

厚生労働省科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業））  
分担研究報告書

小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の発展に資する研究

小児期にある慢性心疾患患者の年代別の不安・困りごとと支援の課題に関する研究

分担研究者	落合 亮太	横浜市立大学 医学部看護学科 准教授
研究協力者	一般社団法人	全国心臓病の子どもを守る会
	城戸 貴史	静岡県立こども病院 ソーシャルワーカー
主任研究者	檜垣 高史	愛媛大学大学院 地域小児・周産期学講座 教授

研究要旨

【目的】小児慢性特定疾病の一疾患群にあたる先天性心疾患患者の年代別の不安・困りごとと支援の課題を明らかにすること。

【方法】先天性心疾患患者の保護者と本人を会員とする全国心臓病の子どもを守る会（以下、守る会）が実施した「生活アンケート」調査のうち、18歳未満の患者データの単純集計結果の提供を受けた。研究班として対象者の治療状況の分類、年代別の比較方法、不安・困りごとに関する自由記述の分析方法について提案を行い、また、結果全体の妥当性について医療専門職の立場から監修を行った。なお、生活アンケート調査は守る会会員を対象とした郵送式の自記式質問紙調査である。

【結果】対象者458名の年齢は0-6歳149名(32.5%)、7-12歳176名(38.4%)、13-15歳64名(14.0%)、16-17歳60名(13.1%)であった。治療状況はフォンタン術後157名(34.3%)、最終修復術後193名(42.1%)、未修復44名(9.6%)などであった。身体障害者手帳の取得率は10代から60代の各年代で45-78%であった。定期通院している428名(93.4%)のうち、主として通院する病院の他にも通院している病院がある者は106名(24.8%)、主として通院する病院が居住地県外にある者は109名(27.3%)であった。通院で利用する医療費助成は小児慢性特定疾病医療費助成262名(61.2%)、重度障害者医療費助成59名(13.8%)、難病医療費助成64名(14.6%)であった。0-6歳の対象者149名中、保育園・幼稚園・認定こども園に就園している者は89名(59.7%)で、うち24名(27.0%)が過去に入園を断られた経験を有していた。7-12歳の対象者176名の通学先は、通常学級118名(67.0%)、特別支援学級44名(25.0%)、特別支援学校6名(3.4%)であった。133名(75.6%)が就学時相談を行っており、163名(92.6%)が学校生活管理指導表を提出していた。学校へ保護者が付き添っている者の割合は、小学生38.1%、中学生32.7%、高校生15.8%で、うち9割以上は母親が付き添っていた。テキストマイニングを用いた自由記述データの年代別分析では各年代の特徴語として、0-3歳では「幼稚園」「保育園」「2人目」「育休中」、4-6歳では「小学校」「入学」「どのくらい」「特別」、7-12歳では「高校」「中学」「学校」「担任」「勉強」「進路」、13-15歳では「学習」「指導」「期待する(否定形)」「走る」「高校」「公立」「私立」、16-17歳では「以降」「志望」「修学旅行」「大学」「保育士」「目指す」などが抽出された。

【結論】入園を断られる患者が一定数存在すること、就学時相談を行なっている者が多いことが示された。また、年代別の特徴として、0-3歳では特に就園や保護者の就労、4-6歳では就学、7-12歳および13-15歳では学習や進路、16-17歳では高校卒業後の進路や将来の就労などが示された。小児慢性特定疾病児童等自立支援事業においては、就園支援、就学・学習支援が必要と考えられる。個別性が高く、かつ内部障害で見た目からはわからないことの多い小児慢性特定疾病児童の支援においては保護者、幼児教育・学校関係者などにとっても初めての経験となることがある。個々の児童にとってその時点その地域で最善の対応を検討できるよう、関係者同士の顔の見える関係作りを促すことが自立支援員には求められる。

## A. 研究目的

平成 27 年 1 月より都道府県、指定都市、中核市は小児慢性特定疾病児童等(以下、小慢児童)の将来の自立にむけ、小児慢性特定疾病児童等自立支援員(以下、自立支援員)を配置する等して、「相談支援」「療養生活支援」「相互交流支援」「就職支援」「介護者支援」「その他自立支援」で構成される小児慢性特定疾病児童等自立支援事業(以下、自立支援事業)を実施している。

