

C. 研究結果

1) 修正 1 歳 6 か月の予後評価

障害の定義に基づき、INTACT 介入研究対象児の障害なき生存 (intact survival) がもれなく評価できるよう、研究参加施設に対象人数分の評価シート、問診票、ITQOL 調査用紙を平成 25 年 6 月に送付し、9 月から修正 1 歳 6 か月時の評価を開始した。

2) 評価プロトコルの周知

①フォローアップ担当医向けに、事前にアンケート調査を行い、予後評価を行う上で注意すべき点を項目毎に解説した Q&A 集第 1 版作成し、研究の WEB サイトのホームページに掲載した。予後評価開始前の 7 月 14 日の会議で研究参加施設の担当医に内容を周知する説明を行った。更に、実際に予後評価を開始した後の疑問を加えて、再度 12 月 1 日に説明会を開催し、フォローアップ Q&A 集第 2 版 (資料 1) を作成しホームページに掲載した。

②フォローアップ担当心理士向け研修会

本研究の内容を十分に理解し、極低出生体重児のフォローアップにおける発達検査の意義、評価、支援についての共通理解を得るために、第 2 回心理士向け研修会を 2013 年 12 月 8 日に開催した。1) 研究の進行状況、2) 修正 1 歳半での発達評価 Q&A、3) 修正 1 歳半～2 歳と 3 歳時の新版 K 式発達検査の実際、4) 極低出生体重児の発達評価と家族への支援、を内容とし 4 名の講師による講義と質疑応答を行った。研究参加施設 33 施設 35 名と研究協力施設 6 施設 9 名の心理士が参加し、疑問点を解決することにより発達評価の統一化を行った。

3) 対象の脱落予防と脱落への対応

①脱落予防

確実なフォローアップが実施できるように、各

施設の担当医あてに対象児のフォローアップ健診期間開始の約 2 か月前に研究支援室からアラートメールを送信するシステムに加え、フォローアップ健診期間終了(修正 24 か月)の 2 か月前にデッドラインのアラートメールを送信するシステムを加えた。

②予後評価脱落例への対応

NRN データベースの解析結果により、脱落の理由として遠方からの受診や転居によることが多い。転院・転居に伴うフォローアップ先変更時の手順により受診を促しても、受診不能例 (=脱落例) への対応として、予後把握のために電話・メール・郵送でのインタビュー・アンケートによる調査のためのインタビューガイドを作成した。受診不能・脱落例には、脱落となった理由、電話等でのコンタクトの有無に関する報告(資料 2)を行い、コンタクトが取れる場合には、保護者の同意のもと、電話・メール・郵送による予後調査票 (資料 3) に沿ったインタビューにより脱落例の予後把握を行うものである。研究班中央倫理委員会の審査を経て各施設で実施予定とした。

4) 新版 K 式発達検査の妥当性の検証

本研究で用いる新版 K 式発達検査と海外の研究で普及している Bayley III の関連研究を行った。ビデオ確認により Bayley III 検査が確実な実施が確認できた心理士 9 名により、保護者から同意を得た対象に、新版 K 式発達検査と Bayley III の両検査を約 2 週間隔で実施した。対象児を登録し、いずれの検査を先に行うかをランダムに割り付けた。11 施設の修正 1 歳 6 か月から 1 歳 11 か月の極低出生体重児 124 名に両検査を実施した。

D. 考察

研究のアウトカムである INTACT 介入研究対象児の障害なき生存 (intact survival) が確

実に評価できるよう、評価シートの配布、Q6A 集の作成、担当医への説明会を実施し、平成 25 年 9 月から修正 1 歳 6 カ月の評価を開始した。実際に評価を行っていく上での問題点・疑問点を説明会、Q&A 集の更新により研究参加施設間で情報共有し解決をすすめた。研究結果の質の担保のためには、参加施設が同じ内容と方法でアウトカム評価を行うこと、またアウトカム評価からの脱落を減らすことが重要である。脱落予防のためのシステムを構築しているが、脱落を完全に防ぐことは困難であり、脱落例の予後を把握することは研究上重要と考え、脱落例の予後把握のために電話・メール・郵送でのインタビュー・アンケートによる調査のためのインタビューガイドを作成した。この調査により評価例と脱落例での重度障害の比較が可能となり、また主要評価項目である 3 歳での予後評価のための受診の勧める上でも重要と考えられる。

