

ムコ多糖症VI型	E76. 2C	3	0.1	銅代謝異常	E83. 0等	308	7.1
β-ガラクトシダーゼ欠損症	E76. 3B	2	0.0	(以下、再掲)			
β-ガラクトシダーゼ-ノイラミダーゼ欠損症	E76. 3C	3	0.1	ウィルソン病	E83. 0A	278	6.4
ムコ多糖症	E76. 3A	43	1.0	メンケス病	E83. 0B	30	0.7
ムコ多糖症	E77. 9等	18	0.4	リン代謝異常	E83. 3等	214	4.9
(以下、再掲)				(以下、再掲)			
ムコ多糖症II型	E77. 0A	12	0.3	家族性低リン酸血症	E83. 3A	39	0.9
ムコ多糖症III型	E77. 0B	4	0.1	骨軟化症	E83. 3B	1	0.0
フコシドーシス	E77. 1D	1	0.0	ビタミンD抵抗性くる病	E83. 3D	174	4.0
高コレステロール血症(以下、再掲)		327	7.5	α ₂ マクログロブリン欠損症	E88. 8D	5	0.1
家族性高コレステロール血症(ヘテロ接合型、型不明含)	E78. 0A	301	6.9	エンテロキナーゼ欠損症	E88. 8F	1	0.0
家族性高コレステロール血症(純接合型)	E78. 0C	13	0.3	先天性アセチルコリンエステラーゼ欠損症	E88. 8N	1	0.0
高β ₂ ミクログロブリン血症II型	E78. 0B	13	0.3	グリセロールキナーゼ欠損症	E88. 8T	2	0.0
高β ₂ ミクログロブリン血症IV型	E78. 1	31	0.7	先天性高乳酸血症	G31. 8B	26	0.6
高β ₂ ミクログロブリン血症I型	E78. 3B	3	0.1	脳・肝・腎症候群	Q87. 8D	3	0.1
家族性高脂血症(以下、再掲)		3	0.1	骨疾患(以下、再掲)		1289	29.6
家族性高カイロミコン血症	E78. 3A	1	0.0	軟骨無形成症	Q77. 4	790	18.2
高β ₂ ミクログロブリン血症V型	E78. 3C	2	0.0	骨形成不全症	Q78. 0	499	11.5
家族性低β ₂ ミクログロブリン血症	E78. 6B	8	0.2	エーテラス・ダンロス症候群	Q79. 6	57	1.3
ベンチンコレステロール-アシルトランスフェラーゼ欠損症	E78. 6E	1	0.0	皮膚疾患(以下、再掲)		158	3.6
hypoxanthine phosphoribosyltransferase欠損症	E79. 1A	2	0.0	色素性乾皮症	Q82. 1	86	2.0
Lesch-Nyhan症候群	E79. 1B	24	0.6	白皮症	E70. 3B	32	0.7
遺伝性若年性痛風	M10. 9	7	0.2	ホルモンスキー・パドワック症候群	E70. 3C	3	0.1
adenine phosphoribosyltransferase欠損症	E79. 8A	11	0.3	致死性表皮水疱症	L13. 9	1	0.0
他のプリン、ピリミジン代謝異常	E79. 8	1	0.0	先天性魚鱗癬		36	0.8
ホムシリン症(以下、再掲)		18	0.4	(Q80. 9Aの15人を含む。以下、再掲)			
プロトホムシリン症	E80. 0	4	0.1	非水疱型先天性魚鱗癬様紅皮症	Q80. 9B	9	0.2
遺伝性コプロホムシリン症	E80. 2A	1	0.0	シェーグレン・ラーソン症候群	Q80. 9D	4	0.1
骨髄性プロトホムシリン症	E80. 2B	7	0.2	水疱型先天性魚鱗癬様紅皮症	Q80. 3	7	0.1
先天性ホムシリン症	E80. 2F	4	0.1	道化師様魚鱗癬	Q80. 9C	1	0.0
ホムシリン症	E80. 2G	2	0.0	(以下、本来は他の疾患群に分類される)			
Crigler-Najjar症候群	E80. 5	3	0.1	カクゲル症候群	Q89. 3	1	0.0
				胆道閉鎖症	Q44. 2	1	0.0
				不明(コンピュータ入力ミス等)		11	0.3
				10, 血友病等血液・免疫疾患			
				「血友病等血液・免疫疾患」に関する集計			

結果を表10に示す。

11年度の登録人数9,035人、12年度の9,313人、13年度9,148人、14年度8,774人、15年度8,261人、16年度7,683人に比べ、17年度は4,402人に半減し、18年度3,957人、19年度は3,852人であった。16年度まで比較的登録人数が多かった血管性紫斑病、溶血性尿毒症症候群、伝染性単核症等が対象外となり、また、組織球症が悪性新生物での区分となり、さらに対象基準が設定された貧血での登録人数が減少したためである。

登録割合は、多い順に血友病A30.5%、原発性免疫不全症9.1%、血小板減少性紫斑病9.9%、遺伝性球状赤血球症7.2%、血友病B6.9%、von Willebrand病6.3%、免疫学的血小板減少症3.8%であり、血小板減少性紫斑病がやや増加し、無顆粒球症が減少した他は、18年度とほぼ同様であった。

表10、血友病等血液・免疫疾患

Blood Diseases and Immunodeficiencies Including Haemophiliae (合計3,852人)

(新規診断619人、継続3,054人、

転入17人、再開19人、無記入143人)

(男子2,627人、女子1,084人、無記入141人)

(国の小慢事業3,846人、県単独事業6人)

疾患名	ICD10	人数(人)	%
AIDS	B24	16	0.4
慢性活動性EBウイルス感染症	B27.9A	45	1.2
Kasabach-Merritt症候群	D18.0	72	1.9
真性多血症	D45	2	0.1
骨髄増殖性疾患	D47.1	3	0.1
血小板血症	D47.3	11	0.3
悪性貧血	D51.0	3	0.1
葉酸欠乏性貧血	D52.9	2	0.1
巨赤芽球性貧血	D53.1	14	0.4
グルコース-6-リン酸脱水素酵素欠乏性貧血			

