

小児慢性腎臓病・小児腎領域の難病の全国調査体制の構築
研究分担者 菊永 佳織 東京都福祉保健局医療政策部・医療人材課

研究要旨

【研究目的】

本研究は、小児腎領域の難病を対象として、関連する学会と連携し、1. 学会承認された診断基準・重症度分類の改訂と普及、指定難病や小児慢性特定疾病としての情報収集、診断の手引きや概要等の整備、改定、2. 学会承認のもと作成される、エビデンスに基づいた診療ガイドラインや患者向けガイドの編集、改訂と普及、3. 小児慢性腎臓病コホート(2010年に確立)の継続、4. 全国疫学調査で実態が把握された疾患のコホート構築と予後調査、5. 小児成人期移行医療(トランジション)プログラムの確立を行う。

本分担研究課題では、就学・就労に関する調査の推進、全国実態の把握、臨床上の課題の抽出と共有を行う。また、電子症例報告システム(Electric Data Capture, EDC)を活用した症例レジストリ研究を検討し推進する。

【研究方法】

小児腎領域の難病の就学・就労について、先行研究・関連研究をもとに調査項目を選定し、調査票を作成する。小児慢性腎臓病コホート研究の対象施設に質問紙調査を行う。

EDCシステムを活用した症例レジストリ研究について、使用するEDCシステムを選定し、入力フォーム構築技術を習得する。EDC使用を前提に症例レジストリ研究の研究実施計画書の素案を作成する。

【結果】

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査では、2020年5月時点で81施設から回答を得た。就学相談有8割、就労相談有6割、対応スタッフは、いずれも医師、医療ソーシャルワーカー(MSW)、看護師の順に多く、医師→MSW、看護師、施設内部署→院外施設のフローが多くみられた。院外施設との連携は15%弱であり、自由記載項目として医療者から就労施設への働きかけの必要性、支援体制の整備に関するご助言を頂いた。

EDCシステムについては、Pharma Consulting GroupのViedoc4を選択した。入力フォーム構築等のウェブ講習を受講し、システム構築資格を得た。適応事例の候補として小児慢性特定疾病である小児特発性ネフローゼ症候群の全国調査研究「JP-SHINE study」の継続研究の研究計画書を作成した。

【考察】

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査では、医師、MSW、看護師を中心に対応されているが、院外施設との連携している施設は限られていた。EDCシステムについては、Viedoc4を使用したEDCシステム構築、研究計画書作成が推進された。

【結論】

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査については、症例ごとの具体的事例に基づく課題、疾患特有の課題の抽出と共有を推進する。難病についても同様の検討を進める。

EDCシステムを活用した症例レジストリ研究については、今後、関連研究者と検討を進め、入力システム、研究計画書を更新する。

A. 研究目的

本研究は、小児腎領域の難病を対象として、関連する学会と連携し、1. 学会承認された診断基準・重症度分類の改訂と普及、指定難病や小児慢性特定疾病としての情報収集、診断の手引きや概要等の整備、改定、2. 学会承認のもと作成される、エビデンスに基づいた診療ガイドラインや患者向けガイドの編集、改訂と普及、3. 小児慢性腎臓病コホート(2010年に確立)の

継続、4. 全国疫学調査で実態が把握された疾患のコホート構築と予後調査、5. 小児成人期移行医療(トランジション)プログラムの確立を行う。また、神奈川県と秋田県をモデル地区として研究を実践する。

本分担研究課題では、就学・就労に関する調査の推進、全国実態の把握、臨床上の課題の抽出と共有を行う。また、電子症例報告システム(Electric Data Capture, EDC)を活用した症例レジストリ研究を検討し推進する。

B. 研究方法

小児腎領域の難病の就学・就労について、先行研究・関連研究をもとに調査項目を選定し、調査票を作成する。小児慢性腎臓病コホート研究の対象施設に質問紙調査を行う。

EDC システムを活用した症例レジストリ研究について、使用する EDC システムを選定し、入力フォーム構築技術を習得する。併せて EDC 使用を前提に症例レジストリ研究の研究実施計画書の素案を作成する。

(倫理面への配慮)

研究にあたりヘルシンキ宣言に基づく倫理的原則および医学研究に関する倫理指針を遵守し、個人情報管理を徹底する。中央施設ならびに参加施設の倫理委員会に提出し、倫理審査を行う。

C. 研究結果

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査では、2020年5月時点で81施設から回答を得た。就学相談有8割、就労相談有6割、対応スタッフは、就学・就労いずれも医師、医療ソーシャルワーカー(MSW)、看護師の順に多く、医師→MSW、看護師、施設内部署→院外施設のフローが多くみられた。院外施設との連携は15%弱であり、自由記載項目として医療者から就労施設への働きかけの必要性など支援体制の整備に関するご助言を頂いた。