フォロー四徴症に代表される先天性心疾患は、小慢 16 疾患群の一つである「慢性心疾患」に相当し、756 の告示疾病のうち 66 疾病を占める。近年、先天性心疾患患者の 9 割以上は成人期を迎え、成人期に達した先天性心疾患(以下、成人先天性心疾患)患者は国内で約 50 万人、年間 9 千人の増加が見込まれ、将来、全人口の 1%近くに達する可能性がある。成人患者の増加に伴い、先天性心疾患領域でも自立支援の重要性が増している。

全国心臓病の子どもを守る会(以下、守る会)は、先天性心疾患患者の保護者と本人を会員とする当事者団体である。守る会は 1960 年代に設立され、会員数は 2020 年現在で約 4000 世帯を数える。また、内部組織として 16 歳以上の患者本人からなる全国心臓病友の会がある。守る会は約 5 年ごとに会員世帯を対象に「生活アンケート」を実施しており、過去の調査結果の一部は学術雑誌に論文として掲載されている(1, 2)。患者団体の調査は医療専門職が実施する調査よりも当事者目線で実施されるものであり、患者の生活実態を詳細に把握できている可能性がある。そこで、本研究では守る会が 2018 年に実施した「生活アンケート」のうち、18 歳未満の患者データの単純集計結果について守る会から提供を受け、研究班が対象者の治療状況の分類、年代別の比較方法、不安・困りごとに関する自由記述の分析方法について提案を行い、また、結果全体の妥当性について医療専門職の立場から監修を行った。

## B. 研究方法

### 1. 研究デザイン

生活アンケート調査は自記式質問紙を用いた郵送法による横断研究である。

### 2. 調査対象

本研究は、先天性心疾患患者の保護者と本人を会員とする全国心臓病の子どもを守る会から提供を受けた「生活アンケート」調査の結果を対象とした。同調査では利用できる社会福祉制度の違いを考慮して、18 歳未満の患者用と 18 歳以上の患者用の 2 種類の調査を実施したが、本研究では、18 歳未満の患者データを分析対象とした。

対象者の適格基準は、調査を実施した 2018 年 7 月時点で全国心臓病の子どもを守る会およびその内部組織である全国心臓病の友の会会員 3774 世帯のうち、18 歳未満、かつ調査への参加に同意した者を対象とした。質問紙への回答は原則として保護者に依頼した。

### 3. 調査方法

守る会事務局より、各支部へ調査票を郵送し、各支部が適格基準を満たす所属会員宛に調査票を郵送した。調査票の回収は郵送にて行った。調査期間は 2018 年 7 月～2018 年 9 月であった。

### 4. 調査内容

自記式質問紙を用いて、下記の項目を尋ねた。

- 1) 対象者基礎情報: 患者本人および保護者の年齢、心疾患名、手術歴、術式、一般状態区分、チアノーゼの有無、通院頻度など
- 2) 福祉制度の利用状況: 障害者手帳の有無と級数、療育手帳の有無と種別、特別児童扶養手当受給状況など
- 3) 未就学児の就園状況: 就園状況、就園決定への障壁など
- 4) 学校生活: 小学校、中学校、高校などへの付き添い状況など
- 5) 現在困っていること、将来への不安に関する自由記述

### 5. 分析方法

各調査項目について、記述統計量を算出した。対象者の治療状況は研究班で協議の上、「フォンタン術後」「最終(二心室)修復術後」「未修復」「経過観察のみ」「心筋症」「不整脈疾患」に分類した。対象者の年代は学齢期を考慮して「0-3 歳」「4-6 歳」「7-12 歳」「13-15 歳」「16-17 歳」に分類し、各調査項目の分布を比較した。自由記述データの分析にはテキストマイニングの手法を用い、各年代における単語出現頻度、および特徴語を探索した。統計解析パ

パッケージには SPSS ver.25.0、テキストマイニングには TRUE TELLER を用いた。

## 6. 倫理面への配慮

本研究は、研究班が守る会から単純集計結果の提供を受け、研究班として対象者の治療状況の分類、年代別の比較方法、不安・困りごとに関する自由記述の分析方法について提案を行い、また、結果全体の妥当性について医療専門職の立場から監修を行ったものである。結果の提供は、事務局が支部名や年齢など、個人が特定できる情報をあらかじめ削除あるいはカテゴリカル・データに加工したうえで行った。研究班への監修依頼は守る会理事会の承認を得て行った。

