

表1 各施設における小児血液専門医の数と長期フォローアップ患者概数の関係

長期フォローアップ患者数	小児血液専門医の数 (N)				合計
	1人	2人	3人	4人以上	
5人未満	11	2	1	0	14
5～19人	25	20	4	0	49
20～49人	11	15	9	7	42
50人以上	10	5	9	14	38
合計	57	42	23	21	143

結果の数値は施設の数を表す。
 $\chi^2 = 44.5, df = 9, p < 0.001$

対象及び方法

対象は JPLSG 登録の 211 施設である。2005 年 7 月 1 日～2005 年 7 月 31 日の調査期間に事務局が質問紙を郵送で各施設に配布し、郵送により質問紙を回収した。調査項目は JPLSG 長期フォローアップ委員会において検討・作成し、JPLSG 運営委員会で承認された質問紙（選択肢と自由記載の併用）を用いた。

調査項目は

①参加施設の概要（病院の規模、性質、勤務する小児科医の数、小児血液専門医の数、通院中の長期フォローアップ患者の数）

②参加施設におけるコメディカルの在籍率と利用率（各施設に「理学療法士」「臨床心理士」「ケースワーカー」「保育士」「チャイルドライフスペシャリスト」「言語療法士」が在籍しているか、入院・外来での利用率）

③晩期合併症の経験の現状（合併症を「循環器系」「呼吸器系」「消化器系」「内分泌系」「聴・視覚系」「腎・泌尿器系」「筋・骨格系」「皮膚・美容上の問題」「心理・精神」「口腔・発生」「二次がん」の系統に分け、各施設での経験の有無、具体的な疾患、合併症の診療担当者について質問）

④長期フォローアップ診療における各施設の現状と方針（患者が成人したあとのフォロー体制の現状、2年以上受診がない患者への対応、長期フォローを行う期間と診療場所の方針；回答者を含めた施設全体の方針を問い、複数回答を許容した）

⑤医療者間、患者家族に対する医療情報取扱の現状（治療総括作成の有無、患者家族への総括開示状況）

⑥今後期待される長期フォローアップのあり方と小児特定疾患制度改定への認識

以上の6項目で構成されている。

結 果

1. 参加施設の概要

JPLSG 登録 211 施設中 145 施設 (68.7%) から有効回

答を得た。病院の規模は 1,000 床以上 13%、600～999 床 47%、300～599 床 33%、300 床未満 6%。病院の性質は大学病院 51%、国公立病院 19%、民間病院 13%、こども病院 8%、赤十字病院 7%、がんセンター 3%（「国立がんセンター」など性質の重複する病院はそれぞれに加算した）であった。各施設に勤務する小児科医の人数は 10 人以上 63%、5～9 人 28%、2～4 人 9% で、小児血液を専門とする医師の数は 4 人以上 15%、3 人 16%、2 人 29%、1 人 39% であった。血液腫瘍疾患が大病院で診療されており、その中で専門医が 2 人以下の施設が 7 割弱に及ぶことが判明した。また、各施設の小児血液専門医の数と長期フォローを行っている患者の概数対応表を表 1 に示す。 χ^2 検定 (df=9) により施設における専門医の数が多いほどフォローアップの患者が多い有意な傾向を示していた。一方で専門医が 1 人の施設でも 50 人以上の多数をフォローしている現状も明らかにされた。

2. 参加施設におけるコメディカルの在籍率と利用率

各施設におけるコメディカルスタッフの在籍率は、①理学療法士 (84%)、②ケースワーカー (68%)、③臨床心理士 (53%)、④保育士 (37%)、⑤言語療法士 (26%)、⑥チャイルドライフスペシャリスト (3%) であり、「どのコメディカルもない」施設も 4% 認められた。またコメディカルの入院診療での週 1 回以上利用する率は、①保育士 (77%)、②臨床心理士 (60%)、③チャイルドライフスペシャリスト (60%)、④ケースワーカー (59%)、⑤理学療法士 (41%) の順であった。外来診療での週 1 回以上の利用率は、①ケースワーカー (48%)、②臨床心理士 (45%)、③理学療法士 (21%)、④言語療法士 (10%) であった。またコメディカルが存在しても利用しない施設は入院で 13%、外来で 30% 認められた。また、自由記載で「外来で看護師」という施設も認められた。