EDC システムについては治験等の十分な実績があり、症例レジストリ研究への適用事例も少なくないことから Pharma Consulting Group の Viedoc4 を選択した。入力フォーム構築等のウェブ講習を受講し、システム構築資格を得た。適応事例の候補として小児慢性特定疾病である小児特発性ネフローゼ症候群の全国調査研究「JP-SHINE study」の継続研究の研究計画書を、EDC システム使用を前提に作成した。

・就学・就労の施設調査票レイアウト例

The image shows a screenshot of a survey form titled '小児慢性腎臓病 (2020年度年次調査) 施設調査 小児 CKD の就学・就労に関して'. The form is divided into two main columns: '就学について' (Regarding Schooling) and '就労について' (Regarding Employment). Each column contains several questions with radio button options and checkboxes. For example, under '就学について', there are questions about whether the facility provides consultation for school enrollment, the types of staff involved (e.g., doctors, MSWs, nurses), and the flow of referrals. The form also includes a section for 'その他' (Other) with a free-text field for additional comments. The interface includes a header with the study name and a footer with a language selector set to 'Japanese (Japan)'.

・小児慢性腎臓病の診療施設の就学・就労調査の結果

	全体 n=81	小児病院 n=14	大学病院 n=36	その他 n=31
就学				
相談を受けることがある	63 (77.8)	13 (92.9)	31 (86.1)	19 (61.3)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、医師	68 (84.0)	12 (85.7)	34 (94.4)	22 (71.0)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、看護師	25 (30.9)	5 (35.7)	11 (30.6)	9 (29.0)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、MSW	44 (54.3)	10 (71.4)	19 (52.8)	15 (48.4)
院外施設と連携している	12 (14.8)	7 (50.0)	1 (2.8)	4 (12.9)
就労				
相談を受けることがある	48 (59.3)	10 (71.4)	26 (72.2)	12 (38.7)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、医師	55 (67.9)	9 (64.3)	29 (80.6)	17 (54.8)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、看護師	16 (19.8)	4 (28.6)	8 (22.2)	4 (12.9)
院内で対応や支援を行う場合の対応者、MSW	37 (45.7)	9 (64.3)	18 (50.0)	10 (32.3)
院外施設と連携している	11 (13.6)	5 (35.7)	3 (8.3)	3 (9.7)

・医療ソーシャルワーカー(MSW)

医療機関で患者・家族を社会福祉の立場からサポートする専門職。患者・家族の相談に応じ、より良い社会生活を送れるよう、医療的・社会的な制度の活用方法の提案から地域の社会資源の紹介、自宅環境整備まで多岐に渡って支援する。退院後も問題なく生活できるように病院内外の関係者に必要な支援について協力を求める支援を提供する。

