

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 国立研究開発法人国立成育医療研究センター臨床研究開発センター
生命倫理研究室長 / 小児慢性特定疾病情報室長

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等を踏まえ、調査コンテンツ（質問項目）の検討、子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー、サンプリング等に関する検討、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行った。以上の検討を踏まえ、全国調査に先立ち北海道地域を対象とし、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 web 調査にて実施し、道内 87 施設の協力を得て、患児と保護者計 1376 名（回答率 45.2%）から回答を得た。さらに、インタビュー調査への更なる同意が得られた対象者に対して電話インタビューによる質的調査を実施し、慢性疾患を有する児とその保護者のおかれた状況等について明らかにした。

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 政策科学研究部 研究員
今井希依 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 研究員
須藤茉衣子 津田塾大学大学院国際学研究科博士課程
竹原健二 国立成育医療研究センター研究所 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 社会医学研究部 ライフコース疫学研究室 室長
大西香世 国立成育医療研究センター研究所 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 政策科学研究部 研究司書
大田えりか 国立成育医療研究センター研究所 政策開発研究室 室長
森 臨太郎 国立成育医療研究センター研究所 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。

平成 25 年度は、次年度以降の横断調査を実施するための事前研究として、調査コンテンツ(質問項目)の検討、子どもの well-being に関する尺度の系統的文献レビュー、サンプリング等に関する検討、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(DISABKIDS)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。

平成 26 年度は、前年度に引き続き、DISABKIDS 日本語版の validation study を実施し、さらに前年度までの知見を踏まえ、大規模横断調査のプロトコルの作成と、調査協力施設の確保と各施設での倫理審査・承認を受けることを目的とした。

平成 27 年度は、大規模横断調査として、北海道地域を対象とし、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 web 調査にて実施し、さらにインタビュー調査への更なる同意が得られた対象者に対して電話インタビューによる質的調査を実施し、慢性疾患を有する児とその保護者のおかれた状況等について明らかにすることを目的とした。

B. 研究方法

研究 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、対象疾患を有す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、先行研究の検討結果に基づいて Well-being 構成領域（a. 身体・社会的状況、b. 公的支援、c. 医療支援、d. 精神的状況・幸福感、e. 行動と生活様式、f. 社会参加と適応、g. 人間関係）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。

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、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 子ども (children) と青年 (adolescence) の well-being を測っているもの、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ービューおよびサマリー、とした。一方、除外基準としては、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、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 'thriv$' OR  
'flourish$' OR 'pleasure' OR 'joy' OR 'life  
ADJ1 satisfaction' OR 'satisfaction ADJ1  
with ADJ1 life' OR 'strength$' OR  
'blessing$' OR 'virtue$' OR 'good ADJ1 life'  
OR 'fulfilment' OR 'eudaimonia' OR  
'eudaemonia' OR 'hedonism' OR 'coping' OR  
'spiritual' OR 'comfort') AND ('adolescenc$'  
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。

上記の10本の論文を精読し、AMSTAR (AMSTAR に関しては、Beverley 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: サンプリング等についての検討

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。

研究5: 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順としては、Forward translation (2 名の翻訳者による独立した日本語版試訳の作成)、Re-conciliation of items (各項目の照合)、Back translation (日本語訳を更に英訳)、Review of the Forward and Backward Translation (順翻訳および逆翻訳の再検討)、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)、Pre-test (日本語訳の表現の適切性等を検討)、Inter-national harmonization (国際的調整)、Validation study (日本の対象集団でのデータを集積)、結果を解析・評価し report する。

DISABKIDS 日本語版開発のための pre-test および validation study を、国立成育医療研究センターにおいて計画し、プロトコルを作成、倫理審査委員会の審査・承認を得て実施した。

研究 6: 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

本調査は、横断的調査による広範な実態把握と、任意の調査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した。なお、調査の対象は、北海道

