

（令和3年度～令和5年度）

「小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資する研究」

研究代表者 檜垣 高史
（国立大学法人愛媛大学 大学院医学系研究科・寄附講座教授）

研究要旨

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**」）は、小児慢性特定疾病児童等（「小慢児童」）及びその家族の多様なニーズに応じた支援を提供できる意義のある事業である。小児慢性特定疾病児童等自立支援員（「**自立支援員**」）等が相談支援を通じて、ニーズや課題を正確に把握し、各分野の専門職を含む関係者間で連携して対応していくことが重要である。自立支援員の更なる資質向上のために、先行研究で、ニーズに基づき作成された**好事例集**（平成28-29年度 檜垣班）や**小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集**、**保健所取り組み好事例集**、**就園にむけたガイドブック**、**きょうだい児支援取組事例集**、**情報共有シート**（平成30-令和2年度 檜垣班）などを基礎資料として、研修会や調査などにより自立支援事業を周知するとともに情報を収集し、ガイドブックや手引きをアップデートし情報提供することが重要である。任意事業の実施について**努力義務化**、**実態把握事業の追加**、地域協議会の連携などが見直されており、各実施主体における自立支援事業の積極的な実施、事業内容の均てん化および質的・量的向上を目指すことが可能になっている。

そこで、下記の4課題について研究を計画し、令和3～5年度の3年間に於いて、ニーズに合わせてテーマを微修正しながら実施した。

■【分担研究1】

小児慢性特定疾病児及びその家族を含めた自立支援に関する真のニーズを把握するための実態調査

- 1 相談支援の実態調査（相談内容・相談件数の把握）
- 2 **ブロック別小児慢性特定疾病児童等自立支援員連絡会**を行う（令和4年度～）
- 3 実際に自立支援を受けた患者及び家族からの声を把握する
- 4 自立支援に関する尺度開発および調査
- 5 自立支援事業全国実施状況調査（継続：経年的比較）

■【分担研究2】

自立支援員の更なる資質向上をめざした研修の在り方に関する研究

- 1 自立支援員研修会における相談対応モデル集・情報共有シート（就園、就学、就職）の試用・評価・更新

■【分担研究3】

自立支援事業の周知・啓発及び任意事業の立ち上げ支援に資する研究

- 1 自立支援事業についての周知・啓発状況について調査し、任意事業の立ち上げ支援の方策を検討する

■【分担研究4】

移行期医療、周産期医療等の他の関連施策と自立支援事業の連携における現状分析と課題抽出、要因分析、課題解決へ向けた検討

- 1 自立支援事業と移行期医療との連携における現状分析及び課題抽出
- 2 **NICU** 退院児に対する自立支援事業の現状分析及び課題抽出（令和4年度～）

■【総括】

研究成果を統合して、自立支援事業実施におけるガイド「小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取り組み資料集」をバージョンアップする

結果と考察

- 1-1 自立支援員による相談支援個票を用いて、支援内容の実態を把握し、自立支援員が頻繁に相談対応することが想定されるモデル対応集を作成した。
- 1-2 令和4年度からブロック別自立支援員連絡会を行い、意見交換及びアンケート調査を行い、支援者を支援するための基礎資料を作成した。
- 1-3 自立支援事業を利用した慢性疾患の子どもたちとその家族、および、成人した小児期発症慢性疾患患者のきょうだい当事者からの声を半構造化インタビューにより把握した。
- 1-4 開発した日本版 Health Literacy and Resiliency Scale for Youth (HLRS-Y) (Japanese version) の小慢患者の評価に一定の内容的妥当性と構成概念妥当性、および内的一貫性を有することが確認された。小慢児童に対して調査を行い、自立支援に関する知識や真のニーズを把握し分析した。プレコンセプション支援における尺度を用いて調査し分析した。
- 1-5 自立支援事業全国実施状況調査により平成27年度からの経年変化を捉え課題を分析した。
- 2 本研究班が作成した相談対応モデル集・情報共有シートなどを「令和5年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業」により実施されている自立支援員研修会、関連学会などにおいて教材として試用し、情報提供するとともに評価・検討した。
- 3 自立支援事業を、医療機関で知る機会が多いことから、医療機関への有効な周知方法を検討した。研究班で、全国共通パンフレットの作成を検討する。
- 4-1 小児がん成人医療移行を推進するために必要なことや、小児がん経験者と母親の就労状況に影響する因子について検討した。また既存7カ所の移行期医療支援センターのある都道府県の自立支援員を対象に、Web アンケート調査を実施し、連携が進んでいない実態が明らかになった。
- 4-2 NICU入院児に対する自立支援事業の有用性を示した重要な新規研究（令和4年度から）で、早期介入の観点からも重要である。

結論

研究成果を統合して、コンテンツをバージョンアップして、自立支援事業実施におけるガイドとなる「小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集（第2版）」を完成させて公表した。自立支援事業の目指す方向性を検討していくための基礎データとなり、自立支援員の資質向上、任意事業の活性化、自立支援事業の発展を目指している。

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研究開発監理部生命倫理研究室・室長）
三平元（国立大学法人千葉大学附属法医学教育研究センター・特任講師）
石田也寸志（公立大学法人愛媛県立医療技術大学保健科学部・特命教授）
高田秀実（国立大学法人愛媛大学大学院医学系研究科・准教授）
落合亮太（公立大学法人横浜市立大学学術院医学群医学研究科・准教授）
滝川国芳（学校法人京都女子学園京都女子大学発達教育学部・教授）
仁尾かおり（大阪公立大学大学院看護学研究科・教授）
檜木暢子（国立大学法人愛媛大学大学院教育学研究科・教授）
三沢あき子（京都府立医科大学小児科学・特任講師）
新家一輝（国立大学法人東海国立大学機構名古屋大学大学院医学系研究科・准教授）
太田雅明（国立大学法人愛媛大学大学院医学系研究

科・寄附講座准教授）

【研究協力者】

西朋子 認定NPO法人ラ・ファミリエ 理事・小慢自立支援員
越智彩帆 認定NPO法人ラ・ファミリエ 小慢自立支援員
日山朋乃 認定NPO法人ラ・ファミリエ 小慢自立支援員
谷田美佳 認定NPO法人ラ・ファミリエ 小慢自立支援員
大西和江 認定NPO法人ラ・ファミリエ 小慢自立支援員
手嶋佐千子 福岡県医療的ケア児支援センター 医療的ケア児等コーディネーター
横田信也 福岡県医療的ケア児支援センター 医療的ケア児等コーディネーター
城戸貴史 静岡県立こども病院 地域医療連携室 医療ソーシャルワーカー
本田睦子 認定NPO法人難病のこども支援全国ネットワーク 小慢自立支援員
日和田美幸 なないろくれよん福祉センター 代表
筈崎宏文 なないろくれよん福祉センター こども相談室 小慢自立支援員
猪又竜 先天性心疾患患者
福士清美 東北大学病院小児科・小慢さぽーとせん

たー 小慢自立支援員
 木村正人 宮城県立こども病院循環器科 部長
 林三枝 認定NPO法人ハートリンクワーキングプロジェクト 副理事長
 三好裕也 認定NPO法人ポケットサポート 代表理事
 清田悠代 NPO法人しぶたね 理事長
 眞利慎也 NPO法人しぶたね プログラムディレクター
 本間尚史 市立札幌山の手支援学校 教諭
 金子太郎 名古屋大学大学院医学系研究科総合保健学専攻 大学院生
 菊留小都 名古屋大学大学院医学系研究科総合保健学専攻 大学院生
 中間初子 かごしま難病小児慢性特定疾患を支援する会 会長・小慢自立支援員
 多久島尚美 びわこ学園訪問看護ステーションちょこれーと。 小児慢性療育相談員
 菅野芳美 北海道療育園旭川市小児慢性特定疾病相談室 小慢自立支援員
 榎本淳子 東洋大学文学部 教授
 北村千章 清泉女学院大学看護学部 准教授
 小林京子 聖路加国際大学大学院看護学研究科小児看護学 教授
 秋山直美 杏林大学保健学部看護学科看護学専攻成人看護学 助教
 清水由佳 NPO法人カシオペア 理事長
 福島慎吾 認定NPO法人難病のこども支援全国ネットワーク 事務局長
 江口八千代 認定NPO法人ファミリーハウス 理事長
 及川郁子 東京家政大学短期大学部 教授
 西田みゆき 順天堂大学保健看護学部 教授
 野間口千香穂 宮崎大学医学部看護学科 教授
 福田篤子 東京立正短期大学 専任講師
 大戸真紀子 幼保連携型認定こども園 浜分こども園 保育園看護師
 小柴梨恵 千葉大学大学院看護学研究科博士後期課程 大学院生（保育園看護師）
 安真理 社会福祉法人平磯保育園 保育園看護師
 吉木美恵 社会福祉法人花山福祉会 花山認定こども園 保育園看護師
 塩之谷真弓 中部大学現代教育学部幼児教育学科 准教授
 田中昌子 京都府山城北保健所
 諸戸雅治 市立福知山市民病院 小児科医長
 光井朱美 京都先端科学大学健康医療学部看護学科 講師
 宇敷裕香里 千葉市保健福祉局健康福祉部健康支援課 母子保健班
 遠藤明史 東京医科歯科大学臨床試験管理センター 特任助教
 松岡真里 三重大学医学系研究科 看護学専攻実践看護学領域小児看護学分野 教授
 楠木重範 わしおこども医院 小児科医
 河原洋紀 三重県難病相談支援センター センター長
 副島賢和 昭和大学大学院保健医療学研究科 准教授
 平賀健太郎 大阪教育大学教育学部特別支援講座 准教授
 水野芳子 東京情報大学看護学部成育・成人看護分野 講師
 島津智之 認定NPO法人NEXTEP 理事長（小児科医）
 阿部美穂子 山梨県立大学看護学部 教授