3. 晩期合併症経験の現状

系統別の晩期合併症とその経験を有する施設の割合。系統別に経験した疾患の頻度上位 2 つずつを図 1

に示す。内分泌系統の合併症の経験が83%と最も高く、皮膚・美容系(64%)、心理・精神系(64%)と続いている。各系統の合併症を誰が診療するかについての質問では内分泌、循環器、腎・泌尿器系統では「小児血液以外の小児科専門医」が最も頻度が高く診療にあたっており、皮膚・美容上の問題、神経・精神系、視覚系、聴覚系、筋骨格系、呼吸器系、消化器系、二次がんでは「他科の専門医」が最も多く診療を担当していた。また、患者が成人以降二次がんを発症した場合の診療の中心は「他科へ転科」(56%)「症例による」(24%)「小児科が中心」(13%)「その他・経験がない」(7%)の順であった。

4. 長期フォローアップ診療における各施設の現状と方針

患者が成人したあとのフォローの中心となる診療科は「小児科が中心」(58%)「他科へ転科」(24%)「他科の医師と併診」(15%)の順で、2施設が「長期フォロー

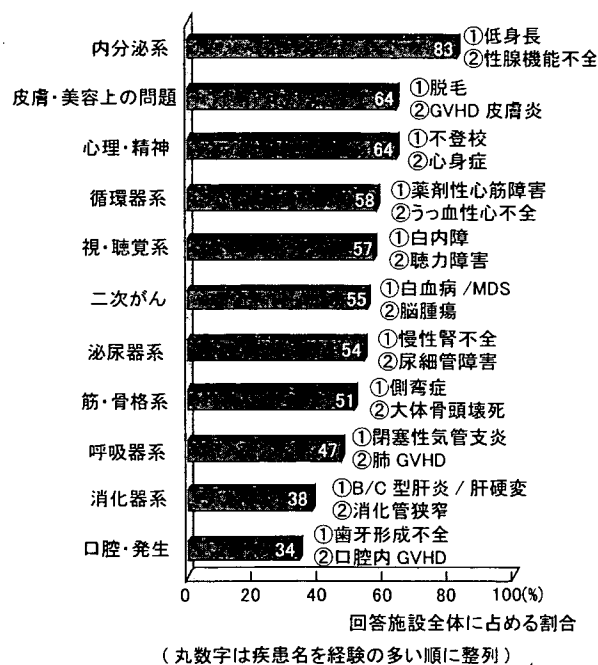


図1 各施設の系統別晩期合併症経験の割合

アップ外来」として小児科から独立した診療枠を有していた。

2年以上受診のないいわゆる「フォローもれ」の小児がん経験者の現状について、施設数を結果としてフォローしている全体の患者概数とフォローもれする患者概数の対応表を表2に示す。χ²検定(df=9)では多くの患者を抱えている施設がより多いフォローもれを有意に経験していた。しかし一面では全体の6割近い施設がフォローもれ5名未満であり、多くの施設が小児がん経験者に対し確実な継続診療を行っていることが明らかになった。一旦フォローからもれた患者に対し、49.6%の施設が「積極的にこちらから連絡を取る」「症例により連絡する」と回答しているが、16%の施設は「何もしていない」と答えた。また、いったんドロップアウトした患者のその後の経過は約7割の施設が4名未満の把握にとどまり、接触のとりにくさが明らかとなった。

長期フォローアップ診療における参加施設の方針を図2に示した。基本的には患者家族が希望する限り継続してゆく施設が7割と最も多く、小児がん経験者がどんな状態であっても基本的にいつまでもフォローが必要と考えている施設も6%認められた。また、晩期合併症の状態や経験者の年齢、発病後経過年数に応じてフォローを終了するという意見も多く認められた。フォロー終了の目安となる期間の平均値は治療終了後8年(範囲5~10年)、年齢は20歳(範囲18~22歳)であった。

5. 医療者間、患者家族に対する医療情報取り扱いの現状

治療総括の施行状況について、全例に施行(29%)、症例により施行(33%)、疾患により施行(13%)、主治医任せ(14%)、全くしていない(11%)であった。患者家族への治療総括の開示状況については、必ず渡す(2%)、症例ごと(8%)、患者家族が希望したら(37%)、渡したことがない(53%)であった。また、治療総括に利用しているものは「入院症例要約」(88%)「コンピューターデータベース」(19%)「コンピュー

