

香港小腦共濟失調症的成本：回顧性疾病成本分析

*Winser John Stanley, Chan Kit Laam Kelly, Chinn Ching Tung,
Tang Wai Lok, Tye Man Kit Ringo, Yeung Kai Ki and Raymond Cheung*

香港理工大學康復治療科學系，香港九龍

背景：小腦性共濟失調影響患者的協調和平衡。這種疾病造成的影響增加了患者、護理人員和社會的負擔。香港並未對這種疾病的成本和負擔進行調查。

目標：（1）估計香港小腦性共濟失調在 2019 年基準年的社會經濟成本；（2）評估健康狀況的生活質量（HRQoL）和共濟失調的嚴重程度；（3）確定小腦性共濟失調嚴重程度與成本之間的相關性，以及檢查小腦性共濟失調的嚴重程度與健康狀況的生活質量之間的相關性。

方法：對 31 例小腦性共濟失調患者進行回顧性橫斷面研究。與成本有關的數據是通過自我報告的問卷獲得。共濟失調的嚴重程度使用共濟失調評估與評級表進行評估，而 HRQoL 則使用簡短形式（36）健康調查（SF-36）進行評估。正態分佈數據採用 Pearson 相關分析，而其他情況則採用 Spearman 相關分析。

結果：以 40 分為總分，共濟失調的平均嚴重程度為 21 分。以 6 個月平均計算，一名共濟失調患者的直接和間接成本分別為 HKD 51,371 和 HKD 93,855。以日常生活中能獨立活動至最低依賴患者為一組，與中度至高度依賴患者為另一組作比較，兩組的直接成本和間接成本的平均差分別為 33,829 港元和 51,444 港元。大量支出與生產損失（42%）、護理人員工資（17%）和住院護理（16%）有關。SF-36 的身體功能（ $r = -0.58$ ）和總體健康狀況（ $r = -0.41$ ）與疾病嚴重程度呈負相關（ $p < 0.05$ ）。研究發現，疾病嚴重程度與直接成本（Spearman 的 $\rho = 0.39$ ）和僱用護理人員的成本（Spearman 的 $\rho = 0.43$ ）之間存在顯著的正相關。

結論：香港小腦性共濟失調患者 6 個月的平均成本為 146,832 港幣。額外的支援，包括就業、聘請專業顧問、非正式的家庭護理和社區參與，也是一些應予關注的範疇。將來有必要對更大的群組進行前瞻性的研究，以確認上述結果。

關鍵字：小腦性共濟失調，成本效用，疾病成本，直接成本，間接成本

介紹

小腦性共濟失調不是疾病，而是小腦或其連接受損引起的一系列症狀（1）。這類異質性疾病可大致分為獲得性和遺傳性類型（1）。共濟失調的主要特徵包括功能不全，子宮發育不良，震顫，平衡差，步態不穩，構音障礙和認知障礙（1、2）。小腦性共濟失調患者中，平衡差和步態不穩是造成傷害性跌倒的高發因素。Van de Warrenburg 等報告說，共濟失調患者中有 93% 是跌倒者，其中有 85% 遭受了傷害性跌倒（3）。小腦性共濟失調的國際患病率為每 100,000 人有 0.3 至 3.0（4）例，具體數字取決於潛在的基本原因。在韓國進行的一項研究報告，其患病率為每 100,000 人有 8.29（5）例。

小腦性共濟失調的大多數主要特徵都會影響患者的恢復工作能力；這很可能會增加個人和社會的經濟負擔（6）。此外，一些小腦共濟失調患者的日常活動（ADL）需要家庭成員或有償助手的支持，這會增加因這種情況引起的間接費用（6）。在香港，身為合資格市民的小腦性共濟失調患者可以得到的社會支持包括醫療費用補貼、殘疾兒童的金錢補貼和名為“香港小腦萎縮症協會”（HKSCAA）的自助小組的福利。

據我們所知，目前包括香港在內的亞洲地區尚無任何報告小腦性共濟失調成本的研究。因此，有必要開展一項研究來確定小腦性共濟失調的直接和間接成本以及小腦性共濟失調患者的生活質量（QoL）。這項研究的結果將強調小腦共濟失調患者的護理需求。此外，這項研究的結果將會令決策者察覺到，如有需要，則要重整小腦共濟失調患者的需求。因此，本研究旨在（1）估計香港小腦性共濟失調的直接和間接社會經濟成本，包括因任何原因發病的小腦性共濟失調患者（2）評估香港 2019 年小腦性共濟失調患者的健康狀況生活質量（HRQoL）（3a）估計小腦共濟失調的嚴重程度與成本之間的相關性，（3b）估計小腦共濟失調的嚴重程度與生活質量之間的相關性。

材料和方法

我們進行了一項以回顧性橫斷面調查為基礎的研究。此項研究獲得香港理工大學人類道德規範委員會（HSECS 參考編號：HSEARS20190524001）的道德規範認可。該試驗已在中國臨床試驗中註冊（註冊號：ChiCTR1900023440）。我們透過收回自我報告的問卷，取得 2019 基準年香港小腦性共濟失調患者過去 6 個月的成本效用資料。