なお、生活アンケート調査における回答は匿名とし、自記式質問紙への回答をもって調査協力への同意とみなした。

## C. 研究結果

研究結果の詳細は 2020 年 6 月に守る会が報告書として刊行予定のため、ここでは概要のみ述べる。

有効回答を得た 458 名の年齢は 0-6 歳 149 名(32.5%)、7-12 歳 176 名(38.4%)、13-15 歳 64 名(14.0%)、16-17 歳 60 名(13.1%)であった。治療状況はフォンタン術後 157 名(34.3%)、最終修復術後 193 名(42.1%)、未修復 44 名(9.6%)などであった。身体障害者手帳の取得率は 10 代から 60 代の各年代で 45-78%であった。

定期通院している 428 名(93.4%)のうち、主として通院する病院の他にも通院している病院がある者は 106 名(24.8%)、主として通院する病院が居住地県外にある者は 109 名(27.3%)であった。通院で利用する医療費助成は小児慢性特定疾病医療費助成 262 名(61.2%)、重度障害者医療費助成 59 名(13.8%)、難病医療費助成 64 名(14.6%)であった。

0-6 歳の対象者 149 名中、保育園・幼稚園・認定こども園に就園している者は 89 名(59.7%)で、うち 24 名(27.0%)が過去に入園を断られた経験を有していた。7-12 歳の対象者 176 名の通学先は、通常学級 118 名(67.0%)、特別支援学級 44 名(25.0%)、特別支援学校 6 名(3.4%)であった。133 名(75.6%)が就学時相談を行っており、163 名(92.6%)が学校生活管理指導表を提出していた。学校へ保護者が付き添っている者の割合は、小学生 38.1%、

中学生 32.7%、高校生 15.8%で、うち 9 割以上は母親が付き添っていた。

テキストマイニングを用いた自由記述データの年代別分析では各年代の特徴語として、0-3 歳では「幼稚園」「保育園」「2 人目」「育休中」、4-6 歳では「小学校」「入学」「どのくらい」「特別」、7-12 歳では「高校」「中学」「学校」「担任」「勉強」「進路」、13-15 歳では「学習」「指導」「期待する(否定形)」「走る」「高校」「公立」「私立」、16-17 歳では「以降」「志望」「修学旅行」「大学」「保育士」「目指す」などが抽出された。

## D. 考察

本研究は患者団体による調査結果を研究班が監修したものであり、当事者目線と医学的客観性を有する貴重な報告と言える。公共事業や政策の意思決定への住民参加を意味する「Public Involvement」の動きはすでにグローバルスタンダードになりつつある。医療分野においても診療ガイドライン作成に患者・市民が参画することが推奨されている。本調査は当事者と医療専門職者が共同して行う調査の好事例となりうる。

本調査で得られた主要な知見は以下である：1. 入園を断られる患者が一定数存在し、小学校入学前には就学時相談を行なっている者が多いこと、2. 年代別の特徴として、0-3 歳では特に就園や保護者の就労、4-6 歳では就学、7-12 歳および 13-15 歳では学習や進路、16-17 歳では高校卒業後の進路や将来の就労などが示唆されたこと。以下、これらの視点から、小児慢性特定疾病児童等自立支援事業に求められる役割について考察する。

### 1. 入園と就学

本研究では保育園・幼稚園・認定こども園に就園している者のうち 27%) が入園を断られた経験を有していた。入園は幼児の社会性の獲得同時に、保護者の就労も可能とする。自由記述でもこの年代の保護者からは「育休中」など、保護者の職場復帰に関する特徴語が抽出されている。小児期は小児慢性特定疾病医療費助成、重度障害者医療費助成が利用可能であり、幼児期は子ども医療費助成を併用することで医療費の負担は小さくすることができる。一方、入院時の付き添い宿泊費、食費、受診のための交通費など、自己負担となる費用もあり、家計の負担となりうる。こ

れら経済的負担がある中で、保護者の就労が困難となることで、世帯の経済状況はさらに圧迫されうる。自立支援員は、就園を幼児の社会参加に加え、世帯の経済的安定の観点からも捉え、地域の関係者と連携しつつ可能な限り円滑な就園を支援する必要がある。その際、就園先の心配事や不安な内容などを把握し、わかりやすく必要な支援や病状を伝えられるよう調整することも重要だろう。

就学については、対象者の76%が就学時相談を実施していた。小学校入学前年度には、各自治体の教育委員会が就学時健診を実施し、就学相談窓口も設置している。さらに必要時には、就学指導委員会で調査や審議を行うこととなっている。これらの機会を通して、保護者は小慢児童の病状や学校で必要となる配慮(体育参加、教室移動、バリアフリー化に関して等)について教育関係者と話し合うこととなっている。必要によって主治医をはじめとした医療者が参加することも可能である。病状によっては、特別支援学級や特別支援学校(養護学校)も検討する。就学時の支援については支援体制が整理されているが、このような体制を知らず不安を感じている保護者も少なくないため、自立支援事業としては必要な情報提供を行うことが必要である。