地域で慢性疾患 (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した。

6-1. web 調査

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 (研究協力施設の医師) から、患者ならびにその保護者に直接「調査協力をお願い」を手渡して (もしくは郵送して) 頂いた。

患者ならびにその保護者は自ら Web 調査への協力依頼書を読み、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、同意のチェック欄にチェックを入れた上で、無記名で Web 上の調査票に回答し、送信して頂いた。

6-2. インタビュー調査

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、送信して頂いた。

連絡先をお知らせくださった患者もしくはその保護者に対して、「インタビュー調査へのご協力をお願い」(資料 4) を改めて郵送した上で、研究者が直接連絡し、再度インタビュー調査についての説明を行い、協力について同意を頂ける場合は、インタビュー調査の日時を調整し、インタビュー調査を行った。

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半構造化面接法を用いて、聞き取りを行った。

(倫理面への配慮)

研究 5 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、国

立成育医療研究センター倫理審査委員会の審査、承認（受付番号 734 および 750）を得た上で、対象者の人権保護を徹底して実施した。研究 6 についても、同様に上記指針に従い、国立成育医療研究センター倫理審査委員会（受付番号 817）、ならびに北海道大学、札幌医科大学、旭川医科大学の倫理審査委員会において審査、承認を得た上で、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する。

C. 研究結果と考察

研究 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 DSRSC (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に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。

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 AMSTAR 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) サンプリング方法の比較

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、そのサンプリング方法には主に下記の方法がある。

全数調査

単純無作為抽出法

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。

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。

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。

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。

研究 5: 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

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、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、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、これらのデータを踏まえて、DISABKIDS 日本語版が完成した。

研究 6: 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

本調査は、横断的調査による広範な実態把握と、任意の調査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した。なお、調査の対象は、北海道地域で慢性疾患(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した。

6-1. web 調査

本調査の有効回答数は1376名で、内訳は、保護者:752名、8-18歳の患者:539名(内、親とペア135名)、19-22歳の患者:85名(内、親とペア21名)であった。協力世帯数(保護者とのペアによる重複分を除く)回答数は1220名(回答率45.2%)であった。

保護者に対する調査の結果からは、慢性疾患を有する児を育てている家庭では、ひとり親家庭の割合が高く、ひとり親家庭では一般家庭に比べ収入が低いことが明らかとなった。また、公的サービスの利用状況は、小児慢性特定疾病医療費給付が最も多く、重度心身障がい者医療費助成、子ども医療費助成(乳幼児等医療給付を含む)が次いで多かった。いずれの公的サービスも利用していない患者が一定数いることが分かった。現在、利用している相談支援は、療育相談支援事業が最も多く、次いで療養生活支援事業(小慢児童等の日中における居場所の提供。レスパイト事業等)、巡回相談指導事業、自立に向けた育成相談であった。他方、大多数が現段階では相談支援等を利用していないことが明らかになった。

社会的支援については、地域にショートステイのサービスが有るか否かについては、あるとの回答が25%であり、ないという回答は約10%、分からないという回答が約65%であった。地域にショートステイサービスが有ると回答した者のうち、ショートステイの利用経験があると回答したのは約9%であり、利用率が低いことが明らかとなった。

保護者(回答者)のQOLについて、SF-8(健

康関連QOL尺度)を用いて測定した結果は、全体的健康感、身体機能、日常役割機能(身体)、体の痛み、活力、社会生活機能、心の健康、日常役割機能(精神)の8つの概念いずれにおいても、日本国民標準値と比較して大きな差はみられなかった。

8-18歳のこども(患児)に対する調査では、主に本人による自己評価が不可欠であるQOL等の質問項目を中心に回答を求めた。結果としては、DISABKIDS-37の北海道調査(N=520)と欧州調査(8-16歳、N=1152)を比較すると、社会的孤立・社会的一体性がやや低いものの、その他の下位尺度はほぼ同スコアであった。また、PedsQL-4.0についても、健康な日本人スコアと比較して、全体的健康観は大きな差は見られなかった。抑うつに関する結果は、DSRCを用いた8-14歳の抑うつについては、カットオフ値を16に定めた場合、健康な中学生よりも抑うつの割合は少なかった。CES-Dによる15-18歳の抑うつについては、健康な高校生の平均値よりも低かった。これらの結果から、小児の慢性疾患に罹患し通院治療を受けている患者全体としては、QOLの低下や抑うつスコアの悪化は認めなかった。