參與的患者經由 HKSCAA 招募。這些志願參與者必須為已確診的小腦性共濟失調患者，不論患病原因為何，亦不論是否已知原因。不願透露個人資料的患者則不獲接納。研究人員以本地語言解釋了研究目的以及所涉及的程序和潛在風險。採納的患者均提供了書面同意。通過 HKSCAA 向參與研究的患者分發了一份調查個人資料（如年齡、性別）和社會經濟成本資料的問卷。在本研究中，跌倒是指從坐姿或直立姿勢向斜躺姿勢或到地面姿勢的迅速不受控制的變化（7），“經常跌倒的人”是指過去 6 個月內跌倒五次或以上的人。

小腦性共濟失調的嚴重程度使用共濟失調評估與評級表（SARA）進行評估。該量表的總分為40分。得分越高，共濟失調症狀越嚴重。評估工作由研究小組成員進行，成員均由小組督導員培訓。在本研究中，參與的患者根據整體SARA得分歸類為不同的日常活動(ADL)依賴程度。得分小於10的患者歸類為能獨立活動至最低依賴性組別，而得分大於10的患者歸類為中度至高度依賴性組別(8)。據報導，SARA在估計小腦性共濟失調患者的疾病嚴重程度方面，有高度的評分者之間可靠性(9)、再測試可信度(9)和建構效度(10)。HRQoL則使用簡短形式（36）健康調查（SF-36）進行評估。SF-36包括8個範疇，每個按0至100評分，0分表示可能最差的健康狀況，100表示可能最好的健康狀況。過去有關小腦性共濟失調的研究均使用SF-36(11–13)。本研究使用中文版的SF-36。此版本具有令人滿意的聚合效度和區別效度（14、15）。該量表具有較高的再測可信度（ICC範圍為0.66-0.94）和內部一致性（Cronbach alpha範圍為0.72-0.88）（14）。

問卷要求患者回顧過去 6 個月與小腦共濟失調相關的醫療費用，以估算社會經濟成本。至於無法前往 HKSCAA 的患者，測試在他的住所進行。患者回答了 52 項社會經濟調查；一些患者基於寫作能力的原因，需由照顧者或研究人員協助。SF-36 是由研究人員通過訪談進行。

評估量表是隨機執行。除評估人員之外，另有兩名支持研究人員還提供了待命協助，以確保安全。完成這三個測試所需的總時間為 60 分鐘。

我們使用疾病成本（COI）分析（也稱為疾病負擔）來估算社會經濟成本。這種分析方法考慮了健康成效對一個國家、特定地區、社區甚至個人的各種影響。COI 評估患者因健康和生活質量下降以及各項財務因素而構成的患病狀況，包括因過早死亡、殘疾或受傷導致的直接和間接支出（16）。這些評估可以確定疾病成本的不同組成部分，為制定醫療保健政策提供深入分析。所得資料能突顯欠缺效率的範圍，以便確定撥款優先次序和醫療資源分配（17）。

我們估計了直接和間接成本。直接成本是醫療系統、社會、患者個人及其家庭承擔的成本。此等成本項目包括診斷、治療、康復、專業醫療服務、藥物和其他醫療用品的醫療保健支出。COI 研究的間接成本是由患病和死亡而導致的生產力損失；此等成本由患者或其家人負擔（16）。在這項研究中，大多數直接和間接成本項目皆以實物為單位匯報，然後以人力資本法將其折算為貨幣單位，並假定將來的收入可反映將來的生產力，以患者將來的收入折為現值後估算人力資本的價值（16）。標準化的單位成本取自香港醫院管理局收費表（18），其餘成本則是參與研究的患者提供的貨幣單位。

表 1 列出 2019 基準年香港沒有資助的醫療保健開支的成本。我們使用以下準則選擇成本項目以進行估算：與共濟失調的相關性、項目的可量化性、經濟負擔或成本效用研究工作採用此等項目的普遍性、及其反映和影響患者生活質量(QoL)的程度。

統計分析

數據分析工作以 SPSS 版本 20 進行。收集得的個人資料(年齡、性別)以平均值和百分比報告。小腦性共濟失調患者的社會經濟成本、疾病嚴重程度和生活質量以描述性統計數據說明。至於疾病嚴重程度與成本之間的相關性，以及疾病嚴重程度與生活質量之間的相關性，則以推論性統計數據報告。如果數據呈正態分佈，則以 Pearson 相關法量化其相關性；若非正態分佈，則採用 Spearman 相關係數。在這項研究中，相關係數在 0.3–0.5 視為低水平，0.5–0.7 視為中水平，0.7–0.9 視為高水平，> 0.9 視為極高水平（19）。此外， α 設置為 <0.05 以免產生無效假設，即小腦共濟失調的嚴重程度、成本和生活質量等因素之間不存在相關性。

靈敏度分析

我們進行了兩項經調整的分析。首先，我們排除了患有後天性小腦共濟失調（例如中風、多發性硬化症或腦癱導致繼發性共濟失調）的參與者，因為這些疾病的臨床過程可能與退化性和遺傳性共濟失調不同。其次，我們構建了一個龍捲風圖，以高低分布形式表示直接成本和間接成本中每個項目對共濟失調總成本的影響程度。成本的最小和最大範圍設置為第 25 個百分位和第 75 個百分位，此模型用於檢走每個經調整的極端成本值，而其餘成本值固定於其平均值和中位數（20，21）。

