

## 胆道閉鎖症早期発見のための新版便色カードシステム導入パイロット事業について の評価に関する研究

研究分担者 松井 陽（国立成育医療研究センター 病院長）

### 研究要旨

我々の先行研究では本邦での胆道閉鎖症の発症率は 9 千人～1 万人に 1 人であった。2010 年 12 月～2012 年 3 月の間に神奈川県内の 27 市町村でパイロット版便色カードが配布された。パイロット版便色カードの配布が一番遅い時期であった 2012 年 3 月にカードを受け取った妊婦の出産は 2012 年 12 月から 2013 年の 1 月の間であると推測された。新生児の便色に関する問い合わせの対応による実態の把握、および便色カードの配布後に神奈川県で出生し、葛西手術を受けた患児の追跡調査を本研究の目的とした。2012 年度の 5 月末から 2013 年 1 月末までに計 8 ヶ月間に 13 人、つまり 1 万人に 2.7 人が問い合わせをした。また、追跡調査ではパイロット版便色カード配布後に出生した 4 人の患者のうち、2 人が便色カードの利用者で葛西手術の日齢の短縮がみられたが、今後より多くの患者に対して追跡調査し、確認する必要がある。

### 研究協力者:

顧 艶紅（帝京大学医学部衛生学公衆衛生学  
講座・国立成育医療研究センター  
研究所）

茂木仁美（国立成育医療研究センター研究所）

伊藤玲子（国立成育医療研究センター病院）

郡司秀明（JAGAT 研究調査部部長）

森臨太郎（国立成育医療研究センター研究所）

### A. 研究目的

2010 年 12 月から 2012 年 3 月まで神奈川県内の計 1,724 市町村のうち、27 市町村でパイロット版便色カードが配布された。パイロット版便色カードの配布が一番遅い時期であった 2012 年 3 月に便色カードを受け取った妊婦の出産は 2012 年 12 月から 2013 年の 1 月の間であると推測されたため、新生児の便色に関する問い合わせの対応による実態の把握をすること、および便色カードの配布後に神奈川県

で出生し、葛西手術を受けた患児の追跡調査を本研究の目的とした。

### B. 研究方法

#### 1. 研究期間

本文中にまとめたデータの研究期間は 2012 年 5 月末～2013 年 1 月末までであった。

#### 2. 各種の問い合わせに対する対応

①便色に関する保護者などからの問い合わせ：専用の電子メールと電話番号で問い合わせを受け、対応した。問い合わせの内容に対して、質的研究の分析を行なった。

②他の問い合わせ：便色カードの測色と印刷などは別の専用電子メールと郵便物で対応した。

#### 3. 葛西手術を受けた患児に対する追跡調査

2012 年 8 月中旬に神奈川県内および近隣都

内にある葛西手術を行なう医療機関の外科や小児外科に対して匿名で調査票を送った。調査の内容はパイロット便色カード配布後に胆道閉鎖症を発症した患者の有無、患者の出生年月と性別、利用した便色カードの便色番号と利用日、葛西手術の日齢であった。

#### (倫理面への配慮)

便色に関する保護者などからの問い合わせに対する対応や医療機関に対する調査は匿名で行ない、非侵襲性であったため、倫理面での問題はない。また、本研究は本センターの倫理委員会の審査を受け、承認済みである。

### C. 研究結果

1. 計 13 人の保護者から問い合わせがあり、複数回対応した保護者は計 6 人であった。便色に関する保護者などからの問い合わせの具体的な内容、その内容に対する質的分析後のカテゴリー分類と主な対応の仕方を表 1 で示した。問い合わせの内容は主に二つのカテゴリーに属する。すなわち、便色は 7 番より濃い緑色の便に対する問い合わせ、と便色は 4 番に近い色で心配であるという問い合わせであった。
2. 神奈川県における追跡調査をしたところ、2012 年 8 月末現在、パイロット版便色カードを配布し始めた以降に、葛西手術を受けた患者の計 4 例の報告があった。葛西手術の日齢などを表 2 で示した。

### D. 考察

パイロット便色カードが配布された 27 市町村における当時年間出生人口は計 72,571 人であり、1 ヶ月平均出生数は 6,048 人であった。2012 年 5 月末から 2013 年 1 月末までに計 8 ヶ月間に 13 人 (0.00027) の問い合わせがあった。

表 2 で示したように便色カードを利用した 2 人の患児の葛西手術の日齢が短縮の傾向が見られた。また、便色カード配布前の神奈川県内の葛西手術日齢と比べ、便色カード配布後に患者の葛西手術の日齢が短縮した傾向が見られた。今後、2012 年 8 月以降に出生してから 2012 年年末頃手術した患者の葛西手術日齢などに関する追跡調査を行う予定である。

### E. 結論

神奈川県内の一部市町村でのパイロット版便色カード配布後の問い合わせの対応による実態の把握と患者に対する追跡調査では、便色カード配布が育児不安の原因にならなかったことと、便色カードの利用者で葛西手術の日齢の短縮が明らかになった。今後より多くの患者に対して葛西手術の日齢などの追跡調査が必要である。

### 引用文献・出典

- 1) 松井陽、顧艶紅、加藤忠明. 慢性消化器疾患の登録・評価・情報提供に関する研究—法制化後の新規登録者数と胆道閉鎖症の発症率に関する研究. 平成 20 年度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: 173-180, 2009 年.
- 2) 厚生労働省. 平成 21 年度「人口動態統計」  
<http://www.mhlw.go.jp/toukei/list/81-1.html>

### F. 研究発表

1. 論文発表
  - 1) 松井陽. 【母子健康手帳:過去、現在、未来】母子健康手帳に便色見本が掲載された意義. 小児科臨床 65 巻 8 号: pp.1778-1786, 2012.
  - 2) 松井陽. 胆道閉鎖症早期発見の試み 神奈川県から全国へ. 日本女性医学学会雑誌.