滝島真優 きょうだい会SHAMS 代表／成蹊大学文学部 客員研究員
 澤田裕美 医療法人社団永生会クリニックグリーングラス 医師
 大藤佳子 認定NPO法人ラ・ファミリエ 理事／ゆりかごファミリークリニック 院長
 薬師神裕子 愛媛大学大学院医学系研究科看護学教授
 野本美佳 愛媛大学大学院医学系研究科看護学 助教
 中井美穂 愛媛大学医学部附属病院小児総合医療センター師長
 小出沙由紀 愛媛大学大学院医学系研究科看護学大学院生
 榊田夏代 愛媛大学医学部附属病院NICU病棟 師長
 宮岡智子 愛媛大学医学部附属病院小児科病棟 師長
 宮田豊寿 愛媛大学大学院医学系研究科 助教
 森谷友造 愛媛県立中央病院 小児科部長
 【事務局】
 三浦沙奈恵 愛媛大学大学院医学系研究科 地域小児・周産期学講座 研究補助員
 長谷沙織 愛媛大学大学院医学系研究科 地域小児・周産期学講座 事務補佐員

A. 研究目的

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**」）は、小児慢性特定疾病児童等（「小慢児童」）及びその家族の多様なニーズに応じた支援を提供できる意義のある事業である。小児慢性特定疾病児童等自立支援員（「**自立支援員**」）等が相談支援を通じて、ニーズや課題を正確に把握し、各分野の専門職を含む関係者間で連携して対応していくことが重要である。自立支援員の更なる資質向上のために、先行研究で、ニーズに基づき作成された**好事例集**（平成28-29年度 檜垣班）や**小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集**、**保健所取り組み好事例集**、**就園にむけたガイドブック**、**きょうだい児支援取組事例集**、**情報共有シート**（平成30-令和2年度 檜垣班）などを基礎資料として、研修会や調査などにより自立支援事業を周知するとともに情報を収集し、ガイドブックや手引きをアップデートし情報提供することが重要である。任意事業の実施について**努力義務化**、**実態把握事業の追加**、地域協議会の連携などが見直されており、各実施主体における自立支援事業の積極的な実施、事業内容の均てん化および質的・量的向上を目指すことが可能になっている。

そこで、下記の4課題について研究を計画し、令和3～5年度の3年間において、ニーズに合わせてテーマを微修正しながら実施した。

B. 研究方法

■【分担研究1】

小児慢性特定疾病児及びその家族を含めた自立支

援に関する真のニーズを把握するための実態調査

● 1-1 相談支援の実態調査（相談内容・相談件数の把握）

自立支援員が関わる相談の内容及び件数、相談契機、関連施策との連携等を調査するために、自立支援員による相談支援個票（Ver. 1）を作成した。2022年8月～2023年3月の8か月間において、「静岡県立こども病院（静岡県）」、「認定NPO法人ラ・ファミリエ（愛媛県と松山市）」、「公益社団法人北九州市障害者相談支援事業協会（北九州市）」の研究協力者により試用し、内容を調整して個票を完成させていく過程において、支援内容の実態を把握した。患者家族からの相談のみならず関係者からの相談も多かった。「関係機関との連絡調整」、「各種支援策についての情報提供」、「助言」、「傾聴のみ」等の対応が多く、関係機関との連絡調整においては、「医療関係機関」、「地域の支援団体等」、「教育関係機関」、「障害福祉関係機関」、「児童福祉関係機関」、「就労関係機関」などが上位を占めた。自立支援員が重点的に習得すべき施策の知識及び連携方法について検討するための基礎データとし、**相談支援個票**を完成させて調査対象を全国に拡大した。

小慢自立支援事業を実施している地方公共団体から小慢自立支援員による相談支援を受託している団体で、かつ小慢医療費支給対応を行っていない団体のうち、調査協力の得られた「社会福祉法人北海道療育園（小児慢性特定疾病相談室）（旭川市が事業委託）」、「国立大学法人東北大学（小慢さばーとせんたー）（宮城県と仙台市が事業委託）」、「合資会社ひよりサービス（なないろくれよんこども相談室）（いわき市が事業委託）」、「特定非営利活動法人難病のこども支援全国ネットワーク（ネットワーク電話相談室）（東京都が事業委託）」、「地方独立行政法人静岡県立病院機構（静岡県立こども病院）（静岡県が事業委託）」、「特定非営利活動法人ラ・ファミリエ（地域子どものくらし保健室）（愛媛県と松山市が事業委託）」、「かごしま難病小児慢性特定疾患を支援する会（鹿児島市が事業委託）」の7団体（9地方公共団体が事業委託）を対象とし、調査期間は2022年4月～2023年3月の12か月間において相談支援個票を用いて、支援内容の実態を調査した。

● 1-2 ブロック別小児慢性特定疾病児童等自立支援員連絡会（ブロック別自立支援員連絡会）を行う

令和4年度に、中国・四国、九州、東北、東海・北陸の厚生局の管轄地域単位において、**ブロック別自立支援員連絡会**を開催した。Web会議システムを用いて、自立支援員が集い、自立支援事業の実施状況について意見交換を行った。自立支援員らにより意見交換及び情報共有を行い、また仮想事

例を用いた課題に対する支援策について検討し、モデル対応集の基礎資料とした。

令和5年度においても、ブロック別自立支援員連絡会を継続して行い、意見交換及びアンケート調査を行い、自立支援員に対する意識調査から、支援者を支援するための基礎資料を作成した。アンケート調査は、「実施主体間での連携」「小慢自立支援員として相談できる相手」「相談できる内容」「医療機関との連携」「認知度を上げるための工夫」「小慢自立支援員また小慢自立支援事業担当者としての困りごと」「本意見交換会のような小慢自立支援員同士の交流の機会の有効性について」「ガイドブックや手引きについて」「小慢自立支援員に必要なサポート」などについて、Google フォームによるオンライン自記式質問紙を用いて実施した。

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。

● 1-3 実際に自立支援を受けた患者及び家族からの声を把握する

対象1：自立支援事業を利用した慢性疾病の子どもたちとその家族

小児慢性児童等自立支援事業による支援を受けた患者及び家族への調査に向け、令和3年度に自立支援事業による支援を受けた家族からの予備的調査を基にインタビューガイドの原案を作成した。令和4年度はインタビューガイドの確定、倫理審査、複数自治体におけるインタビューを実施した。3自治体の支援を受けた本人（成人した本人を含む）、家族、合計7名からの聞き取りを行い、逐語録を作成、検討した。

令和5年度は、自立支援事業を活用した患者・家族からの自立支援事業に対する評価を得ること、患者・家族から見た自立支援事業の実態を明らかにするとともに、今後の自立支援事業の発展に向けた方策を検討することを目的として、患者本人へのインタビューを追加し、これまでの聞き取り結果と合わせて、自立支援事業の有効性について解析した。

インタビュー調査は、インタビューガイド作成後、倫理審査を経て、対面もしくはビデオ会議システムを活用した半構造化インタビューを実施し、自立支援事業の情報入手、自立支援員の対応と印象、自立支援事業の活用状況、活用に関する感想、自立支援事業に期待することなどについて収集した。小児慢性疾病児童等の社会的自立に向け、幼児期から思春期、青年期を見通した自立支援事業になっているかを検証することを目指した。

（愛媛大学教育学部倫理審査委員会承認）

対象2：成人した小児期発症慢性疾患患者のきょうだい

成人されている小児期発症慢性疾患患者のきょうだいへの調査のために、支援者が利用できるスクリーニングツールの作成を視野に入れてインタビューガイドを作成した。

成人されている小児期発症慢性疾患患者のきょうだいを対象として、2023年2月から2023年9月に調査を実施した。調査方法は半構造化面接とした。インタビュー内容は、小児期発症慢性疾患患者のきょうだいが、学童期及び思春期に家庭、学校、医療における人との関わりの中でどのような体験をしたかについて調査した。また、それら体験を、成人したのちにどのように記憶し受け止めているのかについても調査した。また、小児期発症慢性疾患患者である/あった同胞との年齢差、発症時の年齢、主要な疾患名なども調査した。分析方法については、対象者の語りを意味内容が損なわれないように要約し、コード化し、カテゴリー化を行った。分析の過程は、小児看護研究者と共有し、解釈の厳密性の確保に努めた。聞き取り分析することにより、きょうだい支援の在り方を検討する上での基礎資料になる。