結果

這項研究包括 31 位年齡在 25 至 74 歲之間的小腦性共濟失調患者。

表 2 列出獲採納患者的個人資料。所有接納的患者均為具有中國種族背景在香港居民。共有 30 人有跌倒史；其中有 87% 是經常跌倒的人（6 個月內跌倒 5 次或以上）。6 個月的平均

跌倒次數為 26。90%的跌倒是在室內，不需要住院。因跌倒和與跌倒相關的受傷而到急症室（A&E）的平均就診次數為 1。

表 3 顯示過去 6 個月內由於小腦共濟失調導致的直接和間接成本。每個共濟失調患者 6 個月的平均成本為 146,832 港幣（表 3）。大量支出是與生產損失（42%）、住院護理（16%）和護理人員工資（17%）有關。直接醫療成本佔總成本的 35%，而間接成本佔 65%。

在日常能獨立活動或最低依賴性患者組別中，直接和間接成本分別佔 31%和 69%。此組別患者指出康復費用（8%）、護理人員工資（10%）和生產損失（12%）涉及重大支出。相比之下，住院護理（<1%）、交通（<1%）和家庭裝修（<1%）的費用微不足道。至於日常活動中度至最高度依賴的患者組別，因生產損失（44%）、住院護理（17%）和護理人員薪水（18%）產生大量費用。運輸（<1%）和家庭裝修（2%）在平均總成本中佔最少。

表 4、5 列出 SF-36 和 SARA 研究發現的日常獨立活動至最低依賴組別的平均得分、中度至最高度依賴性組別平均得分，以及兩個組別的平均差和顯著差異。我們發現兩個組別在疾病嚴重程度得分存在顯著差異。

表 6 呈報生活質量、疾病嚴重程度和成本之間的相關性。共濟失調嚴重程度(SARA)與以下兩項生活質量範疇之間出現顯著的相關性負數：身體功能($r=-0.58$)和一般健康($r=-0.40$)。至於社會經濟成本，共濟失調嚴重程度與直接成本(Spearman's $\rho=0.40$)、僱用護理人員成本(Spearman's $\rho=0.37$)和呈現顯著的($p<0.05$)和正向的相關性。

表 1：2019 基準年沒有資助的醫療及醫療相關成本單位（港元）(18)

成本項目	單位	估算單位成本（港元）
直接醫療成本		
1. 住院		
1a 共濟失調症狀入住普通科醫院	日數	\$5100
1b 非共濟失調症狀入住普通科醫院	日數	\$5100
1c 因跌倒入急症室	次數	\$1230
1d 非因跌倒入急症室	次數	\$1230
1e 深切治療部	日數	\$24400
2. 門診		
2a. 普通科醫生診治共濟失調	次數	\$445
2b. 普通科醫生診治非共濟失調	次數	\$445
2c. 專科醫生診治共濟失調	次數	\$1190
2d. 專科醫生診治非共濟失調	次數	\$1190
2e. 傳統中醫診治共濟失調	次數	\$120
2f. 傳統中醫診治非共濟失調	次數	\$120
2g. 共濟失調針灸治療	次數	\$180
2h. 非共濟失調針灸治療	次數	\$180

3. 藥物	藥丸種類數目	不適用 (特定藥物價格資料根據 Lexi-Comp)
4. 復康	次數	\$1190
5. 助行器	項目數	不適用 (價格資料根據香港五間復康用品店的平均價*)
6. 雜項	不適用	不適用 (有待搜集價錢資料)

間接醫療成本

1. 護理人員	月數	\$4520
2. 交通	不適用	不適用 (有待搜集價錢資料)
3. 家庭裝修	安裝項目數	不適用 (價格資料根據香港五間復康用品店的平均價*)
4. 由於疾病或提早退休導致的生產損失	時數	不適用 (參考香港統計處資料)

*曾聯絡五間主要復康用品店搜集家庭裝修開支資料。五間商店為：(1) *Wing Hang Medical Supplies Limited*, (2) *Just Med Limited*, (3) *Health Top*, (4) *Live Smart Rehab*, and (5) *Healthy Living Medical Supplies Limited*.

表 2 :

參與者的個人資料 (n = 31)

性別	男		15 (48.4%)
	女		16 (51.6%)
年齡	平均值 (SD)		55.1 (14.7)
	範圍		25-74
共濟失調的原因	脊髓小腦共濟失調	SCA 3	4 (12.9%)
		SCA 35	1 (3.2%)
		SCA 40	1 (3.2%)
		未知類型	20 (64.5%)
		總數	26 (83.9%)
	中風		1 (3.2%)
	腦癱		1 (3.2%)
	不明原因的共濟失調		3 (9.7%)