20 卷 1 号: p.238, 2012.

- 3) 松井 陽. 胆道閉鎖症を早期発見するための便カラーカード法 母子健康手帳の 1 ヶ月健診記入欄の直前頁に綴じこむことの意義. 助産師 66 卷 1 号: pp.23-25, 2012.

## 2. 学会発表

- 1) 松井 陽. 胆道閉鎖症のスクリーニング意義. 第 39 回日本マス・スクリーニング学会学術集会, 2012 年 8 月 24 日, 東京都(日本マス・スクリーニング学会誌 22 卷 2 号 p.135, 2012.)

## G. 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. 保護者からの問い合わせ内容と主な対応

保護者 ID	保護者からの問い合わせの具体的な内容	質的研究 カテゴリー	保護者に対する主な対応
1	生後 3 週目、濃い緑色の便で、心配	1. 便が濃い緑色で心配。	「便の色が濃い色のままであれば、特に心配はありません。今後、便の色が薄くなってきて4番の色に近くなってきた場合は、再度ご相談いただけたらと存じます。」
2	生後 2 か月、便はちょっと黒っぽくて、便色カードに無い色		
3	オムツ替えで 5 番の色に少し 7 番の色が混ざっていたのですが大丈夫でしょうか		
4	折り返し電話して、注意事項を留守電に録音した。		
5	生後 2 か月、緑色の便から 4 番に	2. 便色が 4 番あたりで心配。	「便色が 4 番と 5 番の間のような色だということですが、便色がうすくなって、1 番～3 番に近づくかどうか注意して観察を続けて下さい。 もし、便色が薄くなってきて 1 番～3 番に近づいてきたと思ったら、その便をオムツと一緒に持参して、担当の医師に見てもらおうようにして下さい。 目の白い部分、鼻の周りやほかの皮膚は黄色になっていませんか？稀に、黄色くならない場合もあります。 生後 5 ヶ月になるまでは、便色チェックを続けるようお願い致します。」
6	生後 54 日目、母乳、4 番は 4 日間連続、うち一回は 5 番		
7	生後 39 日目、2 週間のうちに 4-5 番 2 回		
8	昨夜、4 番の便一回		
9	生後 1 か月と 16 日、母乳、時々 4 番より明るいうんち、レモン色のうんち		
10	生後 7 日目、1 日だけ、便の中に 5mm の粒があって、粒の色が 4 番に近い		
11	3 日前より 4 から 5 番の便が出る。便やおならをするとき、激しく泣く		
12	昨日からうんちの色が 4 と 5 番の間くらいのマスタード色で、病院に行くかどうか		
13	胆道閉鎖症は黄疸や尿が黄色ではなくても発症していることはあるか、4 番に近いので気になる。		

表 2. 2012 年 8 月末現在神奈川県における追跡調査結果

症例 ID	出生年月	性別	便色カード利用の有無	葛西手術の日齢
1	2011 年 6 月	男	あり、2 か 3 番	73
2	2011 年 10 月	男	なし	87
3	2012 年 5 月	男	なし	48
4	2012 年 6 月	女	あり、1 か 2 番	32
			平均±標準偏差 =	60.0±24.7
			中央値 (範囲) =	60.5 (32-87)
参考データ	2007-2010 年	女 6	平均±標準偏差 =	80.2±28.6
		男 5	中央値 (範囲) =	78.0 (36-122)

小児慢性特定疾患治療研究事業に登録された川崎病患者の特性：  
2009-2010 年の川崎病全国調査結果との比較

研究分担者 中村 好一（自治医科大学地域医療学センター公衆衛生学部門 教授）

**研究要旨**

小児慢性特定疾患治療研究事業登録データベースを用いて 2009 年と 2010 年に初診（新規登録申請）の川崎病および関連する心臓後遺症の患者特性を、同期間の初診患者を対象とした第 21 回川崎病全国調査結果と比較することによって示した。

小慢登録患者は 242 人であり、ICD コード「M30.3」は 136 人、「I25.4B」は 38 人、「I25.4C」は 1 人、「I25.4D」は 67 人だった。性別、全体の年齢分布、および心障害を有する頻度は両群で有意な差が観察されたが、2 歳未満の年齢分布と初診月ごとの患者発生頻度の分布は類似していた。川崎病全国調査結果と比較することによって、小児慢性特定疾患治療研究事業登録データベースに登録された川崎病患者の特性の一部を明らかにできる可能性がある。

**A. 研究目的**

小児慢性特定疾患治療研究事業（以下、小慢）登録データベースを用いて 2009 年と 2010 年に初診（新規登録申請）の川崎病および関連する心臓後遺症の患者特性を、同期間の初診患者を対象とした第 21 回川崎病全国調査（以下、全国調査）結果 1 と比較することによって示した。

**B. 研究方法**

小慢登録データベースに登録されている 2009 年と 2010 年に初診の川崎病患者を抽出した。川崎病は ICD コードでは「M30.3」に対応し、関連する心臓後遺症については、「I25.4B」が冠動脈拡張症（川崎病性）、「I25.4C」が冠動脈狭窄症（川崎病性）、「I25.4D」が冠動脈瘤（川崎病性）に対応し、いずれも膠原病の疾患群に含まれていた。なお、慢性心疾患の疾患群においては「I25.4」が冠動脈瘤に対応していたが、川崎病によるものかどうか

は不明であるため対象から除外

した。上記の ICD コードすべて合わせて患者数を集計した。

第 21 回全国調査には 2009 年と 2010 年の 2 年間の初診患者が報告されていることから、小慢登録データベースから抽出した川崎病患者との間で以下の項目について比較した。小慢登録データベースにおける膠原病の調査項目と第 21 回全国調査の調査項目との間で一致するものとして、性別、初診時年齢、初診月、心障害の有無が該当した。「初診月」については、単年度では小慢登録データベースの患者数が少なくなってしまうために 2009 年と 2010 年の初診患者を合計した人数を用いて頻度を算出した。また、「心障害の有無」については、小慢登録データベースでは ICD 疾患名が「冠動脈拡張症（川崎病性）」、「冠動脈狭窄症（川崎病性）」、「冠動脈瘤（川崎病性）」、「川崎病性冠動脈病変」のいずれかである場合を「有り」とし、第 21 回全国調査では「30 病日以降の心後遺症あり」を該当

