

201410012A

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26年度 研究報告書

研究代表者 水口 雅

平成27(2015)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……………15

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……………29

成人移行期における自立支援の検討

石崎優子……………49

病弱教育における自立支援施策の充実に関する検討

西牧謙吾……………55

III. 研究成果の刊行に関する一覧表……………71

IV. 研究成果の刊行物・別刷……………75

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

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の促進を目的として、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を作成ないし準備した。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、目的の達成を目指している。

研究分担者

及川 郁子	聖路加国際大学 教授
西牧 謙吾	国立障害者リハビリター 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 臨床研究開発センター 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 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。

本研究は、我が国における慢性疾患を有する児の現状調査を行いその実態ならびに課題を明らかにするとともに、慢性疾患を有する児のライフステージに応じた適切な自立支援ならびに療養支援が受けられるよう、児とその家族への働きかけ、医療関係者への働きかけ、教育関係者への働きかけといった多面的かつ包括的な介入ツールを

作成し、具体的な支援モデルを提案することにより、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する。

具体的には、1) 我が国における慢性疾患を有する児の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「病氣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。

B. 研究方法

本研究は、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し、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する。

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。これにより、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（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：佐々木八十子、竹原健二、森崎菜穂、森臨太郎（国立成育医療研究センター研究所）、有賀正、柳生一自（北海道大学医学部）、鎌崎穂高、竹内孝子（札幌医科大学医学部）、東寛、棚橋祐典（旭川医科大学）、鈴木信寛、續晶子（北海道立子ども総合医療・療育センター）

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、パイロット調査の結果を受け、フィールド調整後、調査を開始した。最終的な質問票の確定を行い、大規模横断調査のプロトコール作成およびIRB申請を行った。

<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：市原真穂（千葉科学大学看護学部）、井上由紀子（東北大学病院）、大塚香（北里大学病院）、金子恵美（国立病院機構福岡病院）、河俣あゆみ（三重大学医学部附属病院）、黒田光恵（自治医科大学付属病院）、込山洋美（順天堂大学医療看護学部）、近藤美和子（埼玉県立小児医療センター）、染谷奈々子（横浜市立大学付属両院）、竹之内直子（神奈川県立こども医療センター）、田崎あゆみ（あいち小児保健医療総合センター）、半田浩美（岡山大学病院）、古橋知子（福島県立医科大学/附属病院）、水野芳子（千葉県循環器センター）、渡辺輝子（済生会横浜市東部病院）、落合亮太（横浜市立大学医学部看護学科）、中村伸枝（千葉大学看護学部）、西田みゆき（順天堂大学医療看護学部）、仁尾かおり（千里金蘭大学看護学部）、野間口千香穂（宮崎大学医学部看護学科）、林亮（順天堂大学保健看護学部）、三平元（国保松戸市立病院小児医療センター）、江本リナ（小児看護学会理事）

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。本年度は、以下を開始した。

①モデル事業の展開：10医療機関において、医師との協働のもと小児看護CNSによる看護外来を開設して行う。1医療機関の対象者数は10名程度とし、患者・家族への継続的な関わりを行い、その関わりのプロセスも記述する。

②モデル事業の定量的評価：子どもならびにその家族を対象に、C&FCCアセスメントツール、QOLやセルフケアマネジメント指標等を用いたモデル事業の前後における定量的評価を行う。あわせて、小児看護CNSによるケアプロセスの評価、医師や他職種によるケア内容の評価も行う。

<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：丸光恵（東京医科歯科大学保健衛生学研究科）、本田雅敬（東京都立小児総合医療センター）、榊原秀也（横浜市立大学）、三田村真（全国骨髄バンク推進連絡協議会）

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。本年度は、成人移行ガイドブック医師版（案）を日本小児科学会小児慢性特定疾患患児の移行期支援WG及び関係学会にて検討し、使用後の意見集約を行い、その結果を元に内容を改訂した。

<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）

慢性疾患児の療養を支える関係機関の動向について、函館市、札幌市、旭川市と道立保健所（富良野、帯広、室蘭）にヒアリングを行い、各自治体、各地域での状況を調査した。

（倫理面への配慮）

研究方法はアンケート調査であり、研究対象者（慢性疾患のある子ども）に対する身体的、心理的社会的不利益はない。アンケート回答者に対して、文書によりインフォームド・コンセントを得て、同意文書をとる。国立障害者リハビリテーションセンター倫理審査委員会の承認を得て実施して

