.060
診療実日数 (初診以降)	58,045	53.337	58.339	45,263	51.171	57.735	12,782	61.006	59.806
合計点数 (初診以降)	58,045	58,425	136,604	45,263	56,792	142,234	12,782	64,209	114,277
1人当たり点数 (初診以降)	58,045	979.499	837.579	45,263	978.872	856.709	12,782	981.717	766.031
女性=1	58,045	0.609	0.488	45,263	0.617	0.486	12,782	0.582	0.493
先天性=1	58,045	0.614	0.487	45,263	0.584	0.493	12,782	0.721	0.449
脱臼=1	58,045	0.725	0.446	45,263	0.726	0.446	12,782	0.722	0.448
亜脱臼=1	58,045	0.022	0.146	45,263	0.024	0.153	12,782	0.014	0.119
白蓋形成不全=1	58,045	0.253	0.435	45,263	0.250	0.433	12,782	0.264	0.441

出所：『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB) 』 (2012年1月～2017年12月) により筆者算出.

表 2: DID 法による screening 導入効果の推定結果

統制変数	Lotistic		OLS				
	初診 6 か月以下	診断確定	初診月齢	診療実日数	合計点数	1 日当たりの平均点数	
	オッズ比 (95%CI)	オッズ比 (95%CI)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	
screening 有ダミー	1.819 (0.519-6.374)	0.495 (0.169-1.451)	4.075 (16.711)	-17.193 (10.016)	* -24654.160 (26303.130)	617.889 (164.198)	***
screening 導入以降ダミー	1.321 (1.044-1.671)	** 0.846 (0.636-1.126)	-12.387 (3.192)	*** -4.772 (1.913)	** -7912.254 (5024.165)	-7.401 (31.363)	
定数項	0.482 (0.405-0.573)	*** 0.118 (0.093-0.149)	*** 138.450 (2.700)	*** 103.145 (1.655)	*** 112963.300 (4345.260)	*** 1006.092 (27.125)	***
年ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	
市区町村ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	
患者属性	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	
観察数	57,906	57,777	58,045	58,045	58,045	58,045	
Log likelihood	-21878.286	-15247.059					
Prob > chi2	0.000	0.000					
Pseudo R2	0.343	0.537					
F 値			191.600	76.480	15.08	6.68	
Adj R-squared			0.459	0.252	0.0591	0.0247	

出所: 『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB) 』 (2012 年 1 月~2017 年 12 月) により筆者推定.

注) ***, **, *はそれぞれ,1%,5%,10%水準での統計学的有意性を示している.二値変数については lotistic 分析,連続変数については OLS 分析を行った.

したがって,()内は,logistic 分析については 95%信頼区間を,OLS 分析については標準誤差を表している.

表 3 : DID 法による screening 導入効果の推定結果 (先天性 versus 非先天性)

統制変数	Lotistic				OLS							
	診断確定		診療実日数		合計点数				1日当たりの平均点数			
	先天性 オッズ比 (95%CI)	非先天性 オッズ比 (95%CI)	先天性 係数 (標準誤差)	非先天性 係数 (標準誤差)	先天性 係数 (標準誤差)	非先天性 係数 (標準誤差)	先天性 係数 (標準誤差)	非先天性 係数 (標準誤差)	先天性 係数 (標準誤差)	非先天性 係数 (標準誤差)		
screening 有ダミー	0.014 (0.000-98.995)	0.489 (0.105-2.271)	-25.822 (11.164)	** 16.387 (19.690)	-46978.650 (23832.370)	** 45006.700 (58526.700)	393.820 (182.543)	** 961.521 (325.388)	***			
screening 導入以降ダミー	1.195 (0.848-1.684)	0.641 (0.229-1.395)	-4.121 (1.756)	** -20.090 (7.097)	*** -9666.195 (3749.273)	*** -22438.770 (21095.870)	-27.103 (28.717)	57.345 (117.286)				
定数項	0.198 (0.145-0.269)	*** 0.045 (0.031-0.066)	*** 97.435 (2.367)	*** 101.919 (2.912)	*** 97190.530 (5052.298)	*** 118629.700 (8654.969)	*** 1028.704 (38.698)	*** 1009.582 (48.119)	***			
年ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes			
市区町村ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes			
患者属性	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes			
観察数	35,200	22,247	35,625	22,420	35,625	22,420	35,625	22,420				
Log likelihood	-7298.219	-6837.017										
Prob > chi2	0.000	0.000										
Pseudo R2	0.378	0.557										
F 値			79.510	21.3	17.77	5.59	3.61	3.31				
Adj R-squared			0.324	0.184	0.0927	0.0485	0.0157	0.025				

