

## 左心低形成症候群における出生前診断例と非診断例の医療費の検討

里見 元義<sup>1)</sup>, 松井 彦郎<sup>1)</sup>, 安河内 聡<sup>1)</sup>, 福重淳一郎<sup>2)</sup>  
 総崎 直樹<sup>2)</sup>, 小野 安生<sup>3)</sup>, 田中 靖彦<sup>3)</sup>

長野県立こども病院循環器科<sup>1)</sup>,  
 福岡市立こども病院・感染症センター循環器科<sup>2)</sup>,  
 静岡県立こども病院循環器科<sup>3)</sup>

## Key words :

左心低形成症候群, 医療費, 出生前診断,  
 prospective medicine(前方視的医療)

## Medical Cost of Hypoplastic Left Heart Syndrome in Relation to Prenatal Diagnosis

Gengi Satomi,<sup>1)</sup> Hikoro Matsui,<sup>1)</sup> Satoshi Yasukochi,<sup>1)</sup> Junichiro Fukushima,<sup>2)</sup>  
 Naoki Fusazaki,<sup>2)</sup> Yasuo Ono,<sup>3)</sup> and Yasuhiko Tanaka<sup>3)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Pediatric Cardiology, Nagano Children's Hospital, Nagano,

<sup>2)</sup>Department of Pediatric Cardiology, Fukuoka Children's Hospital & Medical Center for Infectious Disease, Fukuoka,

and <sup>3)</sup>Department of Pediatric Cardiology, Shizuoka Children's Hospital, Shizuoka, Japan

**Background:** No report has detailed a cost-benefit analysis of congenital heart diseases in relation to prenatal diagnosis.

**Methods:** The 59 children with hypoplastic left heart syndrome (HLHS) enrolled this study were cared for in three different children's hospitals in Japan during the period from January 1, 2000, to December 31, 2004. Eighteen were given a prenatal diagnosis, and 41 were without prenatal diagnosis. The total medical costs claimed from the medical insurance office were investigated in the patient group that underwent Norwood operation and survived from the first admission until the time of discharge from the pediatric ICU.

**Results:** The median total medical cost was 10.5 million yen in the patient group without prenatal diagnosis and 9.1 million yen in the patient group with prenatal diagnosis.

**Conclusion:** The medical cost of patients with HLHS from the first admission until the time of discharge from the pediatric ICU was a median 1.43 million yen less and a mean 2.3 million yen less in the patient group with a prenatal diagnosis than in those without a prenatal diagnosis.

### 要 旨

目 的：先天性心疾患の出生前診断が医療費の面からみて貢献するか否かを明らかにすること。

対 象：福岡市立こども病院，長野県立こども病院，静岡県立こども病院の3施設において2000年1月1日～2004年12月31日の期間に経験した左心低形成症候群(出生前診断例18例，非診断例41例)合計59例を対象として初回入院に要した総医療費を調査し検討した。

方 法：初回入院で生存退院した例のうちで入院の期間がNorwood(N)+bidirectional Glennまで含まれる群では，N術後のICU退室までで区切って，出生前診断群と非診断群とで比較した。

結 果：出生前非診断群では平均1,221,914点(中央値1,054,749)に対し，出生前診断群では平均点992,130点(中央値911,737)となっており，1例平均で230万円，中央値で143万円低額を示す傾向が認められた。標準偏差が大きく有意差は認められなかった( $p = 0.283$ )。

結 語：医療経済学的にも出生前診断は有意義であると推察された。

平成18年1月27日受付

別刷請求先：〒399-8288 長野県安曇野市豊科3100

平成18年6月28日受理

長野県立こども病院循環器科 里見 元義

## 背 景

出生前診断の利点として、ショックの予防、前方視的医療、術前状態の改善、生存率の向上、両親の早期の精神的受容などが指摘されているが、医療費の面からみて貢献しているか否かについては、調査した範囲ではこれまで明らかにされた検討はない。左心低形成症候群は従来一般的には、もし出生前診断がなされていないならば、生後に見え元気があった新生児が、無尿を伴った急激な血圧低下やショックとして発症し、初めて診断される。一方、もし出生前診断がなされていれば両親に疾患の自然歴についての説明をしたうえで、動脈管閉鎖に伴う症状の発現を予防する目的でPGE<sub>1</sub> (プロスタグランジンE<sub>1</sub>)の静脈内投与を開始し、予定した通りに第一期手術を行うことが可能である。そこで左心低形成症候群では、出生前診断例と非診断例の差が比較的明瞭に区別できると考え、今回の調査対象疾患とした。左心低形成症候群の第1回入院診療にあたって、出生前診断例と非診断例において要した医療費につき比較検討を行った。

