

201312008A

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

慢性疾患に罹患している児の
社会生活支援ならびに療育生活支援
に関する実態調査および
それら施策の充実に関する研究

平成25年度 研究報告書

研究代表者 水口 雅

平成26(2014)年 3月

目 次

I. 総括研究報告

慢性疾患に罹患している児の社会生活支援ならびに療育生活
支援に関する実態調査およびそれら施策の充実に関する研究

水口 雅……………3

II. 分担研究報告

慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状態等の実態調査

掛江直子……………11

患者・家族に対する支援体制の構築に関する研究

及川郁子……………33

成人移行期における自立支援の検討

石崎優子……………63

病弱教育における自立支援施策の充実の検討

西牧謙吾……………67

III. 研究成果の刊行に関する一覧表 ……77

IV. 研究成果の刊行物・別刷 ……81

I. 総括研究報告

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）
総括研究平成25年度終了報告書

慢性疾患に罹患している児の社会生活支援ならびに療育生活支援に関する実態調査および
それら施策の充実に関する研究

研究代表者 水口 雅 東京大学 大学院医学系研究科 教授

研究要旨

慢性疾患を有する児の健全育成ならびに円滑な社会参加を促すことを目的として、研究を行った。本年度は日本における慢性疾患を有する児の実態ならびに課題を明らかにするための現状調査を開始した。また児のライフステージに応じた適切な自立支援や療養支援が受けられるよう、児とその家族への働きかけ、医療関係者、教育関係者への働きかけといった多面的・包括的な啓発ツールの作成に着手した。本研究はこれらにもとづいて具体的な支援モデルを提案することにより、目的の達成を目指す。

研究分担者

及川 郁子	聖路加看護大学 教授
西牧 謙吾	国立障害者リハビリテーション センター病院 部長
石崎 優子	関西医科大学 准教授
掛江 直子	国立成育医療研究センター 研究所 室長

A. 研究目的

近年の小児医学の進歩は、慢性疾患を有する児の生命予後を劇的に改善した。しかし小児期の長期間にわたる治療や入院生活により、学校生活や社会生活を送る上で問題を持つ児は少なくない。また、慢性疾患治療において、小児型医療から成人型医療への移行に困難を伴うことがあるとの報告もある（五十嵐隆，2011）。厚生労働省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」では、小児慢性特定疾患児とその家族に対する支援については、子どもの成長過程や病状に応じて学校生活に関する支援や自立に向けた支援を行うことが大切であり、慢性の疾患を持つ子どもの特性を踏まえた施策の充実を検討し、地域において必要とさ

れるサービスが対象者に行き届くよう、円滑に支援する仕組みを整備することが提案された。

日本では、慢性疾患を有する児に医療費助成を主とした療養支援が行われているが、利用できる医療費助成制度が複数存在しており、制度を越えた全体像の把握ができていない。慢性疾患を有する児の教育環境と療養環境に関する実態も不明な点が多く、このような包括的な全国規模の横断研究は過去にない。

本研究は、日本における慢性疾患を有する児やその家族が現在どのような支援を受けているのか、サービスは行き届いているのか、どのような身体的心理社会的問題があり、過保護や親子密着等の慢性疾患を有する児とその家族に特有の問題が実際にどの程度生じ、どのような支援を必要としているのか等を、横断調査により明らかにするもので、今後の支援の在り方を検討する際の必要となる基礎資料を提供できる。

また、児とその家族への働きかけ、医療関係者、教育関係者への働きかけといった多面的かつ包括的な啓発ツールを作成し、具体的な支援モデルを提案する研究でもあ

り、これらは研究開発されたツール等が現場に根付き、恒常的に慢性疾患を有する児の自立支援に活かされるためのシステム作りを目指すものである。

B. 研究方法

本研究では、1) 我が国における慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状態等の実態調査を行いその現状ならびに課題を明らかにするとともに、2) 患者・家族に対する支援体制の構築に関する研究として、慢性疾患を有する子どものライフステージに応じた適切な療養支援を得られるよう子どもと家族のための「病気や地域社会との付き合い方ガイドライン」を作成、3) 成人移行期における自立支援の検討として、成人移行支援を効果的に行うための医療者向け移行支援ガイドブックを作成し、4) 病弱教育における自立支援施策の充実の検討として、教育と医療が連携して患者の自立支援する具体的方法について検討する、といった分担研究課題を立て、地域行政ならびに医療（日本小児科学会及び日本小児看護学会等）と連携を取りながら、慢性疾患を有する児の自立支援に資する研究を進めていく（図1）。

＜1＞ 慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状況等に関する実態調査

研究分担者：掛江直子（国立成育医療研究センター研究所）

研究協力者：森臨太郎、森崎菜穂、佐々木八十子（国立成育医療研究センター研究所）

本研究では、医療費助成制度の枠を超えて広く対象を設定し、支援の必要な患者に必要な支援が行き届いているのかを調査するとともに、児の身体的状況、心理社会的状況（これには経済、人間関係、社会参加、リスク行動等が含まれる）について実態を把握する。さらに、自尊感情尺度や親子間のアタッチメント尺度、Parenting Bonding Instrument（PBI）、親性の発達尺度等をあわせて用いることにより、慢性疾患を有す

る児ならびにその家族に特有の課題の有無を明らかにする。本年度は、調査票作成のための質的研究、サンプリング検討、パイロット調査を行なった。

＜2＞ 患者・家族に対する支援体制の構築に関する研究

研究分担者：及川郁子（聖路加看護大学）

研究協力者：渡邊輝子（済生会横浜市東部病院）、西田みゆき、込山洋美（順天堂大学看護学部）

慢性疾患を有する子どもが成長過程に応じた適切な療養支援を得ることができるように、子どもと家族のための療養支援モデル（年齢に応じた病気や地域社会との付き合い方ガイドライン）を作成し、小児慢性特定疾患専門医療機関（小児中核病院/地域小児医療センター等）において、小児看護専門看護師を療養支援相談窓口としたモデル事業の実施・評価を行う。本研究では、ガイドラインの基本概念をChild & Family Centered Care（子どもと家族中心のケア）におき、介入前後には、FCCアセスメントツール、QOLやセルフマネジメント指標等を用いてその評価を行う。