本研究の発達評価は、日本で標準化が実施されており、対象年齢の全般的な発達指数と運動・認知・言語の領域別と発達指数を心理士が客観的に評価できる新版 K 式発達検査を使用するが、この検査は海外での使用はされていない。研究のアウトカムとして介入群と非介入群で比較する上での支障はないが、極低出生体重児の発達予後を海外の研究報告と比較することは難しい。そこで海外で広く用いられているが日本での標準化が未実施の Bayley 検査との関連研究を実施した。両検査の結果について統計学的手法を用いて解析予定である。この関連研究の結果をもとに、日本の極低出生体重児の

発達予後を海外の報告と比較し広く国外に発信することが可能になると考えられる。

E. 結論

INTACT 介入のアウトカム評価が、すべての対象児に確実にできるよう、プロトコルを担当医師、心理士に周知し、脱落防止の方法と脱落例への対応を検討し、電話等によるインタビューを作成した。構築したフォローアップ体制により、1 歳 6 か月の予後評価を開始した。3 歳評価にむけて引き続きフォローアップ体制の強化が必要である。

G. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 河野由美 わが国におけるフォローアップ体制の構築とそのプロダクト. 周産期新生児誌 49(1):109-112, 2013
- 2) Ishii N, Kono Y, Yonemoto N, Kusuda S, Fujimura M; for the Neonatal Research Network, Japan. Outcomes of Infants Born at 22 and 23 Weeks' Gestation. Pediatrics. 132 : 61-72, 2013

2. 学会発表

- 1) 河野由美 早産低出生体重児の予後からみた新生児医療の課題と今後の対策 早産低出生体重児の発達予後(会議録) 日児誌 117(2) : 258, 2013

H. 知的財産権の出願・登録状況
なし

資料 1 Q&A 集 Ver1.2

1. 修正1歳6か月発達評価

Q1 修正1歳半健診となっていますが、修正17か月で実施してもよいのでしょうか？

原則、修正18か月0日以降をお願いします。
期間は修正24か月未満(修正1歳11か月まで)ですので、その間に実施して下さい。

Q2 発達検査の日と、医師診察の日がずれてもよいのでしょうか？

発達検査と医師診察の日は同じ日である必要はありません。
健診日と発達検査日は1か月以内となるように調整してください。
両方の日にちとも修正18か月以降、24か月未満に入るようにしてください。
ITQOLの質問票、問診用紙は健診日、発達検査日のいずれかの日で構いません。

Q3 どうしても新版K式が最後までできなかった場合はどうしたらよいのでしょうか？

「発達検査を実施しましたか？」の問いは、「いいえ」にチェックしてください。
試みたが完了できずにチェックを入れて下さい
実施した発達検査の欄では、新版 K 式検査にチェックして、数値化できるものがあれば数値を登録してください。
発達評価は、主治医判定でチェックを行い、主治医判定の根拠を記載してください。

Q4 Q3のような場合、後日、新版K式検査を再検査するべきでしょうか？

再検査が可能であればおこなって下さい。途中からではなく、最初からの検査になります。
前回の検査がどこまでできたかによって、学習効果が異なりますが、2 か月程度の間をおいて実施することが望ましいです。保護者と相談の上、修正 24 か月未満で実施して下さい。
再検査なしの場合の扱いは Q3 のとおりです。

Q5 ベイリーなどの他の発達検査を受けた場合、どのくらい間隔を空ければ、K 式を実施してもよいのでしょうか？

バッテリーをくむという側面であれば、半年を開ける必要性はありませんが、K式と、ベイリーは似ている項目も含まれており、発達検査という大枠は同じなので、練習効果が出る可能性があります。従って、本人の負担と、臨床的なフィードバックを考えると、2 か月はあけたほうがよいでしょう。K 式の実施は修正 18 か月～24 か月になるよう調整して下さい。

Q6 双子のお子さんの発達検査を同じ日に実施してもいいでしょうか。検査時に二人は同席しない方がよいでしょうか？

同じ日に実施してもかまいませんし、別の日でもかまいませんが、検査は一人ずつが原則です。同日の場合には、検査をみることによる学習効果と集中困難なことなどを考えると、他児は別の場所で待ってもらって下さい。同日で別々に実施するため、2 名の養育者と来院するよう前もって説明して下さい。