出所：『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB) 』(2012年1月～2017年12月)により筆者推定。

注) ***, **, *はそれぞれ, 1%, 5%, 10%水準での統計学的有意性を示している。二値変数については lotistic 分析, 連続変数については OLS 分析を行った。

したがって, ()内は, logistic 分析については 95%信頼区間を, OLS 分析については標準誤差を表している。

サブグループに分けて行った Event Study に基づき, 導入前の 7 期のうち, 少なくとも 3 期間において common trend の要件を満たすアウトカム変数の結果のみを示している。

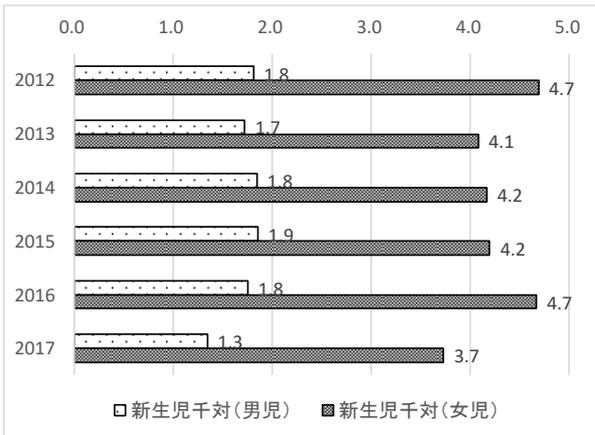


図 1：各年における新生児千対「脱臼」確定診断数

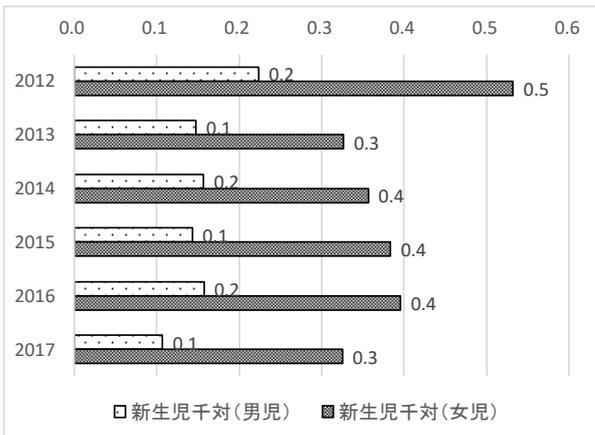


図 2：各年における新生児千対「亜脱臼」確定診断数

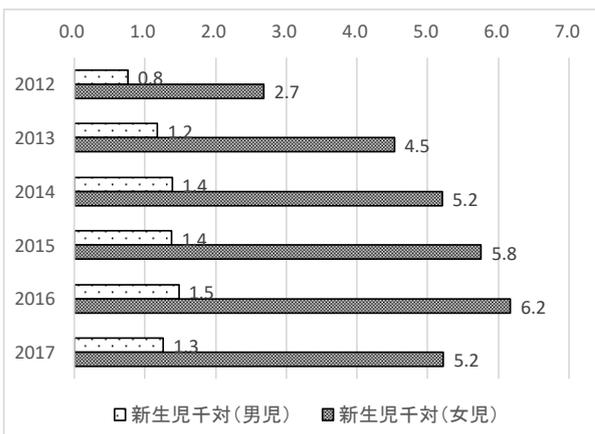
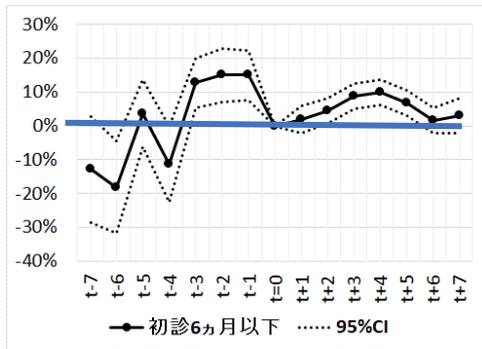
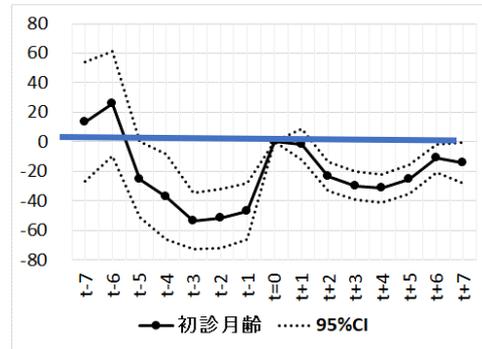