診斷期限	年均數 (SD) 範圍	15.1 (11.0) 2-46
就業狀況	全職 兼職 自僱人士 退休 無法工作	4 (2.9%) 3 (9.7%) 3 (9.7%) 15 (48.4%) 6 (19.4%)
教育程度	沒有上學/幼兒園 小學 初中 高中 文憑/證書課程 大學	1 (3.4%) 5 (16.1%) 6 (19.4%) 7 (22.6%) 4 (12.9%) 8 (25.8%)
婚姻狀況	單身 已婚 離婚/分居 喪偶	13 (41.9%) 12 (38.7%) 3 (9.7%) 3 (9.7%)
照顧者的協助	是 沒有	19 (61.3%) 12 (38.7%)
步行輔助裝置	是 沒有	31 (100%) 0 (0%)
輔助裝置的類型	電動輪椅 輪椅 助行架 助行輪架 拐杖 四腳叉 手杖 不需要助行器	15 (48.4%) 6 (19.4%) 1 (3.2%) 2 (6.5%) 0 (0%) 4 (12.9%) 1 (3.2%) 2 (6.5%)
跌倒歷史	是 沒有	30 (96.8%) 1 (3.2%)
經常跌倒 (6 個月內跌倒 5 次以上)	是 沒有	27 (87.1%) 4 (12.9%)
跌倒次數	均值 (SD)	26.2 (37.6)
現住房屋類型	租住公共房屋 租住私人房屋 私人永久性住房 殘疾之家 居者有其屋計劃	17 (54.8%) 2 (6.5%) 10 (32.3%) 1 (3.2%) 1 (3.2%)
生活	獨居 和家人同住	2 (6.5%) 29 (93.5%)
提前退休	是 不是	24 (77.4%) 7 (22.6%)
疾病嚴重程度 (SARA)	平均值 (SD) / 40	21.2 (8.2)

	範圍	4.5–39.0
基於 SARA 評分的 ADL 中的 依賴程度	中度至最高度依賴性 (SARA <10)	27 (87.1%) 4 (12.9%)
	獨立活動至最低依賴性 (SARA> 10)	

表 3:

在 2019 基準年內，每位小腦共濟失調的患者在 6 個月期間內的平均成本 (SD) [佔總成本的百分比] (港元)。

成本項目	獨立活動至最 低依賴性組別 港元平均值 (SD) {平均就診}	中度至最高依 賴性組別 港元平均值 (SD) {平均就診}	平均差	總數 港幣平均值 (SD) {平均就診}
直接成本				
1.住院護理	307.5 (615.0) [0.4%]	26072.2 (61853.7) [16.5%]	25764.7	22747.7 (58248.5) [15.5%]
1a 共濟失調住 院	0	17377.8 (59865.7) [10.6%] {3.41}	17377.8	15135.5 (56045.6) [10.0%] {2.97}
1b 非共濟失調 的原因入院	0	7555.6 (21187.6) [4.6%] {1.48}	7555.6	6580.6 (19891.9) [4.3%] {1.29}
1c 因跌倒入急 症室	307.5 (615.0) [0.4%] {0.25}	637.8 (1501.4) [0.4%] {0.52}	330.3	595.2 (1415.7) [0.4%] {1.05}
1d 非因跌倒入 急症室	0	501.1 (1144.7) [0.3%] {0.41}	501.1	436.5 (1079.2) [0.3%] {0.35}
1e 深切治療部 (ICU)	0	0	0	0
2.門診護理	1815.0 (2288.1) [2.6%]	3999.8 (3122.4) [2.5%]	2184.8	3717.9 (3086.6) [2.5%]
2a 普通科診治 共濟失調	111.3 (222.5) [0.2%]	148.3 (445.0) [0.1%]	37.0	143.5 (420.4) [0.1%]

	{0.25}	{0.33}		{0.32}
2b 普通科診治	556.3	395.6	160.7	416.3
非共濟失調	(1112.5)	(712.6)		(752.9)
	[0.8%]	[0.2%]		[0.3%]
	{1.25}	{0.89}		{0.94}
2c 專科門診診	595.0	1410.4	815.4	1305.2
治共濟失調	(687.0)	(935.7)		(939.8)
	[0.8%]	[0.9%]		[0.9%]
	{0.50}	{1.19}		{1.10}
2d 專科門診診	297.5	1278.1	980.6	1151.6
治非共濟失調	(595.0)	(1864.9)		(1777.9)
	[0.4%]	[0.8%]		[0.8%]
	{0.25}	{1.07}		{0.97}
2e 傳統中醫診	62.5	898.1	835.6	790.3
治共濟失調	(125.0)	(2238.5)		(2103.7)
	[0.1%]	[0.5%]		[0.5%]
	{0.25}	{3.59}		{3.16}
2f 傳統中醫診	375.0	55.6	319.4	96.8
治非共濟失調	(595.1)	(200.2)		(286.3)
	[0.5%]	[0.0%]		[0.1%]
	{1.50}	{0.22}		{0.39}
2g 針灸治療共	62.5	444.4	381.9	395.2
濟失調	(125.0)	(1368.1)		(1280.9)
	[0.1%]	[0.3%]		[0.3%]
	{0.25}	{1.78}		{1.58}
2h 針灸治療非	0	37.0	37.0	32.3
共濟失調		(133.4)		(124.9)
		[0.0%]		[0.0%]
		{0.15}		{0.13}
3.藥物	6670.7	5574.7	1096.0	5716.1
	(13341.4)	(13200.6)		(12998.4)
	[9.4%]	[3.5%]		[3.9%]
4.復康	7140.0	12561.1	5421.1	11861.6
	(14280.0)	(24466.5)		(23293.8)
	[10.1%]	[7.9%]		[8.1%]
	{6.00}	{10.56}		{9.97}
5.助行器	3973.5	8681.5	4708.0	8074.0
	(7491.4)	(7336.5)		(7405.0)
	[5.6%]	[5.5%]		[5.5%]
6.雜項	2000.0	652.6	1347.4	826.5
	(4000.0)	(1079.8)		(1679.7)
	[2.8%]	[0.4%]		[0.6%]