＜3＞ 成人移行期における自立支援の検討

研究分担者：石崎優子（関西医科大学医学部）

研究協力者：本田雅敬（東京都立小児総合医療センター）、丸光恵（東京医科歯科大学保健衛生学研究科）

先行研究において、看護領域で2008年に成人期支援ガイドブック（丸光恵）がまとめられ、医療の現場で移行支援を進めるためには看護師と共通の知識の基盤を構築が必要となった。そこで本年度は、成人移行期支援看護師用ガイドブックを研究者間で吟味し、移行支援ガイドブック医師版を作成した。

＜4＞ 病弱教育における自立支援施策の充実の検討

研究分担者：西牧謙吾（国立障害者リハビリテーションセンター病院）

研究協力者：原田正平（国立成育医療研

究センター研究所)、新平鎮博(国立特別支援教育総合研究所)、田中宏之(北海道保健福祉部)、矢野浩一(札幌市保健所)、有賀正(北海道大学小児科)、堤裕幸(札幌医科大学小児科)、東寛(旭川医大小児科)

長期に療養する必要がある慢性疾患児は、通常の教育を受けることに心理社会的理由で困難を抱えるケースが多く、不登校に陥るケースも少なくない。そこで、これまで病弱教育の中で、慢性疾患児が多く在籍する通常の教育関係者向けに啓発ツールとして「支援冊子」を開発し、慢性疾患児が在籍する学校の教職員向けに理解啓発を進めてきた。しかし、慢性疾患の中には希少疾患も数多く、実際にそのようなケースを受け持たない教員向けの理解啓発には限界もある。そこで西牧らは、これを医療と病弱の連携ツールとして、慢性疾患児が入院・通院する医療サイドから、保護者や本人を通じて教育情報を伝えてもらえるような仕組み作りに取り組んできた。特に、北海道では、道内3医療機関の3大学の小児科教室の協力の下、仕組みを構築中である(北海道プロジェクト)。

本研究では、医療、保健福祉、教育が連携して、慢性疾患のある子どもの療養環境整備を行うための課題を整理し、保健・福祉・教育の各圏域を越えた広域における連携モデル提示を行う。そのために、教育関係者が病気に関する一定の専門性を確保するための支援ツールである「支援冊子」の有効性評価を、各領域の専門家に対して行うとともに、医療関係者の慢性疾患児の支援に関する意識調査を実施し、連携に向けての課題を明らかにする。次に、北海道の医療・保健・福祉・教育の行政機関の協力を得て、希少疾患を含め、漏れのない支援の仕組みの構築を行い、構築された支援の仕組みが有効に機能するか否かの検証を行う。また、医療、保健福祉、教育の連携ツールの一つである、小児慢性特定疾患児手帳の在り方及び手帳の内容についての検証

を行い、連携強化を図る。

(倫理面への配慮)

慢性疾患を有する児ならびにその家族に対する実態調査、子どもと家族のための療養支援モデルの作成、移行支援ガイドブック医師版の作成、病弱教育に係る北海道プロジェクトを実施する際は、国の疫学研究に関する倫理指針(平成19年文部科学省・厚生労働省告示第1号)を遵守し、担当する研究分担者の所属機関ならびに協力医療機関等の倫理委員会の審査・承認を得て行った。また、調査に際しては、被験者の任意性を担保し、得られた情報は連結不可能匿名化をして個人情報保護に努める等、倫理的配慮を怠らないようにした。

C. 研究結果

本年度は3年計画の初年次であるため、調査コンテンツの検討、予備調査、介入のツール(ガイドブック)の作成などを主として実施した。

<1> 慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状況等に関する実態調査

慢性疾患を有する子どものwell-beingの評価、ならびに社会的支援の状況、医療費負担等を含む社会資源の配分の状況等について横断調査を実施するため、国内外の子どもの健康やQOL/Well-being及び慢性疾患・難病患者の生活状況等に関する先行研究の質問票を参考に①調査コンテンツの検討、②子どものwell-beingに関する尺度の系統的文献レビュー、③サンプリングの検討、④当該研究分野の先行する諸外国の研究機関との連携・協力体制の構築を行った。さらに、慢性疾患を有する子どものQOL評価尺度として、本研究で使用を検討しているDISABKIDSの日本語版開発を行い、信頼性および妥当性の検証を並行して実施した。

<2> 患者・家族に対する支援体制の構築に関する研究

慢性疾患児が発達段階に沿って幼少期から自立に向けた適切な療養支援を受けられるためのモデル案の作成と評価を目的とし

た。本年度は文献検討およびインタビュー調査を実施した。①疾患の理解、②自己管理（セルフケア）の促進、③自己決定の育成、④関連機関との連携、⑤発達課題の5つの視点と発達段階を枠組みとし、支援目標・支援の方向性と具体例・評価と評価項目のポイントを記載したモデル案を作成した。

＜3＞ 成人移行期における自立支援の検討

患者の自立に向けて学童期・思春期から成人後を見越した疾病教育を行うことが重要である。その実現に向けて、まず小児期を担当する医療者に小児科から成人科への移行期医療のあり方に関する知識を普及させるため、成人科への移行について概説した小児科医向け移行支援ガイドブック（試案）を作成した。ガイドブック（試案）の内容は疾患領域に共通した総論的なものとし、それとは別に関連事項を設け、移行支援外来を実施している病院、小児血液疾患患者会、成人期小児慢性疾患患者の妊娠に関する産科医のコメントならびに移行支援看護師研修について紹介し、移行支援に関する知識を深める資とする。

作成したガイドブック（試案）は日本小児科学会を通じて各分科会に配布し、次年度以降の意識集約を行うとともに、領域別の各論作成に役立てていただく。

＜4＞ 病弱教育における自立支援施策の充実の検討

北海道をフィールドとして、道内の3大学病院で病弱教育に関する医療従事者への意識調査に着手した。道・市の行政データ活用を可能とした。「慢性疾患を抱える子ども

とその家族への支援の在り方（平成25年12月報告）」を受けて、より具体的に地域で実現する方策を提言する方向に研究計画を変更することにした。

D. 健康危険情報

なし。

E. 研究発表

1. 論文発表

横谷進，落合亮太，小林信秋，駒松仁子，増子孝徳，水口雅，南砂，八尾厚史．小児期発症疾患を有する患者の移行期医療に関する提言．日本小児科学会雑誌 118(1): 98-106, 2014.