患者とした。割合の差の検定にはカイ二乗検定を用い、有意水準を5%とした。

#### (倫理面への配慮)

個人情報を除いて匿名化したデータベースを用いて解析した。

### C. 研究結果

小慢登録データベースに登録された2009年と2010年の2年間の初診患者は全体で242人(2009年193人、2010年49人)だった(表1)。ICDコード「M30.3」は136人(56%)、「I25.4B」は38人(16%)、「I25.4C」は1人(0.04%)、「I25.4D」は67人(28%)だった。性別は不明の4人を除き、男161人(68%)、女77人(32%)だった。第21回全国調査結果と比較すると、有意に男の割合が大きかった(第21回全国調査:男57%、女43%、 $p=0.001$ )。

小慢登録データベースで初診時年齢が不明な241人について、第21回全国調査結果と年齢分布を比較すると、両群の間には有意な差が観察された(図1、 $p<0.001$ )。初診時年齢が7歳以降である頻度が小慢登録患者に大きいのが特徴であるが、2歳未満では両群ともに6~11か月にピークが存在し、0~2か月の頻度が小さいことは共通に観察できた。

初診月ごとの頻度から川崎病患者の季節変動を観察すると、統計学的に有意ではないが小慢登録患者の分布は第21回全国調査結果よりも変動が大きい傾向にあった(図2、 $p=0.11$ )。その変動は、第21回全国調査結果で観察される変化と似通っており、冬(1~3月)に第1のピークがあり、夏(8月)に第2のピークがあり、続く秋(9~10月)には最も頻度が小さいという分布であった。

心障害の有無に関しては、小慢登録患者では175人(75%)が「有り」と分類され、第21回全国調査結果の3%と比較して有意に高い頻度であった( $p<0.001$ )。

### D. 考察

小慢登録患者のうち2009年と2010年に初診(新規登録申請)の川崎病患者をデータベースから抽出し、同期間の初診患者として報告されている第21回全国調査結果と比較した。性別、年齢分布および心障害を有する頻度はいずれも有意差が観察された。小慢登録患者は、心障害を有する頻度の高さ(75%)からも明らかなように、登録基準を満たす必要性から心障害を合併した患者が多く登録される傾向にあることがわかる。性別や年齢は心障害のリスク因子の一つであることから、第21回全国調査結果と比較し小慢登録患者では男の頻度や7歳以降の頻度が高いことは心障害を有する患者の頻度の多さと関連していることが理解できる。しかしながら、初診時年齢の分布では2歳未満で小慢登録患者と第21回全国調査報告患者の分布が似ていたこと、また、初診月ごとの患者割合の分布にも共通点が観察されたことは興味深い。ただし、季節変動に関して小慢登録患者では1~3月にピークが観察されたことについては、年度末に登録申請が集中した可能性もあるかもしれない。

川崎病全国調査は2年ごとに実施されているが、今後も全国調査結果と比較することによって小慢登録データベースに登録された川崎病患者の特性の一端を明らかにすることが可能ではないだろうか。

### E. 結論

小慢登録データベースから2009年と2010年に初診の川崎病および関連する心臓後遺症の患者を抽出し、同期間の初診患者を対象とした第21回全国調査結果と比較することで小慢登録患者の特性の一部を示した。

性別、全体の年齢分布および心障害を有する頻度には有意な差が観察されたが、2歳未満の年齢分布や患者発生の季節変動には類似点が観察された。

今後も全国調査結果と比較することによって小慢登録患者の特性の一部を明らかにしていくことが可能であろう。

#### 引用文献・出典

- 1) 川崎病全国調査担当グループ. 第 21 回川崎病全国調査成績. 小児科診療 2012; 75: 507-523.

#### F. 研究発表

1. 論文発表  
なし
2. 学会発表  
なし

#### G. 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

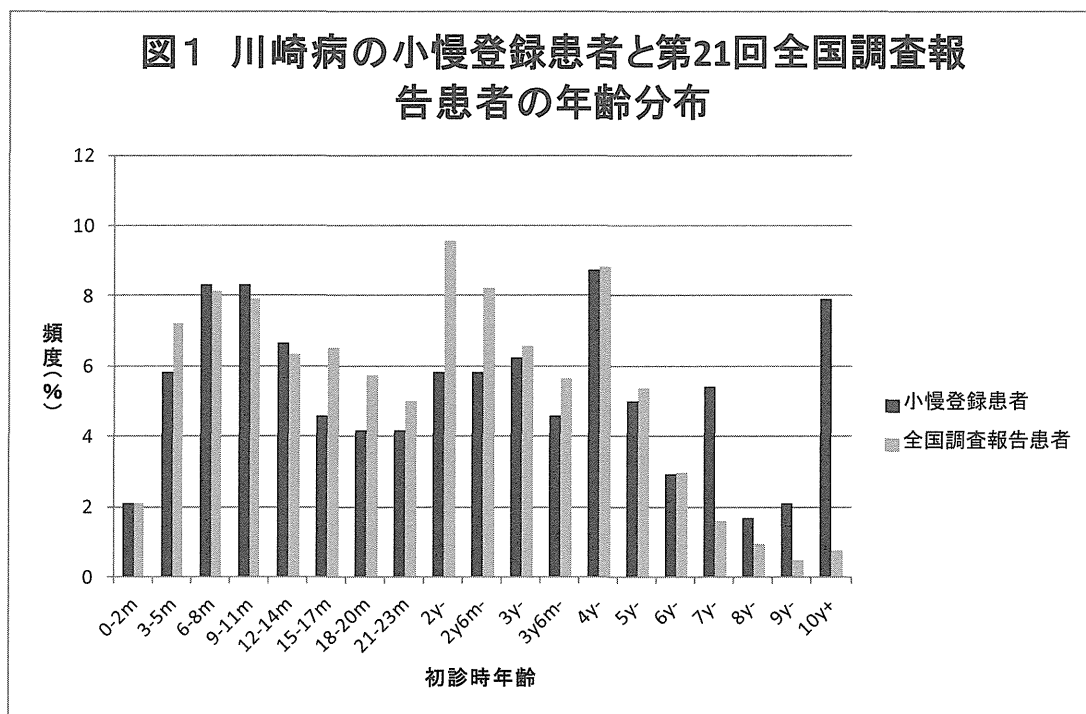
表1 2009年と2010年に川崎病初診の小児慢性特定疾患として登録された患者数