いる。

C. 研究結果

本年度は3年計画の2年目である。前年度（平成25年度）には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、本年度はその成果にもとづいて研究を展開した。

<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を明らかにするため、北海道地区にて大規模横断的調査を計画・実施することとした。北海道地域の3つの医科大学（北海道大学医学部、札幌医科大学、旭川医科大学）ならびにその関連病院を主たる研究協力機関として、平成26年12月2日より約4ヶ月の調査を開始した。

調査手順は、担当医が患者（8歳以上22歳以下）及びその家族に調査依頼文書を用いて調査への協力を依頼する。患者及びその家族が自由意思に基づき Web サイトにアクセスし、アンケートに回答する。また、アンケート調査に回答後、さらにインタビュー調査の協力の依頼ページからインタビュー調査への協力意思を示した20歳以上の患者もしくは患者家族に対しては、後日電話によるインタビューを行う。

本年度の北海道調査の方法論や調査手順を踏まえ、次年度（平成27年度）の全国横断調査の実施に向けて、研究計画の策定を

進めているところである。

<2> 患者・家族に対する支援体制の構築に関する研究

前年度に作成した自立に向けた療養支援モデル案とチェックリストについて、本年度はチェックリストの評価とモデル案に関する意見募集を中心に実施した。172組の親子についてチェックリストを用いて自立度をチェックした。その結果、患児の自立度は概ね設定年齢で達成していたが、内容によっては設定年齢の見直し、表現の修正の必要があることが明らかになった一方、親は早期から子どもの自立に向けた支援をしていた。モデル案に関する意見募集では、18件の意見があり、有用であるとの意見がある一方、疾患別の支援モデルが求められていた。次年度も引き続きチェックリストおよびモデル案に関する評価検討を行い、「慢性疾患児の自立に向けた支援ガイド」を作成していく予定である。

<3> 成人移行期における自立支援の検討

成人を迎えた小児期発症慢性疾患患者（移行期患者）の自立支援のために、前年度、本研究活動において、小児科医が小児科から成人科への転科を支援する上で必要な項目をまとめ、『成人移行期小児慢性疾患患者の自立支援のための移行支援ガイドブック 医師版（試案）』を作成した。本年度は、このガイドブック試案を日本小児科学会分科会に配布し、各領域の専門家の意見を集約し、ガイドブック医師版を改訂して小冊子を完成するとともに、各分科会における

移行期支援の実態について調べた。

<4> 病弱教育における自立支援施策の充実の検討

北海道内で調査した自治体に共通の課題は、以下のようにまとめることができた。道立保健所に比べ、指定都市・政令市が、必須事業の準備において先行していた。指定都市・政令市では、障害福祉サービスの中に医療対応の知識が不足し、既存の障害福祉サービスの小慢児への転換に困難を感じていた。地域支援協議会の構成は検討中である。自立支援員はしばらく行政保健師が担う方向で検討されている。学校教育との連携はあまり意識されていない。

今回の調査の中で、北大の院内学級の分校化が実現し、コドモックルの地域支援機能（親子入院、発達障害のペアトレ、地域巡回指導等、療育センターからの伝統）の活用の可能性が示唆された。協力も依頼済みである。

ポイントは、地域支援協議会の中で、以下の課題を検討することである。

- ・医療機関と教育機関の有機的連携
- ・教育機関のセンター的機能の強化による復学支援
- ・移行期医療別支援モデルの提示
（例：完全に成人診療科に移行する疾病では保護者と学校保健の連携、小児科に継続して受診する疾患では障害福祉サービスへの研修、心理社会的課題がある。保健所機能の活用も考慮）
- ・困難ケースは、公的機関につなぐ仕組みが必要（相談窓口の見える化）、通常の相談

は、自立支援員レベルで解決する。

小慢手帳活用の在り方の検討は、難しい課題である。現状では、ほとんど活用されておらず、医療者も知らない。大幅な概念修正が必要である。現場のニーズは障害福祉サービス提供者、学校関係者への医療情報の提供（例：病弱教育支援冊子）、患者の健康情報を収集し、医療への活用を図ること（例：血友病モデル）にある。スマートフォン等の情報末端の活用は、いくつかの先行事例があったが、成功していない。

研究班内での共同研究は、途上である。実態調査に関しては掛江班員と、復学支援に関しては及川班員と連動して進めてゆく。看護職の学校等へのアウトリーチの可能性を検討する。

D. 健康危険情報

なし。

E. 研究発表

1. 論文発表

Tran DN, Nguyen TQ, Nguyen TA, Hayakawa S, Mizuguchi M, Ushijima H. Human bocavirus in children with acute respiratory infections in Vietnam. *J Med Virol* 2014; 86(6): 988-994.