2. 学会発表

岩崎博之，太田さやか，内野俊平，水野葉子，高橋長久，三牧正和，齋藤真木子，水口雅．ケトンフォーミュラ長期使用により微量元素欠乏症状が出現した2症例．第117回日本小児科学会学術集会 広島，2013年4月19日

高橋長久，内野俊平，太田さやか，下田木の実，岩崎博之，三牧正和，水口雅：経管栄養中の患児における尿中ヨウ素及び甲状腺機能．第55回日本小児神経学会学術集会，大分，2013年5月31日

F. 知的財産権の出願・登録状況

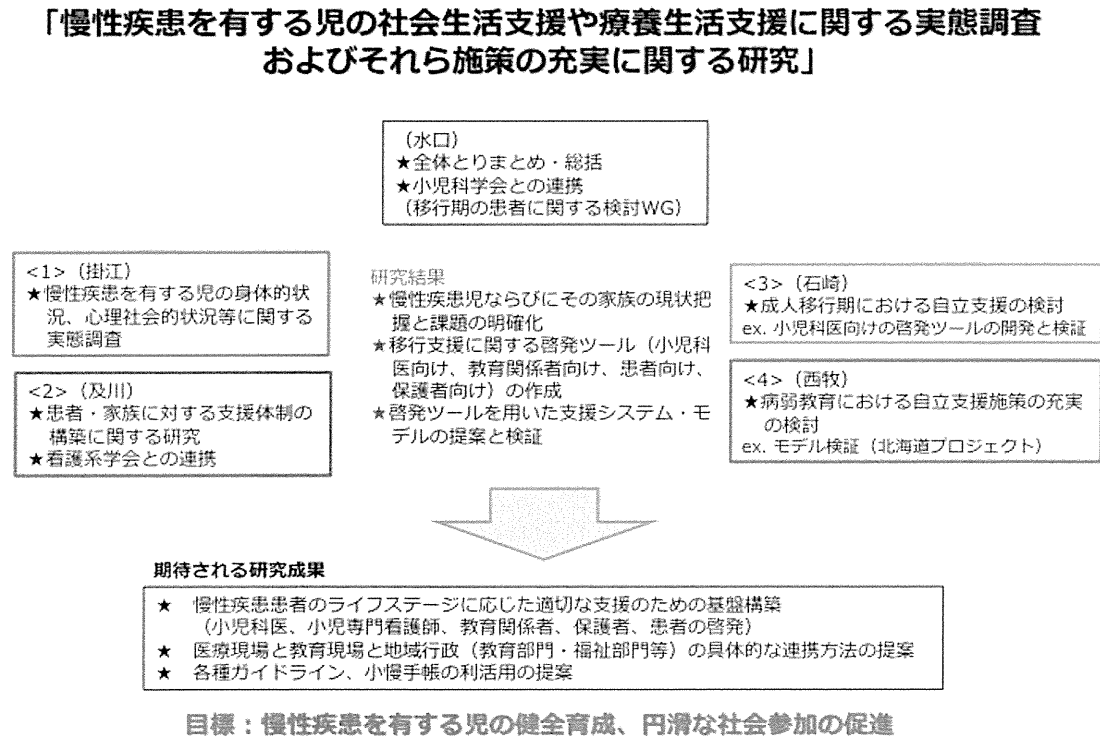
1. 特許取得

2. 実用新案登録

3. その他

いずれもなし。

図1 研究の全体計画



II. 分担研究報告

慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状態等の実態調査

研究分担者 掛江 直子 国立成育医療研究センター研究所社会・臨床研究センター
政策科学研究部保健政策科学研究室長

研究要旨

慢性疾患を有する子どもの well-being の評価、ならびに社会的支援の状況、医療費負担等を含む社会資源の配分の状況等について横断調査を実施するため、国内外の子どもの健康や QOL/Well-being 及び慢性疾患・難病患者の生活状況等に関する先行研究の質問票を参考に①調査コンテンツの検討、②子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー、③サンプリングの検討、④当該研究分野の先行する諸外国の研究機関との連携・協力体制の構築を行った。さらに、慢性疾患を有する子どもの QOL 評価尺度として、本研究で使用を検討している DISABKIDS の日本語版開発を行い、信頼性および妥当性の検証を並行して実施した。

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 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 研究員
森崎 菜穂 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 研究員
大西 香世 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 研究員
ルビマ・デスポトバトレバ トラキア大学医学部 家庭医療学講座 講座長 兼 准教授
瀬川 道和子 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 研究司書
竹原 健二 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 研究員

大田えりか 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 成育社会医学部 室長
森 臨太郎 国立成育医療研究センター研究所 社会・臨床研究センター 政策科学研究部 部長

A. 研究目的

本研究では、慢性疾患を有する子どもの well-being の評価、ならびに社会的支援の状況、医療費負担等を含む社会資源の配分の状況等を調査することにより、well-being 向上を目指した包括的支援のあり方を検討するため、慢性疾患を有する児の身体的、心理社会的状態等の実態調査を実施することを目的としている。

本年度は、次年度以降のパイロット調査および全国横断調査を実施するための事前研究として、①調査コンテンツの検討、②子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー

一、③サンプリングの検討、④当該研究分野の先行する諸外国の研究機関との連携・協力体制の構築を行うことを目的とした。

さらに、慢性疾患を有する児の well-being の実態調査を行う上で使用を検討している QOL 評価尺度に関して、日本語での妥当性が検証されていないものについて、本研究の一環として日本語版尺度の開発研究を行うこととした。

B. 研究方法

研究 1: 調査コンテンツの検討

1-1. 調査コンテンツの検討

国内外の子どもの健康や QOL/Well-being および慢性疾患・難病患者の生活状況等に関する先行研究における質問票等を参考に、調査デザインの検討のみならず、調査項目の作成を行った。