D55.0	17	0.5	
グルタチオン過酸化酵素欠乏性貧血			
D55.1B	1	0.0	
ホスホグリセリン酸キナーゼ欠乏性貧血			
D55.2F	1	0.0	
ピルビン酸キナーゼ欠乏性貧血			
D55.2G	4	0.1	
ピルビン酸キナーゼ欠損症E74.4B	2	0.1	
サラセミア	D56.9等	11	0.3
(以下、再掲)			
αサラセミア	D56.0	2	0.1
βサラセミア	D56.1	1	0.0
鎌状赤血球貧血	D57.8	1	0.0
遺伝性球状赤血球症	D58.0	278	7.2
遺伝性楕円赤血球症	D58.1	1	0.0
異常ヘモグロビン症	D58.2	5	0.1
ヘモグロビンM症	D74.0	3	0.1
遺伝性非球状性溶血性貧血			
D58.9	11	0.3	
自己免疫性溶血性貧血	D59.1	56	1.5
微小血管障害性溶血性貧血			
D59.4	4	0.1	
発作性夜間ヘモグロビン尿症	D59.5	1	0.0
発作性寒冷ヘモグロビン尿症	D59.6	1	0.0
脾機能亢進性溶血性貧血			
D59.8	4	0.1	
赤芽球癆	D60.9	53	1.4
先天性低形成性貧血	D61.0	35	0.9
鉄芽球性貧血	D64.3	3	0.1
先天性赤血球産生異常性貧血			
D64.4	8	0.2	
血友病A	D66	1176	30.5
血友病B	D67	265	6.9
フォン・ウィルブラント病	D68.0	242	6.3
その他の遺伝性凝固因子欠乏症			
(以下、再掲)	D68.2等	69	1.8
第I因子欠乏症	D68.2A	14	0.4
第II因子欠乏症	D68.2B	2	0.1
第V因子欠乏症	D68.2C	4	0.1
第VIII因子欠乏症	D68.2D	11	0.3

第X因子欠乏症	D68. 2E	1	0.0	分類不能型免疫不全症	D83. 9	35	0.9
第X I 因子欠乏症	D68. 1	5	0.1	原発性補体異常症	D84. 1	1	0.0
第X II 因子欠乏症	D68. 2F	2	0.1	異ガンマグロブリン血症	D89. 2A	1	0.0
第X III 因子欠乏症	D68. 2G	23	0.6	Chediak-東症候群	E70. 3A	3	0.1
アンチロビンIII欠乏症	D68. 2I	7	0.2	ataxia telangiectasia			
凝固因子異常症	D68. 9	1	0.0		G11. 3	7	0.2
血小板機能異常症	D69. 1	56	1.5	続発性免疫不全症候群	D84. 8B	1	0.0
血小板減少性紫斑病	D69. 3	382	9.9	本態性高ガンマグロブリン血症	D89. 0B	1	0.0
Evans 症候群	D69. 3A	3	0.1	慢性移植片対宿主病	D89. 9	57	1.5
先天性無巨核球性血小板減少症				C蛋白欠乏症	E88. 8I	8	0.2
	D69. 4A	2	0.1	S蛋白欠乏症	E88. 8T	5	0.1
免疫学的血小板減少症	D69. 4B	146	3.8	遺伝性出血性末梢血管拡張症			
脾機能亢進性血小板減少症					I78. 0	8	0.2
	D69. 5	19	0.5	Banti 症候群	K76. 6	6	0.2
周期性血小板減少症	D69. 6	1	0.0	血栓性血小板減少性紫斑病			
好中球減少症 (以下、再掲)		82	2.1		M31. 1	26	0.7
無顆粒球症	D70 A	65	1.7	大理石病	Q78. 2	8	0.2
周期性好中球減少症	D70 B	12	0.3	Bloom 症候群	Q82. 8	1	0.0
自己免疫性好中球減少症				不明(コンピュータ入力等)		38	1.0
	D70 C	5	0.1				
白血球機能異常症	D71	5	0.1	1 1, 神経・筋疾患			
白血球の遺伝性異常	D72. 0	2	0.1	「神経・筋疾患」に関する集計結果を、表			
好酸球増加症	D72. 1	29	0.8	1 1に示す。			
骨髓線維症	D75. 8	4	0.1	10、及び11年度の登録人数1,062人、12			
原発性免疫不全症(以下、再掲)		350	9.1	年度の1,047人、13年度978人、14年度			
慢性肉芽腫症	D71 B	23	0.6	1,050人、15年度1,186人、16年度1,105			
先天性無γグロブリン血症				人に比べ、17年度は2,880人、18年度は			
	D80. 0	93	2.4	3,167人、19年度は3,866人と増加した。入			
低ガンマグロブリン血症	D80. 1	26	0.7	通院とも対象になったことと、新規対象疾患			
IgA(単独)欠損症	D80. 2	10	0.3	として、リックス・ガストリ症候群、重症乳児シカネ			
IgG単独欠損症	D80. 3	2	0.1	ーてんかん等の登録が見られたためである。			
高IgM症候群	D80. 5	7	0.2				
免疫グロブリン欠損症	D80. 8	31	0.8	表1 1、神経・筋疾患			
スミス型無ガンマグロブリン血症	D81. 2	1	0.0	Neuromuscular Diseases			
アデノシデアミンナーゼ欠損症	D81. 3	1	0.0	(合計3,866人)			
重症複合免疫不全症	D81. 9	34	0.9	(新規診断676人、継続2,995人、			
ウィスコット・アルドリッチ症候群	D82. 0	25	0.6	転入15人、再開10人、無記入170人)			
DiGeorge 症候群	D82. 1	13	0.3	(男子2,019人、女子1,686人、無記入161人)			
高IgE症候群	D82. 4	22	0.6	(国の小慢事業3,768人、県単独事業98人)			
細胞性免疫不全(症)	D83. 1	15	0.4				

疾患名	ICD10	人数(人)	%
亜急性硬化性全脳炎 (特定疾患対象)	A81.1	21	0.5
レット症候群	F84.2	117	3.0
Leigh 脳症	G31.8A	66	1.7
點頭てんかん	G40.4	2013	52.1
レックス・ガストウ症候群	G40.4A	395	10.2
重症乳児ミクロてんかん	G40.4B	144	3.7
無痛無汗症	G60.8	34	0.9
先天性ミオパチー (G71.2 の 122 人を含む) (以下、再掲)		487	12.6
筋細管性ミオパチー	G71.2A	2	0.1
先天性筋線維型不均等症	G71.2B	5	0.1
ネリンミオパチー	G71.2C	15	0.4
遅発型ネリンミオパチー	G71.2D	1	0.0
セントラルコア病	G71.2E	4	0.1
福山型先天性筋ジストロフィー	G71.2F	337	8.7
中心核ミオパチー	G71.2J	1	0.0
ミトコンドリア脳筋症	G71.3	204	5.3
結節性硬化症	Q85.1	372	9.6
不明(コンピュータ入力ミス等)		2	0.1