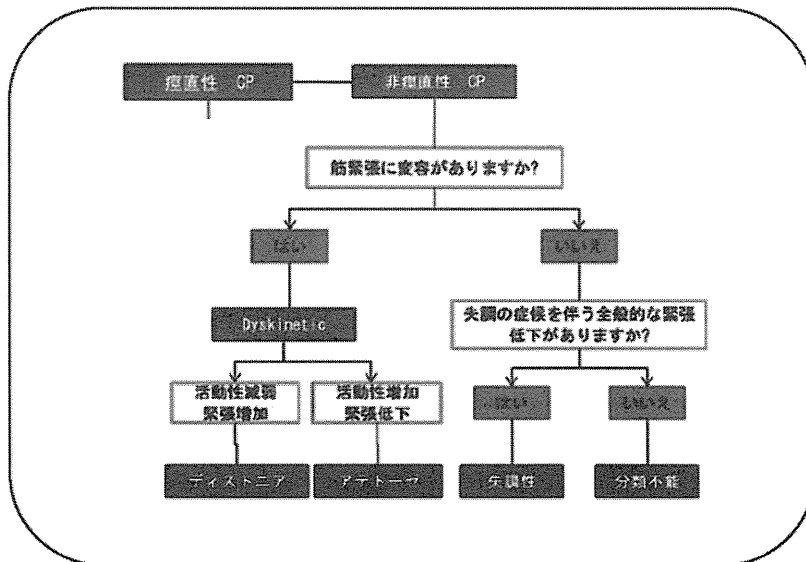
2. CPの臨床評価

Q7 脳性麻痺のアトーゼとディストニアの区別ができません。

アトーゼ：
変動する不規則な不随意運動。遅く、不規則、非律動的。休みなく、這うような力強い運動。四肢、顔面、頸部に多く、四肢は特に遠位部優位。

ディストニア：
筋緊張の増加により起こる捻転性または反復性の運動や異常な姿勢。体幹、四肢近位部の捻転性姿勢異常。

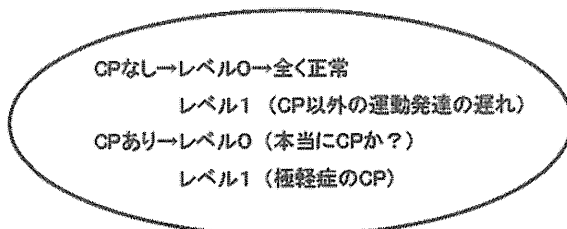
下図のフォローチャートを参考にしてみてください。



Q8 GMFCSの分類のレベル0とレベル1の違いが難しい。予後評価しないならレベル1いらない？

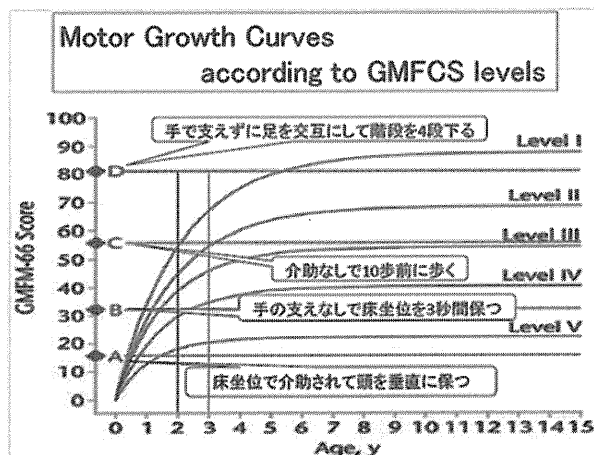
- GMFCSの分類は、脳性麻痺児の粗大運動能力を重症度別に分類する判別的尺度です。

- 脳性麻痺児の粗大運動能力をレベル I ~ V の5段階に分類 しています。
- タイプ別の分類と併用することで、より具体的に脳性まひ児の臨床像を表現できます。
- 脳性麻痺がある場合は、GMFCS分類での評価は必須です。0と1の区別はつかなくても、0または1であることの確認が必要です。



Q9 GMFCSの分類のレベル1とレベル2の違いがわかりません。

- 18か月～2歳では、
- 床坐位で安定して両手を自由に使えれば、1または2になります。
 - 1と2の違いは、
 - ・ (ぎこちないが)独歩していれば→1
 - ・ つたい歩きできれば→1
 - ・ 這いであれば→2 になります。
 - 両手を自由に離して座位がとれない2以上になります。