具体的には、諸外国において先行して実施されている「子どもの QOL/Well-being に関する調査」である、Measuring National Well-being - Children's Well-being 2012 (イギリス)、KiGGS: The German Health Interview and Examination Survey for Children and Adolescents (ドイツ)、Health and Wellbeing of Children in Western Australia 2012 (オーストラリア) 等を参考に、well-being の構成概念の整理等を行い、各ドメインにおける調査項目の検討を行った。これらはいずれも慢性疾患児のみを対象とした調査ではなく、健常児を含めた子ども全般の健康や QOL/Well-being に関する全国規模の実態調査である。本研究において健常児を含めた子どもの調査票を参考にした理由としては、(1) 近年、慢性疾患児に限定した QOL/Well-being に関する全国規模の調査は稀有であること、(2) 慢性疾患の有無が子どもの目指すべき QOL/Well-being を左右するのか、

という論点があると考え、慢性疾患に特有な質問項目のみならず、子ども一般に共通した質問項目を検討することが有益であると考えためである。

慢性疾患に特有な質問項目の検討については、各対象者がどのような慢性疾患を有することによってどのような状態におかれているかを評価・把握するため、HUI : Health Utilities Index (感覚、移動、情動、認知、セルフケア、痛み、受胎能力等の属性から健康状態の QOL 値を得る) と EuroQol: EQ-5D (移動の程度、身の回りの管理、ふだんの生活、痛み・不快感、不安・ふさぎ込みについての自己評価) がもっとも参考になると考えた。多くの先行研究では、対象疾患を有る程度限定して調査研究を計画しているため、疾患名とその疾患の重症度を訊ねることで、対象者の置かれた状況を把握することが容易であるが、本研究では対象疾患を限定せず「慢性疾患を有する児」を対象と設定して研究を計画していることから、疾患毎の重症度評価を実施することが困難である。これらのことを踏まえ、HUI や EuroQol: EQ-5D 等の状態評価が本研究に適しているかを判断することとした。

さらに、国内での先行調査研究である難病患者等の日常生活状況と社会福祉ニーズに関するアンケート調査票 (障害者総合福祉推進事業)、小児期に長期療養生活を経験した若者の就労実態調査 (希少性難治性疾患患者に関する医療の向上及び患者支援のあり方に関する研究)、在学中のこころの問題に関するアンケート調査 (小児慢性特定疾患の効果的療育支援のあり方と治療の評価に関する研究) 等も参考に検討を行った。

質問項目は、本分担研究の先行研究の検討結果に基づいて作成した図 1 の Well-being 構成領域をもとに、各ドメインに該当する質問項目

を整理し、各質問項目に対して既存の尺度が存在するか否かを確認し、既存の尺度がある場合は、その尺度の日本語版があるか否かを確認した。既存の尺度がない場合、先行研究を参照し、質問文ならびに選択回答肢を作成した。

既存の尺度で測定できるドメインについては、本調査対象者に適切且つ国際比較が可能な尺度を優先して検討を行った。

1-2. DISABKIDS（慢性の病気をもつ子どものための調査票）日本語版開発研究

DISABKIDS は、欧州の研究グループ（DISABKIDS group、代表：ドイツの Monika Bullinger 教授）によって 8 ヶ国語で開発された慢性疾患を有する児のための QOL 評価尺度である。この尺度は、慢性疾患を有する児の生活の質と自立の促進をめざした欧州のプロジェクトの一環で作成された尺度であり、子どもの視点から、身体的、心理的、および社会的幸福度について生活の質を評価することが可能とされている。本調査研究の目的を鑑みると、DISABKIDS は有用であると考えられることから、当該尺度の日本語版 validation study を実施し、日本語版を開発することとした。

DISABKIDS の日本語版開発の手続きとしては、(1) Forward translation（2 名の翻訳者による独立した日本語版試訳の作成）、(2) Reconciliation of items（各項目の照合）、(3) Back translation（日本語訳を更に英訳）、(4) Review of the Forward and Backward Translation（順翻訳および逆翻訳の再検討）、(5) Assessment of Conceptual Equivalence / First Harmonization of Problematic Items in a Telephone Conference（電話会議による概念的同等性の評価／不確かな項目の調整）、(6) Pre-test（日本語訳の表現の適切性等を検討）、(7) International harmonization（国際的調整）、

(8) Validation study（日本の対象集団でのデータを集積）、(9) 結果を解析・評価し report する。

本研究は、国立成育医療研究センターを継続的に受診（通院・入院）している者のうち、慢性（おおよそ 6 ヶ月以上）の経過をたどる疾患に罹患している者で、保護者ならびに患者の双方から、調査協力に対する自発的同意・アセントが得られる者を対象に実施した。対象者数は、(6)の pre-test については、4～7 歳（男女各 3 名とその保護者）、8～11 歳（男女各 3 名とその保護者）、12～18 歳（男女各 3 名とその保護者）、合計 18 組の親子とし、(8) の Validation study では、4～7 歳（患者：60 名、保護者 60 名）、8～18 歳（患者：120 名、保護者 120 名）とした。

研究 2: 子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー

近年、QOL とは別に、ウェル・ビーイング（well-being）という用語が人口に膾炙している。だが、その認知度に反して、well-being の意味するところのもの、およびそれを測定する尺度は明らかにされていない。本研究 2 では、系統的レビューの手法を用い、子ども（children）と青年（adolescence）の well-being のレビューのレビューを行うことによって、系統的に well-being を明らかにし、それを測定する尺度を明らかにすることを試みた。

検索には、書誌データベースは、MEDLINE（Ovid よりアクセス）、EMBASE（Elsevier よりアクセス）、PsycINFO および CINAHL（EBSCOHost よりアクセス）の計 4 つのデータベースを用いた。論文の選別基準に関しては、選別に含めるものとしては①子ども（children）と青年（adolescence）の well-being を測っているもの、②システマティ

ック・レビュー、メタ・アナリシス、well-being に関する既存研究のオーバerviewおよびサマリー、とした。一方、除外基準としては、①子どもと青年以外（両親、兄弟、ケア・ギバー、老人、家族）の well-being を図っているもの、②成人の well-being のみに焦点をあててレビューしているもの、とした。