Takanashi JI, Taneichi H, Misaki T, Yahata Y, Okumura A, Ishida YI, Miyawaki T, Okabe N, Sata T, Mizuguchi M. Clinical and radiologic features of encephalopathy during 2011 *E coli* O111 outbreak in Japan. *Neurology* 2014; 82(7): 564-572.

Thongprachum A, Chan-It W, Khamrin P,

Saparpakorn P, Okitsu S, Takanashi S, Mizuguchi M, Hayakawa S, Maneekarn N, Ushijima H. Molecular epidemiology of norovirus associated with gastroenteritis and emergence of norovirus GII.4 variant 2012 in Japanese pediatric patients. *Infect Genet Evol* 2014; 23: 65-73.

Akamatsu T, Dai H, Mizuguchi M, Goto Y, Oka A, Itoh M. LOX-1 is a novel therapeutic target in neonatal hypoxic-ischemic encephalopathy. *Am J Pathol* 2014; 184(6): 1843-1852.

Okitsu S, Khamrin P, Thongprachum A, Kalesaran AF, Takanashi S, Shimizu H, Maneekarn N, Mizuguchi M, Hayakawa S, Ushijima H. Molecular characterization and sequence analysis of the 2B region of Aichivirus C strains in Japan and Thailand. *Infect Genet Evol* 2014; 26C: 89-94.

Igarashi T, Ito S, Sako M, Saitoh A, Hataya H, Mizuguchi M, Morishima T, Ohnishi K, Kawamura N, Kitayama H, Ashida A, Kaname S, Taneichi H, Tang J, Ohnishi M; Study group for establishing guidelines for the diagnosis and therapy of hemolytic uremic syndrome. Guidelines for the management and investigation of hemolytic uremic syndrome. *Clini Exp Nephrol* 2014; 18(4): 525-557.

Ushijima H, Nishimura S, Thongprachum A, Shimizu-Onda Y, Tran DN, Pham NT, Takanashi S, Dey SK, Okitsu S, Yamazaki W, Mizuguchi M, Hayakawa S. Sensitive and rapid detection of campylobacter species from stools of children with diarrhea in Japan by the loop-mediated isothermal amplification method. *Jpn J Infect Dis*

2014; 67(5): 374-378.

Okitsu S, Khamrin P, Thongprachum A, Nishimura S, Kalesaran AF, Takanashi S, Shimizu H, Hayakawa S, Mizuguchi M, Ushijima H. Detection and molecular characterization of human cosavirus in a pediatric patient with acute gastroenteritis, Japan. *Infect Genet Evol* 2014; 28C: 125-129.

宮崎セリーヌ, 齋藤真木子, 伊藤雅之, 山下純正, 宮岸真, 高嶋幸男, Moser AB, 岩森正男, 水口雅. 脂質生化学研究 ペルオキシソーム形成異常症におけるリン脂質・糖脂質分子種変化. *脂質生化学研究* 2014; 56: 179-182.

森川美佳, 三牧正和, 高橋長久, 内野俊平, 水野葉子, 岩崎博之, 水口雅, 五十嵐隆. 回復期に眼球上転・口部ジスキネジアが遷延したインフルエンザ脳症の1例. *小児科臨床* 2014; 67(6): 995-1000.

種市尋宙, 六車崇, 太田邦雄, 小西道雄, 住田亮, 奥村彰久, 高梨潤一, 水口雅, 宮脇利男. 腸管出血性大腸菌 O111 集団感染における危機対応. *日本小児科学会雑誌* 2014; 118(7): 1103-1108.

Nara A, Nagai H, Yamaguchi R, Yoshida KI, Iwase H, Mizuguchi M. An unusual autopsy case of cytokine storm-derived influenza-associated encephalopathy without typical histopathological findings: autopsy case report. *Am J Forens Med Pathol* 2015; 36(1): 3-5..

Yamamoto H, Okumura A, Natsume J, Kojima S, Mizuguchi M. A severity score for acute necrotizing encephalopathy. *Brain Dev* 2015; 37(3): 322-327.

Takanashi JI, Shiihara T, Hasegawa T, Takayanagi M, Hara M, Okumura A, Mizuguchi M. Clinically mild

encephalitis with a reversible splenic lesion (MERS) after mumps vaccination. *J Neurol Sci* 2015; 349(1-2): 226-228.