また、本研究の対象者の93%は学校生活管理指導表を提出していた。一般的に、入学後、運動については主治医が作成する学校生活指導管理表に基づいて、学校と対応を検討する。しかし、服薬方法、在宅酸素、空調管理(先天性心疾患患児は体温管理が難しいことがある)、親の付き添い、介助者・補助員、緊急時対応などについては学校生活管理指導表以外に、個別の調整が必要となる。自立支援員は必要時、保護者や児童、医療者と、教員や同級生、その保護者に対して、だれに、いつ、どこまで、どのように病気のことを伝えるか、相談・調整することが求められる。

## 2. 年代別の特徴語

自由記述の分析結果において、各年代の特徴語として、0-3歳では「幼稚園」「保育園」「2人目」「育休中」、4-6歳では「小学校」「入学」「どのくらい」「特別」が語られていた。これらに対する自立支援事業の役割については前項で述べたとおりである。

小学校入学以降、7-12歳では「高校」「中学」「学校」「担任」「勉強」「進路」、13-15歳では「学習」「指導」「期待する(否定形)」「走る」「高校」「公立」「私立」、16-17歳では「以降」

「志望」「修学旅行」「大学」「保育士」「目指す」などが抽出された。小学校以降では通院のための欠席や入院に伴う長期欠席、疲れやすさなどに伴う学習の遅れや、体育見学に伴う評点の低下など、学習・進学にあたり不利になる点が存在する。これらに対し、全国的ではないものの各自治体、およびNPOなどの支援団体が独自の様々な学習支援を行なっている。自立支援員は地域のこれらの資源を把握し、適応があれば児童および保護者に紹介することが望ましい。

個別性が高く、かつ内部障害で見た目からはわからないことの多い小慢児童の就園・就学学習・キャリア形成の支援は保護者、幼児教育・学校関係者などにとっても経験が少ないことが多い。それぞれの立場により、依って立つ体制、知識・技術を有する分野、考え方が異なるため、個々の児童にとってその時点その地域で最善の対応を検討できるよう、関係者同士の顔の見える関係作りを促すことが自立支援員には求められる。

## 本研究の限界と今後の課題

本調査は守る会会員のみを対象としているため、本研究結果を先天性心疾患患者全体に一般化するのは難しい。しかし、先天性心疾患の当事者の視点から、年代別の不安・困りごとと支援の課題を明確にした点で、本調査は他の小慢疾患における調査事業もモデルとなりうる。今後は医療機関への受診者を対象とした調査や、複数疾患を対象とした調査が必要である。

## E. 結論

入園を断られる患者が一定数存在すること、就学時相談を行なっている者が多いことが示された。また、年代別の特徴として、0-3歳では特に就園や保護者の就労、4-6歳では就学、7-12歳および13-15歳では学習や進路、16-17歳では高校卒業後の進路や将来の就労などが示された。小児慢性特定疾病児童等自立支援事業においては、就園支援、就学・学習支援が必要と考えられる。個別性が高く、かつ内部障害で見た目からはわからないことの多い小慢児童の支援においては保護者、幼児教育・学校関係者などにとっても初めての経験となることがある。個々の児童にとってその時点その地域で最善の対応を検討できるよう、関係者同士の顔の見える関係作りを促すことが自立支

援員には求められる。

#### 謝辞

貴重な調査結果をご提供いただいた全国心臓病の子どもを守る会会員、および関係の皆様  
に厚く御礼申し上げます。

#### F. 健康危険情報

該当せず

#### G. 研究発表

なし

#### H. 知的財産権の出願・登録状況

該当せず

#### 1. 引用文献

1. 落合亮太, 池田幸恭, 賀藤均, 白石公, 一般社団法人全国心臓病の子どもを守る会. 障害者手帳を有する成人先天性心疾患患者の社会的自立と心理的側面の関連. 日本小児循環器学会雑誌. 2012;28(5):20-7.
2. 落合亮太, 檜垣高史, 賀藤均, 秋山直美, 城戸佐知子, 丹羽公一郎, 他. 成人先天性心疾患患者の医療費負担と社会保障制度利用に関する実態調査. 日本成人先天性心疾患学会雑誌. 2015;4(2):55-68.