3. 視力障害

Q10 視力障害の評価の基準を教えてください。

- 両眼での視機能を評価します。
- 眼鏡を使用している場合はつけた状態で。
- 眼科医の判定は必須ではありません。
- 修正1歳半では3段階。
 - 正常またはほぼ正常→NDIなし
 - 近くの大きなもの、動きはわかる、眼振がある→NDI
(手動弁～指動弁に相当、障害があるが見える)
 - 光のみ判別、または全盲→SND

4. 聴力障害

Q11 聴力障害の評価の基準を教えてください。

- 補聴器の使用の有無
- 補聴器を使用している場合はつけた状態で、両耳での聴覚機能を判定。
- 耳鼻科医の判定は必須ではありません。
- 4段階
 - 正常またはほぼ正常→NDIなし
 - 補聴器で補正可能(40-70dB程度)→NDI
 - 補聴器でも完全には補正不能(70-90dB程度)→NDI
 - 補聴器でもほとんど聞えていない(>90dB)、または聾→SDN

5. その他の神経学的障害

Q12 その他の神経学的障害について記入というのは例えば、何でしょうか？

NICU退院後に診断された神経学的予後に影響する可能性がある疾患、診断名、症状、病態を記載して下さい。(けいれん、視覚・聴覚の障害は除きます)

染色体異常、遺伝子異常、先天奇形症候群

髄膜炎、脳炎、脳症

神経筋疾患

虐待 など

Q13 水頭症のシャントの有無の質問のところ、万が一、「リザーバー」であった場合は、何と回答したらよいですか？

リザーバーもシャントのひとつと考えて「あり」にチェックします。
その他の神経学的障害にシャントはリザーバーなどと記載して下さい。

5. 障害合併児の発達評価

Q14 障害合併児の発達評価で注意することは何ですか？

- 可能な限り発達検査による評価を実施する。
- できるだけ新版K式発達検査で行う。
- 眼鏡、補聴器を使用している場合はつけた状態で行う。
- 視力障害の程度は不明なことが多い。
 - 失明と言われたが、近くにある玩具をとれる児もいます
- 補聴器を使用している児での言語発達の評価は重要。
- 運動障害がある場合でもすべての分野を評価。
- 保護者の気持ちに配慮して行う。
 - 無理はさせない。

6. 転院時のフォローアップ

Q15 修正1歳5か月で転居となりました。どうしたらよいでしょうか？

- 1歳半の評価期間は修正18か月～24か月です。
 - 自施設で行うか、転院先に依頼するか、保護者と早急に決定して下さい。
- 研究施設から転院時のフォローアップ手順に従って、
 - INTACT参加施設に紹介する場合：直接依頼、紹介、結果のバックをして下さい。
 - INTACT参加施設には紹介できない場合：支援室から、候補施設について情報提供してもらって下さい。
 - 支援室に 転居連絡フォームをメールもしくはFAXで連絡をして下さい。
 - フォローアップのデータ入力 は紹介元施設が行います。

Q16 転居後の連絡手順や連絡フォームなどは研究本部より準備されるのでしょうか？

- 研究施設から転院時のフォローアップ
 - 支援室に 転居連絡フォームをメールもしくはFAXで連絡して下さい。
→INTACTホームページからWORDをダウンロードをお願いします。
(単独フォームを準備します)
- 研究不参加施設から転院時のフォローアップ

Q17 患者さんが転居し、フォローアップを他の施設に依頼しました。本部から、フォローアップ評価時期が近いと連絡をもらった場合にどのようにすればよいでしょうか？

- 研究本部は転居に伴うフォローアップ施設の変更を把握しており、変更後のフォローアップ担当者の連絡先も確認しています。
- フォローアップアラートは変更後の施設担当者に送られるはずですが、漏れている可能性、重複している可能性を考慮し、研究本部に転居したため他施設へ依頼した旨を再度メールでご連絡下さい。

8. 未受診への対応

Q18 フォローアップ外来は受診せず、電話では話ができる人の場合、電話の内容で登録してもよいのでしょうか？（もちろん発達検査などはできませんが。）

- 受診が可能ならば促して下さい。
- 評価シートの1枚目の事項を必ず確認して登録して下さい。
 - フォローアップ実施の有無→「なし」にチェック。
 - 生存かどうか
 - 受診なしの理由
病院、施設などに入院中か、受診希望なしかなど
 - 入院・入所中の場合、重度障害、障害の有無についても聞き取り記入。
 - シート2～5について、重度障害(SND)、障害(NDI)に相当する項目について可能な範囲で登録して下さい。ただし、「受診なし」にチェックがついた時点で、発達予後解析の対象等からは外れると思います。