表2 フォローもれ患者の概数と長期フォローアップ患者概数の関係

長期フォローアップ患者数	2年間以上受診のない患者の数(N)				合計
	5人未満	5~19人	20~49人	50人以上	
5人未満	12	0	0	0	12
5~19人	40	7	1	0	48
20~49人	14	25	2	1	42
50人以上	9	19	8	1	37
合計	75	51	11	2	139

結果の数値は施設の数を表す。
χ² = 54.5, df = 9, p < 0.001

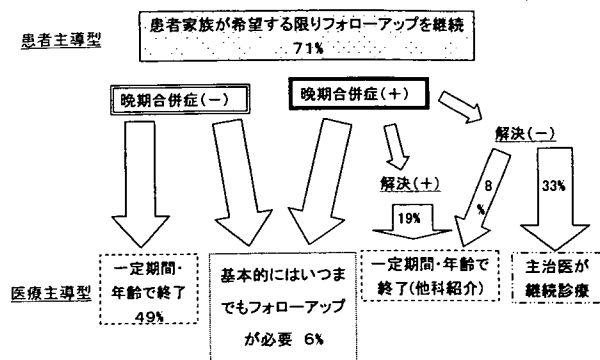


図2 長期フォローアップ診療における参加施設の方針
 (率は144回答施設に占める割合。複数回答を許容したため、総計は100%を超える)

ター以外のデータベース」(5%)であった。

6. 今後期待される長期フォローアップのあり方と小児特定疾患制度改定への認識

選択式で複数回答可の文章を提示した。「個々の問題に対する相談所があれば十分」(50%)「長期フォローアップを専門とする施設が必要」(42%)「現状でよい」(14%)の順であった。その他自由記載で「院内での患者診療担当者をいかに役割調整し、他科との連携を保ってゆくかが重要」「院内では対処しきれない問題に対する専門家の必要性」などが挙げられた。

小児特定疾患制度改定への認識(複数回答可)においては「改定前と同じく無条件で20歳まで公費負担」(34%)「晚期合併症がある患者は20歳まで公費負担」(33%)「治療が必要な晚期障害がある患者は20歳まで公費負担」(24%)「国や地方自治体の財政事情を考えればやむを得ない」(16%)の順であった。

考 察

長期フォローの診療体制上の現状と課題

本研究ではわが国における小児がん長期フォローアップの現状について、診療の最前線にあたる施設に意識調査を行った。現時点で小児がんの長期フォローについての明確な指針はなく、各施設が多様な方法で取り組んでいることが明らかになった。今回調査対象となったフォローアップを行う病院の規模は大半が600床以上の比較的大規模な病院で、その半数以上が大学病院であった。JPLSG登録施設に対してのアンケートであるため、選択偏向の問題は避けられないが、高度に専門化されている施設で長期フォローがなされていることは間違いないと考えられる。一方人員体制の点では小児血液専門医が2人以下の施設が約7割に達し、その中でも50人以上の長期フォローの小児がん経験者を抱えている所も少なからず認められた。長期

フォローに移行した患者は年1~2回の受診で夏休み等長期休暇に集中して受診することが多いため、一人の患者に費やす診療時間には限度があり、小児腫瘍専門医はきめ細かなフォローアップの提供に苦慮しているものと思われる。

コメディカルとの連携については、近年のトータルケア概念の広がりを背景に確実に浸透していることが明らかとなった。入院診療では理学療法士、臨床心理士、保育士、ケースワーカーが在籍率・利用率が高い一方で、外来での利用率は比較的低く、ケースワーカーと臨床心理士が主に利用されていた。質問の設定上長期フォローアップに限定した利用に関しては不明であり、実際コメディカルが長期フォローに関わる現場は今回の結果より少ないものと推測する。この他今回の調査では選択肢としてあげなかったが、自由記載で数施設が回答していた看護師の役割も大きく、海外ではむしろ看護師が中心になって長期フォローを行っている施設も少なくない。Hinkleら³⁾は小児がん経験者の長期フォローを行う外来診療において、小児血液腫瘍専門医、小児ナースプラクティショナー(診断・処方ができる上級資格を有する看護師)、調整看護師、ソーシャルワーカー、連携教育職などでチームを構成している。わが国では石本ら⁹⁾がソーシャルワーカーとの連携を密に行いながら実際に長期フォローアップ外来を行っており、今後長期フォローに専門性の高いコメディカルの育成が重要な課題になると考える。