倫理的配慮については、依頼先の団体から強制力が働かないよう、また実際の同意と調査へ調査への協力の有無は団体には伝えないこととした。また、調査協力は自由意思であり、結果の公表以前の同意撤回の機会を保障した。またインタビューの場所については、プライバシーが保護される環境を確認し実施した。

（愛媛大学医学部附属病院臨床研究倫理審査委員会の承認（2306009））及び、（名古屋大学大学院医学系研究科倫理審査委員会の承認（2023-0134））を得て実施した。

● 1－4 自立支援に関する尺度開発および調査 ★Health Literacy and Resiliency Scale for Youth with chronic illness (HLRS-Y) 日本語版の開発

1. HLRS-Y日本語版の作成

原版作成者に日本語版作成の許可を得たうえで、COSMIN Study Design Checklistを参考にHLRS-Y日本語版の素案を作成した。まず、日本語を母国語とし英語が堪能、かつ小児期医療や移行期医療に詳しい看護師4名で尺度の順翻訳を行った。その際、移行期医療に詳しく、小児科専門医・小児循環器専門医・成人先天性心疾患専門医資格を有する医師1名

に内容の網羅性や理解可能性を確認し、必要な修正を加えた。その後、英語を母語とする翻訳業者に逆翻訳を依頼し、その内容について原版作成者に確認を求めた。その後、移行期に詳しい専門家11人（成人循環器内科医、小児循環器医、看護師、心理士、ソーシャルワーカー、小児慢性特定疾病児童等自立支援員（以下、自立支援員）、看護系大学教員、教育系大学教員、小児期発症慢性疾患をもつ成人当事者本人に、各項目および尺度全体の内容妥当性を4件法で評価してもらい、Content Validity Indexを用いて評価した。結果、HLRS-Y日本語版は良好な内容的妥当性を有することが確認された。内容妥当性検討までの詳細は既報（Sekine S, et al, 2022）を参照されたい。

2. HLRS-Y日本語版の信頼性・妥当性評価

内容妥当性検証までを終えたHLRS-Y日本語版の信頼性・妥当性を検証するため、HLRS-Y日本語版を含むオンライン自記式質問紙を用いた横断的観察研究を実施した。

対象：

対象者の適格基準は、モニター会社に登録する13～21歳の子どもとその保護者のうち、小児期発症慢性疾患により継続的医療を必要とする者とした。除外基準は、子ども自身で調査内容を理解することが難しい者とした。

調査方法：

モニター会社より、適格基準を満たす対象に調査協力を依頼した。自記式質問紙への回答はウェブフォームを用いて実施した。

調査内容：

HLRS-Y日本語版

原版同様、全36項目からなる尺度である。下位尺度の構成、項目の選択肢と得点、下位尺度得点の計算方法は原版に準ずることとした。

対象者基本情報

対象者の性別、年齢、医療的ケアの有無、障害者手帳の有無とその等級、小慢受給者証の有無等を尋ねた。対象者基本情報については小児期発症慢性疾患を有する本人18歳以上の場合は本人が、18歳未満の場合は保護者が回答した。

分析：

対象者基本情報、HLRS-Y日本語版の各項目について記述統計量を算出した。HLRS-Y日本語版の信頼性・妥当性評価にあたり、まず、項目分析としてHLRS-Y各項目の天井効果（平均値+1標準偏差>4）と床効果（平均値-1標準偏差<1）の算出、I-T（Item-T

otal) 相関分析を行った。次いで、構成概念妥当性について、収束的妥当性と弁別妥当性を評価するためにMulti-trait scaling分析を行った。また、信頼性について内的一貫性の評価として下位尺度ごとのクロンバックの α 係数を算出した。

倫理面への配慮については、本研究は(聖路加国際大学研究倫理審査委員会の承認(22-A015))を受けて実施した。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。

★プレコンセプション支援における尺度開発

先天性心疾患を有する思春期・青年期女性のプレコンセプションケアの知識を測定する尺度を開発した。デルファイ法を用いて、専門家に5件法で2回調査を行い、「中央値=4.0以上」「IQR=1.0以下」「IQR% (意見の一致率) =80%以上」の3つをコンセンサスの基準とし、これら全てを満たしている項目を、CHD 女性のプレコンセプションの知識として重要な項目として同定した。

5段階((1) 事前調査、(2) 一次調査、(3) 二次調査、(4) 調査結果の検証 (5) プレテスト)で行う。

(愛媛大学医学部附属病院 臨床研究倫理審査委員会 承認 2302004) および(愛媛大学大学院医学系研究科看護学専攻倫理審査委員会の承認(承認番号: 看 2022-22))

●1-5 自立支援事業全国実施状況調査(継続: 経年的比較)

調査票は、「相談支援事業(必須事業)について」、「小児慢性特定疾病児童等自立支援員による支援について」、「実態把握事業(努力義務事業)について」(令和5年度のみ)、「自立支援事業のうち任意事業もしくは努力義務事業について」、「慢性疾病児童等地域支援協議会もしくは小児慢性特定疾病対策地域協議会について」等のパートから構成されるものを作成し、厚生労働省健康・生活衛生局難病対策課を通じて、全国の実施主体の担当者に対してメールで調査票を送付し回答を依頼した。回答結果については、厚生労働省難病対策課と国立成育医療研究センター生命倫理研究室で共有し、集計及び解析を行った。

なお、小児慢性特定疾病対策における実施主体は、都道府県、政令指定都市に、中核市、児童相談所設置市が追加されており(参考資料1参照)、調査の対象となる実施主体の数は以下に示す通り、年度により異なる。今期3か年は、下記の通りである。

◎2022・2023年度分(令和6年1月実施) 137 実施主体

(内訳) 都道府県: 47、政令指定都市: 20、中核市: 62、児相設置市: 8

◎2021・2022年度分(令和4年12月実施) 135 実施主体

(内訳) 都道府県: 47、政令指定都市: 20、中核市: 62、児相設置市: 6

◎2020・2021年度分(令和4年2月実施) 133 実施主体

(内訳) 都道府県: 47、政令指定都市: 20、中核市: 62、児相設置市: 4

倫理面への配慮については、本調査は、行政を対象とした事業の実施状況調査であり、患者情報等は取り扱うことはないことから、人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針の対象ではない。しかしながら、調査の目的、方法、意義、情報の取扱い等については文書で説明を行い、任意性を担保して調査協力を依頼する等、倫理面への配慮を行いつつ実施した。

■【分担研究2】

自立支援員の更なる資質向上をめざした研修の在り方に関する研究

●2-1 自立支援員研修会における相談対応モデル集・情報共有シート(就園、就学、就職)の試用・評価・更新

★就園に関する研究

情報共有シートを用いた小児慢性疾病児童の就園支援の現状と評価

小児慢性特定疾病児童の就園にかかわる自立支援員、看護師・保健師・等の医療者、保育士等、「ガイドブック」「情報共有シート」を活用して就園支援を実施した人10名程度を対象として、インタビューガイドに基づく自由回答式質問を用いた1対1の個別インタビューを実施した。データ収集期間は、2022年7月21日(研究等倫理委員会承認後)～2024年1月31日である。

主な調査内容は3点で、

①「情報共有シート」活用のプロセス(就園支援に関わった人とその流れ)

②「情報共有シート」を活用することによる認識・行動の変化

③「情報共有シート」の使用感(使いやすかった点、使いにくかった点、使い方)である。

・回答された内容について、内容が具体化されるように質問を重ね、要約、探求、促しによって、さらに回答を引き出し、インタビューを発展させる。

★就学に関する研究

令和3年度、4年度は、研究協力者の自立支援員が担当した就学や転学等の相談時に、先行研究で様式を作成した「病気の子どもの情報共有シート（小学校就学用、小学校復学・転入用、中学生用、高校生用）」の試用を依頼し、使用感、改訂事項の聞き取りを行い、情報収集及び改善点の検討を行った。令和5年度は、自立支援員が実施に担当した就学や転学等の相談の際に、先行研究で様式を作成した「病気の子どもの情報共有シート（小学校就学用、小学校復学・転入用、中学生用、高校生用）」を用いて聞き取りを行い、情報共有シートの試用を自立支援員に依頼する。また、特別支援学校（病弱）の特別支援教育コーディネーターが、入退院する児童生徒の転校、転学に伴う就学支援相談を行う際に、情報共有シートの使用することを依頼する。自立支援員及び特別支援教育コーディネーターには、情報共有シートの使用感、活用方法、改善点等について報告を求める。加えて、自立支援員研修会において情報共有シートに関する周知、啓発を行う。

倫理面への配慮については、自立支援員及び特別支援教育コーディネーターには、本研究に参加するに、研究の目的と方法について十分な説明を提供し、同意を得た。

★就労に関する研究

小児期にある慢性心疾患患者の医療費助成制度の利用状況、就労状況、支援の課題に関する研究

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における医療費助成制度の利用状況と就労状況を明らかにし、支援の課題を検討することを目的とした。

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 2023」調査のうち、主として18歳以上の患者データの単純集計結果の提供を受け実施した。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。