検索は、専門の司書によって、以下の検索用語を用いて行った。

['well-being' OR 'wellbeing' OR 'wellness' OR 'happiness' OR 'happy' OR 'thrive' OR 'flourish' OR 'pleasure' OR 'joy' OR 'life ADJ1 satisfaction' OR 'satisfaction ADJ1 with ADJ1 life' OR 'strength' OR 'blessing' OR 'virtue' OR 'good ADJ1 life' OR 'fulfilment' OR 'eudaimonia' OR 'eudaemonia' OR 'hedonism' OR 'coping' OR 'spiritual' OR 'comfort') AND ('adolescent' OR 'teen' OR 'child' OR 'infant' OR 'newborn' OR 'baby' OR 'neonate') AND ('scale*' OR 'measure*' OR 'tool' OR 'instrument' OR 'assessment' OR 'questionnaire' OR 'survey' OR 'rating') AND ('review')]

前述の4つのデータベースから、上記の選別基準に従って検索した結果、計1,171本の論文が検出された。これらの検出された論文に対して、2名のレビューアーが個々に独立して、上記の選別基準に基づいて妥当と思われる論文を、タイトルとアブストラクトからさらに選別した。2名が独立して選別した論文は、それぞれ47本、50本であった。その後、同2名が互いに選別した論文を突き合わせ、タイトルとアブストラクトからの選出に加わらなかった第三者を含めた計3名によって、それぞれの選別した論文が妥当であるかを討議し、最終的な選別を行った。その結果、11本の論文が選別さ

れた (Bender 1997; Briggs 2011; Chavez 2005; Eccles 2008; Fernandes 2012; Lippman 2011; Lou 2008; Pollard 2003; Seaberg 1998; Smith 2006; Tsang 2012) が、さらに精査することで、Chavez (2005) は概念的な論文であるとして、除外することを決定した。

次に、上記の10本の論文を精読、AMSTAR (AMSTAR に関しては、Beverly J Shea et al. Development of AMSTAR: a measurement tool to assess the methodological quality of systematic reviews, *BMC Medical Research Methodology* 2007 参照) によってスコアリングを行った。

研究3: サンプリングの検討

本研究では、過去の先行研究のレビューおよび2次利用が可能である関連団体から提供された情報を用いて、慢性疾患を有する児の横断調査実施のために可能であるサンプル方法を比較検討した。

研究4: 当該研究分野の先行する諸外国の研究機関との連携・協力体制の構築

調査コンテンツ作成の参考としたドイツの子どもの健康に関する全国規模調査 (KiGGS) の研究本部が設置されている Robert Koch Institute (ベルリン) にて、研究代表者/研究グループメンバーと面談し、KiGGS に関する聞き取り調査および本研究計画に対する助言を得た。また、本研究の一環として日本語版の開発を行っている慢性の病気をもつ子どものための調査票 (DISABKIDS) に関して、研究代表者が在籍する University Medical Center Hamburg-Eppendorf (ハンブルク) を訪問し、DISABKIDS 研究グループが提示する翻訳・妥当性検証の手順書の確認を行った。

ドイツと同様に当該分野の調査研究が進ん

でいるイギリスでは、NHS R&D HTA Programme の報告書として包括的にまとめられた Quality-of-life measures in chronic disease of childhood (2001) の著者である Christine Eiser 教授 (University of Sheffield) と面談し、慢性疾患を有する児の Quality of life / Well-being の尺度および調査研究に関するヒアリングを行った。また、慢性疾患を有する児の成人医療への移行支援に関する研究や慢性疾患を有する児の well-being 研究プロジェクトにおいて戦略的な研究を実施している Newcastle University の Allan Colver 教授と面談し、本研究計画に対する助言を得た。

(倫理面への配慮)

研究 1 の 1-2 については、国立成育医療研究センターにて患者ならびにその保護者を対象にデータ収集を行うことから、文部科学省・厚生労働省告示第 1 号「疫学研究に関する倫理指針」(平成 19 年 8 月 16 日全部改正) を遵守し、対象者の人権保護を徹底して実施した。その他の研究については、人ならびに人資料を用いない研究であることから、倫理的には問題ないと考えた。

倫理面への配慮は、具体的には、対象者への説明は、説明文書を用いて行い、本研究の意義ならびに方法等を理解し、本研究への協力について書面による同意を得られた者のみを対象者とした。なお、同意書は、研究責任者のもとで厳重に保管することとした。同意の撤回については、本調査に協力するまでであればいつでも撤回でき、調査中に辞退したくなった場合も同様とした。

なお、研究 1 の 1-2 の(6) Pre-test ならびに(8) Validation study については、国立成育医療研究センター倫理委員会の承認 (受付番号 734 および 750) に基づく機関の長の承認を得て実

施した。

C. 研究結果と考察

研究 1: 調査コンテンツの検討

1-1. 調査コンテンツの検討

本研究の結果に基づき、以下の通り、調査コンテンツを整理、作成した。

(1) 基本情報

保護者に対する調査項目は、続柄 (子どもとの関係)、年齢、配偶者の有無、学歴、子どもの年齢・性別・出生国・国籍、子どもと普段一緒に暮らしている人、家庭・生活環境 (家族の構成人数、兄弟・姉妹の人数、住まいの種類、車の保有台数)、保護者の健康状態・ストレス・悩み、経済的な状況 (雇用について・世帯の主計者・世帯の合計収入/支出・医療費の自己負担額)、医療・教育サービスの受給に関する項目とした。

子どもに対する調査項目は、年齢により回答できる項目が異なるため、本人の年齢・性別、現在の学校又は最終卒業学校、罹患している慢性疾患名等に関する項目とした。

(2) QOL (Quality of Life)

子どもの QOL に関しては、健常児との比較が可能である KIDSCREEN もしくは PedsQL が適当であると考えたが、日本語版の validation study の状況から、PedsQL 日本語版がより適切であると考えた。

親の QOL に関しては、簡便さ等を総合的に検討し、WHO-5 (日本語版) が適切であると判断した。

(3) 慢性疾患を有する児の QOL

慢性疾患を有する児の生活の質と自立の促進をめざした欧州のプロジェクトの一環で作成された尺度である DISABKIDS が、子どもの視点から、身体的、心理的、および社会的幸福度について生活の質を評価することが可能と