19-22歳の患者に対する調査の結果としては、修学ならびに就労状況としては、短大に通っている(10.6%)、大学に通っている(36.4%)、訓練所/職場に通っている(53.0%)であった。

将来について強く不安を感じていることはあるかの問い(複数回答可)には、進学について:とても不安がある(8.5%)、少し不安がある(23.7%)、あまり不安がない(15.3%)、全く不安がない(52.5%)、就職について:とても不安がある(36.4%)、少し不安がある(32.5%)、あまり不安がない(13.0%)、全く不安がない(18.2%)であった。

次に学校や職場との関係についてであるが、

学校または職場の理解については、約3割以上が教師や上司の無理解に苦しんだことがあると回答した。また、学校や訓練所等の職場の連携が悪く、不快な思いをしたことがあるかという質問に対しては、約2割があると回答した。学校や職場の連携について課題があることが示唆された。

19-22歳患者のQOLについては、SF-8(成人用)とPedsQL(18-25歳用)を用いて測定した結果であるが、SF-8の結果については、20-29歳の日本国民標準値と比較したが、いずれの概念においても大きな差は見られなかった。PedsQLでは健常日本人データがないため比較はできなかったが、スコアとして異常な値は示されなかった。これらの結果から、小児の慢性疾患に罹患し通院治療を受けている19歳から22歳の患者全体としては、QOLの低下は認めなかった。

6-2. インタビュー調査

本調査への参加同意が得られた者166名のうち、全介助の基準を満たした者が18名、そのうち、辞退や電話が通じない者6名を除く12名からデータが得られた。全介助を要する児の保護者からは、【認知される安心感】、【サービス提供における柔軟な対応】、【子どもにとってより良い環境】を望んでいることが明らかとなった。また、生活する上で【精神的な負担】を感じていることが明らかとなった。

一方、本調査への参加同意が得られた者166名のうち、半介助の定義を満たしたのは49名を対象にインタビュー調査を実施し、理論的飽和となった20名のデータを解析した。その結果、半介助を要する児の保護者は、【将来への不安】を抱いており、行政や地域の人々に【設備・サービスの充実】や【病気や(母親が抱えている)問題への理解】を求めている。また、【学校・施設との関係性】をよりよく保ち、【子

どもの成長】を促すためには、【母親自身の状態・行動】を安定させる必要もあることが明らかとなった。

D. 結論

研究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。

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、physical、psychological、cognitive、social、economicが重要であるということが明らかになった。とりわけ、socialは社会的な観点からのみの指標であるが、psychological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、cognitive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反映させている。

研究3: サンプリングの検討

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、本サンプリ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児(小児慢性特定疾患事業の登録患児など)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。

本研究においては、社会的支援の状況が地域(自治体)によって異なることが推測されることから、同じ社会支援制度を採用している大きな地域を対象とすることが必要であることから、北海道地域を対象とし、上記サンプリング方法を踏まえて、研究を実施することとした。なお、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ることを確認した。

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

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。

研究 5: 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 日本語版の開発が完了したことから、大規模横断調査の調査に DISABKIDS 日本語版を、慢性疾患を有する児の well-being の評価尺度として加えることができた。

研究 6: 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

本研究は、研究 1~5 を踏まえて、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として実施された。研究結果より、慢性疾患を有する患児ならびにその保護者について、全体として集計した場合には、いずれの対象群においても QOL の有意な低下や抑うつ等の増加等の結果は見られなかった。他方、保護者では、将来不安や日常的なストレスを抱えている者が少なからずいることが明らかになった。また、慢性疾患を有する子どもを育てる家庭は、一般に比べ約 2 倍の割合でひとり親家庭となっており、経済的にも苦しい状況におかれている家庭の割合が高いことも明らかになった。