■【分担研究3】

自立支援事業の周知・啓発及び任意事業の立ち上げ支援に資する研究

●3-1 自立支援事業についての周知・啓発状況について調査し、任意事業の立ち上げ支援の方策を検討する

1) アンケート調査の作成と実施

令和3年度：インターネットによる調査

調査会社（株式会社インテージ）に依頼しパネル調査を行った。下記内容の質問を行った。

（質問内容）

性別、年齢、勤務形態（開業医、勤務医、研究医など）、所属施設都道府県、所属施設の種類、所属施設 総病床数、所属施設 小児科病床数、専門分野、専門のサブスペシャリティ小児科専門医資格の有無、難病指定医の有無、小児慢性特定疾病指定医の有無、小児患者を診ることがあるか、小児慢性疾患患者を診ることがあるか、小児慢性疾患患者で専門施設への受診を要する患者を診ることがあるか、小児慢性疾患患者を有する成人期患者を診ることがあるか、小児慢性疾患患者で専門施設への受診を要する成人期患者を診ることがあるか、移行期医療とはなにか知っているか、移行期医療への関心、移行期医療の必要性、「小児期発症疾患を有する患者の移行期医療に関する提言（2014）」を知っているか、所属施設に移行期医療支援部門があるか、移行期医療支援センターについて知っているか、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）について知っているか、自立支援事業に患者を紹介したことがあるか、自立支援事業についての必要性、自立支援員を知っているか、自立支援員と関わったことがあるか、所属施設に自立支援担当部門があるか。

令和4年度：アンケート調査

愛媛県および愛媛県医師会の協力の下、循環器対策基本法に関する調査の一環として、愛媛県内の循環器診療に携わる医師（開業医、勤務医）にアンケート調査を行った。質問内容は上述とほぼ同様である。

2) アンケート結果の解析と今後の方針検討

過去2年の調査結果から小児慢性特定疾病児童の自立支援に対する医師の意識、周知度合い等を解析し、今後の事業発展に向けての方策を検討した。

倫理面への配慮については、アンケート調査実施に向け、愛媛大学医学部倫理審査委員会の倫理審査を受けた。アンケート内容には患者の個人情報に関する項目は含まれていない。

■【分担研究4】

移行期医療、周産期医療等の他の関連施策と自立支援事業の連携における現状分析と課題抽出、要因分析、課題解決へ向けた検討

●4-1 自立支援事業と移行期医療との連携における現状分析及び課題抽出

①愛媛大学医学部生と東京大学看護科修士学生に

「小児がんの長期フォローアップと移行期医療」の講義を行い、講義終了後成人医療移行を推進するために最も重要なものを尋ねた。②聖路加生涯コホート研究に参加した18歳以上の経験者を対象に、就労支援に必要な因子に関して調査を行った。また全国11病院の経験者の母親を対象に質問紙調査を実施し、就労継続に必要な因子を調査した。

③横断研究（Webアンケート調査）で、研究対象は既存7カ所の移行期医療支援センターのある都道府県の自立支援員全員で、Webアンケートで連携状況について調査した。

倫理面への配慮については、②研究は倫理委員会承認の上で研究を実施した（聖路加国際病院、東北大学医学部および愛媛県立中央病院）③研究は、Webアンケートを用いており、患者情報などは含まず、各施設の実情や回答者の意見を尋ねるものであり、各回答者の施設での研究倫理委員会での審査は不要と考え、研究代表者施設の（愛媛医療技術大学の研究倫理審査委員会（R5-010））で一括審査を行った。

●4-2 NICU退院児に対する自立支援事業の現状分析及び課題抽出

令和4年度：NICUにおける自立支援事業と連携した退院支援システムの一モデルを構築し、臨床に導入した。

令和5年度：子どもがNICU入院中に、家族へ小児慢性特定疾病児童等自立支援事業を紹介することで得られる退院支援への効果を明らかにするために、2022年4月からNICUに入院した小児慢性特定疾患と診断された子供の家族を対象として、作成した面接ガイドを用いた半構成面接を実施した。場面ごとに家族の思いを抽出し、類似性をもとにまとめ、抽象度を高めてサブカテゴリー、カテゴリーを生成し分析した。

倫理面への配慮については、実施にあたり、（愛媛大学看護部看護研究・倫理委員会の承認）を得て行った。

C. 研究結果と考察

■【分担研究1】

小児慢性特定疾病児及びその家族を含めた自立支援に関する真のニーズを把握するための実態調査

●1-1 相談支援の実態調査（相談内容・相談件数の把握）

平成30年～令和2年度に行われた先行研究「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」において、自立支援員が頻繁に相談対応することが想定される架空の11事例について「小児慢性特定疾病児童等自立支援員による相談対応モデル集」を作成した。自立支援員は各種支援策の概

要について理解を一層深め、助言の資質を一層向上させ、連絡調整する可能性のある関係機関を把握し、傾聴の技量を一層向上させることが望ましい。

令和3年度に、自立支援員が関わる相談の内容及び件数、相談契機、関連施策との連携等を調査するために、自立支援員による相談支援個票（Ver. 1）を作成し、「静岡県立こども病院（静岡県）」、「認定NPO 法人ラ・ファミリエ（愛媛県と松山市）」、「公益社団法人北九州市障害者相談支援事業協会（北九州市）」の研究協力者により試用した。相談件数は合計1200件で、平均すると1調査対象団体（機関）1月あたり50件であった。新規相談よりも継続相談のほうが多く、患者家族からの相談のみならず関係者からの相談も少なくなかった。「関係機関との連絡調整」、「各種支援策についての情報提供」、「助言」、「傾聴のみ」等の対応が多く、関係機関との連絡調整において上位を占めるのは「医療関係機関」、「地域の支援団体等」、「教育関係機関」、「障害福祉関係機関」、「児童福祉関係機関」、「就労関係機関」であった。これらの結果を念頭におき、「小児慢性特定疾病児童等自立支援員による相談対応モデル集」の改訂や「小慢自立支援員研修」が計画される必要があると考えられた。

令和4年度に、7団体（9地方公共団体が事業委託）において調査し、相談対応件数は合計4336件で、平均すると1調査対象団体1月あたり51.6件であった。新規相談よりも継続相談のほうが多く、患者家族からの相談のみならず関係者からの相談も少なくなかった。「関係機関との連絡調整」、「傾聴のみ」、「助言」、「各種支援策についての情報提供」等の対応が多く、関係機関との連絡調整において上位を占めるのは「医療関係機関」、「福祉関係機関」、「地域の支援団体等」、「教育関係機関」であった。これらの結果を念頭におき、「小児慢性特定疾病児童等自立支援員による相談対応モデル集」の改訂や「小慢自立支援員研修」が計画される必要があると考えられた。

自立支援員が関わる相談の内容及び件数、関連施策との連携等の実態を明らかにし、自立支援員が重点的に習得すべき施策の知識及び連携方法についてまとめ、自立支援員として相談支援をしている研究協力者と、対応がやや難しいと思われる架空事例を掲げ、次に掲げる架空事例について対応モデルを作成した。

- こどもの発達面や行動面に不安を感じ、心配である。
- こどもが自傷行為をしているが、どうしたらよいかわからない。
- 慢性疾病があるため、幼稚園に入園できるのかどうか不安である。
- （幼稚園・保育所からの相談）保護者からの要望にこたえることができず困っている。

● きょうだいの不登校となり、どうしたらよいかわからない。

● 親の転勤が決まり、こどもが転校することになるが、新しく通学する学校が、こどもの病気のことを理解してくれるかどうか不安である。

研究成果を、令和 5 年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業による第 1 4 回自立支援員研修会において報告した。対応モデルについてはモデル集 2 として「小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集（第 2 版）」に掲載した。

● 1－2 ブロック別小児慢性特定疾病児童等自立支援員連絡会（ブロック別自立支援員連絡会）

令和 4 年度に、中国・四国、九州、東北、東海・北陸の厚生局の管轄地域単位において、開催し、他地域の自立支援員同士の顔の見える関係性を構築できる機会を提供でき、自立支援員が感じている課題を共有することができた。これらの研究から、自立支援員の更なる資質の向上のためには「1. 各種支援策の概要を把握」、「2. 支援策を所管する機関（団体）の担当者との顔の見える関係性構築」、「3. 小児慢性特定疾病の関係者、特に医師、看護師、医療ソーシャルワーカー等の医療関係者に「自立支援員による支援」を周知」、「4. 「傾聴」、「対応と一緒に考える」、「伴走姿勢を感じてもらう」技量の一層の向上」の 4 点が重要な留意点と考えられた。これらに留意して「自立支援員の研修の在り方」を今後検討してゆくのが良いと思われる。

令和 5 年度においても、ブロック別自立支援員連絡会を、北海道ブロック（10/14）、関東・甲信越ブロック（11/29）において継続的に実施し、意見交換及びアンケート調査を行った。常に相談できる相手が必要で、ガイドブックや手引き、小児慢性特定疾病児童等自立支援員同士の交流の機会が有用であるとの意見が多かった。自立支援の困りごとについての自由記述からは、予算面、人的パワー、周知啓発、ニーズの把握と対応などの内容が記載されていた。「県内に自立支援員が一人なので、同じ立場の人と相談しながら業務を行うことができない」など、「気軽に相談できる窓口」、「ほかの自治体の取り組みを知れる機会」、「交流の場を通しての情報交換」などの要望が多かった。