されていることから、さらに欧州での国際共同研究にて広く用いられていることから適当と考えた。なお、DISABKIDS 日本語版の開発については、本研究 1-2 にて実施している。

(4) 抑うつ尺度

抑うつ状態は QOL に影響する可能性が高いことは既に指摘されている。国際的にも広く使用され、日本語での妥当性が検証されている DSR5-C (8-15 歳) および CES-D (16-18 歳) を使用して、抑うつの状態を評価することとした。

(5) 慢性疾患に関する状態

疾患名、発症時の年齢、病名診断時の年齢、診断がつくまでに受診した医療機関数、通院頻度、通院の付添い人の要不要、入院泊数、健康状態、視力、聴力、障害者認定、知的障害の有無、リハビリや機能訓練の頻度、服薬・排泄・着替え・食事、学校/訓練所/職場などでトイレの介助の要不要、医療・公的サービスの利用状況（最後に受診した時期、通院している医療機関・診療科、通院する際の主な交通手段、医療機関までかかる時間、通院する際の介助の必要性、通院する上での課題・不安、ショートステイの利用、受給している医療費補助）等に関する項目とした。

(6) 自律性尺度

Emotional Autonomy Scale (EAS: 心理面の自律性尺度 20 項目) は、もともと健全な思春期の児童を対象とした自律性を測定するための尺度として開発されたが、安藤ら (2005) が日本における慢性疾患児の精神的発達側面である自律性を測定するための尺度が必要と考え、日本語版 EAS の妥当性と信頼性について検討した。数少ない日本語版小児用自律性尺度を検討した結果、このような背景で作成された尺度は本調査の対象者の自律性の測定に妥当であると考えた。

以上の (1) ～ (6) までの項目に加え、質問票の最後に「現在・今後、生活する上での不安や気になること」について自由記載できるよう記入欄を設けることとした。

なお、回答者（保護者、子ども）、子どもの年齢、治療期間（6 ヶ月未満 or 以上）により項目数は異なる（46～120）予定である。

1-2. DISABKIDS (慢性の病気をもつ子どものための調査票) 日本語版開発研究

DISABKIDS 日本語版開発研究は、(6) Pre-test および (7) International harmonization (国際的調整) が本年度中に終了する。これらが終了し次第、(8) Validation study を実施する予定である。（研究計画書は、既に国立成育医療研究センター倫理委員会の審査を経て、承認されている。）

研究 2: 子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー

系統的レビューの結果は、以下の通りとなった（表 1）。

スコアリングに関しては、それぞれ以下のようになった [Bender 1997 = 2; Briggs 2011 = 1; Eccles 2008 = 2; Fernandes 2012 = 6; Lippman 2011 = 2; Lou 2008 = 4; Pollard 2003 = 6; Seaberg 1998 = 2; Smith 2006 = 3; Tsang 2012 = 9]。

現在までの論文の精読によると、これらの最新の研究を以てしても、未だに well-being の測り方に合意が得られていないとの結論が出ており、本研究 2 は、これら先行研究に新たな知見を加えることによって、well-being を測定する尺度の発掘に、一定以上の貢献ができたと考えられる。

以下、これまでの論文のサマリーを述べる。AMSTAR のスコアリングを含め、Tsang (2012) の論文（908 論文が抽出され、その中から 29

本が最終的に選別されている）が、最も体系的・網羅的に well-being を測定する尺度を明らかにしている。事実、Tsang（2012）が AMSTER のスコアリングが 9 点と最も高い。しかしながら、Tsang（2012）が使用しているデータベースは、Academic Search Premier、MEDLINE、PROQUEST、PsycINFO、CINAHL PLUS、Psychosocial and Health Instrument であり、本研究より多くのデータ・ベースを使用しているにもかかわらず、見落とされている尺度も多数あることが今回の研究で明らかになった。例えば、Multidimensional Student's Life Satisfaction Scale (MSLSS) や Perceived Competence Scale for Children、Cognitive Abilities Test などの尺度がそれに該当する。

研究 3: サンプルングの検討

(1) 母集団の定義

我々の目標とする母集団は、実際小児慢性特定疾患治療研究事業を利用しているか否かの有無に関わらず、慢性疾患を有する児とし、小児慢性特定疾患治療研究事業に申請している児と同等の慢性疾患に罹患した児とした。

このため、まず、我々は慢性疾患に罹患した児の調査に関する文献の系統的レビュー（van der Lee JH 2007）を通し、慢性疾患に罹患した児を、“6 ヶ月以上継続的に一つの病名で通院もしくは入院加療を要している児（0～18 歳）”と定義した。

次に、今回は主に小児慢性疾患事業等の支援事業の対象となりうる児のうち、主観的 well-being について自記式評価尺度等に回答可能な年齢の児を対象としていることから、未就学児（0～7 歳）については除外した。また、広汎性発達障害・知的障害・学習障害のみを疾患として有する児についても、自記式調査に対応が難しいことから含めないこととした。

結果として、母集団は、“8～18 歳の 6 ヶ月以上継続的に一つの病名で精神科以外に通院もしくは入院加療をしている児”とした。

(2) サンプルング方法の比較

上記の定義を使用した場合、慢性疾患に罹患した児は全児童の 1～10%と予想される（van der Lee JH 2007）。また、我が国での小児慢性特定疾患治療研究事業への申請は年間約 10 万件で、0～18 歳人口の約 0.5%である。

量的調査を実施する場合、そのサンプルング方法には主に下記の方法がある。

①全数調査

②単純無作為抽出法

③多段階無作為抽出法など系統的抽出法

我々はこれら 3 つの各方法について、まずは全国横断調査に先立ち計画している北海道調査を想定し、その利点、欠点、および実施可能性について検討を行った。

①全数調査

全数調査は、返答率さえ高くに維持することが可能であれば、一番バイアスがかからず総意を汲み取れる（実態が把握できる）方法である。

しかし、北海道の人口は全国の約 10%であり、また小児慢性特定疾患登録患者数も年間約 1 万件である。このため、今回量的な調査を実施する場合、全数調査は膨大な対象人数となるため、その実施については極めて困難である。