眞下英明, 三浦健一郎, 高梨さやか, 井上茉南, 張田豊, 竹内正人, 磯島豪, 荒木聡, 植田千里, 遠藤明史, 川村眞智子, 水口雅, 岡明. 急速な下痢の進行により循環血液減少性ショックを呈し、RT-PCRでロタウイルス感染症と診断された1例. *小児科臨床* 2015; 68(1): 59-64.

2. 学会発表

齋藤真木子, 塩見正司, 山形崇倫, 亀井淳, 赤坂真奈美, 廣瀬伸一, 水口雅. テオフィリン関連急性脳症における複数の遺伝的素因. 第117回日本小児科学会学術集会, 名古屋, 2014年4月11日

水口雅. 小児脳死下移植医療の現状—ドナー側からみた問題点. 第117回日本小児科学会学術集会, 名古屋, 2014年4月12日

赤松智久, 伊藤雅之, 水口雅, 岡明. 新生児低酸素性虚血性脳症(nHIE)の新たな治療ターゲットとしてのLOX-1. 第117回日本小児科学会学術集会, 名古屋, 2014年4月12日

高梨さやか, Thongprachum A, 沖津祥子, 水口雅, 牛島廣治. ロタウイルスワクチン導入移行期における同ウイルスの遺伝子型の検討. 第117回日本小児科学会学術集会, 名古屋, 2014年4月13日

齋藤真木子, 石井敦士, 井原由紀子, 星野愛, 寺嶋宙, 久保田雅也, 山中岳, 河島尚志, 菊池健二郎, 雨宮馨, 亀井淳, 廣瀬伸一, 水口雅. けいれん重積型急性脳症におけるナトリウムチャンネル *SCN1A* および *SCN2A* 変異解析. 第56回日本小児神経学会学術集会, 浜松, 2014年5月29日

星野愛, 齋藤真木子, 久保田雅也, 高梨潤一, 豊島光雄, 宮本晶恵, 奥村彰久, 水口雅.

急性壊死性脳症における遺伝的素因
—HLA タイピング及びサイトカイン遺伝
子多型解析—第2報. 第56回日本小児神経
学会学術集会, 浜松, 2014年5月29日

佐藤敦志, 高松幸雄, 小林敏之, 樋野興夫,
水口雅. 結節性硬化症モデルマウスにおい
てTsc2変異はより重度の自閉症様行動と
関連する. 第56回日本小児神経学会学術集
会, 浜松, 2014年5月30日

水口雅. 小児のウイルス感染症と意識障害。
第55回日本臨床ウイルス学会モーニング
セミナー、札幌、2014年6月15日

井上菜南, 高梨さやか, 牛島廣治, 沖津祥
子, 崎山弘, 水口雅. 府中市におけるロタ
ウイルスワクチン累積予防接種率の検討—

定期接種ワクチンとの比較. 第117回日本
小児科学会学術集会, 名古屋, 2014年4月
11日

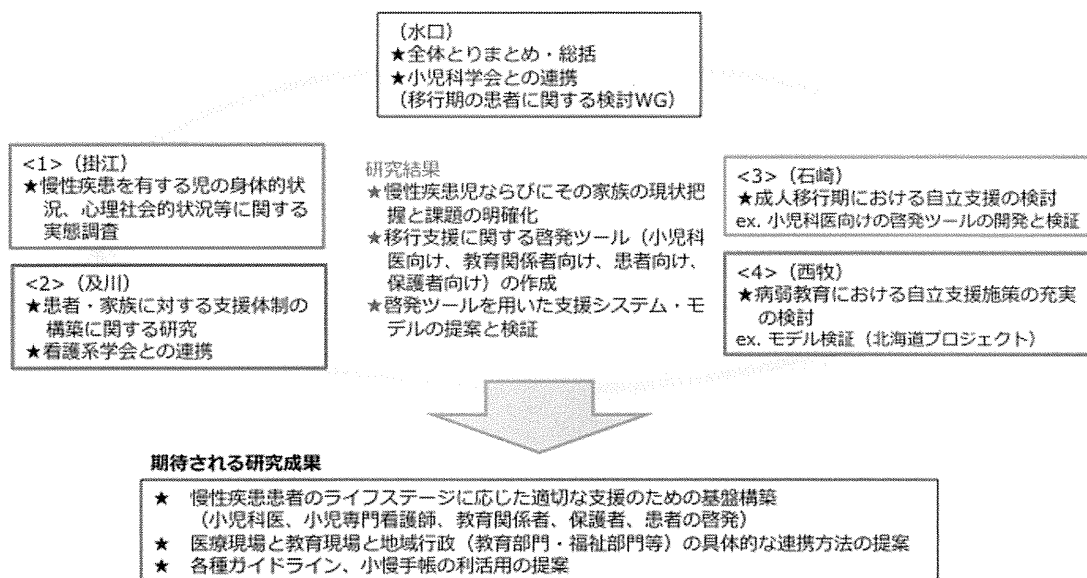
Pattara K, Thongprachum A, 高梨さやか,
沖津祥子, 水口雅, 早川智, 牛島廣治.
Multiple astrovirus MLB1, MLB2, VA2,
and classic human astrovirus clades in
children with acute gastroenteritis in
Japan. 第11回日本小児消化管感染症研究
会, 大阪, 2015年2月7日