自立支援員連絡会を継続し、さらに多くの地域の自立支援員による自立支援事業における課題抽出や意識調査を行う必要があるが、支援者を支援するための基礎資料となった。

自立支援員同士による意見交換を行うことにより、相談窓口機能向上、事業の質の向上が大きく期待され、好事例や困りごとの対応策など情報提供を行うなど、支援者支援の重要性が示され、本研究班の重要な役割であることが明らかになった。

● 1－3 実際に自立支援を受けた患者及び家族からの声を把握する

対象 1：自立支援事業を利用した慢性疾病の子どもたちとその家族

各事業に関する結果

（1）相談支援事業

本人、家族共に相談して良かったという感謝や充実感、精神的な支柱になっていることを語っており、情報提供の質と量が評価されていた。自立支援員への信頼が厚く、安心感、充実感、同様の他者への共感などが語られており、自立支援事業の広がりへの期待があった。

（2）相互交流事業

今回のインタビューは患者会への参加はあったが、相互交流事業への参加はなかった。参加しない理由として、自らのニーズに合っていないこと、開催場所までの距離が挙げられていた。本人はより具体的なことがわかる相互交流、家族は将来への見通しのための相互交流を求めている。

病院内での同年代の友だちとの出会いの有無により、相互交流へのニーズが変わってくる。特に同じ病気、もしくは同じ学習集団などの共通項があると、その後も関係が継続されるが、出会いがない場合、相互交流の場が必要になってくる。

（3）就労支援事業

本人は就労に関する具体的な情報、職に就くこと自体についての情報を得ようとしていた。家族は就労継続やその先の自立について相談していた。

学齢期の児童生徒にとって、就労支援事業は本人の就労準備、就労に向かう気持ちを育てる支援である。しかしながら、障害者雇用や福祉的就労などは知らない可能性が高く、多様な働き方、多様な役割の果たし方があることを伝える必要がある。「就労」「就活」への支援だけでなく、「就労継続」のための支援であることの周知も必要であると思われた。

（4）介護者支援事業（きょうだい支援）

きょうだい支援があることを知らなかった本人、家族はインタビューを通じて、きょうだい支援があっても良かったのではないかと考えるようになっていた。

家族はきょうだいのことを考える余裕がなく、自立支援員に相談することではないと考えている可能性がある。本人、家族共に、もしも身近な人の支えがなかったら必要であったかもしれない、きょうだいの悩みや苦しみを思い返し負担を掛けたと感じている可能性が推測された。きょうだい支援には、本人、家族の負い目を軽くする役割も期待される。

（5）その他の事業（学習支援）

学習支援を活用している人が身近にいと、学習支援のメリットがわかりやすいのではないかと語られていた。一方で、本人、家族の教育に関する不満の背景に、学校からのサポートのなさ、リモート授業への無理解が示唆された。

医療機関の課題、学校との連携の課題が示唆された。医療機関におけるインターネット環境、リモートの問題への解決を求める声が多かった。学習支援が必要になる背景として、学校側の教育機会の提供の不十分さ、本人・家族と学校間の連絡、調整の難しさが明かになった。医療機関への対応の提案、学校への働きかけなど、自立支援員の活動に関する周知が必要であることが示唆された。

小児慢性疾患におけるライフステージに応じた長期的見通しをもった支援の必要性が示唆された。また、こうした長期にわたる支援は医療・保健・福祉・教育・労働の連携が不可欠であり、自立支援事業が連携の要となるための方策を検討する必要があることが示された。

自立支援事業へのアクセスのしやすさ、自立支援事業の周知、特に任意事業の周知が評価のポイントとなることが推測された。また、患者会などを通じて他の自治体の様子がわかることから、自身の自治体にない任意事業への要望がある一方で、任意事業に関する情報がない場合、利用も要望もできない。自立支援事業の周知に向けたアプローチが必要である。

また、今回の対象者は自立支援事業を十分に活用できていた方々であるので、ニーズに合った支援が受けられていない患者・家族からの評価を受けるための方策も重要であると思われる。

今回の対象者は自立支援員からの紹介であり、支援を受けることで、社会的自立への向かっていったケースが多かった。そのため、自立支援事業への評価が高く、自立支援員への信頼から、自立支援事業の広がりへの期待が示唆された。

必須事業である相談支援事業については一定の評価が得られていたが、任意事業については、ニーズが一定あるものの、本人の年齢、状況、居住地域、実施事業等により、活用していない・できていない事業があった。自立支援事業が積極的に活用され、小慢児童等の自立支援を進めていくためには、家族のみならず、本人、特に中学生、高校生が自立支援事業について理解を深め、必要な支援を自ら求められる仕組みを作る必要があることが示唆された。

そこで、全国で使える中学生・高校生向けのサポートブックとフライヤーを作成することとした。どのような場合に、どの事業を活用できるかがわかりやすいよう具体例を明示し、中学生・高校生が手に取りやすいよう、デザインを工夫した。今後はこの

リーフレット等のユーザビリティを検証し、全国の自立支援事業の啓発に努めていきたいと考えている。

また、今回は本人の年齢が高く、自立支援事業の利用開始が幼児期ではない場合もあり、幼児期や小学校期に関するデータを十分に収集することができなかった。データ収集方法を再考する必要がある。

対象2：成人した小児期発症慢性疾患患者のきょうだい

小慢児童等のきょうだいで、学童期及び思春期の段階にあるきょうだいのニーズ調査を実施した。調査に協力いただいた方は14名であり、女性11名、男性3名、年齢は18～50代であった。同胞の疾患は悪性新生物、神経・筋疾患などさまざまであり、同胞と死別した方は5名であった。家庭において、きょうだいは【同胞の病状に関連した両親の言動や様子によって自分の言動を選択する】、【同胞の病状に関連して家族の雰囲気に変化する】、【同胞への希望がある】など19のカテゴリーが抽出された。学校においては、【同胞に関連したことが友人との関係性や関わり方に影響する】、【教師が自分の状況を受け止めてくれる】など10カテゴリーが抽出された。医療においては、【病院スタッフとの関わりについての思い】、【病院を訪れた際の印象や受け止め】など4カテゴリーが、そして、支援団体やピアに関連して、【きょうだいのことを大人になってから知る】、【自分の体験をきょうだい支援者として生かすことについての思い】など7カテゴリーが抽出された。さらに、その他、【同胞の通う支援学校や児童発達支援の先生との関わりについての思い】、【交際相手に自分の気持ちを話す】など10カテゴリーが抽出された。きょうだいは、さまざまな環境における人との関わりに中で生活の変化を体験したり、葛藤や希望、安心感や嬉しさを感じたりしていた。また、同胞の病気に関連した自分自身の選択に影響を及ぼした関わりなど、きょうだいであるが故の特徴的な体験をしており、その体験を振り返って、さまざまに捉え直していた。

本研究事業のポータルサイトの充実化を図った。
本研究事業ポータルサイトのトップページから、（令和5年度より努力義務化した）任意事業の一覧の絵をクリックすると、「きょうだい児取組事例集」に入って閲覧していただけるようにした。この取組事例集に事例を提供いただいた地域の患者・家族会、小慢児童を支援する特定非営利活動法人及びボランティア団体、医療機関等の所在を、Google mapにてマッピングし、各団体の位置をクリックすると、寄稿いただいた事例の内容を閲覧できるように設定した。きょうだい支援の周知・啓発に資するものと思われる。

● 1-4 自立支援に関する尺度開発および調査

★Health Literacy and Resiliency Scale for Youth with chronic illness (HLRS-Y) 日本語版の開発

小慢自立支援事業の実施・普及において、小慢患者や保護者のニーズ評価が十分でないことが指摘されている。本研究では、小慢患者のニーズ評価に適した指標と考えられるHealth Literacy and Resiliency Scale for Youth with chronic illness (HLRS-Y) 日本語版を開発し、その信頼性と妥当性を評価することを目的とした。HLRS-Y日本語版の内容妥当性を確認した上で、モニター会社に登録する13～21歳の子どもとその保護者のうち、小児期発症慢性疾患により継続的医療を必要とする者を対象に、HLRS-Y日本語版を含むオンライン自記式質問紙を用いた調査を実施した。290名から有効回答を得た。患者本人の性別は男女ほぼ同数、年齢は平均16.5±2.5歳であった。有している疾患は小慢16疾患群の分類別で、呼吸器が82名(28.3%)と最多で、次いで、皮膚、心疾患の順であった。小児慢性特定疾病受給者証を有する者は50名(17.2%)であった。HLRS-Y日本語版の項目分析において、天井効果・床効果を認めた項目はなかった。I-T相関分析では、下位尺度と各項目の相関係数はヘルスリテラシーで $r=0.19\sim0.70$ 、レジリエンシーで $r=0.54\sim0.75$ 、サポート・セルフアドボカシーで $r=0.36\sim0.62$ であった。Multi-trait scaling分析を実施したところ、尺度化成功率は79～100%であった。クロンバックの α 係数はヘルスリテラシーで0.85、レジリエンシーで0.91、サポート・セルフアドボカシーで0.89であった。本研究の結果から、HLRS-Y日本語版は、I-T相関分析の結果などから一部の項目に検討の余地はあるものの、一定の内容的妥当性と構成概念妥当性、および内的一貫性を有することが確認された。今後、探索的、検証的因子分析による構成概念妥当性や併存妥当性の評価など、さらなる検討を行う必要がある。