1 2、慢性消化器疾患

17 年度新規疾患群であり、19 年度の集計結果を表 1 2 に示す。登録人数は 17 年度 2,782 人、18 年度 2,683 人、19 年度 2,659 人とほぼ同様であった。疾患ごとの登録割合も胆道閉鎖症 76.2%、先天性胆道拡張症 14.1%、Alagille 症候群 2.2% とほぼ同様であった。

表 1 2、慢性消化器疾患

Digestive Diseases (合計 2,659 人)			
(新規診断 263 人、継続 2,261 人、 転入 9 人、再開 10 人、無記入 116 人)			
(男子 941 人、女子 1,636 人、無記入 82 人)			
(国の小慢事業 2,652 人、県単独事業 7 人)			
疾患名	ICD10	人数(人)	%
肝胆道系疾患		2623	98.6

デュペン・ジョンソン症候群	E80.6A	1	0.0
肝硬変	K76.1	38	1.4
進行性家族性肝内胆汁うっ滞症			
	K76.1A	24	0.9
門脈圧亢進症	K76.6B	44	1.7
原発性硬化性胆管炎	K83.0	19	0.7
肝内胆管拡張症	K83.8	7	0.3
胆道閉鎖症	Q44.2	2027	76.2
肝内胆管閉鎖症	Q44.2B	3	0.1
先天性胆道拡張症	Q44.5	376	14.1
先天性肝線維症	Q44.5A	16	0.6
肝内胆管低形成症	Q44.5B	5	0.2
肝内胆管異形成症候群	Q44.5C	5	0.2
Alagille 症候群	Q44.7	58	2.2
慢性腸疾患		25	0.9
腸リンパ管拡張症	K63.9	21	0.8
先天性微絨毛萎縮症	K90.9C	4	0.2
不明(コンピュータ入力ミス等)		3	0.1

1 3、成長ホルモン治療用意見書

「成長ホルモン治療」に関する集計結果を、初回申請症例は表 1 3-1 に、継続申請症例は表 1 3-2 に示す。

平成 14 年より成長ホルモン治療が小慢事業の対象となった Prader-Willi 症候群の継続申請例が 16 年度の 76 人から 17 年度 224 人、18 年度 264 人に増加していた。成長ホルモン分泌不全性低身長症は、17 年度より開始基準として IGF-I 値が追加された。しかし、継続申請症例は 16 年度 5,884 人から 17 年度 12,084 人、18 年度 12,185 人、19 年度 10,902 人と増加していた。

表 1 3-1、成長ホルモン治療用意見書

(初回申請症例)			
(合計 2,169 人)			
(男子 1,236 人、女子 857 人、無記入 76 人)			
疾患名	ICD10	人数(人)	%
成長ホルモン分泌不全性低身長症	E23.0E	1843	85.0

ターナー症候群	Q96	147	6.8
下垂体機能低下症	E23.0A	40	1.8
プラターウィー症候群	Q87.1A	48	2.2
軟骨無形成症	Q77.4	58	2.7
慢性腎不全	N18.9	10	0.5
その他の慢性腎疾患		6	0.3
その他(治療対象外の疾患等)		15	0.7
不明(コンピュータ入力ミス等)		2	0.1

表13-2、成長ホルモン治療用意見書

(継続申請症例)

(合計 10,902 人)

(男子 6,513 人、女子 4,213 人、無記入 176 人)

疾患名	ICD10	人数(人)	%
成長ホルモン分泌不全性低身長症	E23.0E	9135	83.8
ターナー症候群	Q96	769	7.1
下垂体機能低下症	E23.0A	133	1.2
プラターウィー症候群	Q87.1A	287	2.6
軟骨無形成症	Q77.4	438	4.0
慢性腎不全	N18.9	28	0.3
その他の慢性腎疾患		33	0.3
その他(治療対象外の疾患等)		41	0.4
不明(コンピュータ入力ミス等)		38	0.3

資料

1) 倉辻忠俊監修：医療意見書. 小児慢性特定疾患早見表(登録管理用)平成19年度版；190～202、2008

2) 加藤忠明、安藤亜希、福田清香、他：平成18年度小児慢性特定疾患治療研究事業の全国登録状況. 平成20年度厚生労働科学研究「法制化後の小児慢性特定疾患治療研究事業の登録・管理・評価・情報提供に関する研究」報告書；11～38、2009

3) 厚生労働省雇用均等・児童家庭局母子保健課長：「児童福祉法第21条の9の2の規定に基づき厚生労働大臣が定める慢性疾患及び当該疾患ごとに厚生労働大臣が定める疾患の状態の程度」の改正等について. 平成18年3月30日

4) 加藤忠明、安藤亜希、顧艶紅、他：小児慢性特定疾患治療研究事業に登録された、新しい新生児マススクリーニングで発見される疾患. 平成20年度厚生労働科学研究「タンデムマス等の新技術を導入した新しい新生児マススクリーニング体制の確立に関する研究」報告書；119～123、2009

小児慢性特定疾患治療研究事業（膠原病）の 非継続症例の経過に関する実態調査

分担研究者 加藤 忠明、 国立成育医療センター研究所成育政策科学研究部長

研究要旨： 法制化後の平成17年度小児慢性特定疾患治療研究事業に登録されたが、18年度に非継続であった膠原病1,551人の経過を調査した。17年度に登録された医療機関に対して、21年度に質問紙調査を行い、返送数964通、回収率62.2%であった。非継続となった理由は、制度上の理由67.2%、家族の都合14.4%、経過が順調9.4%を合わせると91.0%であり、当該事業が医療費助成制度としてほぼ適正に運営されていることを示していた。しかし、経過が再燃または悪化したにもかかわらず再申請していなかった患者の多くは年齢が対象外との理由であったので、20歳以上の患者への何らかの医療費助成が望まれる。疾患名の変更はなく、電子データ上の多くの疾患名は正確なものと考えられる。そして、死亡症例の報告数は、人口動態統計での死亡数と近似していたので、非継続症例の経過を全国レベルで把握できたと考えられる。発症から死亡に至る経過が判明したので、その経過を少しでも回避できるような医療、また生活指導が望まれる。

見出し語：小児慢性特定疾患治療研究事業、膠原病、非継続症例、死亡経過

研究協力者：

武井修治、鹿児島大学医学部保健学科教授
原田正平、国立成育医療センター研究所成育医療政策科学研究室長
掛江直子、国立成育医療センター研究所成育保健政策科学研究室長
顧 艶紅、国立成育医療センター成育政策科学研究部流動研究員
竹原健二、国立成育医療センター成育政策科学研究部リサーチレジデント
藤本純一郎、国立成育医療センター研究所副所長