②単純無作為抽出法

米国などにおいてはランダムダイアル法による電話調査（van Dyck PC 2002, van Dyck P 2004）、また、ドイツにおいても個人識別番号を用いた対面調査により、単純無作為抽出法を使用した慢性疾患児の実態調査（Lampert T 2009）を行っている。

本研究において単純無作為抽出法を検討した場合、主な具体的調査は電話調査あるいは学校調査となる。電話調査は簡便である反面、現

在は固定電話の減少および携帯電話の普及のため、北海道などある特定の地域に住む患児に選択的につながることは極めて難しくなっている。また、鈴木らが報告したように我が国において電話調査は拒否率が 50%を超えることが多く（鈴木達三 2003）、電話調査により評価が妥当な返答率を得ることは極めて難しいと推測される。

一方、道中全ての小中高校に協力をいただき、例えば全学級で出席番号が“5”である児をサンプルするということは大変バイアスがかかりにくく、妥当な結果が得られることが予想されるが、全学校から了解を得るのは現実的に極めて困難である。

③多段階無作為抽出法など系統的抽出法

多くの統計にて好まれる方法としては、母集団リストをいくつかの層（年齢、性別、居住地域など）において分けた上で、その各層から単純無作為抽出あるいは全数調査を行う方法であり、わが国における乳幼児発育調査など多くの政府統計で使われている。

この方法は、あらかじめ母集団リストの特性が把握され、また各層における返答に対する相違やバラツキが想定できれば、より小さな標本で母集団について推論が可能となる。

しかし、今回我々は完全な患者リストを有しておらず、また年齢、性別、居住地域、病状、などが返答のバラツキに与える影響も正確には推測できていない。このため、我々は慢性疾患に罹患した児について現時点で最も詳細に年齢、性別、居住地域、病状に関する情報が得られると考えられる、小児慢性特定疾患事業の登録情報を用いた多段階無作為抽出法を検討した。

まず抽出法としては、第1段階が3次医療圏、第2段階が市町村による層別化を行った。これは医療圏により医療の提供体制が、そして居住

市町村により提供される医療福祉サービスが異なり、これが患児の実態に影響を与え得ると推測できるからである。

結果として、北海道の6つの3次医療圏の全てにおいて、医療計画中核都市（函館、札幌、旭川、北見、帯広、釧路）および各3次医療圏の中核都市以外の1都市（十勝、道南のみ中核都市以外に該当病院がないため中核病院から病院を選定）を選定した。

その上で、選定市町村の中の医療施設のうち小児慢性疾患事業の申請書提出が3年間で40症例以上あった施設を選定した。

最後に、選定された施設においては、3ヶ月間に小児科を受診した全患者のうち対象（“8～18歳の6ヶ月以上継続的に一つの病名で精神科以外に通院もしくは入院加療をしている児”）に当てはまる患児の全数調査とした。

この方法により選定された病院について、巻末資料に示した（添付資料1～6）。また、この方法論に基づき選定された病院とそれ以外の病院に通院した小児慢性特定疾患治療事業登録患児の疾患および年齢の分布、そして施設の規模（平均年間症例数による分類）による同様の偏りについて、表2および表3に記す。

研究4: 当該研究分野の先行する諸外国の研究 機関との連携・協力体制の構築

ドイツの子どもの健康に関する全国規模調査 KiGGS（Robert Koch Institute）の調査票開発の背景や調査方法等のヒアリングから、慢性疾患の定義付けの難しさ、本調査研究との規模の違いを認識した一方で、本研究の調査対象にも共通して調査すべき質問項目、今後日本で同様の全国規模調査を実施する際に参考となる調査方法や課題等が明らかになった。

DISABKIDS 研究グループ代表者との打ち合わせでは、DISABKIDS（慢性の病気をもつ子

どものための調査票)の翻訳・妥当性検証の詳しい手順の確認及び共同研究の締結を行った。

University of Sheffield の Christine Eiser 教授とのヒアリングでは、慢性疾患に関する状態を測定する尺度として、国際的にも広く使用され、日本語版も開発されている HUI : Health Utilities Index を使用するよう助言を得たため、調査コンテンツ作成の参考とした。

Newcastle University の Allan Colver 教授とのヒアリングでは、慢性疾患を有する児の Quality of life / Well-being に関する多国間共同研究の経験から、国際共同研究における課題や助言を得た。また、本研究に有益な研究資料や論文等を多数ご提供いただいた。

D. 結論

研究 1: 調査コンテンツの検討

1-1. 調査コンテンツの検討

本研究により、(1) 基本情報、(2) QOL (Quality of Life)、(3) 慢性疾患を有する児の QOL、(4) 抑うつ、(5) 慢性疾患に関する状態、(6) 自律性から成る約 120 項目を作成した。

1-2. DISABKIDS (慢性の病気をもつ子どものための調査票) 日本語版開発研究

DISABKIDS 日本語版開発研究は、(1) Forward translation (2名の翻訳者による独立した日本語版試訳の作成)、(2) Reconciliation of items (各項目の照合)、(3) Back translation (日本語訳を更に英訳)、(4) Review of the Forward and Backward Translation (順翻訳および逆翻訳の再検討)、(5) Assessment of Conceptual Equivalence / First Harmonization of Problematic Items in a Telephone Conference (電話会議による概念的同等性の評価／不確かな項目の調整)、(6) Pre-test (日本語訳の表現の適切性等を検討)までがほぼ終了し、本年度中に(7) International harmonization

(国際的調整)が完了し、(8) Validation study (日本の対象集団でのデータを集積)および(9) 結果を解析・評価し report の手続きに入る予定である。なお、(8)のフィールド調査については、既に国立成育医療研究センター倫理委員会の審査を経て、承認されている。

したがって、次年度以降の調査研究において、DISABKIDS の使用が可能になる予定である。

研究 2: 子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー

今回の研究において、ドメインに関しては、①physical、②psychological、③cognitive、④social、⑤economic が重要であるということが明らかになった。とりわけ、④social は社会的な観点からのみの指標であるが、②psychological は感情やメンタルヘルス、メンタルの疾患を含むドメインであり、③cognitive は、知的な能力、または学校における成果などを図る指標である、という区別をすることの重要性が新たに明らかになった。また、それぞれのドメインは、positive と negative に分けて考えなければならないという、その重要性もこの研究において明らかになった。