★プレコンセプション支援における尺度開発

医療の発達により、約90%以上の先天性心疾患患者が成人を迎えるようになり、移行期医療の重要性が増している。これに伴い、心疾患を有する妊娠可能な女性数は年々増加している。また、「自立支援事業」における「相談支援」において、プレコンセプションケアのニーズは、近年高まってきている。

小児期発症慢性疾患患者へのプレコンセプションケアは、成育基本法の成育医療等基本方針にも

明記されているように、成育医療の推進という観点からも重要である。

本研究では先天性心疾患女性のプレコンセプションケアの現状把握を行うために、先天性心疾患のある思春期・青年期女性のプレコンセプションケアの知識を測定するための評価尺度を、デルファイ法を用いて開発した。

(1) 事前調査

CHD 女性のプレコンセプションケアに関する質問項目を65項目作成した。

(2) 一次調査

調査の結果から3つの基準全てを満たしている58項目を、CHD 女性のプレコンセプションケアの知識として重要な項目として同定した。7項目を削除し、自由記載欄の意見を参考に、3項目を追加、9項目の表現方法を変更し、61項目となった。

(3) 二次調査

削除された項目はなく、自由記載欄、専門家の意見を参考に、似た表現の項目をまとめ、3項目を削除し、46項目となった。

(4) 調査結果の検証

専門家7名に重要度を確認した。17項目を、CHD 女性のプレコンセプションケアの知識として重要な項目として同定した。17項目のうち「妊娠・出産のリスクについて、パートナーに理解してもらう必要がある」「育児はパートナーや家族の協力が必要である」「心疾患をもって妊娠・出産することを、パートナーと相談する必要がある」の3項目は7名全員が「5. 絶対に重要である」と回答した。

先天性心疾患女性のプレコンセプションケアの知識が明らかになることで、性に関するカウンセリングや教育プログラムを実施する際に、具体的なアドバイスが可能になるものと思われる。また、自立支援事業において、自立支援員が相談支援を行う際に、プレコンセプションケアは、「把握しておきたい知識」の一つになってきているものと思われた。

● 1-5 自立支援事業全国実施状況調査(継続: 経年的比較)

小児慢性特定疾病対策の一環で実施されている小児慢性特定疾病児童等自立支援事業(以下、「小慢自立支援事業」とする)の実施状況を把握し、当該事業における課題を検討することを目的として、令和3年度全国133実施主体、令和4年度135実施主体、令和5年度137実施主体を対象に質問紙調査を実施した。令和5年度は年度途中の10月に改正児童福祉法が施行され、小慢自立支援事業については、実態把握事業が努力義務の事業として新設され、またこれまで任意事業とされていた5つの支援事業の実施が努力義務化され、当該事業の強化が図られた。さらに、同改正法では、小児慢性特定疾病対策協議会が法定化されるとともに難病と小慢の地域協議会間の連携努力義務が新設され、

地域における支援体制の強化が図られた。これらの制度改正を踏まえ本分担研究では、必須事業及び実態把握事業、努力義務事業（旧任意事業）の実施状況、小児慢性特定疾病対策地域協議会（旧慢性疾病児童等地域支援協議会）の設置・運営状況等を把握するための調査票を作成し、調査を実施した。結果としては、必須事業については、今期3か年はほぼ全ての実施主体において取り組まれていることが明らかになった。任意事業（努力義務事業）については、何らかの事業を実施しているとの回答が、令和3年度44.4%、令和4年度49.6%、令和5年度62.0%と、特に令和5年5月から新型コロナウイルス感染症の感染症法上の位置付けが5類感染症に移行したことを受けて対面支援等の実施を再開したことや、10月1日からの改正児童福祉法施行によりこれまでの任意事業が努力義務化されたことにより、急な増加が見られたものと推察される。

当該研究班による好事例集等に加え、難病等制度推進事業において「小児慢性特定疾病児童とその家族の支援ニーズの把握のための実態把握調査の手引き書（令和3年度）」や「小児慢性特定疾病児童等自立支援事業立ち上げ・見直し手順マニュアル（令和4年度）」等を参照の上、地域のニーズ及び社会資源を踏まえて、小児慢性疾病児童等及びその家族に対して必要な自立支援が届けられる体制が全国のあらゆる地域で整うことが期待される。

■【分担研究2】

自立支援員の更なる資質向上をめざした研修の在り方に関する研究

●2-1 自立支援員研修会における相談対応モデル集・情報共有シート（就園、就学、就職）の試用・評価・更新

★就園に関する研究

情報共有シートを用いた小児慢性疾病児童の就園支援の現状と評価

先行研究において作成した「小児慢性疾病児の就園に向けての『ガイドブック』『情報共有シート』」を、研究協力者である自立支援員および保育園、病院、行政機関等の看護師、保健師、保育士、行政職等が試用し（令和3年度）、支援効果を評価、検討した上で（令和4年度）、『ガイドブック』『情報共有シート』の改良、及び、支援プロセスのパターン集として小児慢性疾病児童の支援モデル構築（令和5年度）を目指した。

令和3～5年度は、「慢性疾患児の自立支援のための就園に向けた『ガイドブック』『就園のための情報共有シート』」の活用促進に向けた活動として、行政機関、病院、保育園、学会等にガイドブック、情報共有シートの配付を継続するとともに、関連

学会、講演会、研修会等で、啓蒙活動を行った（別添資料①）。

さらに、令和4～5年度は、『ガイドブック』『情報共有シート』を使用して就園支援を行った専門職を対象とし、就園相談から就園まで、どのように活用し就園支援が行われたかを明らかにする目的でインタビュー調査を実施した。7名の専門職より13事例についてインタビューを行い、明らかになった結果から就園支援相談事例集を作成した（別添資料②）。

「情報共有シート」を活用することによる認識・行動の変化としては、これまで面談時にためらいがちであった部分を保護者から聴き取りできたことや、園側が入園前に十分な情報を得ることで不安が解消されたことが明らかになった。「情報共有シート」の使用感については、園が必要と考えている情報が網羅されていること、各項目の情報を詳細に書くことで園側の受入れが良いことなどが明らかになった。さらに、情報共有シートは、入院中の幼児の就園、復園の際にも活用できる。退院に向けた合同カンファレンスや退院支援チームで活用され効果を上げていた。就園の予定がまだないNICU入院中の児に対しては退院後の多職種連携、特に自立支援員による支援の際に効果的に活用されるのではないかと考えられた。

★就学に関する研究

本分担研究班では、先行研究において作成した「病気の子どもの情報共有シート（小学校就学用、小学校復学・転入用、中学生用、高校生用）」を用いた支援実績の検討を行う。「病気の子どもの情報共有シート」を、研究協力者である小児慢性特定疾病児童等自立支援員が試用し（令和3年度）、支援効果を評価、検討し（令和4年度）、就学や学習支援に関する相談の際に活用するための情報共有シート（就学：小学生用・中学生用・高校生用）の周知をより一層図るとともに、情報共有シートの活用事例を通して有用性を検討すること（令和5年度）を目的としている。

就学や転学の相談を担当する自立支援員が、就学・転学の仕組みを知っておくことは必須である。

そこで、令和3年度は、義務教育諸学校への就学・転学の仕組みの確認し、就学先決定のプロセスにおいて、子供一人一人の障害や病気の状態等を把握して教育的ニーズを明確にし、具体的にどのような支援の内容が必要とされるかということを整理する段階での、「病気の子どもの情報共有シート」の有効な活用の在り方を検討した。そして、令和4年度は、「病気の子どもの情報共有シート」の改訂に関する検討事項、活用に関する検討事項を明らかにした。令和5年度は、小児慢性特定疾病児童等自立支援員が、就学や学習支援に関する相談の際に活用するための情報共有シート（就学：小学

生用・中学生用・高校生用)によって、情報共有する取組について周知を進めていく中で、特別支援学校(病弱)の特別支援教育コーディネーターにとっても、学校と家庭、そして医療機関との情報共有のためのツールとして活用できることが確認できた。

★就労に関する研究

小児期にある慢性心疾患患者の医療費助成制度の利用状況、就労状況、支援の課題に関する研究

18歳未満の対象者276名、18歳以上の対象者305名から回答を得た。18歳未満の対象者における年齢の内訳は0-6歳69名(25.0%)、7-12歳106名(38.4%)、13-15歳58名(21.0%)、16-17歳43名(15.6%)であった。18歳以上を対象者における年齢の内訳は、10代22名(7.2%)、20代133名(43.6%)、30代80名(26.2%)、40代39名(12.8%)、50代15名(4.9%)、60代以上16名(5.2%)であった。対象者の重症度は、18歳未満ではフォンタン術後が116名(42.0%)、二心室修復術後が108名(39.1%)で、両者の合計で7割を占めた。18歳以上では複雑が168名(51.1%)と半数を超え、中等症112名(36.7%)と合わせると9割を超えた。