たデータの全国集計は行われていない。そのため、申請書が提出されなくなった症例の経過が不明である。また、電子データによる厚生労働省への報告に不備が存在する可能性もある。

そこで、昨年度は小慢事業（慢性腎疾患、慢性呼吸器疾患、糖尿病、慢性消化器疾患）の非継続症例の経過に関する質問紙調査を全国レベルで行った²⁾。今年度は、それに引き続き小慢事業（膠原病）に関して同様の質問紙調査を行った。

B. 対象と方法

対象者は、17年度小慢事業の膠原病登録時に研究の資料にすることに同意を得られた方で、17年度に登録されたが18年度に登録されなかった1,551人であった。

18年度小慢事業の医療意見書に関する厚生労働省への電子データによる報告は、全国99か所の実施主体のうち21年6月までに、93か

A. 研究目的

小児慢性特定疾患治療研究事業（以下、小慢事業）では、治癒、死亡等で受給資格がなくなり医療受診券が返還される場合、受給者の転帰（治癒、死亡、他都道府県市転出等を含む中止）を各実施主体において小慢事業台帳に記入することになっているが¹⁾、そうし

所の実施主体から行われた。そのうち17年度に医療機関名が報告された82か所の実施主体の症例を対象とした。

個人情報保護のため氏名、住所、生年月日等は自動的に削除された電子データを用いた。小慢事業の電子データを年度ごとに順次入力すると、当該年度の前年度に登録されたが当該年度に登録されなかった症例を自動的に抽出する症例情報データベースシステムを用いて対象者を選定した³⁾。

対象者に関する医療機関への調査内容は、「調査時点の症例の経過」、「死亡した症例は、死亡年月、死因と経過」、「調査時点で小慢事業への申請の有無」、「申請した場合は、申請疾患名、受給者番号、申請した実施主体」、「申請しなかった場合は、対象外となった理由」であった。

調査票は、医療機関宛に21年6月に発送し、22年2月末までに返送された内容を集計解析した。そして、国立成育医療センターのサーバー内に構築された症例情報データベースシステムに入力・保存されている10～18年度小慢事業の電子データと共に患児の経過をまとめた³⁾。

C. 結果

返送数は、964通(回収率62.2%)、該当者なし等ほとんど無記入の無効回答を除き、有効回答例は953人(有効回答率61.4%)であった。

昨年度の調査では、4疾患群合わせた返送数2913通(回収率61.7%)、有効回答例は2838人(有効回答率60.1%)であったので、今回の調査では若干増加していた²⁾。

1. 平成17年度小慢事業に登録された症例の経過

17年度小慢事業に登録されたものの18年度に非継続となった症例の臨床経過に関する質問紙調査結果、及び18年度小慢事業に登録された継続症例の臨床経過に関する電子データの結果を表1、表2に示す。表1は疾患群全

表1 平成17年度小慢事業に登録された「膠原病」全体としての経過

経過	非継続症例 ¹⁾ 人数 (%)	継続症例 ²⁾ 人数 (%)
治癒	189人(19.8%)	2人(0.1%)
寛解	176 (18.5)	291 (12.4)
軽快	273 (28.6)	837 (35.7)
不変	118 (12.4)	909 (38.8)
再発	0 (0)	24 (1.0)
再燃	16 (1.7)	52 (2.2)
悪化	4 (0.4)	33 (1.4)
死亡	9 (0.9)	0 (0.0)
不明	168 (17.6)	194 (8.3)
合計	953人(100%)	2342人(100%)

1) 平成17年度小慢事業に登録され、18年度に非継続となった症例(表2も同様)

2) 平成17年度、18年度ともに小慢事業に登録された継続症例(表2も同様)

表2 平成17年度小慢事業に登録された「膠原病」個々の疾患の経過

経過	非継続症例 ¹⁾ 人数 (%)	継続症例 ²⁾ 人数 (%)
	川崎病性冠動脈病変	
治癒	123人(20.7%)	1人(0.1%)
寛解	97 (16.3)	45 (4.9)
軽快	224 (37.7)	193 (20.8)
不変	67 (11.3)	564 (60.9)
再発	0 (0)	3 (0.3)
再燃	1 (0.2)	3 (0.3)
悪化	1 (0.2)	13 (1.4)
死亡	2 (0.3)	0 (0.0)
不明	79 (13.3)	104 (11.2)
合計	594人(100%)	926人(100%)
	若年性関節リウマチ (含、若年性特発性関節炎)	
治癒	63人(19.0%)	1人(0.1%)
寛解	73 (22.1)	227 (17.4)
軽快	46 (13.9)	611 (46.8)
不変	45 (13.6)	305 (23.4)
再発	0 (0)	21 (1.6)
再燃	15 (4.5)	45 (3.4)
悪化	3 (0.9)	19 (1.5)
死亡	6 (1.8)	0 (0)
不明	80 (24.2)	77 (5.9)
合計	331人(100%)	1306人(100%)

シェーグレン症候群		
治癒	0人(0%)	0人(0%)
寛解	3(25.0)	3(7.9)
軽快	1(8.3)	12(31.6)
不変	4(33.3)	18(47.4)
再燃	0(0)	1(2.6)
悪化	0(0)	0(0)
死亡	0(0)	0(0)
不明	4(33.3)	4(10.5)
合計	12人(100%)	38人(100%)
スチーブンス・ジョンソン症候群		
治癒	3人(27.3%)	0人(0%)
寛解	2(18.2)	3(16.7)
軽快	1(9.1)	5(27.8)
不変	1(9.1)	8(44.4)
再燃	0(0)	1(5.6)
悪化	0(0)	1(5.6)
死亡	1(9.1)	0(0)
不明	3(27.3)	0(0)
合計	11人(100%)	18人(100%)

体の患児の経過、表2は10人以上回答のあった疾患の患児の経過である。

膠原病全体、また、川崎病性冠動脈病変の非継続症例は「軽快」「治癒」「寛解」の順に多く、継続症例は「不変」「軽快」の順であった。継続症例ではほとんど把握できなかった「治癒」と「死亡」例の報告が非継続症例の調査により得られた。若年性特発性関節炎を含む若年性関節リウマチ、またスチーブンス・ジョンソン症候群でも同様、非継続症例は「寛解」「治癒」「軽快」が多く、継続症例は「不変」「軽快」が多かった。