医療的支援、福祉的支援については、今回の調査の対象となった慢性疾患を有する患児の家庭においては、ある程度行き渡っている印象を得た。一方、社会的支援、心理的サポート等については、調査を実施したタイミングでは、まだ十分に支援制度が整備されていなかった可能性、ならびに支援制度が整備されていても十分に地域で周知されていなかった可能性を示唆する認知状況であることが伺えた。

新しい小児慢性特定疾病対策が平成 27 年 1 月 1 日より開始され、自立支援事業において慢性疾患を有する児とその家族に対する様々な支援が検討されているところであると推察されることから、本調査で得られた結果をさらに詳細分析を行ない、北海道地域の実施主体ならびに医療関係者にフィードバックして、患児ならびに家族のための包括的な支援体制の整備

に役立てたいと考える。

また、北海道地域のみならず、引き続き全国の様々な地域での実態調査を実施し、患児家族のトータルベネフィットを踏まえた包括的な支援の構築に貢献できるよう努めていきたい。

謝辞

本調査研究にご協力くださいました患者さまならびにその保護者の皆様、協力医療機関の先生方に、心より感謝申し上げます。

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, Nessler 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.
 - 20) Uchida K et al. Self-reported assessment of health-related quality of life in children who underwent restorative proctocolectomy with ileal J-pouch anal anastomosis for ulcerative colitis. *Pediatr Surg Int*. 2013 29(3): 287-91.
 - 21) Osako Y et al. Quality of life (QOL) in children with juvenile idiopathic arthritis (JIA) treated with biologic agents- a nation-wide survey by using Pediatric Quality of Live Inventory 4.0 Generic Core Scales (PedsQL). ICN 25th Quadrennial Congress 2013.
 - 22) Sato I et al. Cancer-specific health-related quality of life in children with brain tumors. *Qual Life Res*. 2014 23(4): 1059-68.
 - 23) 福原俊一, 鈴鴨よしみ編著. SF-8 日本語版マニュアル: 健康関連 QOL 尺度. 健康医療評価研究機構, 2004. 10.
 - 24) Kobayashi K, Kamibeppu K. Measuring quality of life in Japanese children: Development of the Japanese version of PedsQL. *Pediatrics International*. 2010; 52: 80-8.
 - 25) 渡邊タミ子ほか. 中学生の抑うつ状態におけるコーピングとソーシャルサポートに関する研究: 市部と郡部との比較. *山梨大学看護学会誌*. 2009 8(1):37-42.
 - 26) 高倉 実. 思春期用日常生活ストレスサー尺度の試作 平成9年度~11年度文部科学省科学研究費補助金基盤研究(C) 思春期集団における抑うつ症状と心理社会的要因の関連」研究成果報告書. 2000 55-67.
 - 27) 大脇百合子, 内田雅代, 竹内幸江, 他. 慢性疾患や障がいをもつ子どもの家族とのパートナーシップ形成に向けた看護職者の関わりに関する研究 市町村および

県・中核市保健所における保健師を対象とした調査 . 日本小児看護学会誌 2009 ; 18 : 3 : 18-26.

- 28) 厚生労働省 . 平成 17 年度知的障害児(者) 基礎調査結果の概要

<http://www.mhlw.go.jp/toukei/saikin/hw/titeki/> (2016 年 1 月 25 日アクセス)

- 29) 前田浩利 , 医療依存度の高い小児および若年成人の重度心身障がい者への在宅医療における訪問看護師、理学療法士、訪問介護員の標準的支援技術の確立とその育成プログラム作成のための研究 . 平成 23 年

度厚生労働科学研究費補助金(障害者対策 総合研究事業 総括報告書, 7-20.

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