ICDコード*	初診年†		計
	2009年	2010年	
M30.3	117 (61%)	19 (39%)	136 (56%)
I25.4B	25 (13%)	13 (27%)	38 (16%)
I25.4C	0 (0%)	1 (2%)	1 (0.04%)
I25.4D	51 (26%)	16 (33%)	67 (28%)
計	193 (100%)	49 (100%)	242 (100%)

\*: M30.3は「川崎病」、I25.4Bは「冠動脈拡張症(川崎病性)」、I25.4Cは「冠動脈狭窄症(川崎病性)」、I25.4Dは「冠動脈瘤(川崎病性)」を示す。

†: カッコ内の合計は四捨五入の関係で100にならないことがある。

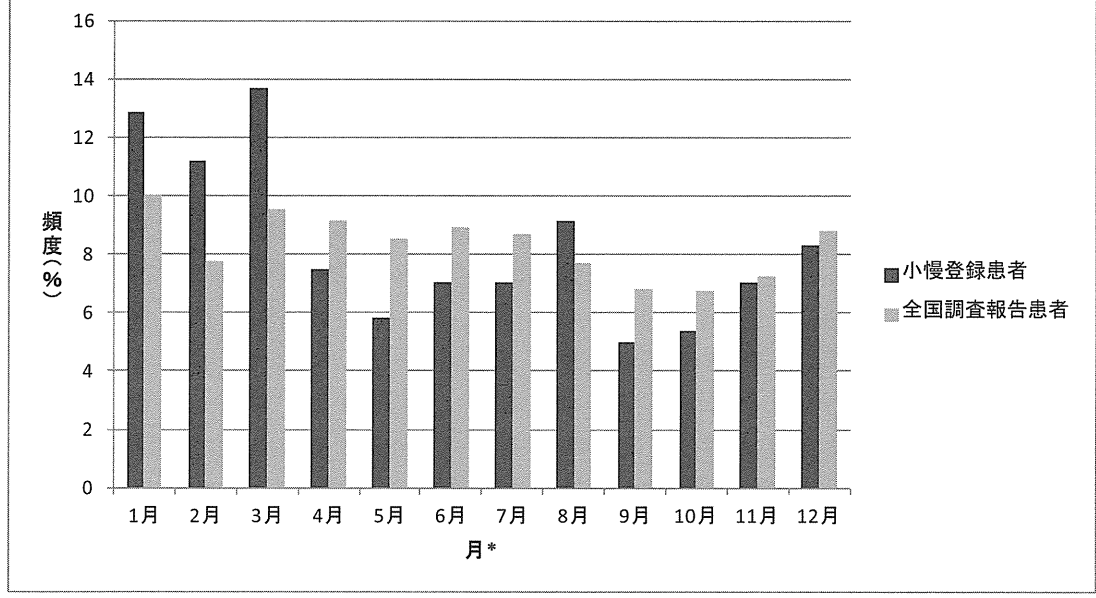
※ 2012年時点の小慢DBの登録データに基づく



※ 2012年時点の小慢DBの登録データに基づく



図2 川崎病の小慢登録患者と第21回全国調査報告患者の初診月の分布



\* : 2009年と2010年の月別患者数を合計して算出した値

※ 2012年時点の小慢DBの登録データに基づく

平成 24 年度 厚生労働科学研究費補助金（成育疾患克服等次世代育成基盤研究事業）  
「小児慢性特定疾患の登録・管理・解析・情報提供に関する研究」分担研究報告書

## 小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書情報を北海道における インクルーシブ教育システムの構築に利活用するための試み

研究分担者 原田 正平（国立成育医療研究センター研究所 成育医療政策科学研究室長）

### 研究要旨

平成 22 年度から、小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書情報をインクルーシブ教育システムの構築に活かす方策について、これまで特別支援学校との先行研究が行われている北海道をフィールドとして、特別支援学校と地域の学校等をつなげるシステム構築を試みた。その結果、1) 北海道内の医育 3 大学の小児科学教室の協力を得ることができ、今後の長期的な連携についても同意を得た、2) 北海道内唯一の小児総合医療施設との連携の端緒が得られた、3) 北海道教育委員会、札幌市教育委員会の協力が得られた、4) 北海道内の主要な特別支援学校との連携が確立された、5) 北海道内の小児科医との連携の端緒が得られた。またシステム構築と併せて、地域の特別支援学級の実態視察を行ったところ、大規模校、小規模校のいずれにおいても、専門的支援を必要とする児童生徒が在籍し、地域によっては、全くの普通学級に特別な支援を必要とする児童生徒も在籍しており、医療機関と教育機関との密接な連携の重要性が改めて浮き彫りとなった。今後、北海道内の医療機関を対象とした教育現場との連携のニーズ調査と、小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書データベースとを照合し、医療機関と連携した、より効率的な支援の確立を検討する予定である。