2, 死亡症例の発症から死亡までの経過

「膠原病」の死亡9症例に関して、疾患名と死亡に至る経過を表3に示す。多い順に、若年性関節リウマチ4人、若年性特発性関節炎2人、川崎病性冠動脈病変2人、スチーブンス・ジョンソン症候群1人であった。

川崎病性冠動脈病変の7)、及びスチーブンス・ジョンソン症候群の9)を除けば、原疾患または治療に何らかに関連した要因によって亡くなっていた。

3, 18年度非継続であったものの、21年度調査時点で小慢事業に申請していた症例

平成18年度小慢事業として厚生労働省へ報告された電子データでは非継続とされたものの、21年度小慢事業には申請されていた症例は68人(有効回答者の7.1%)であった。また、他の疾患群と異なり、全員が17年度小慢事業と同様の疾患名で申請していた。

受給者番号を17年度小慢事業の電子データと比較すると、一致症例40人、不一致16人、不明12人であった。不一致と不明の28人中、実施主体番号は19人が同じで、8人が異なり、1人が不明であった。

4, 小慢事業に申請しなかった理由

現場でも小慢事業に継続申請しなかった症例は、死亡した9人を除き876人で、その理由が記載されていたのは817人であった。その内訳は、年齢が対象外:91人(11.1%)、疾患の対象基準外:458人(56.1%)、転院:82人(10.0%)、転科:2人(0.2%)、治療を中断:60人(7.3%、治癒20人、寛解20人、軽快6人、不変1人、経過が不明13人)、他の医療費助成制度を利用:20人(2.4%)、未受診:66人(8.1%、寛解3人、軽快7人、不変6人、経過が不明50人)、治癒または寛解:21人(2.6%)、家族の希望10人(1.2%)、申請し忘れ3人(0.4%)、海外居住:4人(0.5%)であった。

小慢事業に継続申請しなかった理由は、疾患の対象基準外、年齢が対象外等、制度そのものによる理由が549人(67.2%)と多かった。次いで転院、乳幼児医療費助成制度など他の医療費助成制度を利用、親の希望、海外居住等、家族の都合による理由が118人(14.4%)を占めていた。その他、治癒、寛解、軽快など経過が順調になったとの理由は77人(9.4%)であった。問題となる可能性のある未受診、治療を中断し経過が不明との回答は63人(7.7%)と少なかった。

経過が再燃または悪化とされた20人中、5人は再申請し、9人は年齢が対象外、4人が転

表3 「膠原病」の死亡9症例の経過

最終登録時疾患名 死亡者数/ 有効回答者数	死亡時の年齢と性別：発病から死亡に至る経過
1～4) 若年性関節 リウマチ 4/318人	1) 12か月女児：11か月時に発病、全身型、リウマトイド因子陰性、非ステロイド系抗炎症薬、ステロイド薬にて治療中、血球貪食リウマチ組織球症にて死亡 2) 2歳11か月女児：1歳5か月時に発病、全身型、リウマトイド因子陽性、ステロイド薬、免疫抑制薬で治療し軽快していたが、腸炎、DIC、循環不全にて死亡 3) 4歳女児：2歳時に発病、全身型、リウマトイド因子陰性、ステロイド薬、免疫抑制薬、抗凝固療法で治療、当初寛解するも悪化して死亡 4) 19歳女児：14歳で発病、全身型、リウマトイド因子陽性、非ステロイド系抗炎症薬、ステロイド薬で治療し軽快していたが、ワファリン内服中に机から転落して死亡
5～6) 若年性特発 性関節炎 2/13人	5) 10歳女児：1歳時に発病、病型不明、リウマトイド因子陰性、ステロイド薬の治療にて軽快していたが、EBウイルス関連リウマチ腫にて死亡 6) 19歳女児：6歳時に発病、全身型、ステロイド薬、免疫抑制薬で治療し軽快していたが、19歳で再発、免疫調整薬に変更するも敗血症にて死亡
7～8) 川崎病性 冠動脈病変 2/594人	7) 7か月男児：生後5か月で川崎病にて入院、11日目に退院、アスピリン服用中13日目にけいれん発症、その2週間後、急性壊死性脳症にて死亡、原因不明 8) 1歳10か月女児：1歳3か月時に発病、巨大冠動脈瘤あり抗凝固療法にて軽快していたが、心筋梗塞による心不全にて死亡
9) スチーブンス・ジョンソン 症候群 1/11人	9) 23歳男児：10歳で発病、眼症状はあるもののほとんど無治療で、経過は不変であったが、肺炎による呼吸不全で死亡

院、また、疾患の対象基準外と親の希望とが各1人であった。

D. 考察

今回の調査では、全体として回収率、有効回答率ともに62%前後となったことは、全国の医療機関関係者の協力のおかげである。また、同時に小慢事業に登録されなくなった症例の経過を把握することの大切さ、関心の高さを示している。

非継続となった理由として、制度上の理由67.2%、家族の都合14.4%、経過が順調9.4%を合わせると91.0%であり、小慢事業が医療費助成制度としてほぼ適正に運営されていることを示している。

しかし、経過が再燃または悪化とされたものの、小慢事業に再申請していなかった15人中、9人は年齢が対象外となっていた。20歳以上のキャリアオーバー患者にも何らかの医療費助成が望まれる。

18年度非継続であったものの、今回の調査で小慢事業に申請していた症例の割合は7.1%

であり、昨年度調査した他の4疾患群の14～47%と比べて少なかった²⁾。年月を経たことと共に、疾患特有の状況によると推測される。また、疾患名の明らかな変更はなく、電子データ上の疾患名は正確なものと考えられる。

全国82/99の実施主体に登録された症例から61.4%の有効回答を得られたので、全国の症例の約半数を1～3年間把握した結果である。平成18～20年の人口動態統計によれば、若年性関節炎による死亡は0～4歳3人、15～19歳3人、心筋梗塞による死亡は0～4歳2人、5～9歳2人であった⁴⁾。死亡統計上の分類が小慢事業での登録内容と異なるので、厳密な比較はできないが、ほぼ同等の人数を把握できたと推測される。膠原病のある子どもの死亡に至る経過を全国レベルで把握できたので、若年性特発性関節炎等の治療、また経過観察の際の参考になると期待される。

1か所の医療機関で同じような経過をたどって亡くなる慢性疾患児を経験することが少なくなっている。そこで、死亡症例をその後の医療に生かすことが難しい。今回の調査では、