直接成本總額	21906.7 (21117.8) [30.9%]	55736.1 (65875.8) [35.3%]	33829.4	51371.0 (62757.5) [35.0%]
間接開銷				
1.護理人員	6780.0 (13560.0) [9.6%]	28124.4 (23160.9) [17.8%]	21344.4	25370.3 (23156.0) [17.3%]
2.交通	500.0 (707.1) [0.7%]	412.8 (587.0) [0.3%]	87.2	424.0 (591.2) [0.3%]
3.家庭裝修	578.0 (719.1) [0.8%]	2372.6 (2462.7) [1.5%]	1794.6	2141.0 (2383.7) [1.5%]
4.生產損失	8733.0 (11408.0) [12.3%]	69584.1 (96057.3) [44.0%]	60850.8	61732.4 (91868.1) [42.0%]
間接成本總額	49049.5 (54445.5) [69.1%]	100493.9 (109411.3) [63.6%]	51444.4	93855.9 (104778.3) [65%]
總開支	70956.2 (52825.2)	158072.9 (146110.9)	87116.8	146832.1 (140222.4)

表 4 | 使用 SF-36 量得的生活質量 QoL 的平均得分（斜體字）

生活質量範疇	獨立活動至最低依賴度組別的平均值(SD)	中度至最高依賴度組別的平均值(SD)	總計 平均值(SD)	p-值
身體功能	45.0 (32.9)	23.7 (16.2)	26.5 (19.8)	0.042*
工作崗位（身體健康因素）	18.3 (14.05)	20.2 (31.8)	17.6 (30.4)	0.087
工作崗位（情緒因素）	41.7 (41.9)	55.6 (47.1)	53.8 (46.1)	0.680
體力	36.3 (22.9)	57.0 (22.8)	54.4 (23.5)	0.155
情緒健康	61.0 (25.0)	76.0 (21.0)	74.1 (21.7)	0.235
社交功能	50.0 (22.8)	56.5 (37.6)	55.6 (35.8)	0.654
痛楚	41.9 (26.0)	68.5 (31.2)	65.1 (31.6)	0.094
一般健康	51.3 (24.3)	40.5 (21.0)	41.9 (21.3)	0.374
健康狀況變化	37.5 (25.0)	24.6 (19.7)	26.3 (20.5)	0.350

* $p < 0.05$ 顯示有統計上的意義

表 5 | 使用 SARA 量得的小腦性共濟失調嚴重程度平均得分

SARA 項目 (計分範圍)	獨立活動至最低 依賴度組別 的平均值(SD)	中度至最高依賴度 組別的平均值(SD)	總計 平均值(SD)	p-值
步態(0-8)	3.0 (2.2)	6.2 (1.3)	5.8 (1.8)	0.003*
站立(0-8)	1.3 (1.0)	4.2 (1.7)	3.8 (1.9)	0.006*
坐下(0-8)	0.0 (0.0)	1.4 (1.6)	1.2 (1.6)	0.056
語言障礙(0-8)	0.3 (0.5)	2.4 (1.6)	2.1 (1.6)	0.006*
手指點擊(0-4)	1.1 (0.8)	1.7 (0.8)	1.6 (0.8)	0.210
手指觸鼻(0-4)	0.4 (0.3)	2.0 (1.1)	1.9 (1.2)	0.013*
手掌反覆翻動(0-4)	0.5 (0.7)	2.8 (0.6)	2.5 (1.0)	<0.001*
腳跟沿脛滑動(0-4)	0.8 (0.3)	2.5 (1.1)	2.2 (1.2)	0.003*
總分	7.3 (2.2)	23.2 (6.5)	21.2 (8.2)	<0.001*

*具意義的 $p < 0.05$. * $p < 0.05$ 表示具統計意義。

表 6 | 共濟失調嚴重程度與生活質量和成本的相關性

項目	相關性系數	p-值	
疾病嚴重程度(SARA)相對於生活質量(SF-36)			
身體功能#	-0.579	0.001*	
工作崗位 (身體健康因素) ^	0.095	0.612	
工作崗位 (情緒因素) ^	-0.079	0.672	
體力#	0.008	0.964	
情緒健康#	-0.245	0.184	
社交功能^	-0.133	0.475	
痛楚^	0.181	0.329	
一般健康#	-0.407	0.023*	
健康狀況變化^	-0.333	0.067	
疾病嚴重程度(SARA)相對於成本			
直接成本	住院護理^	0.329	0.071
	門診護理^	0.339	0.062
	藥物^	0.110	0.555
	復康^	0.263	0.153
	助行器^	0.384	0.033*
	雜項^	-0.022	0.183
	總計^	0.390	0.030*
間接成本	護理人員^	0.432	0.015*
	交通^	0.279	0.128
	家庭裝修^	0.371	0.040*
	生產損失^	0.205	0.268
	總計^	0.246	0.183
整體開支	0.318	0.081	

*具意義的 $p < 0.05$, #Pearson's r , ^Spearman's ρ .