長期フォローにおいて取り扱われる疾患

晚期合併症の経験については、各施設が限られた資源の中で苦心しながら他の専門医や他科医と連携している現状が明らかにされた。比較的頻度の高い内分泌、循環器、腎・泌尿器系の合併症は院内の小児科専門医での診療が最も高かったが、その他の系統では他科や院外の専門医に紹介する割合が高かった。現在のわが国の病院事情を考慮すると、一つの病院で長期フォロー中の患者の問題がすべて解決するとは考えがたく、特に小児病院やがんセンターなどでは成人以降の通院や、産科や精神科などへの紹介が困難であるものと思われる。このため他の病院の医師や理解のある開業医とのネットワークを形成することも重要であると考えられる。

また二次がんはその発症年齢やがん種の多様性から、様々な場所で診療されていることが明らかとなった。一つの施設においても、二次がんは発症年齢と疾患で画一的に論じることはできないが、5年以上生存の小児がん経験者の死亡原因の第2位(1位は原疾患の再発)であるため³⁾、多様な二次がんに対応できるネットワーク作りが急務と考える。

長期フォローにおける施設方針のあり方について

今回の調査では各施設における長期フォローの方針についてもその多様性が明らかとなった。最も高い頻度の約7割の施設で認められたものは「患者家族が望む限りフォローを続ける」という方針で、次に多かったのは「晩期合併症がなければ一定の期間・年齢でフォローを終了」であった。前者はいわば「患者主導」で後者は「医療主導」の長期フォローと言える。GoldsbeyとAblin⁶⁾は長期フォローを行う体制について「患者主導」「一次診療医主導」「小児腫瘍専門医主導」「成人医療主導」の4つの様式を提示したが、今回の結果からわが国においては「患者主導」と「小児腫瘍専門医主導」の混成型であると言ってよい。それぞれの様式には長所短所があるが、小児腫瘍専門医主導においては、医師患者関係が確立しており、医師が晩期合併症に対応する専門的知識をもつ長所がある一方で、患者が成人する際に起こす問題への対処に困難をきたすことが指摘されている。

晩期合併症の有無による長期フォローの方針では、その内容と程度に依存するところが大きい。約3割の施設で合併症が解決しなければ小児科での診療を継続すると回答した。他科に主導を移行するか、一定年齢でフォロー終了とする施設に比べ高い割合であり、概して長期化する合併症は小児科医が成人後も含めて継続診療を行っているものと考えた。

質の高い長期フォローの成否には「成人医療への移行」が重要な要素であることは論を待たない。実際患者が成人したり、大学進学で転居したり、小児特定疾患の申請が切れるときなどの節目は小児科医によるフォローアップ終了の重要な転機と考えられる。ただ、アンケート結果で患者が成人した後のフォローの中心となる診療科は「小児科」が最も高かったことは、換言すれば成人医療への円滑な移行が困難である現状を意味している。また、長期フォローの終了の目安についての質問では「治療終了後平均で8年、年齢では平均20歳」という結果であった。この節目で患者がフォローを望まなかった場合にどうなるかについては、今回の調査で知ることはできないが、一定の患者がフォロー終了になるものと思われる。また小児科医が長期フォローの終了を宣告する前にフォローからもれる患者が少なからずおり、一度関係が離れると再度受診することが困難な現状も明らかとなった。

長期フォローの今後の方向性

これまで「晩期合併症の多様性」「成人期までキャリアオーバーする問題」「患者医療者関係を長期間維持する困難さ」の克服が質の高い長期フォローの実現の

ために重要であることが議論された。今後の方向性の参考になる提案を診療体制・施策の面から行いたい。

本調査では今後の長期フォローアップのあり方について、「個々の問題に対する相談所があれば十分」という回答が最多であった。これは、相談事業への強い要請を反映したもので、医療者自身が長期フォローに関する明確な基準を求めている事が背景の一つにあると推測される。わが国における長期フォローアップの指針作成はいくつか試みられているが、個々の疾患に対する特異的なフォローに関してはまだ作られていない。米国 Children's Oncology Group (COG) の長期フォローアップの分科会 (the Late Effects Committee) では、各患者の原疾患と投与された薬剤の種類と量に応じて予測される晩期合併症を予測して経過観察・治療を行うリスクベースケアを提唱しており⁷⁾、ホームページにおいても詳細な指針が掲載されている⁸⁾。多様な領域に及びがちな検査を少しでも減らし、患者の負担を軽減するためにも今後この概念は有用と思われる。