全国レベルでその状況を把握できたので、今後の小児医療の現場で役立つ資料となることが期待される。

E. 結論

1) 小慢事業に登録されなくなった症例の経過を把握することの大切さが今回の調査で示され、小慢事業が医療費助成制度としてほぼ適正に運営されていることが確認された。

2) しかし、経過が再燃または悪化したにもかかわらず再申請していなかった患者の多くは年齢が対象外との理由であったので、20歳以上の患者への何らかの医療費助成が望まれる。

3) 膠原病での死亡症例の報告数は、人口動態統計での死亡数と近似していた。今回の調査により非継続症例の経過を全国レベルで把握できたと考えられる。

4) 9人の死亡症例の報告があり、発症から死亡に至る経過が判明した。その経過を少しでも回避できるような医療、また生活指導が望まれる。

謝辞

研究にご協力いただいた患児家族、厚生労働省や地方自治体の担当者、そして医療機関、ことに死亡症例をご報告いただいた担当医師に深謝いたします。

資料

1) 倉辻忠俊監修：医療意見書. 小児慢性特定疾患早見表（登録管理用）平成19年度版；207、2008

2) 加藤忠明、原田正平、安藤亜希、他：小児慢性特定疾患治療研究事業（慢性腎疾患、慢性呼吸器疾患、糖尿病、慢性消化器疾患）の非継続症例の経過に関する実態調査. 平成20年度厚生労働科学研究「法制化後の小児慢性特定疾患治療研究事業の登録・管理・評価・情報提供に関する研究」報告書；39～52、2009

3) 原田正平：症例情報データベースシステム基本仕様書. 平成17年度厚生労働科学研

究「子どもの病気に関する包括的データベースの構築とその利用に関する研究」：13-51、2006

4) 厚生労働省統計情報部：平成18、19年人口動態統計下巻、2008、2009、2010

厚生労働科学研究費補助金(子ども家庭総合研究事業)
分担研究報告書

分担研究課題 白血病診療の実態 に関する研究

分担研究者 別所 文雄 杏林大学医学部小児科 客員教授

研究要旨

- 【目的】 (1)年間白血病患者が2例以下の施設において、どのようにこの少数の患者を診療しているのかを明らかにすること。(2)長期フォローの必要性を確認すること。
- 【方法】 (1) 2005年度に白血病症例について小児慢性特定疾患の意見書の提出が2例以下提出の施設108施設にアンケート用紙を送付した。(2)長期生存者あるいはその家族に調査用紙を送付し、また電話などによる聞き取り調査を行った。
- 【結果】 (1)回収率は66.7%であった。約85%の施設が10名以下の医員で診療をしていた。それぞれ22.4%、51.1%の施設では、日本小児血液学会(児血)あるいは日本小児がん学会(児がん)の会員および日本血液学会(日血)の専門医の存在無しで、何らかの形で白血病患者を扱っていた。専門医療に関係していないとした施設の61.5%が児血あるいは児がんの会員がいるにもかかわらず、また34.6%の施設が日血の専門医がいるにもかかわらず、専門医療には関係していなかった。(2)長期後の再発、臓器障害、2次性腫瘍の発生などが確認された。
- 【結論】 (1)悪性新生物を診療している施設の医員数が少ないことが明らかになった。また、必ずしも児血あるいは児がんの会員および日血の専門医がいない施設でも悪性新生物の診療を行っている状況と、逆にこれらの「専門医」がいる施設でも極めて少数の患者を診療しているに過ぎないか、専門医療には関係していないことが明らかになった。医療資源としての専門医を有効に活用し、医療に質を高めるためにも専門医療の集約化が必須であると考えられる。(2)長期受診の保証のため、小児慢性特定疾患としての登録を継続することが必要であると考えられる。

A. 研究目的

我が国の医療の特徴は、小規模な施設が多数存在し、1施設が扱う患者数も少数であることである。昨年度の本研究において、悪性腫瘍のような極めて専門性の高い疾患についても、患者が多数の施設に少数ずつ分散している様子が推測される結果が得られた。

今回の研究では、年間白血病患者が2例以下の施設において、どのようにこの少数の患者を診

療しているのかをアンケート調査によって明らかにすることを試みた。

また、長期生存者の現状を明らかにするための調査を行った。

B. 研究方法

昨年度のデータとの整合性を保つため、2005年度のデータを用いた。

2005年度に白血病症例の診断書を2例以下

提出している施設 108 施設を対象にアンケート用紙を送付した。アンケート用紙送付に当たり、6年の経過で医員の移動等が生じている可能性があるため、インターネット上に公開されている施設のホームページによってその責任者の確認を行った。アンケート用紙は確認された責任者宛に送付した。

施設担当者へのアンケートは、研究目的に使用することがあることを明記した小児慢性特定疾患事業への意見書に基づくもので、さらに内容には特定の施設・個人が特定できる事項を含まないので、倫理委員会の審査を要しない。また、長期生存者に関する調査については、杏林大学医学部倫理委員会での審査を経、その承認を得ている。

C. 研究結果

1. アンケート用紙に発送と回収率

3施設では既に責任者が移動しており、宛先不明であった。残りの105施設中70施設から回答があった(回収率66.7%)(表1)。回答のあった施設の約80%は、国立病院、公立病院、私立病院であった。診療科では小児科が76%、1科を除き、残りは内科であった(表2)。

2. 施設における医員数とその「専門」性

以下の記述で「専門」、「専門医」のように「」付きでの表現は、学会認定の専門医とは無関係で、血液学ないしは悪性腫瘍学に造詣が深いと思われ、あるいは思われている医員のことである。

医員数が5名以下の施設は約40%、6名から10名の施設は45%であり、全体の約85%の施設が10名以下の医員で診療を行っていた(図)。

日本小児血液学会(児血)あるいは日本小児がん学会(児がん)の会員がいる施設でみると、多少医員数が多い傾向がみられたが、それでも約76%が10名以下の医員数であり、日本血液学会(日血)の専門医資格を有する医員がいる施設であっても白血病治療を行っている施設の半数近くの施設が5名以下の医員であった(図)。

また、児血あるいは児がんの会員および日血の専門医がいる施設かどうかでみると、それぞれ11/49(22.4%)、28/49(51.1%)の施設では、これらの「専門医」の存在無しで、何らかの形で白血病の患者を扱っていた(表3)。

3. 回答施設での診療の実態

これらの施設が白血病の疑いのある患者についてどのような方針の下に対処しているかをみると、表4のようであった。表では比較のために神経芽腫に対してはどのように対処しているかも示してある。56.2%の施設では、自施設で診療しており、他院の「専門医」に依頼している施設は38.6%であった。それに対して、神経芽腫の場合は、65.5%が他院に依頼し、自施設で診療している施設は32.8%であった。

