

令和1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

2011年～2014年に出生したエコチル調査参加児について、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

2019年10月20日現在、エコチル調査参加者の中で、2011年出生が9,736人、2012年出生が28,270人、2013年出生が35,628人、2014年出生が26,666人で、全体が100,300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108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1.08人/1000出生、2011年出生で2.47、2012年出生で0.81、2013年出生で0.98、2014年出生で0.98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、0.35、5.80、0.40、6.79であった。脳性麻痺発生数を元に、2014年出生数での脳性麻痺発生数を推定したところ、一般審査基準（旧基準）での該当者が出生年により211～387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59～111人の幅を認めた。また、一般審査基準（新基準）での該当者が313人、質問票回収数により250～455人の幅を認めた。個別審査基準（新基準）では、29人、質問票回収数により14～39人の幅を認めた。

4. 考察

脳性麻痺発生率は、今回、出生数に対して、報告された脳性麻痺発生数から算定し、0.67～2.16/1000出生であった。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。鳥取県、徳島県、栃木県に

において、2009年から2013年に出生した脳性麻痺発生率は年ごとに、鳥取県で0.4~2.2、徳島県で1.7~2.3、栃木県で1.3~2.1であり、今回の結果はその範囲より低い傾向があった。エコチル調査から算定した年間脳性麻痺発生数推計は、個別審査対象者が少ないが、選択バイアスにより発生数が低く見積もられている可能性があり、参考値としてみるべきであると考えられる。

## 5. 結論

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。

### (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2011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2011年1月から開始され、2014年3月末で終了した。子どもの出産も2014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(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51,908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2019年10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、脳性麻痺に関わる質問が含まれる1歳、3歳、4歳、5歳質問票の回収数はそれぞれ、90,480件、82,436件、77,976件、68,861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の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症率の推計を行い、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症率を推定することにある。

エコチル調査参加者100,300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。

2019年10月20日現在で、エコチル調査参加者の中で、2011年出生が9,736人、2012年出生が28,270人、2013年出生が35,628人、2014年出生が26,666人で、全体が100,300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8,065人、2012年出生が23,455人、2013年出生が29,061人、2014年出生が21,855人で、回収率は82.2%であった。4歳質問票登録数は2011年出生が7,676人、2012年出生が22,243人、2013年出生が27,341人、2014年出生が20,716人で、回収率は77.7%であった。5歳質問票登録数は2011年出生が7,227人、2012年出生が20,899人、2013年出生が25,705人、2014年出生が15,030人で、回収率は68.7%であった。

エコチル調査参加者の内、旧基準で97,950人（97.6%）、新基準で99,086人（98.8%）が一般審査基準該当者であり、旧基準で1,725人（1.7%）、新基準で589人（0.6%）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 108 人であった。昨年度の報告より 5 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 87 人であった。妊娠 28 週以降に出産した児の中で、上記二つどちらにも該当した人数は、全体で 44 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 1.08 人/1000 出生、2011 年出生で 2.47、2012 年出生で 0.81、2013 年出生で 0.98、2014 年出生で 0.98 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、0.35、5.80、0.40、6.79 であった。

脳性麻痺発生数を元に、2014 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）での該当者が出生年により 211～387 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 59～111 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。

### 3．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、H21 年 1 月に創設された。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ことから、その対象者数の正確な試算が重要であるが、全国的な規模での脳性麻痺発生数の報告はなく一部地域の報告をもとに開始された。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制度対象者が 419 人と確定したことから、対象補償金と余剰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、H27 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り、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 年後に明らかとなり、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。

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。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H23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て開始された。

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が増加することについて明らかとした。一方で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た。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分娩時情報がエコチル調査では不十分であることから、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が明らかとなり、追加調査の継続は困難かつ有効性に乏しいことが明らかとなった。

本年度はデータが回収固定しつつあるエコチル調査を用い、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(他分担研究者報告書参照)本邦における最新の脳性麻痺児の疫学調査「脳性麻痺児の実態把握に関する疫学調査報告書」(公益財団法人日本医療機能評価機構・脳性麻痺児の実態把握に関する疫学調査プロジェクトチーム)データと妊娠週数毎・分娩週数毎に脳性麻痺発生率について比較し、本研究データの信頼性について検討を行った。