靈敏度分析

在第一次調整後的分析中，我們刪除了 2 例獲得性小腦共濟失調（中風和腦癱）患者的數據。附錄 1 總結了首次靈敏度分析的結果。該分析的結果未顯示任何重要差異。圖 1 說明了第二個靈敏度分析的結果，即龍捲風圖。在第 25 和第 75 個百分位內的成本項目中，“生產力損失”對成本的影響最大，其次是“僱用護理人員的成本”和“助行器”。

討論

本研究旨在確定 2019 年基準年香港小腦共濟失調患者的社會經濟成本。每位小腦共濟失調患者的 6 個月平均估計成本為 146,832 港幣（獨立活動至最低依賴患者組別為 70956 港元，而中度至最高度依賴患者組別為 158073 港元）。直接成本佔支出的 35%，間接成本佔支出的 65%。患者表示，找專科顧問的機會有限，大多數門診都在普通門診進行。此外，在大多數情況下，接受物理治療、職業治療和言語治療等復康服務的次數只限於每周一次。對於共濟失調發作後的就業，可以考慮為目標患者群提供額外的支持，以解決小腦共濟失調患者的重大生產損失（平均 42%），因為患者可能會失去工作能力。此外，幾乎所有患者在最近 6 個月內跌倒了一次或多次，而大多數小腦性共濟失調患者（87%）經常跌倒。

小腦性共濟失調的症狀會在生理和心理上影響患者，嚴重影響患者和國家的經濟負擔。迄今為止，全球僅有一項關於全面經濟和生活質量評估的研究（6）。我們的研究結果與早前西班牙對 84 例脊髓小腦性共濟失調患者進行的研究結果一致（6），他們同樣發現提前退休和非正式護理成本導致的生產力損失是疾病成本的主要類別。在香港或亞洲其他地區並未進行小腦性共濟失調患者的社會經濟成本研究。因此，以前取得的成本研究結果可以作為參考。由於醫療保健系統、文化、醫療保健政策、每個國家的資源以及成本估算的基準年之間存在個別差異，因此將我們的研究與以前的研究結果的比較有局限（22）。與先前發表的研究（6）相反，我們使用 SARA 估計疾病的嚴重程度。SARA 是一種可靠、有效且靈敏度高的測量工具，可用於估計小腦性共濟失調患者的疾病嚴重程度（9，10）。此外，我們亦運用 SARA 評分將患者依日常活動的獨立性分組，顯然有更好的準確性。醫療系統與香港類似的中國發表了一項研究報告，顯示帕金森遜症的年度成本為 24,995 港元（按 2019 基準年折算貨幣）（23）。帕金森遜症患者的估計成本較低可能是由於生產力損失導致的成本較低，因為帕金森症常見於可能已經退休的長者。其次，我們根據沒有資助的費用估算成本，而他們估算中國帕金森氏病患者實際支付的費用。撇開成本估算的個別差異，一般而言，此地區的小腦共濟失調成本似乎高於帕金森症的成本。

合資格香港市民在所有直接成本項目均可以獲得 88% 的資助（18），並在間接醫療成本項下獲得一次性資助，僅限於家庭裝修。在 6 個月期間的直接醫療成本中，這大約相當於由香港醫療系統支付 45,206 港元的平均成本，剩餘的 6,165 港元由患者支付。在間接支出中，僱用護理人員的成本在總成本的百分比佔第二高位（17%），緊隨生產損失之後。目前，患有嚴重小腦共濟失調的患者需要聘用至少一名全職家務助理進行日常護理。全職家務助理的月薪介乎 4520 港元至 6,000 港元。建議由政府資助各項支援服務，例如給予坐輪椅或臥床的小腦性共濟失調患者資助，以支付家務助理或僱用護士的薪金。

在生活質量的 9 個範疇中，有 6 個與疾病嚴重程度（SARA）沒有相關性。得出此結果的原因可能源於測量工具在特性上的限制。儘管 SARA 經過廣泛驗證適用於估計疾病嚴重程度（24），但這項測量工作可能無法充分反映某些具有小腦外特徵病例的疾病嚴重程度。SARA 對共濟失調相關的症狀進行評分，但不考慮共濟失調患者中常見的非共濟失調症狀，特別是那些患有脊髓性小腦共濟失調的患者（9）。因此，如果患者的生活質量受非共濟失調症狀的影響，則 SARA 評分與 SF-36 結果的比較可能無法很好地呈現相關性。相比之下，根據目前的發現，可以認為疾病嚴重程度不影響小腦性共濟失調患者可察見的生活質量。

日常能獨立活動或最低依賴度的患者（n=4）報稱能繼續就業，但減少工作時間。這些患者的平均生產損失為 8733 港元。在中度至最高依賴組別中（n=27），有 7 人報告無法工作。

這組患者的平均生產力損失為 69584 港元。值得注意的是，患有嚴重疾病的患者中有 84% 由於小腦共濟失調而提前退休。該研究僅考慮了過去 6 個月的生產力損失。整體平均損失為 60,850 港元。終身生產損失可能真正反映兩組之間的差異。生產力損失增加了這些患者的經濟負擔。

住房和家庭裝修支出的平均成本為每 6 個月 2141 港元。在這 31 名病人中，有 17 人住在香港政府提供的公屋。值得注意的是，76% 的患者需要家庭裝修，例如安裝扶手和坡道。據患者報告，這些費用已被香港房屋委員會豁免。病情較重的患者在家庭裝修上的費用是病情較輕患者的五倍。