児血あるいは児がんの会員および日血の専門医の有無でみると、自施設で診療を行っている施設の全てに児血あるいは児がんの会員がいるが、40.7%の施設では日血の専門医がいなかった(表5)。

4. 紹介元と紹介先との連携

他院の「専門医」に依頼した場合、紹介先と協力して専門医療の一部を分担する施設は23.7%に過ぎず、一般診療のみを行う施設は37.3%、治療終了後の追跡に協力をあわせると60%になり、ほとんどの施設は専門医療に関わっていなかった(表6)。全く無関係になってしまう施設も6.8%存在した。

専門医療に関係していないとした施設の会員の専門性についてみると表7の如くで、61.5%の施設が児血あるいは児がんの会員がいるにもかかわらず、また34.6%の施設が日血の専門医がいるにもかかわらず専門医療には関係していなかった。紹介後の医療に関係していない理由についての設問に対しては無記載が圧倒的に多く、評価できなかったが、関与したいがその機会がないと言う回答が1施設からあった(表8)。

逆に紹介された施設がその後の診療について紹介元との関係をどのようにしているかについては表9に示したとおりであった。一般医療や治療

終了後の追跡を依頼する施設はあったが、一部の医療の分担を依頼する施設はなかった。ただし、患者や紹介元の希望があったり、紹介元の性格によっては依頼するとした施設が 52.5%と最も多かった。依頼しない理由については、やはり無記載が多かったが、紹介元が希望しない、紹介元が信頼できない、患者の希望がほぼ同数であった。患者の希望では専門施設での診療を希望する例が多かった(表10)。

5. 意見書の提出

小児慢性特定疾患申請用の意見書は、ほとんどの施設で診断がほぼ出来たか確定した段階で提出していた(表11)。今回のアンケート用紙を送付した施設は意見書提出施設であるにも関わらず 32.1%の施設が自施設では提出していないと回答していた。自施設で意見書を提出している施設としては、診断と治療を自施設で行っていると回答した施設が最も多く 50%を占めていた(表12)。診断確定後に専門医に紹介する施設も 25%存在した。

意見書を提出していない施設は、診断を疑った時点で他施設の専門医に紹介してしまっているとする施設が約半数(47.4%)を占めていた(表13)が、自施設で診断・治療を行っていると回答した施設も 42.1%存在した。

紹介を受けた施設での意見書の提出の状況は表14の通りである。既に提出されていれば継続の場合のみ提出とする施設が 24.1%と多かったが、既提出か否かにかかわらず提出しているという施設が同数存在した。また、紹介元の施設と紹介された施設の所属する自治体が異なる場合には提出すると回答した施設が約 1/5 存在した。

6. 長期生存者の長期予後

長期生存者の内、成人に達した生存者 133 人うち、17 例に重篤な障害がみられ、6 名がその障害のために死亡していた(表 15)。白血病の 3 名は診断後 16 年後、21 年後、35 年後に再発し、全て造血幹細胞移植を含む治療を行ったにもかかわらず、全員死亡していた(表 16、図1)。

D. 考察

前年度の研究との整合性を保つために、2005 年度の意見書提出施設に対してアンケート用紙を送付したが、各施設のインターネット上のホームページで申請者の確認を行ったところ、大部分の施設では同名の医師の氏名は確認できず、医員の移動の激しさが示された。それにもかかわらず、現在の責任者宛に送付することによって、宛先不明で返送された例は、送付 108 件中 3 件に留まった。

宛先施設は意見書提出施設であるにもかかわらず、自施設では意見書を提出しないと回答した施設が少なからずあったのは、2005 年度と現在との方針の違いによることが考えられるが、症例数が少ない施設であるため、現在の責任者が専門領域外である場合、提出費提出の実態を正しく把握していない可能性も否定できない。

昨年度の患者数の観点からの検討から、1施設当たりの患者数の少なさが明らかとなったが、今回の調査では、施設の規模の観点からの検討で診療要員の少なさが明らかとなった。少ない診療要員で少数の患者を診療すると言うことは理にかなったように見えるが、少なからぬ施設が少数の診療要員の中に日本血液学会専門医を有していることを考えると、専門医としての質の維持が容易でないであろうことが推測される。また、医療資源という観点からは、専門医がいながら極めて少数の患者を診療していると言うことは無駄が大きいことを意味している。

今回の調査では、小児慢性特定疾患の意見書が、紹介元と紹介先の両方から提出されている場合があることが明らかになった。これも書類作成という点で少ない医員に負担をかけていることになり対策を講じる必要があるのではないかと思われる。

長期生存者は、長期にわたって様々な問題を抱えているばかりでなく、年が長じるに従って新たな問題が生じることが明らかとなった。成人における 5 年再発・再燃がないと言う定義は小児に適用できないと思われる。多くの小児がんの専門

医は、治療終了後5年で小慢の適用が終了することによってフォローの継続が困難になることを危惧している。少なくとも、親に依存するのではなく、自身について責任を持って判断することが求められる20歳までは小慢の適用を復活することが望まれるところである。

E. 結論

我が国の小児がんの診療について、1施設当たりの患者数が少ないことに加え、悪性新生物を診療している施設の医員数が少ないことが明らかになった。また、必ずしも児血あるいは児がんの会員および日血の専門医がいない施設でも悪性新生物の診療を行っている状況と、逆にこれらの「専門医」がいる施設でも極めて少数の患者を診療しているに過ぎないことが明らかになった。

病院小児科の集約化と共に、小児がんのような特殊な疾患の診療のためには、医療資源を集約して専門施設化を目指すことが、医療資源の無駄をなくし、医療の質を維持し、更に高めていくためには必要である。

小児がんは5年生存を持って治癒とすることは出来ず、長期に、あるいは一生に渡ってフォローしていく必要があり、自身で責任を持つことが求められる治療が終了したか否かにかかわらず、20歳までは小慢の適用が維持されることが望まれる。

F. 健康危険情報 なし

G. 研究発表

1. 論文発表

①別所文雄：小児がん治療の進歩と課題
—長期生存患者の健康問題を中心に—
小児保健研究 68:607-613, 2009.

②吉野浩, 別所文雄：晩期再発？白血病の2次がんとしての白血病. 小児科臨床 63: 41-46, 2010.

2. 学会発表

Bessho F, Kobayashi M: Long-term outcome of pediatric cancer survivors. 13th Asian Pacific Congress of Pediatrics. Shanghai, October 14-18, 2009.