図 3：各年における新生児千対「白蓋形成不全」確定診断数

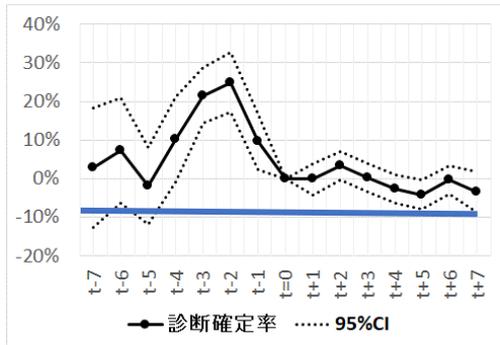
出所：『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB)』(2012 年 1 月～2017 年 12 月), 総務省データベース『人口動態調査』により筆者算出.



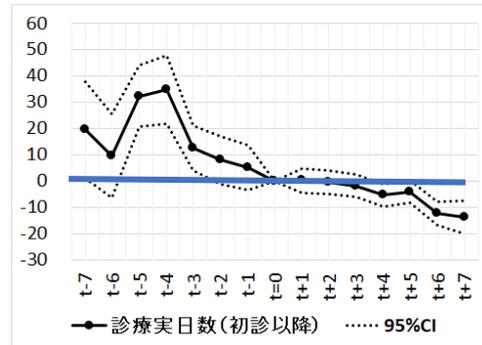
初診 6 か月以下の初診確率 (N=58, 045)



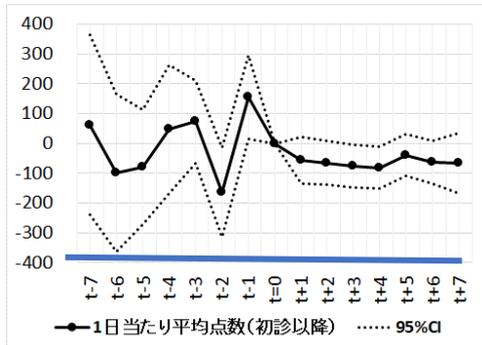
初診月齢 (N=58, 045)



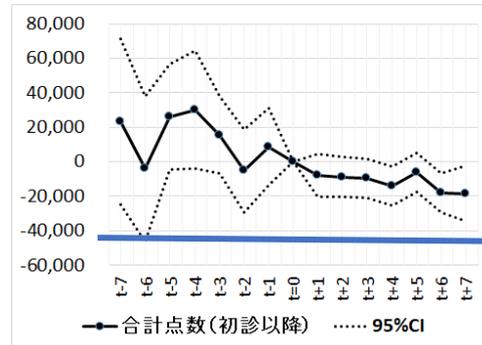
診断確定 (疑い→確定) 率 (N=58, 045)



初診以降の診療実日数 (N=58, 045)



初診以降の 1 日当たり平均点数 (N=58, 045)



初診以降の合計点数 (N=58, 045)

図 4 : Event Study の結果

出所：『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB)』(2012 年 1 月～2017 年 12 月) により筆者算出。