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

**「慢性疾患を有する児の社会生活支援や療養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」**



目標：慢性疾患を有する児の健全育成、円滑な社会参加の促進

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 臨床研究開発センター
生命倫理研究室 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を明らかにするため、北海道地区にて大規模横断的調査を計画・実施することとした。北海道地域の3つの医科大学（北海道大学医学部、札幌医科大学、旭川医科大学）ならびにその関連病院を主たる研究協力機関として、平成26年12月2日より約4ヶ月の調査を開始した。

調査手順は、担当医よりから患者（8歳以上22歳以下）及びその家族に調査依頼文書を用いて調査への協力を依頼、患者及びその家族が自由意思に基づき Web サイトにアクセスし、アンケートに回答する。また、アンケート調査に回答後、さらにインタビュー調査の協力の依頼ページからインタビュー調査への協力意思を示した20歳以上の患者もしくは患者家族に対しては、後日電話によるインタビューを行う。

本年度の北海道調査の方法論や調査手順を踏まえ、次年度（最終年度）の全国横断調査の実施に向けて、研究計画の策定を進めているところである。

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）
森崎 菜穂（国立成育医療研究センター研究所）
森 臨太郎（国立成育医療研究センター研究所）
有賀 正（北海道大学医学部小児科学講座）
柳生 一自（北海道大学医学部児童思春期精神医学講座）
鎌崎 穂高（札幌医科大学医学部小児科学講座）
竹内 孝子（札幌医科大学医学部小児科学講座）
東 寛（旭川医科大学小児科学講座）
棚橋 祐典（旭川医科大学小児科学講座）
鈴木 信寛（北海道立子ども総合医療・療育センター）
續 晶子（北海道立子ども総合医療・療育センター）

A. 研究目的

慢性疾患を有する子どもの心理・社会的問題が着目されるようになったのは1990年頃からであり、当初は生活の質（QOL）を検討する研究が多くみられたが、近年は well-being としてより広い包括的な概念枠組みを用いて検討する研究が増えてきている。well-being という言葉は WHO 憲章の前文でも用いられ、本邦では「満足のいく状態、安寧、幸福」と訳されている。Well-being を検討する際の具体的な内容としては、精神的、身体的、社会的側面とされており、個人の状況に加え、家族やコミュニティといった周囲の他者との関係性等も

含め検討される。

わが国でも育成医療における重要な課題として、慢性疾患を有する子どもたちの包括的支援が挙げられ、特に医学的支援のみならず社会的支援の提供状況や、子ども期のみならず成人期への移行（transition）の問題も近年指摘されている。慢性疾患を有する児には、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、制度を超えた全体像の把握ができていない。疾患別のQOL研究では、病気による生活・運動の制限や感情の妨げがQOLを下げること⁽¹⁾、患児への精神的支援の必要性^(2, 3)などが報告される一方で、疾患を特定しない慢性疾患を有する児の包括的なwell-beingについての大規模な調査研究は過去にない。

そこで、本研究分担班では、慢性疾患を有する児とその家族が現在どのような支援を受けているのか、医療サービスおよび社会支援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、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明らかにするため、大規模横断的調査を北海道地区にて計画することとした。

北海道地区の小児慢性特定疾患治療研究事業による医療費助成を受けている登録患者数は年間3,868人（平成25年度）である。現在、複数の医療圏を定める都道府県としては北海道と長野県があるが、北海道はその広域性ゆえ、6圏域の第三次医療圏を有する。これらの条件により、北海道は、全国に先駆けて大規模横断的実態調査を行う地域として適していると判断した。