### 研究協力者:

西牧謙吾（国立特別支援教育総合研究所）  
有賀 正（北海道大学大学院医学研究科小児  
科学分野）  
堤 裕幸（札幌医科大学医学部小児科学）  
東 寛（旭川医科大学小児科）

ためにも大きな意義がある。子ども達が必要な教育を受けられるよう、医療・保健・福祉の関係者と教育機関等が連携し、個々の子どもの病状に応じた柔軟な対応や、教育関係者が疾患に関する一定の専門性を確保するための環境整備が重要である。関係省庁間で十分に連携して必要な施策を検討・推進することが求められる。」とされ、また文部科学省初等中等教育分科会より、平成 24 年 7 月 23 日に出された「共生社会の形成に向けたインクルーシブ教育システム構築のための特別支援教育の推進（報告）」でも、「医療、保健、福祉、労働等の関係機関等との適切な連携が重要である。このためには、関係行政機関等の相互連携の下で、広域的な地域支援のための有機的なネットワークが形成されることが

### A. 研究目的

社会保障審議会児童部会小児慢性特定疾患児への支援の在り方に関する専門委員会による「慢性疾患を抱える子どもとその家族への支援の在り方（中間報告）」（平成 25 年 1 月 30 日）において「慢性疾患を抱える子どもにとっての教育は、学習だけでなく、社会性を身につけたり、自分の疾患を理解したりする

有効である。」とされているが、学校基本調査によると、日本での理由別長期欠席者には病気による児が相当数含まれ、その教育支援対策は遅れている（表 1, 2）。

我々はこれまで、小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書情報（表 3）を利活用して、支援冊子を作成（図 1）するとともに、インクルーシブ教育システムの構築に活かす方策について、特別支援学校との先行研究が行われている北海道をフィールドとして、特別支援学校と地域の学校等の連携などを試みてきた。また平成 22 年度から、医療機関との連携を図るため、北海道内の医育 3 大学小児科とその関連病院とのネットワーク構築、小児科医に対する啓発活動も試みてきたのでその概要について報告する。

## B. 研究方法

北海道は 47 都道府県の中で、病弱・身体虚弱特別支援学級数が最も多く、また病弱特別支援学校と支援を受ける学校側の距離が大きいことから、Web 会議システムなど情報通信技術（Information and Communication Technology、以下、ICT）活用が望まれており、また特別支援学校との先行研究が既に行われていたことから、北海道をフィールドとして、ICT を活用して特別支援学校と地域の学校等をつなげるシステム構築を計画した。

具体的には、1) 専門医療支援の地域ネットワーク確立のため、北海道内の医育 3 大学（北海道大学、札幌医科大学、旭川医科大学）の小児科学教室に協力を依頼する、2) 北海道内唯一の小児総合医療施設である北海道立子ども総合医療・療育センターとの連携を図る、3) 北海道教育委員会、札幌市教育委員会に協力を依頼する、4) 北海道内の主要な特別支援学校である札幌市立山の手養護学校、北海道手稲養護学校との連携を図る、こととした。

以上の目的のため平成 23 年（2011 年）3 月と 12 月、平成 24 年 6 月、平成 25 年 2 月の

計 4 回、研究分担者（S. H）と研究協力者（K. N）が北海道内の各施設を訪問し、関係者と協議を行った。

またあわせて、平成 23 年 12 月には、病弱身体虚弱特別支援学級において、通常学級と教科等の場面で交流及び共同学習を実施し、効果的に学習を進めている学級の視察を行った。

視察先としては、大規模校として 1、3、6 年生が病弱学級に在籍している道東地区の 1 小学校、小規模校として 6 年生が病弱学級に在籍している道央地区の 1 小学校を選択した。なお視察には文部科学省初等中等教育局特別支援教育課特別支援教育調査官が同行した。

### （倫理面への配慮）

本年度の研究においては、患者、家族などの個人情報を取り扱う研究ではないことから、個人情報に対する倫理的な配慮は特に必要ではないと考えた。

ただし、特別支援学級の視察の際に、在籍する小児慢性疾患患児の情報が得られたことから、個人の特定制ができないように、視察先の具体的な市町村名、学校名などは報告書に記載しないこととした。

## C. 研究結果

### 1. 北海道内の医育 3 大学（北海道大学、札幌医科大学、旭川医科大学）の小児科学教室への協力依頼

平成 23 年 3 月に北海道大学と札幌医科大学それぞれの小児科学教室を、研究分担者（S. H）と研究協力者（K. N）、および北海道教育委員会、札幌市教育委員会担当者が訪問し、インクルーシブ教育システム構築にあたっての各地の小児科医との連携、協力等を依頼し同意を得た。また両教室の窓口となる担当者についても決めていただいた。

旭川医科大学小児科学教室については、平成 24 年 6 月訪問し、協力依頼を行った。

さらに平成25年2月には、北海道大学と札幌医科大学それぞれの小児科学教室を再訪し、この2年間の進展と今後のネットワーク構築などについて説明を行った。

## 2. 北海道立子ども総合医療・療育センター（施設愛称、コドモックル）との連携

平成23年12月に施設を訪問し、センター長との面談を行った。施設の体制として、隣接する北海道手稲養護学校との連携が未だ不十分であるとの説明を受けたが、将来の連携に向けた依頼を行った。

平成24年4月に新任のセンター長が着任したことから、札幌医科大学小児科学教室を通して、改めて連携を試みることにした。

## 3. 北海道及び札幌市教育委員会に協力依頼

4回の訪問時に、北海道及び札幌市教育委員会の担当者と打ち合わせを行い、連携を図った。

## 4. センター機能を有する特別支援学校との連携

北海道内の主要な特別支援学校である札幌市立山の手養護学校、北海道手稲養護学校を、それぞれ平成23年3月と12月に訪問し、Web会議システムなどICT活用の施設機能について調査し、実現可能性を明らかにした。