18歳以上で定期通院している278名が、通院で利用していた公的医療費助成は重度障害者医療費助成(119名、42.8%)で、次いで難病医療費助成(61名、21.9%)であった。直近5年間で入院経験のある136名(44.6%)が、入院で利用した公的医療費助成は、重度障害者医療費助成(55名、38.6%)で、次いで難病医療費助成(38名、27.9%)であった。学生を除く257名のうち、就労者は189名(73.5%)で、うち正規雇用(フルタイム)の者は106名(56.1%)であった。雇用率は障害者雇用が83名(43.9%)と最多で、次点が一般雇用78名(41.3%)であった。就労者における疾患開示の相手は、上司が一般雇用で66%、障害者枠89%と最も多かった。

本研究結果と前回の2018年の調査結果の比較から、難病医療費助成の利用者の増加、障害者雇用枠利用の有用性、職場における疾患開示割合の増加が示唆された。

本研究班が作成した相談対応モデル集・情報共有シートなどを教材として、厚生労働省健康局難病対策課による「令和5年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業」により実施されている、**自立支援員研修会** 基礎編(7/27-28)、アドバンス編(11/7-8)(国立成育医療研究センター、難病のこども支援全国ネットワーク共催)、関連学会など自立支援員の研修に資する機会において情報を提供した。

教材として試用した相談対応モデル集・情報共有シートは、評価、検討し、バージョンアップを検討する。

■【分担研究3】

自立支援事業の周知・啓発及び任意事業の立ち上げ支援に資する研究

●3-1 自立支援事業についての周知・啓発状況について調査し、任意事業の立ち上げ支援の方策を検討する

令和3年度のパネル調査は815人の医師から回答を得た。内科医が34%を締め、ついで外科医(12%)、整形外科(8%)、小児科医(6%)であった。自立支援事業について知っている(よく知っている、聞いたことがある)のは29%であった。類似の事業として移行期医療があげられるが、同事業に関しては58%の医師が知っていると回答した。

令和4年度のアンケート調査では内科医(59%)、小児科医(29%)外科医(7%)から回答を得た。自立支援事業知っている割合(よく知っている、聞いたことがある)はそれぞれ43%であった。

これらの結果から小児慢性特定疾病児童等自立支援事業は医師の中でも十分周知できているとは言えない状況が判明した。現状では本事業が十分に活用されてないと考え、有用な医師への周知方法を検討する必要があると考えられた。インターネットのホームページ上での活動紹介、報告は既になされている。これらは既に興味のある医師には有用であるが、それ以外の医師はその情報に触れることがない。これより、ポスターによる啓蒙活動が有用と考えられた。医師会の協力による各施設への配布や関連学会の協力の学術集会での掲示などは有効な手段と考えられる。

本研究班から全国に発信できるようなポスターの作成の必要性および有効性が示唆されている。

■【分担研究4】

移行期医療、周産期医療等の他の関連施策と自立支援事業の連携における現状分析と課題抽出、要因分析、課題解決へ向けた検討

●4-1 自立支援事業と移行期医療との連携における現状分析及び課題抽出

1年目は医学部4年生・看護修士課程学生に、小児がん成人医療移行を推進するために最も重要なものを尋ねたところ、小児がん経験者への教育プログラムの整備や経験者の親や成人診療科医へ情報提供を行い、理解を得ることを重視していた。

2年目は小児がん経験者と母親の就労状況に影響する因子について検討し、長期フォローアップには、身体的、心理的、社会的機能をサポートし、健康、自己管理への移行準備、家族機能を向上させるトータルケアの提供が必要で、経験者の母親の就労は、就労意欲や長期不安などの心理的要因と関連していたことから、経験者の母親に対する心理的支援が就労継続を促進する可能性がある。

3年目は、成人期移行期医療支援モデル事業を実

施した都道府県において、小児慢性特定疾病児童自立支援支援員との連携の実態を調査した。既存7カ所の移行期医療支援センターのある都道府県の自立支援員を対象に、各都道府県の担当部署を通じてメールで研究参加依頼用紙を送付し、Webアンケート調査を実施した。移行期支援コーディネーターとの連携は日常的連携1人、必要時またはごく一部連携することあり2人ずつ、現時点で連携なし6人、その他2人で、あまり両者の連携が進んでいない実態が明らかになった。

今後家族が患者の現状や将来について相談できる機会を持つことを希望すると11人が回答しており、成人移行支援のニーズはあると思われ、今後連携できるよう働きかけが必要と考えられた。

●4-2 NICU退院児に対する自立支援事業の現状分析及び課題抽出

本研究は、「小児慢性特定疾病児童等を対象にした自立支援事業と周産期医療との連携に関する調査と、周産期医療分野における本事業の周知」を目的に行われた。小児慢性特定疾病児童等を対象にした自立支援事業は、周産期医療の領域、特にNICU（新生児集中治療室）においては認知度が低く、またその効果も明らかでない。自立支援という言葉事態が新生児や乳児にとっては時期尚早と感じられる。しかし、自立支援事業の目的である「自立や成長支援について、家族の負担軽減のために必要な情報提供・助言、関係機関との連絡調整を行う事」は、新生児期から必要とされる支援と考えられる。令和4年度にはNICUにおける自立支援事業の在り方について研究を行い、NICUにおける自立支援事業と連携した退院支援システムの一モデルを構築した。面接を実施した対象家族は4家族。子どもの平均年齢は8か月であった。「サービスを知れてよかった」、「NICU入院中に知れてよかった」、「具体的な疑問点が整理できた」、「支援機関との仲介をお願いしたい」、「同じ病気を持つ家族を紹介して欲しい」、「就園や就学について知りたい」といった肯定的な意見が多く、退院後の支援に繋がる要望も多く聞かれた。紹介方法としては、スタッフによる直接的な紹介が有効であり、パンフレットやポスターの設置のみでは効果が低いと考えられた。紹介時期についても効果が異なる可能性が示唆され、今後の退院支援への有用な情報となった。令和5年度は、この退院支援システムの効果について検討し、周産期医療関連の学会で発表した。自立支援事業と周産期医療が連携することで、生涯を通じてサポートが得られる心強さを家族に伝えられることは、重要な退院支援に成り得る。自立支援事業と周産期医療との狭間の重要な新規研究である。早期介入の観点からも重要である。

D. 結論

小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資する研究において（令和3年～5年の3年間）、各分担研究成果を統合して、コンテンツをバージョンアップして、自立支援事業実施におけるガイドとなる「**小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集（第2版）**」を作成した。

また、本研究成果は、令和5年度の**成果報告会**（令和6年2月12日）（愛媛会場+HYBRID開催）において情報を共有するとともに、冊子を印刷して関係各機関に配布した。

E. 研究発表

① 論文発表

1. Akazawa Y, **Higaki T***, Kashiwagi K, Chisaka T, Takata H, Uchita S, Nishiyama H, Yoshida K, Inaba S, Yamaguchi O
Subclinical Leaflet Thrombosis After Transcatheter Pulmonary Valve Implantation: Two Clinical Concerns
Circulation: Cardiovascular Imaging 2024 in press
2. Kumon H, Miyake Y, Yoshino Y, Iga J, Tanaka K, Senba H, Kimura E, **Higaki T**, Matsuura B, Kawamoto R, Ueno S.
Functional AGXT2 SNP rs180749 variant and depressive symptoms: Baseline data from the Aidai Cohort Study in Japan
Journal of Neural Transmission 2024 in press
3. Watanabe R, Shuang Liu, Sakaue T, Ikegawa Y, **Ohta M**, **Higaki T**, Mogi M, Eguchi M
Amelioration of oxygen-induced retinopathy in neonatal mice with fetal growth restriction
Frontiers in Cell and Developmental Biology 2024 inpress
4. **檜垣高史**
「小児循環器入門」
4 保険医療制度（指定難病と身体障害者）と就労支援
日本医事新報社 2024 in press
5. **檜垣高史**
「小児・成育循環器学」 改訂第2版
I その他の諸問題 4 社会心理的問題, 社会保障
診断と治療社 日本小児循環器学会編 2024 in press
6. **檜垣高史**
「新・臨床発達心臓病学」
小児心疾患の管理と諸問題 4. 心疾患と福祉体系
中外医学社 2024 in press
7. **檜垣高史**、**太田雅明**、赤澤祐介、榎木暢子、西朋子
難病の子どもと家族を支える多職種による支援と連携
ーラ・ファミリエの活動よりー
「障害者問題研究」2024 in press
8. Ayusawa M, Iwamoto M, Ushinohama H, Kato Y, Kato T, Sumitomo N, Toyono M, Yasuda K, **Yamamoto E**, Yoshinaga M, Izumida N, Tauchi N, Horigome H, **Higaki T**, Hokosaki T, Abe K, Nagashima M, Aragaki Y, Ogawa S, Kato T, Takahashi N, Hiraoka M.