そしてこのリスクベースケアの実現のために欠かせない要素が治療内容の総括を行うことである。このことで、将来予測される合併症に関する検査計画を立てることができる他、患者に提供することで移動やフォロー中止後再受診の際にも役立つなど様々な点で利点があると予測される。ただ、調査の結果ではその重要性の認識は広がっているとは言いがたい状況である。この現状を打開するために石田は長期フォローアップ用の治療総括ひな型を提示している⁹⁾。現在 JPLSG 長期フォローアップ委員会において、実用に向けた施行を繰り返しており、臨床試験と平行して最小限の作業で総括が作成できるよう検討中である。

また今後は若年成人以降の医療受診行動に即したネットワーク作りも重要である。Oeffinger ら¹⁰⁾は18歳以上の小児がん経験者を対象とした研究を行い、原疾患に関連した医療機関の受診率は発病から年を追うごとに低下し、25~29年経過している者は28%しか受診をしていない現状を報告した。一方で同じ年を経過した患者たちの一般開業医 (General Physician) への受診率は60.6%と高く、今後は開業医が小児がんの長期フォローに関する認識を深める必要性を示唆している。一方で成人後も晩期合併症の影響で定期受診が必要な患者や、しばらく受診がなかった患者が突然晩期合併症を発症し医療機関受診が必要となった時の対処として、長期フォローアップを専門とするセンターを設置し、各施設からの相談に応じたり、実際の診療を行うことが解決法の一つと考える。「長期フォローアップのセンターが必要」という意見が今後の長期フォローのあり方について2番目に多かったことは、高い必要性を裏付けていると考える。

また施策面では教育が重要であり、これに関して Mertens ら¹¹⁾は長期フォローの有識者17名に対してアンケート調査を行い、「概して一次診療医が小児がん経験者の晩期合併症の問題を十分理解していない」点と「小児がん経験者が将来自分の健康上に起こる合併症に無頓着で定期受診の必要性を認識していない」以上の2点が長期フォロー推進の障害になることを指摘している。この対策として一次診療医には教科書をはじめとした出版物や講演会活動で啓発を行い、患者教育においてはまず両親に長期フォローの必要性を認識してもらい、患者にはその年齢と理解できる基準に合わせて教育を行ってゆくことを推奨している。

わが国においては、小児慢性特定疾患の制度改定も経済的な側面から今後長期フォローに多大な影響を与える要素になると考える。アンケート結果からは「改定後の状態でも致し方ない」という意見は少数にとどまったことは、現場においても長期フォローの将来に対する危機感がにじみ出ている。今後はリスクベースの長期フォローの実現に向け、治療内容に応じた晩期合併症のフォローに関しては、投薬がなくても公費負担を申請できるよう国に働きかけてゆくことも必要であると考えられる。

謝辞 アンケートにご協力いただいた JPLSG 登録施設に深謝する。本研究は平成17年度厚生労働科学研究補助金(がん臨床研究事業)「小児造血器腫瘍の標準的治療法の確立に関する研究」の補助を受けた。

文 献

1) Feig SA. Second malignant neoplasms after successful treatment of childhood cancers. *Blood Cells, Molecules, and Disease* 2001; 27: 662-666.

2) Oeffinger KC, Mertens AC, Sklar CA, et al. Chronic health conditions in adult survivors of childhood cancer. *N Engl J Med* 2006; 355: 1572-1582.

3) Hinkle AS, Proukou C, French CA, et al. A clinic-based, comprehensive care model for studying late effects in long-term survivors of pediatric illnesses. *Pediatrics* 2004; 113: 1141-1145.

4) 石本浩市, 吉田雅子. 長期フォローアップ外来の構築に向けて 長期フォローアップ外来の実際. *日本小児血液学会雑誌* 2004; 18: 108-111.