HKSCAA 是香港小腦性共濟失調患者的自助團體，為患者及其護理人員提供支持和指導。該協會定期為患者舉辦聚會和活動，讓他們與群組內的病友進行社交活動。HKSCAA 亦向患者介紹社會上可用的資源，藉此擔當患者與政府之間的橋樑。在這項研究中，我們未包括患者的社交成本，因為此類成本沒有量度標準。進行研究時我們預計疾病嚴重程度與 SF-36 的社會功能項目之間會呈現負相關性。然而，研究發現這些項目之間並未呈現有意義的相關性 ($p = 0.431$)。出現這個現象的潛在原因可能是樣本量較小。研究中大約 70% 的參與者回答說，社交活動發生了干擾。這種干擾表明，身體健康的限制阻礙了社交活動。因此，建議政府和非政府組織提供必要的支持，讓患者能參與社交活動，從而改善和加強社區參與。

我們的研究顯示出以下優點：（1）據我們所知，這項研究在亞洲尚屬首次。（2）使用最佳估算方法（16）進行成本估算時採取嚴格步驟，建立了標準單位價格，令研究結果更具說服力。（3）參與者經由 HKSCAA 招募，真正代表香港患者群組。（4）使用專用於小腦性共濟失調的標準化評估工具，以評估疾病嚴重程度（SARA）和生活質量（SF-36）。（5）最後，我們使用了 SF-36 的中文譯本和標準問卷，從參與者獲得更準確的答覆。

在這項研究中觀察到一些局限性。首先，樣本比較小，只招募了 31 名患者，可能削弱研究的說服力。HKSCAA 是香港唯一專責服務小腦性共濟失調患者的權益小組，已登記 126 名確診小腦性共濟失調患者為會員。我們的樣本佔香港確診病例的 25%，可視為是香港小腦共濟失調患者的代表性樣本。此外，鑑於香港是一個共濟失調患病率較低的小城市，參與患者有 31 人被認為可以接受樣本。將來進行地區性研究時可能包括來自中國大陸等鄰近地區的數據，以招募更大的樣本量。此外，所有患者都經由 HKSCAA 招募，HKSCAA 是香港唯一專責服務小腦共濟失調患者的權益小組。將來的研究可能考慮透過香港公立醫院的神經內科門診部招募潛在參與者。其次，研究中使用的測量工具包括自我報告的問卷。患者可能沒有完全理解問卷內的措辭，因此做出的選擇不太準確。然而，我們使用標準的中文版 SF-36 自評問卷，以防止研究結果的內部有效性受損。第三，小腦共濟失調嚴重程度的評估工作需要由多於一名評估者進行。然而，所有參與評估工作的閱卷員都由同一位經驗豐富的研究人員培訓，確保了評估工作的評分者之間可靠性。最後，由於這項研究是回顧性，參與者在填報成本項目時難免出現記憶偏差。這次進行回顧性分析，原因是時間和資源的限制。我們建議將來的研究進行前瞻性分析，以更準確地每天記錄支出。儘管有這些局限性，本研究的結果仍可視為揭開一個序幕，為將來進行大規模小腦性共濟失調患者成本效用研究鋪路。

結論

在香港，小腦共濟失調患者六個月的平均成本為 146,832 港元。大部分成本是疾病引起的間接開支。額外的支援，包括就業、聘請專業顧問、非正式的家庭護理和社區參與，也是一些應予關注的範疇。將來有必要對更大的群組進行前瞻性的研究，以確認上述結果。

數據可用性聲明

欲取得此研究生成的數據集，可向相關的作者索取。

道德聲明

香港理工大學人類倫理委員會（HSECS 參考編號：HSEARS20190524001）審查並認可此等涉及人類參與者的研究。患者/參與者參與本研究均提交了書面同意，以示明白研究內容。

作者貢獻

WS 參與了概念的開發、研究方法的準備、統計分析以及撰寫草稿。CK、CT、TL、TR 和 YH 參與了數據收集、統計分析和撰寫草稿。RC 參與了統計分析和撰寫草稿。所有作者都為該文章作出貢獻，並同意所提交的版本。

資金

這項研究由香港理工大學早期職業創業基金資助。

致謝

作者團隊感謝 HKSCAA 和參加這項研究的參與者。我們感謝 Umar Bello Muhammad 先生為數據收集提供的幫助。

補充材料

本文的補充材料可以在以下網址在線找到：

<https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fneur.2020.00711/full#supplementary-material>

參考資料

1. Marsden J, Harris C. Cerebellar ataxia: pathophysiology and rehabilitation. *Clinical Rehab.* (2011) 25:195–216. doi: 10.1177/0269215510382495
2. Manto M, Mariën P. Schmahmann's syndrome-identification of the third cornerstone of clinical ataxiology. *Cereb Ataxias.* (2015) 2:2. doi: 10.1186/s40673-015-0023-1
3. van de Warrenburg BP, Steijns JA, Munneke M, Kremer BP, Bloem BR. Falls in degenerative cerebellar ataxias. *MovDisord.* (2005) 20:497–500. doi: 10.1002/mds.20375
4. Van de Warrenburg B, Sinke R, Verschuuren–Bemelmans C, Scheffer H, Brunt E, Ippel P, et al. Spinocerebellar ataxias in the Netherlands: prevalence and age at onset variance analysis. *Neurology.* (2002) 58:702–8. doi: 10.1212/WNL.58.5.702
5. Joo B-E, Lee C-N, Park K-W. Prevalence rate and functional status of cerebellar ataxia in Korea. *Cerebellum.* (2012) 11:733–8. doi: 10.1007/s12311-011-0332-8
6. López-Bastida J, Perestelo-Pérez L, Montón-álvarez F, Serrano-Aguilar P. Social economic costs and health-related quality of life in patients with degenerative cerebellar ataxia in Spain. *MovDisord.* (2008) 23:212–7. doi: 10.1002/mds.21798