・電子症例報告システム, Pharma Consulting GroupのViedoc4



・ 入力フォームレイアウト例

小児慢性腎臓病レジスタリ研究 | New Study Design

登録時情報 REG

施設内ID REG1

性別 #1 REG22 男性 女性

生年月 REG33

特発性ネフローゼ症候群診断日 (参加施設での診断日) REG4

選択基準

適格基準

1) 倫理委員会承認後、小児特発性ネフローゼ症候群と診断され、C INC1 はい いいえ
各参加施設でステロイド治療を開始した患者 #2

2) 既存の研究 (JP-SHINE Study) で登録された患者 #3 INC2 はい いいえ

3) 診断時の年齢が6か月以上15歳以下の患者 #4 INC3 はい いいえ

除外基準

1) 担当医師が本研究に不適切と判断した患者 #5 EXC1 はい いいえ

確認

上記の適格基準全てを満たし、除外基準のいずれにも該当しない IC はい いいえ
ことを確認した #6

患者基本情報 DM

人種 #1 DM1 東洋系 (ハーフを含む) 東洋系以外

出生歴: 出産期 #2 DM2 満産期 早期産 過期産 不明

出生歴: 分娩 #3 DM3 正常 異常

出生歴: 新生児期 #4 DM4 正常 異常

アレルギー歴 #5 DM5 あり なし 不明

アレルギー歴あり: 内容 #6 DM6

- 気管支喘息
- アトピー性皮膚炎
- アレルギー性鼻炎
- アレルギー性結膜炎
- 食物アレルギー
- その他

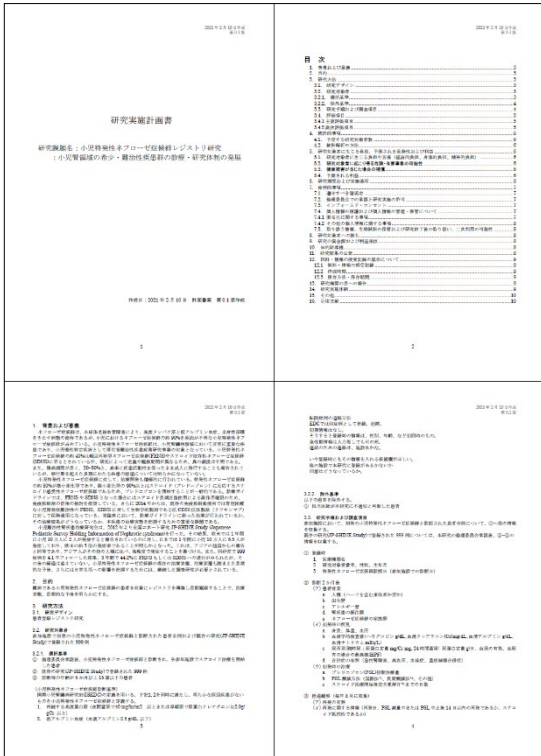
アレルギー歴あり: その他内容 DM7

腎疾患の既往歴 #7 DM8 あり なし 不明

ネフローゼ症候群の家族歴 #8 DM9 あり なし 不明

ネフローゼ症候群の家族歴あり: 続柄 DM10

・ 症例レジストリ研究の実実施計画書



・ 変数取り扱い定義書

変数名	変数説明	変数型	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値	変数値
施設ID	施設ID	文字列	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID	施設ID
性別	性別	数値	0: 不明	1: 男性	2: 女性	3: その他	4: その他	5: その他	6: その他	7: その他	8: その他	9: その他	10: その他
年齢	年齢	数値	0: 不明	1: 0-5歳	2: 6-11歳	3: 12-14歳	4: 15-17歳	5: 18-20歳	6: 21歳以上	7: その他	8: その他	9: その他	10: その他

D. 考察

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査では、医師、MSW、看護師を中心に対処されていた。院外施設との連携は限られていた。今後、症例ごとの具体的事例に基づく臨床的課題、疾患特有の課題の抽出、共有、検討を推進する。他の難病症例に関する就学・就労の調査についても同様の検討を進める。

EDC システムについては、Viedoc4 を使用した EDC システム構築、研究計画書作成が推進された。今後、関連研究者との内容検討を進め、入力システム、研究計画書を更新し、症例登録体制を構築する。また、2021年3月に厚生労働省医薬・生活衛生局医薬品審査管理課および同局医療機器審査管理課から「承認申請等におけるレジストリの活用に関する基本的考え方」および「レジストリデータを承認申請等に利用する場合の信頼性担保のための留意点」が公開された。これらに加え、小児腎領域の難病の各疾患の症例レジストリ研究の目的、将来の役割を視野に入れ検討を進める。

E. 結論

小児慢性腎臓病の就学・就労に関する施設調査については、症例ごとの具体的事例に基づく課題、疾患特有の課題の抽出と共有を推進する。難病についても同様の検討を進める。

EDC システムを活用した症例レジストリ研究については、今後、関連研究者と検討を進め、症例登録体制を構築する。

F. 健康危険情報
該当なし

G. 研究発表
1. 論文発表

Sato M, Ishikura K, Ando T, Kikunaga K, Terano C, Hamada R, Ishimori S, Hamasaki Y, Araki Y, Gotoh Y, Nakanishi K, Nakazato H, Matsuyama T, Iijima K, Yoshikawa N, Ito S, Honda M: Prognosis and acute complications at the fir

st onset of idiopathic nephrotic syndrome in children: a nationwide survey in Japan (JP-SH INE study). Nephrol Dial Transplant, 36:475-481, 2021.

井口 智洋, 濱田 陸, 久保田 亘, 菊永 佳織, 寺野 千香子, 原田 涼子, 幡谷 浩史, 緒方 謙太郎, 本田 雅敬:肥満の有無により異なる腎予後を辿った早産・極低出生体重児の二絨毛二羊膜双胎児例. 本小児腎不全学会雑誌, 40:195-198, 2020.

2. 学会発表

菊永 佳織, 幡谷 浩史, 井口 智洋, 寺野 千香子, 原田 涼子, 濱田 陸, 齊藤 剛仁, 砂川 富正

: 本邦における溶血性尿毒症症候群腎関連後遺症の経過観察状況. 第123回日本小児科学会学術集会, 2020, 神戸.

H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得
該当なし
2. 実用新案登録
該当なし
3. その他
該当なし