## 5. 病弱特別支援学級視察

1) 大規模校として1、3、6年生が病弱特別支援学級に在籍している道東地区の1小学校視察を行った。

同校では普通学級に、肝移植後の児童が在籍していた。

2) 小規模校として6年生が病弱学級に在籍している道央地区の1小学校の視察を行った。

同校に在籍する児童は、幼少時から視力障害が指摘されていたが、原疾患に対してのみ医療的関心がもたれ、視力については専門的診察を受けていなかった。小5となって初め

て、弱視に配慮された教育をうけ学力の向上を見た。

3) 平成25年2月には、北海道大学病院の院内学級も訪問し、北海道大学情報基盤センターとの連携による、Web会議システムなどICT活用の今後の方向性について打ち合わせを行った。

## 6. 広報周知

北海道内の小児医療関係者への周知のため、第23回日本小児科医会総会フォーラム(平成24年6月10日、札幌市)において、これまでの研究の進展状況を報告した。

## 7. 北海道内医療機関へのアンケート調査

平成25年2月に、北海道大学医学部小児科、札幌医大小児科を訪問し、アンケートへの協力依頼を行った。アンケート内容としては、医療機関側からみた教育現場との連携のニーズ調査などとし、詳細は現在検討中である。

## D. 考察

平成23年3月と12月、平成24年6月、平成25年2月の北海道内の各施設の訪問により、1) 北海道内の医育3大学の小児科学教室の協力を得ることができ、今後の長期的な連携についても同意を得た、2) 北海道内唯一の小児総合医療施設との連携の端緒が得られた、3) 北海道教育委員会、札幌市教育委員会の協力が得られた、4) 北海道内の主要な特別支援学校との連携が確立された、5) 北海道内の小児科医との連携の端緒が得られた。

地域の特別支援学級の実態視察では、大規模校、小規模校のいずれにおいても、専門的支援を必要とする児童生徒が在籍しており、これまでの支援の不十分さも示唆された。

さらには、全くの普通学級に特別な支援を必要とする児童生徒も在籍していることが一地域での視察で分かり、これが氷山の一角であるのか、多くの地域で起こっているのかの

解明も含め、医療機関と教育機関との密接な連携の重要性が改めて浮き彫りとなった。

今後、道内の医療機関を対象とした教育現場との連携のニーズ調査と、小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書データベースとを照合し、医療機関と連携した、より効率的な支援の確立を検討する予定である。

## E. 結論

「慢性疾患を抱える子どもとその家族への支援の在り方（中間報告）」や「共生社会の形成に向けたインクルーシブ教育システム構築のための特別支援教育の推進（報告）」により要請されている、慢性疾患児への教育支援の拡充に、小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書情報の利活用が必要であると考えられた。

## 謝辞

医療と教育の連携の重要性をご理解頂き、調査研究に御協力を賜った文部科学省初等中等教育局 丹羽登特別支援教育調査官、北海道教育委員会、札幌市教育委員会の関係各位に深謝いたします。

## F. 研究発表

### 1. 論文発表

なし

### 2. 学会発表

- 1) 西牧謙吾, 原田正平. 小児慢性特定疾患治療研究事業の医療意見書情報を北海道におけるインクルーシブ教育システムの構築に活用するための試み. 第 23 回日本小児科医会総会フォーラム, 2012年6月10日, 札幌市.

## G. 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 理由別長期欠席者数

学校基本調査 -平成23年度-

H22年度間	病気	経済的 理由	不登校	その他	計
小学校	19,611	43	22,463	10,477	52,594
中学校	16,769	86	97,255	10,434	124,544
中等教育学校 (前期課程)	41	0	173	18	232
合 計	36,421	129	119,891	20,929	177,370

(注) 「長期欠席生徒」とは、年度間に通算30日以上欠席した生徒をいう。

特別支援学校 小学部 35,889

特別支援学級 中学部 27,662

表2 長期欠席者の学校種別、理由別数

H22年度間	病気	経済的 理由	不登校	その他	計	全在籍者数	病弱・身体 虚弱のみ
小学校	19,611 0.28%	43	22,463 0.32%	10,477	52,594	6,993,376	
中学校	16,769 0.47%	86	97,255 2.73%	10,434	124,544	3,558,166	
中等教育学校 (前期課程)	41 0.28%	0	173 1.19%	18	232	14,486	
特別支援学校 (小学部)	2,519 7.02%	1	67 0.19%	622	3,209	35,889	773 2.15%
特別支援学校 (中学部)	1,527 5.52%	5	167 0.60%	396	2,095	27,662	777 2.81%

表3 小児慢性特定疾患治療研究事業の登録者数

平成21年度小慢事業の全国登録人数

(平成23年11月、都道府県単独事業を含む98/106か所からの報告)  
平成18,19,20年度とほぼ同様の登録人数

疾患名	全国登録人数
成長ホルモン分泌不全性低身長症	10,624人
先天性甲状腺機能低下症	5,279人
1型糖尿病	4,484人
白血病	4,094人
甲状腺機能亢進症	3,198人
ネフローゼ症候群	2,185人
點頭てんかん	2,142人
脳(脊髄)腫瘍(ICD-Oでの登録のみ)	1,963人
胆道閉鎖症	1,906人
心室中隔欠損症	1,853人
Fallot四徴症	1,795人
若年性関節リウマチ	1,777人
思春期早発症	1,752人
IgA腎症	1,653人
川崎病性冠動脈病変	1,153人