B. 研究方法

1. 研究協力施設の選定方法

調査の対象は、平成25年度に北海道小児慢

性特定疾患事業の対象患者の医療意見書を作成したことのある医療機関146施設を選定し、本調査への協力を求めた。また、北海道小児科医会および札幌市小児科医会の所属医療機関にも協力を求め、本研究の対象患者の診療を行っている医療機関のうち、本調査への協力に同意くださった医療機関を研究協力施設とした。（資料1を参照）

なお、北海道地域の3つの医科大学（北海道大学医学部、札幌医科大学、旭川医科大学）ならびにその関連病院の患者で、本研究の対象患者の約9割を捕捉できると推察される。（資料2を参照）

2. 研究対象者の選定方法

研究対象者の上記研究協力施設を受診している患者のうち、以下のクライテリアを満たす者とその保護者とした。

<対象患児>

【選択基準】

- ・北海道に居住している8歳以上22歳以下（調査実施時）の者
- ・慢性（6ヶ月以上）の経過をたどる疾患（慢性疾患）に罹患している者
- ・慢性疾患を18歳以下で発症した者
- ・慢性疾患による3ヶ月に1回以上、医療機関を受診する者
- ・自記式調査に回答する場合は、患者本人より調査協力に対する同意（未成年者の場合にはアセント）が得られる者

【除外基準】

- ・調査に回答することが困難な知的障がいや有する者（本人を対象とした自記式調査からのみ除外とし、保護者*1については実態調査の対象とする）

<保護者>

【選択基準】

- ・上記対象患児の選択基準を満たす者の保護者*1)
- ・上記対象患児の選択基準を満たす者のうち、調査に回答することが困難な知的障がい等を有する者で、本人を対象とした自記式調査の対象から除外されている患児の保護者*1)
- ・保護者本人より調査協力に対する自発的な同意が得られる者

*1) 保護者の定義：本調査では、日常のケアに当たっている家族（できれば親権者）とし、1患児に対して1人を想定した。

【除外基準】

- ・調査に回答することが困難な状況にあると担当医師が判断した者

3. 研究対象者数（推定）

調査の対象は、北海道地区で慢性疾患（6ヶ月以上）を有する8歳以上18歳以下の児とその保護者を主たる対象と予定した。前述の通り、北海等地区の小児慢性特定疾患治療研究事業による医療費助成を受けている登録患者数（8-18歳）は年間2,565人（平成25年度）であり（表1参照）、さらに小児慢性特定疾患治療研究事業の対象とはなっていない慢性疾患を有する児を含めると、本調査の対象者数はおよそ4000人～5000人程度であることが予想される。

なお、19歳以上22歳以下の北海道地区在住で慢性疾患（6ヶ月以上）を有する者については、行政上必要なデータであることから、参考データとして収集する。小児慢性特定疾患治療研究事業における19歳の登録患者数（継続申請者のみ）は年間100人（平成25年度）であり、19歳～22歳の対象者数は100人×4年次分で400人、さらに当該事業の対象となつて

いない慢性疾患患者を含めるとおよそ800人程度であると類推した。

したがって、本調査の全対象者数は、およそ5000人～6000人と推定した。

4. 調査方法

本調査は、横断的調査による広範な実態把握と、任意の協力者に対するインタビュー調査によるより深く掘下げる質的研究の2種類の調査法の組合せにより、より有益な情報を得ることを目指す。

① 自記式質問紙調査（Webアンケート）

北海道地域にて小児の慢性疾患の診療を行っている担当医から、患者ならびにその保護者に直接「調査協力をお願い」（資料3）を手渡して（もしくは郵送して）頂く。

患者ならびにその保護者は自ら調査協力依頼書を読み、本調査研究への協力を同意頂ける場合はWebアンケートにアクセスし、無記名で調査票に回答の上、送信して頂く。

なお、「調査協力をお願い」を郵送する際は、予め電話でその旨お知らせすることとする。

② インタビュー調査（電話インタビュー）

Web調査票の末尾に記載したインタビュー調査へのご協力の依頼文「さらなる調査協力をお願い」を読んで頂き、インタビュー調査について連絡することを承諾頂ける場合は、連絡先を記入欄にご記入頂き、送信して頂く。

連絡先をお知らせくださった患者もしくは患者保護者に対して、「インタビュー調査へのご協力をお願い」（資料4）を郵送した上で、研究者が直接連絡し、改めてインタビュー調査の説明を行い、同意を頂ける場合は、インタビュー調査の日時を調整する。