付録表 1 : DID 法による screening 導入効果の推定結果 (男性 versus 女性)

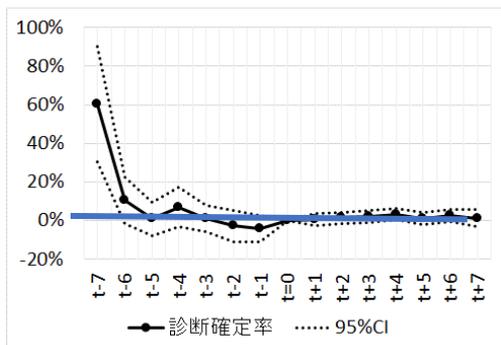
	Lotistic				OLS							
	初診 6 か月以下		診断確定		診療実日数		合計点数		1日当たりの平均点数			
	男性	女性	男性	女性	男性	女性	男性	女性	男性	女性		
統制変数	オッズ比 (95%CI)	オッズ比 (95%CI)	オッズ比 (95%CI)	オッズ比 (95%CI)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)	係数 (標準誤差)		
screening 有ダミー	17.547 (1.324-232.626)	** 0.584 (0.144-2.373)	0.263 (0.038-1.828)	0.664 (0.117-2.494)	-35.728 (15.651)	** -1.369 (13.076)	-68162.880 (45335.260)	13566.160 (31291.900)	1177.282 (246.330)	*** 136.869 (221.095)		
screening 導入以降ダミー	0.850 (0.556-1.298)	1.677 (1.256-2.241)	*** 0.907 (0.536-1.536)	0.817 (0.578-1.154)	-7.622 (2.985)	** -1.843 (2.503)	-11342.480 (8645.663)	-4911.557 (5988.759)	-13.609 (46.976)	-10.039 (42.314)		
定数項	0.459 (0.333-0.634)	*** 0.469 (0.381-0.577)	*** 0.095 (0.060-0.151)	*** 0.245 (0.187-0.319)	*** 101.719 (3.672)	*** 96.726 (1.870)	*** 115053.200 (10637.080)	*** 97544.300 (4476.145)	*** 934.861 (57.797)	*** 959.135 (31.626)		
年ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes		
市区町村ダミー	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes		
患者属性	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes	Yes		
観察数	22,528	35,173	22,311	35,159	22,685	35,360	22,685	35,360	22,685	35,360		
Log likelihood	-7404.269	-14176.589	-4737.192	-10335.525								
Prob > chi2	0.000	0.000	0.000	0.000								
Pseudo R2	0.296	0.354	0.462	0.539								
F 値					35.830	46.64	7.33	10.27	4.15	4.32		
Adj R-squared					0.256	0.244	0.0588	0.0615	0.0302	0.0229		

出所：『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB)』(2012 年 1 月～2017 年 12 月) により筆者推定。

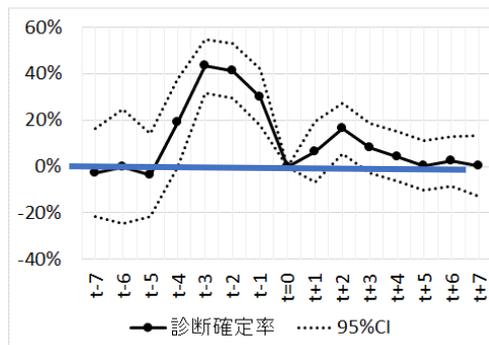
注) ***, **, *はそれぞれ, 1%, 5%, 10%水準での統計学的有意性を示している。二値変数については lotistic 分析, 連続変数については OLS 分析を行った。