病気の児童生徒への特別支援教育

病気の子どもの理解のために



全国特別支援学校病弱教育校長会  
独立行政法人  
国立特別支援教育総合研究所

図1 支援冊子

## 小児慢性特定疾患のデータ管理の今後に関する研究

研究分担者 森 臨太郎（国立成育医療研究センター研究所 成育政策科学研究部 部長）

### 研究要旨

成育医療における長期展望を見据えて、小児慢性特定疾患治療研究登録事業データベースを含めた成育疾患の疾病登録について短期・中期的な改善に資するために、小児慢性特定疾患のデータベースの課題を抽出し、それを踏まえて、データベース管理の将来像を検討した。データの質側面では古さ、縦断性、カバー率、信憑性に関して、さらに、データの利用側面では、個人情報保護、需要と供給のミスマッチに課題が示された。クラウドシステムを用い、直接地方自治体、医療施設、所管課、データマネジメントセンターが権限に合わせた形でデータを出入力し、データ管理の双方向性を向上し、また、学術的な質問項目を設け、疾病登録制度を本基盤に載せ、確率的連結手法を用い、個人を特定することなく、個人の連結を行い、ルール作りの下に外部研究者にデータ使用の道筋をつけることで、データの質向上と有効活用が見込まれると考えられた。

### 研究協力者:

佐々木八十子（国立成育医療研究センター研究所）  
竹原 健二（国立成育医療研究センター研究所）  
野間 久史（国立数理統計研究所）  
茂木 仁美（国立成育医療研究センター研究所）

究費等による分野別疾病登録の充実に伴い、連携の機会も増えている。

データベースに関連した技術の進歩により、データベースの管理手法の工夫により、より質の高いデータと、それによる利活用の幅が広がっている。

また、当該事業が公募方式の厚生労働科学研究費によって行われているため継続したデータマネジメント改善が妨げられていることもあり、国の期間に恒常的にこのような機能を果たす機関を設置する権威づけも必要になっている。

以上のような成育医療における長期展望を見据えて、小児慢性特定疾患治療研究登録事業データベースを含めた成育疾患の疾病登録について短期・中期的な改善に資するために、小児慢性特定疾患のデータベースの課題を抽出し、それを踏まえて、データベース管理の将来像を検討することを目的とした。

### A. 研究目的

本年度、特定疾患に関する制度改正に関連して、小児慢性特定疾患治療研究事業においても、成人期への移行および疾病概念整理など、さまざまな改善策が検討されている。

一方、本事業の重要な側面である公的医療費補助においては乳幼児医療助成制度が徐々に拡充する中、構造上の問題から、疾病の病態解明のためのデータ利活用が妨げられている。

さらに、もう一方の側面である疾病登録とそのデータ利活用に関しては、小児科学会各分科会データベース、がん登録など、公的研



## B. 研究方法

以下の3段階に分けて行った。

第一段階：小児慢性特定疾患に係る専門家（分担研究者、事務局、所管課）から、現在に至るまでの小児慢性特定疾患データベースの課題に関して、情報を得るとともに、データベースの全体像を俯瞰して、課題抽出作業を行った。

第二段階：上記の課題に基づき、その解決策をできるだけ包括的に行う策を検討し、班会議で専門家より意見を募った。

第三段階：上記の意見を踏まえて、将来像を提示し、そのメリットとデメリットを示した。

### （倫理面への配慮）

本研究課題に関しては個人情報の取り扱いなど、倫理的課題は最小限だと考えられ、倫理審査などは不要と考えられた。

## C. 研究結果

第一段階：

本段階で明らかになった課題を下記に示す。（表1にまとめた）

### データの質に関して

- 古い（保健所→厚生労働省→成育センターとなるため要時間）
- 縦断性（個人を軸に連結しにくいいため経過が追えない）
- カバー率（乳幼児医療など他の医療扶助の存在や地方公共団体による方針の違いにより、全例をカバーできていない）
- 信憑性（医療扶助を獲得するため、学術的な診断基準と異なることや、研究に必要なデータが取られていない、また手書きであるため読めない・ミス）

### データの利用に関して

- 個人情報保護（倫理審査の必要性および研究利用への親権者の承諾）
- 需要と供給のミスマッチ（研究したい人

のところの研究しやすい形でデータが提供されているか）

第二段階：

以上を踏まえ、現状図（図1）および改善案（図2）に示すような将来像を検討した。

経済産業省による個人情報保護のためのガイドラインに準拠してクラウドシステムを用い、地域の基盤病院から医師が直接データ入力するシステムを開発し、その電子データを直接地方自治体、医療施設、所管課、データマネジメントセンターが権限に合わせた形でデータを出入力し、データ管理の双方向性を向上させることで、データの質を向上させる。また、意見書に掲載されない学術的な質問項目を設け、疾病登録制度を本基盤に載せることで、カバー率や信憑性を向上させる。さらに、確率的連結手法を用い、個人を特定することなく、個人の連結を行う。

第三段階：

このシステムにより、生まれるメリット・デメリットが以下のように整理できた。（表2）

### メリット

- 行政用のデータに関しては現状と変化せず提供可能
- PCで意見書を各システムにより毎年の更新がしやすくなり、電子カルテとの相性が良くなる
- 入力ミスが減り、相互のやり取りからデータの質が向上する
- データ入手のタイミングが早くなる
- レコードリンケージによる縦断データとして活用
- 学術的データを同時に並行して収集することで厳しく診断基準を適用した場合の対象を限定できる
- 今後の学術研究として柔軟な変化に対応できる

### デメリット

- 患者・家族からのインフォームドコンセ

ントが必要

- 参加施設で倫理審査が必要
- 個人情報が全くなし
- 事務局の業務量が増える
- 非承認症例のデータも収集
- 全国すべての病院では最初は不可能（カバー率は減少）
- 医療扶助にかかわる問題は解決できない

#### D. 考察

小児慢性特定疾患のデータベースは、データマネジメントの方法を工夫しつつ、意見書の見直し、双方向性の確認、疾患定義の整理、IDの振り方などにより小慢データの質が少し向上すると考えられる。さらに、小児慢性特定疾患治療研究登録事業データベースを中心に、成育医療に関する疾病登録を一元的に管理することで、以後の効率化や連携によるデータの質の向上が見込める。また、成育医療に関する公的な情報を網羅的に把握することで成育医療政策や診療の質改善に資する利活用ができるとも考えられた。