インタビュー調査は原則として電話インタ

ビューとし、インタビューガイドに沿って聞き取りを行う。

5. 調査手順

事前準備 1

当該調査研究の対象となる患者を診察している医療機関において、研究への協力についての了解を得、必要に応じて倫理委員会等の審査・承認を得る。

第 0 ステップ

調査期間の 4 ヶ月間に外来受診した患者に対し、担当医より、当該研究の説明と調査協力について記載された用紙「調査協力をお願い」を患者ならびに保護者に対して渡してもらう。(その際、患者の研究 ID に対して、依頼日、診断病名を記録する。)

第 1 ステップ

研究対象者(患者ならびにその保護者)が自ら説明用紙を読み、研究への協力を検討する。

第 2 ステップ

研究へ協力することに同意した対象者は、配布用紙に記載されている URL/QR コードにアクセスし、web 調査票の開始画面に ID パスワードを入力して質問画面に進み、回答する。途中で回答内容を保存し、再開することもできる。(原則として回答をもって同意を得たものと見なす。)

第 3 ステップ

国立成育医療研究センター研究所にて、送信された調査データを解析する。

第 4 ステップ

インタビュー調査のための連絡先を送信した研究対象者に対して、「インタビュー調査へのご協力をお願い」を郵送した上で、研究者が直接連絡し、改めてインタビュー

調査の説明を行い、同意を頂ける場合は、インタビュー調査の日時を調整する。

第 5 ステップ

国立成育医療研究センター研究所から研究対象者に電話をかけ、インタビューガイドに沿って聞き取りを行う。

6. 調査質問紙の種類

当該調査では、対象者が受診のため来院した際に以下の調査票を web 上で回答するための URL/QR コードおよび ID パスワードが記載された用紙を各対象者へ配布し、回答を求める。(調査票の組合せは表 2 を参照)

【慢性疾患を有する患者・保護者用】

- ・DISABKIDS Chronic Generic Measure 日本語版 (慢性の病気をもつ子どものための調査票)
- ・PedsQL 日本語版 (子どもの健康関連 QOL 尺度)
- ・DSRSC 日本語版 (抑うつ尺度)
- ・CES-D 日本語版 (抑うつ尺度)
- ・SF-8 日本語版 (健康関連 QOL 尺度)
- ・その他の質問項目 (基本情報、身体的・社会的状況、人間関係、医療・社会的支援、社会参加と適応を含む)

7. 医療情報の種類

当該調査では、担当医が対象者に当該調査のお願いを渡す際に、対象者の研究 ID と診断名情報を控え、国立成育医療研究センターに送付することとする。これは、わが国の小児医療の臨床現場において、患者ならびに保護者が正確に児の診断名を回答できない事例が多々あることが、事前のヒアリングにおいて明らかとなっていることに対する対応である。

8. 結果の解析

委託業者が保守管理しているサーバーより CSV 形式で調査データをダウンロードし、統計解析ソフトで解析を行う。本解析においては、記述統計および尺度の相関係数を検討する。

【主な解析計画】

①記述統計

DISABKIDS Chronic Generic Measure、PedsQL、DSRSC、CES-D、SF-8 の平均値、標準偏差、パーセント、最小値、最大値、四分位等を算出する。

基本情報の項目は、回答者の属性別(続柄、性別、年齢、最終学歴、婚姻状況)、子どもの属性別(年齢、性別、身長、体重、国籍)、家族の属性別(同居者、兄弟の人数)、両親の就労状況(正規、非正規、無職)、世帯の生計者(母親、父親、祖母、祖父、その他)、世帯収入合計別に割合を記述する。身体的・社会的状況(21項目)、人間関係(6項目)、医療・社会的支援(8項目)、社会参加と適応(13項目)に関しては、回答別に集計し、割合を記述する。

②分散分析

回答者の属性、子どもの属性を独立変数、QOL、抑うつ各尺度の総合計点数を従属変数とし、1 要因配置分散分析を行い、群間の平均の差を検定する。

③探索的な解析

DISABKIDS、PedsQL、DSRSC、CES-D、SF-8、その他の項目の得点について Spearman の順位相関係数を算出し、2 変数間の相関を検証する。相関関係のある変数に対し単変量解析を行う。単変量解析にて有意差を認めた項目を独立変数に投入し、QOL の総得点を従属変数として多変量解析を行う。

④インタビュー結果のM-GTAによる質的分析

「現在・今後、生活する上での不安や気になること」等の各インタビュー項目について、修正版グラウンデッド・セオリー・アプローチ法 (Modified Grounded Theory Approach; M-GTA) を用いて分析する。