7. Noury N, Fleury A, Rumeau P, Bourke AK, Laignin GO, Rialle V, et al. Fall detection-principles and methods. In: 29th Annual International Conference of the IEEE Engineering in Medicine and Biology Society. Lyon (2007).
8. Kim B-R, Lim J-H, Lee SA, Park S, Koh S-E, Lee I-S, et al. Usefulness of the Scale for the Assessment and Rating of Ataxia (SARA) in ataxic stroke patients. *Ann Rehab Med.* (2011) 35:772. doi: 10.5535/arm.2011.35.6.772
9. Schmitz-Hübsch T, Du Montcel ST, Baliko L, Berciano J, Boesch S, Depondt C, et al. Scale for the assessment and rating of ataxia: development of a new clinical scale. *Neurology.* (2006) 66:1717–20. doi: 10.1212/01.wnl.0000219042.60538.92
10. Winser S, Smith CM, Hale LA, Claydon LS, Whitney SL, Klatt B, et al. Psychometric properties of a core set of measures of balance for people with cerebellar ataxia secondary to multiple sclerosis. *Arch Phys Med Rehab.* (2017) 98:270–6. doi:10.1016/j.apmr.2016.07.023
11. Epstein E, Farmer JM, Tsou A, Perlman S, Subramony S, Gomez CM, et al. Health related quality of life measures in Friedreich ataxia. *J Neurol Sci.* (2008) 272:123–8. doi:10.1016/j.jns.2008.05.009
12. Graves TD, Cha Y-H, Hahn AF, Barohn R, Salajegheh MK, Griggs RC, et al. Episodic ataxia type 1: clinical characterization, quality of life and genotype– phenotype correlation. *Brain.* (2014) 137:1009–18. doi: 10.1093/brain/awu012
13. Sánchez-López C, Perestelo-Pérez L, Escobar A, López-Bastida J, Serrano- Aguilar P. Health-related quality of life in patients with spinocerebellar ataxia. *Neurología.* (2017) 32:143–51. doi: 10.1016/j.nrleng.2015. 09.002
14. Li L, Wang H, Shen Y. Development and psychometric tests of a Chinese version of the SF-36 health survey scales. *Zhonghua Yu Fang Yi XueZaZhi.* (2002) 36:109–13.
15. Lam C, Lo Y, Lam E, Gandek B. Psychometrics and population norm of the Chinese (HK) SF-36 health survey_version 2. *HK Pract.* (2008) 30:189–97.
16. Jo C. Cost-of-illness studies: concepts, scopes, and methods. *ClinMolHepatol.* (2014) 20:327. doi: 10.3350/cmh.2014.20.4.327
17. Byford S, Torgerson DJ, Raftery J. Cost of illness studies. *BMJ.* (2000) 320:1335. doi:10.1136/bmj.320.7245.1335
18. Hospital Authority. Fees and Charges. Available online at: http://www.ha.org.hk/visitor/ha_visitor_index.asp?Parent_ID=10044&Content_ID=10045&Ver=HTML (accessed February 9, 2019).
19. Mukaka MM. A guide to appropriate use of correlation coefficient in medical research. *Malawi Med J.* (2012) 24:69–71.
20. Datta-Gupta SMA. Uncertainty quantification. In: Shapiro A, editor. *Applied Statistical Modeling and Data Analytics: A Practical Guide for the Petroleum Geosciences.* Columbus, OH: Elsevier (2018). p. 125.
21. Eschenbach TG. Spiderplots versus tornado diagrams for sensitivity analysis. *Interfaces.* (1992) 22:40–6. doi: 10.1287/inte.22.6.40
22. Winser SJ, Chan HTF, Ho L, Chung LS, Ching LT, Felix TKL, et al. Dosage for cost-effective exercise-based falls prevention programs for older people: a systematic review of economic evaluations. *Ann Phys Rehab Med.* (2020) 63:69–80. doi: 10.1016/j.rehab.2019.06.012
23. Yang J-X, Chen L. Economic burden analysis of Parkinson’s disease patients in China. *Parkinson Dis.* (2017) 2017:8762939. doi: 10.1155/2017/8762939
24. Klockgether T, Lüdtke R, Kramer B, Abele M, Bürk K, Schöls L, et al. The natural history of degenerative ataxia: a retrospective study in 466 patients. *Brain J Neurol.* (1998) 121:589-600. doi: 10.1093/brain/121.4.589

利益衝突：作者聲明，這項研究在沒有任何可理解為潛在利益衝突的商業或財務關係狀況下進行。

版權所有©2020 Stanley, Kelly, Tung, Lok, Ringo, Ho 和 Cheung。這是根據知識共享署名許可 (CC BY) 條款分發的開放獲取文章，允許在其他論壇中使用、分發或複製，唯須遵循公認的學術慣例，註明原始作者和版權所有者，並標明文章最初在本期刊發表。若不遵循此等條款，一律禁止使用、分發或複製。