9. 問診用紙

Q19 INTACT フォローアップ 問診用紙 の使い方と注意点を教えてください

記入方法

保護者に記入してもらおう。

渡すタイミングは、以下のいずれでも可だが、1、2は忘れることが多いので、当日の方がおすすめです。

1. 予約時に渡して、当日持参(記入は修正 1 歳半以降にお願い)
2. 発達検査と診察日が別であれば、発達検査時に渡し次回持参
3. 受付時
4. 発達検査の前
5. 診察待ち時間
6. 診察時

帰るまでに回収。ITQOLの質問紙も同様。

設問毎の注意

2. 主な養育者の方が日常話している言葉は？

国籍は不要。日本語以外の時、言語を確認できれば、横に記入して下さい。

5. お子さんは、家族メンバーとの離別あるいは死別の経験がありますか

対象児の出生後の、離婚、死別を聞いています。

□ありの場合、必ず、誰と？を記入してもらって下さい。

元々シングルマザーの場合は、□なし になります。Q6、Q8 の質問欄は空欄にして下さい。

6. これまでの子育て中のご両親の健康状態は？

父親、母親それぞれについて必ず記入。

出生後の離別、死別ありの場合は空欄。

出生前離別の場合も空欄。

8. お子さんのご両親は、高校卒業以後の進学がありますか

□なし→高校卒業まで(中卒、高校中退、高卒までのいずれか)

□あり→高校卒業以後の進学(大学、専門学校などへの進学がある場合)

不明の場合、記入したくない場合は空欄のまま→WEB 登録は□不明

10. ITQOL 問診用紙

回答に困る場合には、

- すべての質問に回答することが原則です。

- 一番近い答えを選んでください。
- 深く考えすぎないで大丈夫です。

保護者の分かりにくい言葉

- 学習能力または認知能力の発達について
→どちらもいわゆる“知能”と考えて下さい。1歳半では、言葉、模倣行動、命令理解などで測られますが、保護者の直感でよいと思います。
- すぐに同様の一少しの変化で気分が変化する
- 注意深い→新しい物や人、場所を警戒する、慎重である
- 内向的な行動をとる
→ひとり遊び、内気、協調性にかける行動

11. ハイリスク児フォローアップの健診との差異

Q20 ハイリスク児フォローアップ研究会の健診用紙にない項目で、INTACT にしかない項目は何ですか？

- CP の GMFCS 分類(5 段階)
- 水頭症に対するシャントの有無
- コミュニケーションの困難さ
- 最終けいれん既往
- 腎機能
- 摂食、消化器機能

Q21 ハイリスク児フォローアップ研究会の健診用紙にのみある項目で、INTACT にはない項目は何ですか？

- 視力障害の原因
- 斜視の詳細
- 神経学的診察(歩行、歩行開始、不随意運動、筋緊張、深部腱反射、姿勢・四肢の異常、微細運動、主に使う手、眼球運動)
- 運動発達の遅れ
- 運動障害
- てんかん
- MRI、脳波、ABR
- 胸囲
- 名前を呼んだらふりむく
- その時の視線
- 対人関係

- 落ち着き

Q22 ハイリスク児フォローアップ研究会の健診用紙と異なる点は何ですか？

- INTACT では、
 - CP 疑いはなくなりました。CP でも GMFCS 1 の場合は、NDI に相当しません。
 - けいれんの有無→ありの場合に発熱の有無
 - 視力障害(眼振)(光のみと全盲は同じ項目)
 - 有意語:3 語以上を正常。1~2 語はボーダーライン
 - 行動:多動と視線のみ評価
- INTACT 症例では、INTACT の評価シートに沿って、診察、記入をお願いします