H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得 なし
2. 実用新案登録 なし
3. その他 なし

表1. 施設の性格

	回答施設数	送付施設数
大学附属病院	6	12
大学附属病院 分院	4	5
小児病院	1	2
国立病院	3	3
公立病院	27	39
一般病院	27	45
診療所	2	2
計	70	108

表2. 診療科

	施設数	
小児科	53	
その他	17	
内科		3
血液(腫瘍)内科		13
整形外科		1

表3. 日本小児血液学会あるいは日本小児がん学会および日本血液学会専門医の有無別施設数

日本小児血液学会あるいは日本小児がん学会会員		日本血液学会専門医	
いる	38	いる	21
いない	11	いない	28

表4. 診療実態

診療方針	実数		割合(%)	
	白血病	神経芽腫	白血病	神経芽腫
疑った時点で他施設の専門医に紹介	11	17	19.3	30.9
他施設の専門医の指導下に診断			0.0	0.0
診断確定後に専門医に紹介	10	18	17.5	32.7
他施設の専門医の指導下に治療	5	4	8.8	7.3
時期を見て他施設の専門医に治療継続を依頼	1	1	1.8	1.8
確定診断・治療とも自施設で実施	27	14	47.4	25.5
その他	2		3.5	0.0
記載なし	1	1	1.8	1.8
計	57	55	100.0	100.0

(複数回答あり)

表5. 確定診断・治療とも自施設で実施の施設の規模

	日本小児血液学会あるいは 日本小児がん学会 会員		日本血液学会 専門医	
	いる	いない	いる	いない
白血病	27	0	16	11
神経芽腫	14	0	7	7

表6. 紹介後の紹介した施設での診療

	施設数	割合(%)
協力して専門医療の一部を分担	14	23.7
治療終了後の追跡の協力	14	23.7
一般診療のみ	22	37.3
全く無関係	4	6.8
その他	1	1.7
記載なし	4	6.8
計	59	100.0

(複数回答あり)

表7. 専門医療に関係していない施設

日本小児血液学会あるいは 日本小児がん学会 会員		日本血液学会専門医	
いない	10	いない	17
いる	16	いる	9

表8. 紹介後の診療に全く
関与していない理由

	施設数
関与する機会がない	1
余裕がない	1
知識がない	1
関与したくない	0
その他	0
記載なし	60

表9. 紹介された施設の紹介元との関係

	施設数	割合(%)
一部の専門医療の分担を依頼	0	0.0
一般医療のみ依頼	6	9.8
治療終了後の追跡を依頼	1	1.6
紹介元の性格によって内容を決めて依頼	15	24.6
紹介元の希望による	3	4.9
患者の希望による	14	23.0
依頼はしない	6	9.8
その他	0	0.0
記載なし	16	26.2
計	61	100.0

表10. 紹介元に依頼しない理由

	施設数	割合(%)
紹介元が希望しない	7	12.7
紹介元を信頼できない	6	10.9
患者の希望	5	9.1
専門施設での診療	4	
継続しての診療	0	
一カ所での診療	1	
不明	0	
その他	0	
記載なし	1	
その他	0	
記載なし	37	67.3
計	55	100.0

表11. 小児慢性特定疾患の意見書の提出

	施設数	割合(%)
疑った時点で提出	2	3.8
ほぼ診断できた時点で提出	17	32.1
確定診断後に提出	15	28.3
自施設では提出していない	17	32.1
紹介先の自治体が異なる場合には提出	0	0.0
一定の方針はなく、患者の希望で提出	0	0.0
その他	0	0.0
記載なし	2	3.8
計	53	100.0

表12. 診断書を提出している施設の診療方針

	施設数		割合(%)	
	白血病	神経芽腫	白血病	神経芽腫
疑った時点で他施設の専門医に紹介	2	6	5.6	16.7
他施設の専門医の指導下に診断	0	0	0.0	0.0
診断確定後に専門医に紹介	9	15	25.0	41.7
他施設の専門医の指導下に治療	4	3	11.1	8.3
時期を見て他施設の専門医に治療継続を依頼	1	0	2.8	0.0
確定診断・治療とも自施設で実施	18	11	50.0	30.6
その他	1	0	2.8	0.0
記載なし	1	1	2.8	2.8
計	36	36	100.0	100.0

(複数回答あり)

表13. 診断書を提出していない施設の診療方針

	施設数		割合(%)	
	白血病	神経芽腫	白血病	神経芽腫
疑った時点で他施設の専門医に紹介	9	11	47.4	64.7
他施設の専門医の指導下に診断	0	0	0.0	0.0
診断確定後に専門医に紹介	1	3	5.3	17.6
他施設の専門医の指導下に治療	1	1	5.3	5.9
時期を見て他施設の専門医に治療継続を依頼	0	1	0.0	5.9
確定診断・治療とも自施設で実施	7	1	36.8	5.9
その他	1	0	5.3	0.0
記載なし	0	0	0.0	0.0
計	19	17	100.0	100.0

(複数回答あり)

表14. 紹介を受けた施設での小児慢性特定疾患の申請

	施設数	割合 (%)
既に申請されていれば継続のみ	13	24.1
自治体が異なれば申請	11	20.4
既申請か否かに無関係に申請	13	24.1
一定の方針なく頼まれれば申請	1	1.9
その他	0	0.0
記載なし	16	29.6
計	54	100.0

(複数回答あり)

表 15. 長期生存者の重篤な晩期障害

Conditions		No. (death)
Secondary neoplasms	Meningioma	3 (0)
	Reappearance of ALL	3 (3)
	Breast carcinoma	2 (0)
	Urinary bladder carcinoma	1 (0)
Constrictive lung diseases		3 (2)
Heart failure		1 (1)
Renal failure		2 (0)
Proteinuria of unknown etiology		1 (0)
Multiple intracranial hemangioma		1 (0)
Total		17 (6)

表 16. 小児がん生存者の長期予後

Long-Term Outcome of Cancer Survivors

Patient	Sex	Type of Leukemia	Age at Diagnosis	Secondary Malignancy	Age at Secondary Malignancy
1	Female	ALL	3	Meningioma	19
2	Female	ALL	3	Meningioma	29
3	Female	ALL	3	Meningioma	33
4	Female	ALL	13	Breast cancer	34
5	Female	Neuroblastoma	7	Urinary bladder carcinoma	26
6	Female	Hodgkin disease	15	Breast cancer	43
7	Male	ALL	7	ALL	22*
8	Female	ALL	3	ALL	22*
9	Male	ALL	13	ALL	47*