①～③については、統計解析ソフト SPSS Statistics 21、④の分析には Nvivo10を使用する。

4. 研究期間

調査実施期間は、2014年12月～2015年4月を予定。

(倫理面への配慮)

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14年6月17日策定、平成25年4月1日一部改正)を遵守し、対象者の人権保護を徹底して実施する。

具体的には、対象者への説明は、別添の説明文書兼web調査の案内文書を用いて行い、本研究の意義ならびに方法を理解してもらう。本研究への協力は、書面による同意は受けず、自由意思にて調査票に回答いただくものとするため、回答の送信をもって同意が得られたものとする。回答をweb上で送信した後は、どの回答が誰のものであるかわからないため、同意を撤回、ならびに回答いただいた内容を廃棄することはできない旨を事前に周知する。

インタビュー調査については、調査への協力量意をもつ方に連絡先をお知らせ頂くのではあるが、インタビュー調査の際に改めて口頭で同意の確認を行い、任意性を担保する。なお、連絡先として個人情報を保有していることから、同意の撤回の申し出があった場合は、速やかに調査を中止し、個人情報の廃棄を行う。

なお、本研究については、独立行政法人国立成育医療研究センター倫理委員会による審査を受け、機関の長の承認を受けて実施している

(受付番号: 817, 平成26年10月2日承認)。また、共同研究者の所属である北海道大学病院、札幌医科大学病院、旭川医科大学病院においても、倫理審査を経る等して機関の長の承認を受けている。

C. 研究結果と考察

本調査は、協力施設内の倫理審査や関連病院の医師への周知などを経て、平成26年12月2日より調査を開始した。平成27年2月4日現在、932件（保護者ならびに患者の回答総数）の回答を得ている。研究協力施設及び患者・家族からは、研究事務局に対して、Web調査のサイトへのアクセス方法等の問い合わせはあるものの、深刻な苦情や有害事象等の報告は受けていないため、調査自体は順調に進んでいると言える。一方で、推定対象者（患者）数から見ると、現在までの回答数は1/10程度に留まっている。改めて、協力施設の医師に本調査の意義と重要性をご理解頂くことが、より多くの対象者から回答を得るために必要であり、研究事務局としての役割である。

D. 結論

現在進めている北海道地域での大規模横断的調査について、残りの調査期間により多くの患者ならびにその保護者の回答が得られるよう努めると共に、本年度の北海道調査の方法論や調査手順を踏まえ、最終年度の全国横断調査

の実施に向けて、研究計画の策定を進めているところである。

参考文献

- (1) Self-reported assessment of health-related quality of life in children who underwent restorative proctocolectomy with ileal J-pouch anal anastomosis for ulcerative colitis (Uchida et al. 2013)
- (2) QOL in children with juvenile idiopathic arthritis (JIA) treated with biologic agents- a nation-wide survey by using PedsQL (Osako et al. 2013)
- (3) Cancer-specific health-related quality of life in children with brain tumors (Sato et al. 2013)

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

資料 1. 研究協力施設

(順不同)

北海道大学病院
市立札幌病院
釧路赤十字病院
北見赤十字病院
函館五稜郭病院
JA 北海道厚生連 帯広厚生病院
医療法人溪仁会 手稲溪仁会病院
社会医療法人北楡会 札幌北楡病院
医療法人 王子総合病院
市立千歳市民病院
社会医療法人母恋 天使病院
社会福祉法人函館厚生院 函館中央病院
江別市立病院
社会福祉法人北海道社会事業協会 帯広病院 (帯広協会病院)
市立旭川病院
KKR 札幌医療センター
JA 北海道厚生連 札幌厚生病院
社会医療法人母恋 日鋼記念病院
独立行政法人地域医療機能推進機構 北海道病院 (北海道社会保険病院)
町立中標津病院
独立行政法人国立病院機構 北海道がんセンター
財団法人小児愛育協会附属 愛育病院
JA 北海道厚生連 倶知安厚生病院
市立美唄病院
市立小樽病院
社会福祉法人 楡の会こどもクリニック
北海道医療大学病院
札幌医科大学附属病院
北海道立子ども総合医療・療育センター
NTT 東日本 札幌病院
独立行政法人国立病院機構 北海道医療センター
苫小牧市立病院
市立釧路総合病院
社会医療法人 製鉄記念室蘭病院
岩見沢市立総合病院
滝川市立病院
市立函館病院