#### E. 結論

小児慢性特定疾患のデータベースは、データマネジメントの方法を工夫し、運用方法を改善することで、さらに改善できると考えられた。

#### 謝辞

ご意見をいただいた分担研究者、研究協力者、所管課のご協力に深謝いたします。

#### 引用文献・出典

なし

#### F. 研究発表

1. 論文発表 なし
2. 学会発表 なし

#### G. 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. 小児慢性特定疾患における課題抽出

## 問題点

### データの質

- 古い
  - 保健所→厚生労働省→成育センターとなるため要時間
- 縦断性
  - 個人を軸に連結しにくいいため経過が追えない
- カバー率
  - 乳幼児医療など他の医療扶助の存在や地方公共団体による方針の違いにより、全例をカバーできていない
- 信憑性
  - 医療扶助を獲得するため、学術的な診断基準と異なることや、研究に必要なデータが取られていない
  - 手書きであるため読めない・ミス

### データの利用

- 個人情報保護
  - 倫理審査の必要性
  - 研究利用への親権者の承諾
- 需要と供給のミスマッチ
  - 研究したい人のところに研究しやすい形でデータが提供されているか

## 現状のデータの流れ

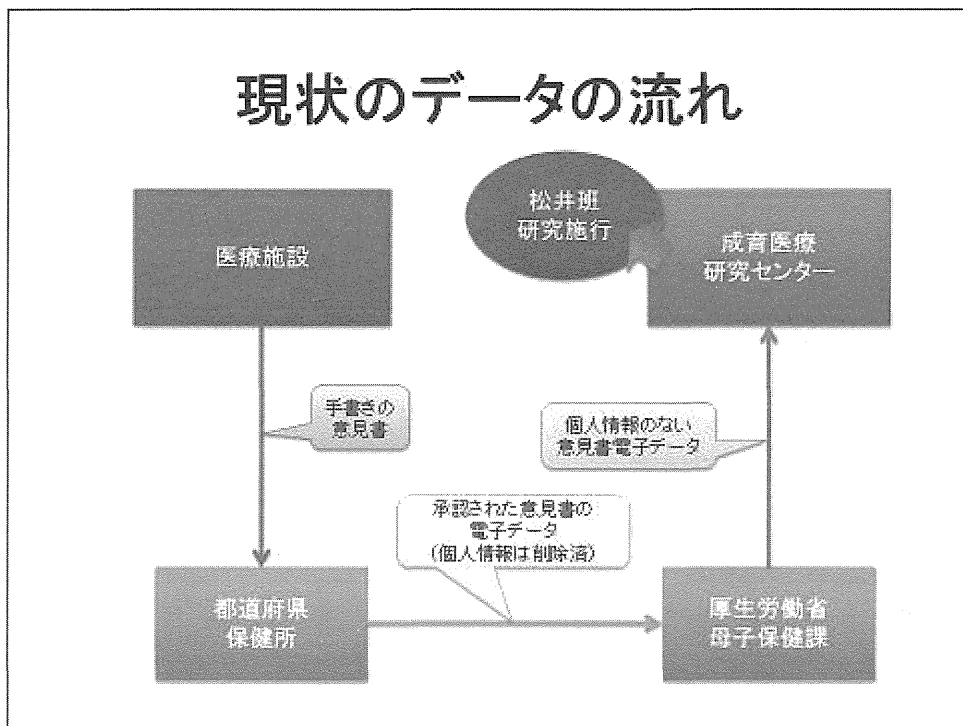


図 1. データマネージメントの現状

## 提案

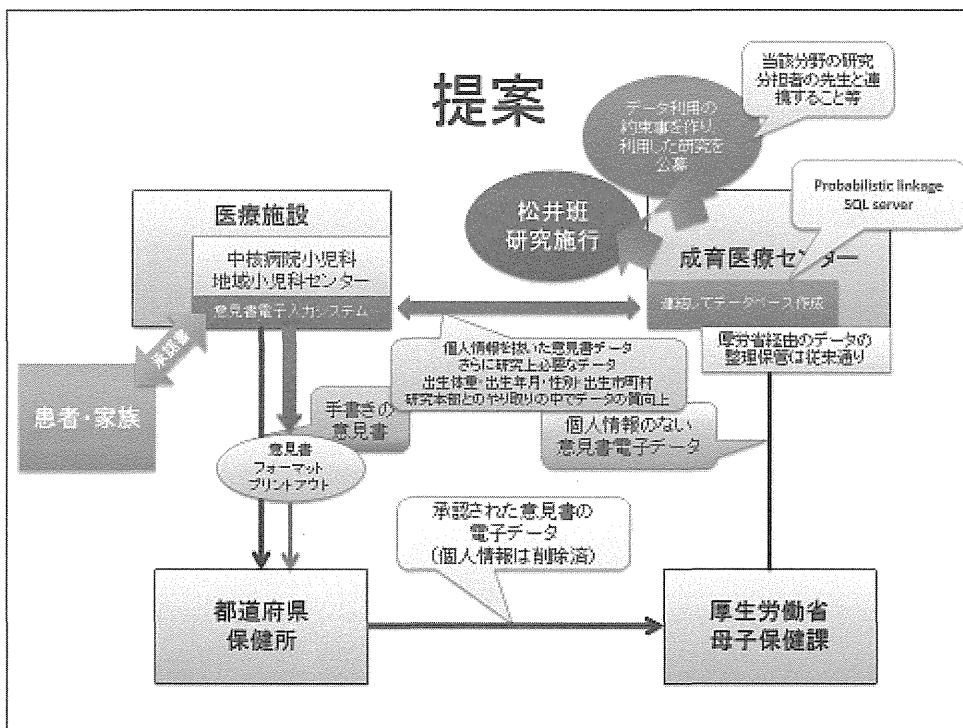


図 2. データマネージメントの今後