なお、既にこれらの結果は、研究計画および調査コンテンツの検討に活かしてきた。

研究 3: サンプルングの検討

効果的な多段階無作為抽出法を行うための母集団リストを欠く中、小児慢性特定疾患事業の登録情報を用いて施設選定を行った結果、疾患年齢および疾患については、大きく代表性を損ねることはないことが確認された。

しかし、医療設備や医療情報へのアクセスについては、小規模医療機関に通院している児と大規模医療機関に通院している児とでは異なることが推察されるため、本サンプルング法を

採用する際にも、小規模医療機関に通院している個人識別情報が把握できる患儿（小児慢性特定疾患事業の登録患儿など）については、別途情報を収集し、必要に応じて比較することは有用であろう。

今回我々は、慢性疾患に罹患している児の大規模調査はかつて行われたことがなく、参照データをもたない中、これらの児を対象とした研究のサンプル選定方法を検討した。当該研究班において実施する研究計画では、全数調査や単純無作為抽出法は非現実的であり、また効率的な多段階無作為抽出法を行うための母集団リストは有していないことから、小児慢性特定疾患事業の登録情報を用いて3次医療圏、市町村、施設という多段階無作為抽出法がよりベターであろうことが明らかとなった。しかし本研究においては、対象人数が膨大でかつ既存情報からは同定が難しいこと、また各患儿の社会的・医学的・生物学的状況が質問票の返答内容に与える影響が不確実であることより、いかなるサンプリング方法をとるについても、その利点欠点および妥当性を十分加味して結果を解釈することが重要であろう。

研究 4: 当該研究分野の先行する諸外国の研究 機関との連携・協力体制の構築

諸外国の当該研究の専門家との研究打ち合わせを通して、有益な情報交換・連携体制の構築ができた。次年度以降も、引き続き当該研究領域の専門家として、必要に応じて助言を得ていく予定である。

以上の本年度の成果を踏まえ、次年度以降の全国横断調査の実施に向けて、パイロット調査ならびに北海道調査等を進めていきたいと考える。

参考文献

- 1) 安藤満代, 斎藤和香子, 田村三穂, 中村知靖. 思春期前期の親子関係に関する自律性尺度の信頼性と妥当性の検討. 群馬保健学紀要. 25, 7-14 (2005)
- 2) Eiser, C. "Eiser C, Morse R. Quality-of-life measures in chronic diseases of childhood. Health Technol Assess 2001; 5 (4)." Health technology assessment 5.4.
- 3) Bender. Assessment of Subjective Well-Being during Childhood and Adolescence, Phye, Gary D. Ed. Handbook of classroom assessment: Learning, achievement, and adjustment. Educational psychology series. 1997; 199-225. San Diego, CA, US: Academic Press.
- 4) Michele Kielty Briggs, Patrick Akos, Greg Czyszczon, Ashley Eldridge. Assessing and Promoting Spiritual Wellness as a Protective Factor in Secondary Schools, Counseling and Values. 2011; Vol.55: 171-184.
- 5) Chavez et al. Understanding and researching wellbeing: Its usage in different disciplines and potential for health research and health promotion, Health Education Journal, 2005; 64(1): 70-87.
- 6) Eccles, Brown and Templeton. A Developmental Framework for. Selecting Indicators of Well-Being. During the Adolescent and Young. 2008; Adult Years, Chap7: 197-237.
- 7) Fernandes, A Review Essay on the Measurement of Child Well-Being, Soc Indic Res. 2012; 106: 239-257.

- 8) Lippman. Positive Indicators of Child Well-Being: A Conceptual Framework, Measures, and Methodological Issues, *Applied Research Quality Life*. 2011; 6: 425-449.
 - 9) Lou. Assessing Child and Youth Well-Being: Implications for Child Welfare Practice, *Journal of Evidence-Based Social Work*. 2008; 5(1-2): 91-133.
 - 10) Pollard. Child Well-being: A Systematic Review of the Literature, *Social Indicators Research* January. 2003; 61(1): 59-78.
 - 11) Seaberg. Child Well-being, *Scales Social Work Research Abstracts*. 1988; 24(3): 9-15.
 - 12) Smith, K. An Analysis of Selected Measures of Child Well-Being for Use at School and Community-Based Family Resource Centers. *Child Welfare*; 2006; 85(6): 985-1010.
 - 13) Tsang. Assessing psychosocial well-being of adolescents: a systematic review of measuring Instrument. 2012; 38(5): 629-46.
 - 14) van der Lee JH, Mokkink LB, Grootenhuis MA, Heymans HS, Offringa M. Definitions and measurement of chronic health conditions in childhood: a systematic review. *JAMA*. 2007; 297(24): 2741-51.
 - 15) van Dyck PC, McPherson M, Strickland BB, Nesseler K, Blumberg SJ, Cynamon ML, et al. The national survey of children with special health care needs. *Ambul Pediatr*. 2002; 2(1): 29-37.
 - 16) van Dyck P, Kogan MD, Heppel D, Blumberg SJ, Cynamon ML, Newacheck PW. The National Survey of Children's Health: a new data resource. *Matern Child Health J*. 2004; 8(3): 183-8.
 - 17) Lampert T, Mensink GB, Holling H, Schlack R, Kleiser C, Kurth BM. [Development and implementation of health targets for children and adolescents. What contribution can the Robert Koch Institute's National Health Interview and Examination Survey for Children and Adolescents (KiGGS) make?]. *Bundesgesundheitsblatt Gesundheitsforschung Gesundheitsschutz*. 2009; 52(10): 905-18.
 - 18) 鈴木達三. 電話調査法についての一考察. *行動計量学*. 2003; 30(1), 73-91.
 - 19) 橋元良明, 辻大介, 福田充, 柳澤花芽, 森康俊. インターネット利用に関する調査法比較: オンライン調査法と郵送法. *社会情報研究所調査研究紀要*. 1998; no.11, 45-79.
- E. 健康危険情報**
なし
- F. 研究発表**
なし
- G. 知的財産権の出願・登録状況**
なし