## 対 象

左心低形成症候群は約10,000人に1人という比較的可成りな疾患であることから、国内で本症の治療を積極的に行っている3つの小児医療施設を選び、それらの施設での合計について調査検討した。福岡市立こども病院、長野県立こども病院、静岡県立こども病院の3施設において2000年1月1日～2004年12月30日の期間に経験した左心低形成症候群(出生前診断例18例、非診断例41例)合計59例を対象として初回入院に要した総医療費を調査し検討した。患者の氏名、イニシャル、年齢、性別、患者番号など個人情報すべてを除外した形で、初回入院に要した総診療点数を医事情報から抽出し、比較検討した。

## 方 法

以下の3通りの方法で総医療費の比較検討を行った。総医療費は中央値を用いて比較し、Mann-Whitney検定を用い、 $p < 0.05$ をもって有意差の判定とした。

生存、死亡に無関係に出生前診断群と非診断群とで比較。

初回入院で生存退院した例だけを対象として、その期間に要した医療費を出生前診断群と非診断群とで比較。

検討のうち初回入院のままNorwood手術 + bidirectional Glenn (BDG) 手術まで行う施設とNorwood (N) 手

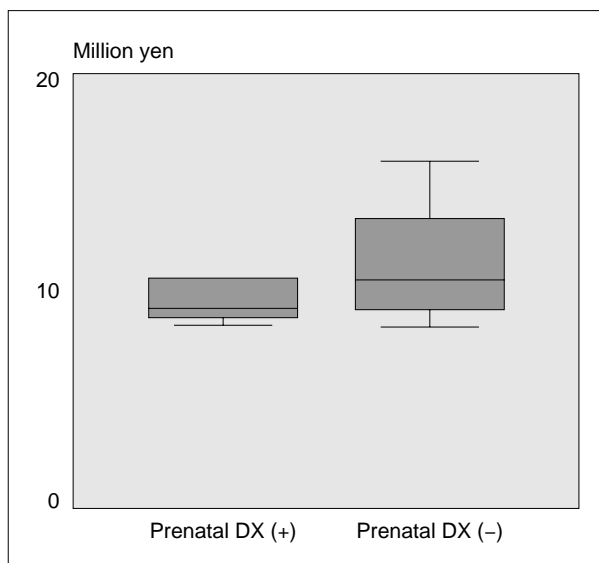


Fig. 1 Comparison of medical costs in patient groups with hypoplastic left heart syndrome with and without prenatal diagnosis. Median value: The group with a prenatal diagnosis of HLHS had a median medical cost that was 1.43 million yen less than that of the group without a prenatal diagnosis.

術でいったん退院する施設が含まれるため、入院期間がN + BDGの群においてはN術後のICU退室までで区切って、出生前診断群と非診断群とで比較。

## 結 果

術後生存、死亡の区別なく比較すると総保険点数の中央値は出生前非診断例41例の1,027,792点に対して出生前診断例18例では1,051,259点となっていた。標準偏差が大きく有意差は認められなかった。

第一期手術で生存した26例のみを対象とした比較では総保険点数の中央値は出生前非診断例21例の1,073,215点に対して出生前診断例5例では1,333,597点となっていた。

のうちBDGを含む群についてICU退室までの期間で区切って比較すると非診断例の中央値は1,054,749点に対し、出生前診断群では911,737点となっていた ( $p = 0.283$  (Fig. 1)). 保険点数1点は医療費10円に相当することから検討では出生前診断例のほうが中央値で約143万円低額となっていた。標準偏差が大きく有意差は認められなかった。検討において、平均値の差は229,784点出生前診断例のほうが低値であった。これは約230万円に相当する。

## 考 案

出生前診断が先天性心疾患の手術成績の改善に貢献

していることについては種々報告があるが<sup>1-3)</sup>、われわれが調べ得た範囲では医療経済の面から検討した報告はない。わが国において、比較的積極的に左心低形成症候群の治療に取り組んでいると思われる小児病院3施設を選んで、第1回目の入院にかかった費用を出生前診断例と非診断例において比較検討した。かかった医療費は健康保険の請求額の総和をもって調査し、1点10円であることからその10倍を医療費総額とした。