12. NRN と INTACT のデータベースについて

Q23 NRN データベースの 1 歳 6 カ月予後入力との関係は？

- NRN の入力項目で、INTACT 評価シートに含まれない項目は、歴年齢の DQ のみです。

資料2 受診なし・脱落症例報告書

受診なし・脱落症例報告書

施設名

患者ID	在胎週・日	出生体重
<input type="text"/>	<input type="text"/>	<input type="text"/>

受診なしの理由

- 転院
- 転居・県内
- 転居・県外
- 転居・国外
- 長期入院中・入所中のため
- その他

電話等でのコンタクトと受診勧奨の有無

- 電話・メール・郵送で連絡できた
- 電話・メール・郵送をしたが連絡とれず
- 電話・メール・郵送をしていない

電話/メール/郵送による予後調査の有無

- 調査できた
- 調査不可

自由記載欄

--

資料3 電話・メール・郵送による予後調査票

電話/メール/郵送による予後調査	患者ID
	調査日
1 お子さんの今日現在の年齢を教えてください。(電話の場合は不要)	()歳()か月
2 お子さんは病院や療育施設などに入院中ではないですか？(元氣とわかっている 2' 入院中の場合、どちらに入院中ですか？ いる場合は不要)	<input type="checkbox"/> 入院していない <input type="checkbox"/> 入院中 → <input type="checkbox"/> 病院 <input type="checkbox"/> 療育施設 <input type="checkbox"/> その他()
3 養育者はどなたですか？ご両親ですか？(わかっている場合は不要)	<input type="checkbox"/> 両親 <input type="checkbox"/> 母親のみ <input type="checkbox"/> 父親のみ <input type="checkbox"/> 両親以外
4 お子さんの最近の体重を教えてください。 いつ頃はかりましたか？	()Kg ()年()月頃
5 お子さんに何らかの障がいがありますか？ 5' (ありの場合)具体的に教えてください	<input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> あり → ()
6 現在次のような医療的ケアを受けていますか？ 気管切開、経管栄養、人工呼吸器、在宅酸素、胃瘻栄養、など	<input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> 気管切開 <input type="checkbox"/> 経管栄養 <input type="checkbox"/> 人工呼吸器 <input type="checkbox"/> 酸素(HOT) <input type="checkbox"/> 胃瘻 <input type="checkbox"/> その他
7 視力障害がありますか？ 7' (ありの場合)どちらかの目が見えていないといわれたことがありますか？	<input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> あり → <input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> あり
8 補聴器を使用していますか？	<input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> あり
9 医師または理学療法士に脳性麻痺といわれたことがありますか？	<input type="checkbox"/> なし <input type="checkbox"/> あり
10 補助なしで10歩以上歩けますか？補助すれば10歩以上歩けますか？ 10' (補助しても歩行不可能の場合)補助なしで座れますか？支えれば座れますか？	<input type="checkbox"/> 補助無しで可能 <input type="checkbox"/> 補助して可能 <input type="checkbox"/> 補助しても不可能 → <input type="checkbox"/> 補助無しで可能 <input type="checkbox"/> 補助して可能 <input type="checkbox"/> 補助しても不可能
11 意味のある単語を話しますか？いくつぐらい言えますか？	<input type="checkbox"/> はい3語以上 <input type="checkbox"/> はい1・2語のみ <input type="checkbox"/> いいえ <input type="checkbox"/> 不明
12 簡単な指示が理解できますか？	<input type="checkbox"/> はい <input type="checkbox"/> いいえ <input type="checkbox"/> 不明
13 積み木を1個以上つめますか？	<input type="checkbox"/> はい <input type="checkbox"/> いいえ <input type="checkbox"/> 不明
14 バイバイなどのまねをしますか？	<input type="checkbox"/> はい <input type="checkbox"/> いいえ <input type="checkbox"/> 不明
15 絵や物を指さしますか？	<input type="checkbox"/> はい <input type="checkbox"/> いいえ <input type="checkbox"/> 不明

研究成果の刊行に関する一覧表

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書 籍 名	出版社名	出版地	出版年	ページ

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
河野由美	ハイリスク児の発達評価法；わが国におけるフォローアップ体制の構築とそのプロダクト	周産期新生児誌	49(1)	109-112	2013
Ishii N, Kono Y, Yonemoto N, et al	Outcomes of Infants Born at 22 and 23 Weeks' Gestation.	Pediatrics	132(1)	61-72	2013
河野由美	関連データベースとのリンケージに向けて：フォローアップ	周産期医学	43(10)	1263-1266	2013
河野由美	データベースによる予後解析 極低出生体重児のフォローアップ体制の整備	周産期医学	43(5)	641-645	2013

厚生労働科学研究費補助金（地域医療基盤開発推進研究事業）
「周産期医療の質と安全の向上のための研究」

平成 25 年度
総括・分担研究報告書

平成 26 年（2014）3 月
研究代表者 楠田 聡

東京女子医科大学母子総合医療センター
〒162-8666 東京都新宿区河田町 8-1
TEL/FAX 03-5269-7344