したがって, ()内は, logistic 分析については 95%信頼区間を, OLS 分析については標準誤差を表している。

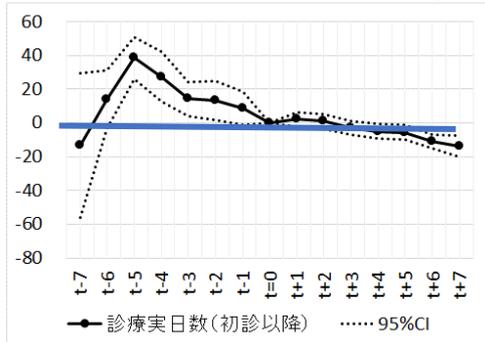
サブグループに分けて行った Event Study に基づき, 導入前の 7 期のうち, 少なくとも 3 期間において common trend の要件を満たすアウトカム変数の結果のみを示している。



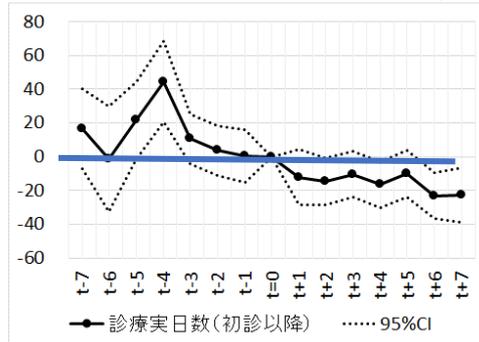
診断確定（疑い→確定）率 (N=35,625)



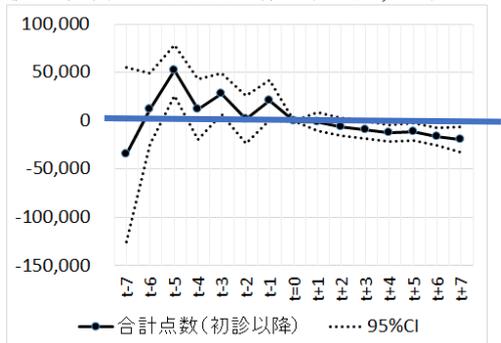
診断確定（疑い→確定）率 (N=22,420)



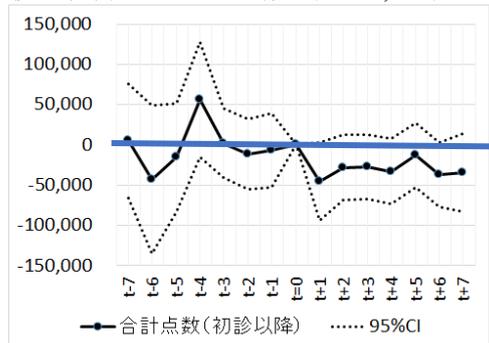
初診以降の診療実日数 (N=35,625)



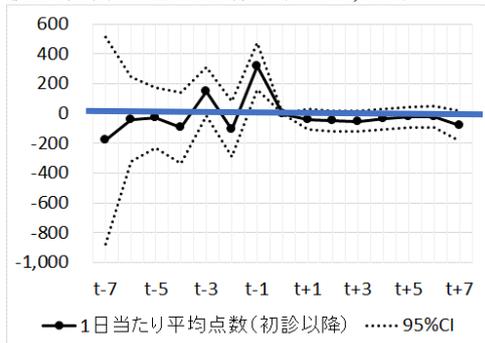
初診以降の診療実日数 (N=22,420)



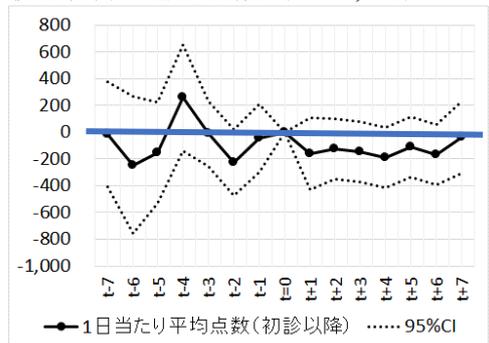
初診以降の合計点数 (N=35,625)



初診以降の合計点数 (N=22,420)



初診以降の1日当たり平均点数 (N=35,625)



初診以降の1日当たり平均点数 (N=22,420)

付録図 1 : Event Study の結果 (先天性 versus 非先天性)

出所 : 『レセプト情報・特定健診等情報データベース (National Database : NDB)』
(2012年1月~2017年12月) により筆者算出.