検討 Ⅰは、在院日数や生存死亡に無関係にただ総医療費を単純に比較したものである。出生前非診断群のなかにはショック状態で来院し状態不良のためNorwood手術まで到達することなく死亡した症例もあり、その結果、かかった医療費は非常に低額になっているケースも含まれていた。このような理由で検討 Ⅰでは出生前非診断群の医療費が低額の傾向を示したと考えられた。またNorwood手術後の経過によっては死亡に至る例もあり、死前期においては濃密な集中治療を行ったために医療費が高額となった例もあれば、両親が濃密な集中治療を希望しなかったために医療費としては低額となった例もある。これらの理由から検討 ⅡではNorwood手術を受けた症例で、生存退院まで到達した例のみを対象として比較した。検討 Ⅱの結果では総医療費の中央値で比較すると出生前診断群のほうが総医療費は高額となっていた。その理由として、検討 ⅡのなかにはNorwood手術後にいったん退院させる施設と、そのまま次のBDG手術まで続けて入院させる施設の両方が含まれており、そのため一定の傾向が認められなかったものと考えられた。そこで検討 Ⅲでは、生存退院した例のうちでも、この点を標準化する意味で入院期間をNorwood手術後にICUを退室するまでで区切って、両者を比較した。検討 Ⅲでは中央値と平均値のいずれでも出生前診断群のほうが、かかった総医療費は低額であった。

臨床の現場においては、病院にショック状態で搬送されて、ほとんど医療を受けることなく死亡に至る例もあれば、同じようにショック状態で搬送されても、濃厚な集中治療を施すことによって安定した状態まで回復し、手術に至る例もある。ほとんど医療を施すことなく死亡すれば医療費は低く、集中治療を施せば高くなる。出生前診断がなされていなければショックで発症するケースが多いので医療費も高くなるかという疑問に対しては、この理由から一概にその通りにはなっていない。

また術後どの程度の入院期間を必要とするかに関しても、同様の手術を受けても術後感染症、乳び胸水、残存大動脈縮窄など、出生前診断とは無関係の種々の

要因によって大きな差が生じる。このような理由から、今回行った3種類の検討方法のいずれにおいても非常に幅広い標準偏差を有しており、有意差をもって差があることを証明することはできなかった。この理由から中央値をもって医療費の傾向をみた結果、検討 Ⅰでは24万円、出生前診断例のほうが低くなっていた。検討 Ⅱでは中央値で143万円、平均値で230万円と、いずれも出生前診断例のほうが低くなっていた。

今回、左心低形成症候群を取りあげて、この1疾患のみについて、出生前診断の有無による医療費を比較検討したが、この傾向はおそらくは他の先天性心疾患についても同様であると類推される。その理由としては、出生前診断を行うことによって、起こる可能性のあることを予測しながら行う、前方視的医療 (prospective medicine) を実践することによるところが大きいと考えられる。いったん後手に回ってしまえば、残遺症や合併症のリスクも高くなり、患者のQOLも悪化することは周知のことであるが、この状態から立て直すのに要する労力と時間はそのまま医療費の差となって現れることが予想される。本検討では一部分ではあるが、その点を明らかにしたことは有意義であったと思われる。ノルウェーで行われた、先天性梅毒に対する出生前診断と予防プログラムが経済の面からみてcost-benefit ratioで1.9の効果があるとした報告がある<sup>4)</sup>。そのなかでは妊娠中に診断および治療がなされない場合の財政的コストを、直接的なコストと間接的なコストに分けている。直接的コストとしては、長期の施設ケア、奇形と発達遅滞を有する児に対する特別な教育とリハビリテーションに要する費用を、間接的コストとしては、疾患による経済的生産性がないことを含んでいる。今回の検討には含まれていないが、左心低形成症候群においても同様で、診断および治療が後手に回ったために残遺症や後遺症、合併症を来す可能性が高いことを考えると、本検討で行った直接的コストに加えて、間接的コストについても出生前診断群のほうが低いことは明らかであり、本症の出生前診断は直接効果のみでも中央値の比較で143万円の節減効果があり、これに間接効果も加えれば、さらに医療経済から考えてcost-beneficialであるといつてよいと思われる。

## 結 語

左心低形成症候群における第1回目の入院時における医療費は、出生前診断群のほうが、出生前非診断群よりも1例あたり中央値で143万円、平均値で230万円低額であったことから、出生前診断は医療経済学的見地からも社会に貢献すると思われる。

**【参考文献】**

- 1 Satomi G, Yasukochi S, Shimizu T, et al: Has fetal echocardiography improved the prognosis of congenital heart disease? Comparison of patients with hypoplastic left heart syndrome with and without prenatal diagnosis. *Pediatr Int* 1999; 41: 728–732
- 2 Tworetzky W, McElhinney DB, Reddy VM, et al: Improved surgical outcome after fetal diagnosis of hypoplastic left heart syndrome. *Circulation* 2001; 103: 1269–1273
- 3 Blackley KJ, Kilby MD, Wright JG, et al: Outcome after prenatal diagnosis of hypoplastic left-heart syndrome: A case series. *Lancet* 2000; 356: 1143–1147
- 4 Stray-Pedersen B: Cost-benefit analysis of a prenatal preventive program against congenital syphilis. *NIPH Ann* 1980; 3: 57–66