5) Mertens AC, Yasui Y, Neglia JP, et al. Late mortality experience in five-year survivors of childhood and adolescent cancer: the Childhood Cancer Survivor Study. *J Clin Oncol* 2001; 19: 3163-3172.

6) Goldsby RE, Ablin AR. Surviving childhood cancer: now what? Controversies regarding long-term follow-up. *Pediatr Blood Cancer* 2004; 43: 211-214.

7) Landier W, Bhatia S, Eshelman DA, et al. Development of risk-based guidelines for pediatric cancer survivors: the Children's Oncology Group Long-Term Follow-Up Guidelines from the Children's Oncology Group Late Effects Committee and Nursing Discipline. *J Clin Oncol* 2004; 22: 4979-4990.

8) www.survivorshipguidelines.org.

9) 石田也寸志. 長期フォローアップシステムの構築に向けて グループスタディの立場から. *日本小児血液学会雑誌* 2004; 18: 91-96.

10) Oeffinger KC, Mertens AC, Hudson MM, et al. Health care of young adult survivors of childhood cancer: a report from the Childhood Cancer Survivor Study. *Ann Fam Med* 2004; 2: 61-70.

11) Mertens AC, Cotter KL, Foster BM, et al. Improving health care for adult survivors of childhood cancer: recommendations from a delphi panel of health policy experts. *Health Policy* 2004; 69: 169-178.

The Status Quo of Long-term Follow Up for Survivors of Childhood Cancer—A Nationwide Survey in Japan

Shuichi Ozono¹, Yasushi Ishida², Kikuko Kuriyama³, Keiko Asami⁴, Takeji Matsushita⁵, Miho Maeda⁶,
Kentarou Aritaka⁷, Eizaburo Ishii⁸, Miyako Yoshinari⁹, Koichi Ishimoto¹⁰, and Keizo Horibe¹¹
Japan Pediatric Leukemia/ Lymphoma Study Group (JPLSG) Long-term Follow Up Committee

¹Department of Pediatrics, Kurume University

²Department of Pediatrics, Ehime University

³Department of Child Psychiatry, Aichi Prefectural Colony Central Hospital

⁴Department of Pediatrics, Niigata Prefectural Cancer Center

⁵Department of Pediatrics, International Medical Center of Japan

⁶Department of Pediatrics, Nippon Medical School

⁷Department of Interdisciplinary Medicine, Division of General Pediatrics,
National Center for Child Health and Development

⁸Department of Pediatric Oncology, Nagano Prefectural Children's Hospital

⁹Department of Pediatric Hematology and Oncology, Tohoku University

¹⁰Akebono Shoni Clinic

¹¹Clinical Research Center, National Hospital Organization Nagoya Medical Center

The importance of a long-term follow-up (LTFU) for childhood cancer survivors is increasing, as the number of long-term survivors continues to grow and many researchers describe the late effects that sometimes occur among such survivors. The purpose of this study is to assess the status quo of LTFU for childhood cancer survivors in Japan. Among the 211 registered institutions of the Japan Pediatric Leukemia/Lymphoma Study Group (JPLSG), 145 (68.7%) replied our questionnaire. The following factors related to LTFU were assessed: the outline of institution, the level of cooperation with the co-medical staff, the degree of experience in treating late effects and the management strategies, the methods of trying to contact survivors who were lost to follow-up, the management of survivors after they come of age, and ideal LTFU system. The results showed that most institutions had difficulty in managing such survivors due to their limited resources and the lack of any established network. Four suggestions were indicated to provide high quality LTFU: i) establishing LTFU guidelines based on the optimal risk-based late effects care, ii) preparing a comprehensive pamphlet to be handed out to each survivor, iii) establishing a LTFU national center and regional network, iv) Try to get increased public funding for such programs.

厚生労働科学研究費補助金

がん臨床研究事業

「小児造血器腫瘍の標準的治療法の確立に関する研究」

平成19年度

平成20年3月発行

発行者：堀部敬三（主任研究者）

事務局：独立行政法人国立病院機構

名古屋医療センター臨床研究センター内

〒460-0001 名古屋市中区三の丸4丁目1番1号

TEL:052-951-1111 FAX:052-963-5503

印刷所：サカイ印刷株式会社