Guideline for Secondary Screening of Heart Disease in Schools: Electrocardiographic Findings of the Initial Screening (JSPCCS2019) Journal of Pediatric Cardiology and Cardiac Surgery 8(1): 39-52 2024
doi:10.24509/jpccs.0801G1

9. Saito M, Miyake M, Tanaka K, Nagata C, Senba H, Hasebe Y, Miyata T, Higaki T, Kimura E, Matsuura B, Yamaguchi O, Kawamoto R: Smoking and secondhand smoke exposure and carotid intima-media thickness in Japan: The Aidai Cohort Study in Yawatahama, Uchiko, Seiyo, and Ainan. *Tobacco Induced Diseases* 2023 in press
10. Akazawa Y, O Higaki T, Takata H, Sakamoto H, Uchita S, Yamaguchi O: Atrial septal defect closure via left subclavian vein: A novel technique using a steerable sheath. *Cardiovascular Intervention and Therapeutics* 2023 in press
11. 柏木孝介、檜垣高史、辻本拓真、有元裕梨、河本敦、宮田豊寿、田代良、渡部竜助、森谷友造、千阪俊行、太田雅明、高田秀実、松田修、山本英一、江口真理子。愛媛県八幡浜市の小中学校における自動体外式除細動器 (Automated External Defibrillator) の設置状況と有効設置戦略。愛媛医学、42 巻 2 号;79-86. (2023)
12. 黒部裕嗣、新岡俊治、平田陽一郎、福西琢真、森谷友造、倉田美恵、坂上倫久、○檜垣高史、泉谷裕則。(ア) 生体分解性素材を用いた医療デバイスの開発。愛媛医学、42 巻 3 号;119-126. (2023)
13. 有元裕梨、千阪俊行、重森健 (学生)、丸山なつき、浦田啓陽、河本敦、岩田はるか、宮田豊寿、田代良、渡部竜助、太田雅明、高田秀実、世良勇樹 (学生)、郷田怜那 (学生)、赤澤祐介、手島真弓、西野貴子、打田俊司、江口真理子、檜垣高史。経皮的バルーン肺動脈弁形成術により体一肺動脈シャント術を回避できたフアロー四徴症の 1 例。愛媛県小児科医会誌、4 巻 1 号;17-21. (2023)
14. Sekine S, Ochiai R, Kobayashi k, O Higaki T. Development of the Japanese version of the Health Literacy and Resiliency Scale for Youth (HLRS-Y), An Assessment Tool for Young Adult with Chronic Diseases. *Frontiers in Pediatrics* 2022 Nov 21;10:978079.
15. Miyake Y, Tanaka K, Nagata C, Senba H, Hasebe Y, Miyata T, Higaki T, Kimura E, Matsuura B, Kawamoto R. Fish and polyunsaturated fatty acid intake and carotid intima-media thickness in Japan: baseline data from the Aidai Cohort Study in Yawatahama, Uchiko, Seiyo, and Ainan Atherosclerosis. *J Atheroscler Thromb*. 2022 Sep 30.
16. Kumon H, Miyake Y, Yoshino Y, Iga J, Tanaka K, Senba H, Kimura E, Higaki T, Matsuura B, Kawamoto R, Ueno S. Functional AGXT2 SNP rs37369 variant is a risk factor for diabetes mellitus: baseline data from the Aidai Cohort Study in Japan. *Can J Diabetes*. 2022 Jun 22;S1499-2671(22)00140-X.
17. Inoue K, Kawakami H, Akazawa Y, Higashi H, Higaki T, Yamaguchi O. Pathophysiologic Insight into Atrial Function with Echocardiography. *Journal of Cardiovascular Development and Disease (J Cardiovasc Dev Dis.)* 2022 Feb 27;9(3):68.
18. Mori H, Sumitomo N, Fukunaga H, Hayashi H, Nakajima H, Muraji S, Nabeshima T, Kawano D, Tsutsui K, Ikeda Y, Asano S, Nitta J, Watanabe S, Hokosaki T, Sato S, Chisaka T, O Higaki T, Nakajima T, Tamura S, Okada A, Minamiguchi H, Imamura T, Shizuta S, Kawamura M, Munetsugu Y, Suzuki T, Murakami T, Horigome H, Wada T, Takamuro M, Ozawa J, Suzuki H, Izumi D, Otsuki S, Chinushi M, Kato K, Miura M, Maeda J, Fukunaga M, Kondo H, Takahashi N, Tobiume T, Morishima I, Kuraishi K, Nakamura K, Hayashi H, Suzuki H, Fukamizu S, Hojo R, Nuruki N, Yoshinaga M, Hayashi K, Fukaya H, Kishihara J, Kobayashi T and Kato R. Efficacy of Subcutaneous Implantable Cardioverter-Defibrillator ≤ 18 year-old Children: SAVE-CHILDREN Registry. *Int J Cardiol*. 2022 Sep 8;S0167-5273(22)01318-3
19. Oyunsuren Munkhjargal, Oka Y, Tanno S, Shimizu H, Fujino Y, Kira T, Ooe A, Eguchi M, O Higaki T. Discrepancy between subjective and objective sleepiness in adolescents. *Sleep Med*. 2022 Aug;96:1-7.
20. Niinomi K, Mihira H, Ochiai R, Misawa A, Takigawa K, Kashiki N, Kakee N, Takata H, Ishida Y, O Higaki T. Hospital support for siblings of children with illness in Japan. *Frontiers in Pediatrics* 2022; 10: 927084
21. Akazawa Y, O Higaki T*, Inaba S, Yamaguchi O. Direct oral anticoagulant for a right atrial thrombus following endovascular stenting in superior vena cava syndrome. *Circ J*. 2022 Aug 25;86(9):1478.
22. Akazawa Y, O Higaki T*, Haruhiko H, Yamaguchi O. Takotsubo syndrome following PDA device closure: post-procedural threat concern. *Eur Heart J Case Rep*. 2022 Jul; 6(7): ytac221.
23. Akazawa Y, O Higaki T*, Nagai T, Sasaki Y, Asagi Y, Moritani T, Inaba S, Nishiyama H, Eguchi M, Yamaguchi O. Transvenous Pacing Approach for Atrioventricular Block in Fontan - Possibility of Transvenous Approach by Electrophysiological Assessment -. *J Cardiol Cases*. 2022 Mar 14;25(6):389-391.
24. 三谷義英、安河内聰、白石公、赤木禎治、八尾厚史、落合亮太、坂本喜三郎、吉村直樹、岩永史郎、吉松淳、○檜垣高史、賀藤均、新家俊郎、赤阪隆史。先天性心疾患の成人への移行医療に関する提言 (第 3 版)。先天性心疾患の移行医療に関する横断的検討委員会 (8 学会合同: 日本循環器学会・日本心臓病学会・日本小児循環器学会・日本成人先天性心疾患学会・日本胸部外科学会・日本心臓血管外科学会・日本心エコー図学会・日本産科婦人科学会) (2022)
25. 秋山直美、落合亮太、三谷義英、八尾厚史、○檜垣高史、水野篤、丹羽公一郎、白石 公; 先天性心疾患領域で移行期・成人期診療に携わる医師が移行期医療支援センターに期待する機能: 日本成人先天性心疾患学会雑誌 2022 第 11 巻 第 2 号 15~23
26. ○檜垣高史、赤澤祐介、小野恵子;特集: 小児医療、移行医療への公的支援 ― 制度の概念と具体的な運用 5 「障害年金」. 金原出版『小児科』 Vol 63, No. 5; 509-518. (2022)
27. ○檜垣高史、三平元、落合亮太;特集「小児医療の最先

- 端」慢性疾病のある子どもたちへの自立支援 一早期介入と多職種・多領域・専門職の連携. 医歯薬出版・週刊『医学のあゆみ』(2022)
28. **○檜垣高史**、千阪俊行、赤澤祐介；特集 成人患者における小児期発症慢性疾患
 29. 成人期における主な小児発症疾患の病態・管理：循環器疾患 Fallot 四徴. 「小児内科」54 巻 9 号 (2022 年 9 月号)
 30. **檜垣高史**；学校現場での突然死を防ぐために 日小医会報、No.64；1-3. 2022
 31. Koizumi Y, Hirooka M, Tanaka T, Watanabe T, Yoshida O, Tokumoto Y, **○Higaki T**, Eguchi E, Abe M, Hiasa Y. Non-invasive ultrasound technique for assessment of liver fibrosis and cardiac function in Fontan-associated liver disease: diagnosis by elastography and hepatic vein waveform type. Journal of Medical Ultrasonics Journal of Medical Ultrasonics. 2021 Jan 8
 32. Miyake Y, Tanaka K, Senba H, Hasebe Y Miyata T, **Higaki T**, Kimura E, Matsuura B, Kawamoto R. Education and household income and carotid intima-media thickness in Japan : baseline data from the Aidai Cohort Study in Yawatahama, Uchiko, Seiyō, and Ainan: Environmental Health and Preventive Medicine 2021 26:88
 33. Yoshinaga M, Horigome H, Ayusawa M, Yasuda K, Kogaki S, Doi S, Tateno S, Ohta K, Hokosaki T, Nishihara E, Iwamoto M, Sumitomo N, Ushinohama H, Izumida N, Tauchi N, Kato Y, Kato T, Chisaka T, **○Higaki T**, Yoneyama T, Abe K, Nozaki Y, Komori A, Kawai S, Ninomiya Y, Tanaka Y, Nuruki N, Sonoda M, Ueno K, Hazeki D, Nomura Y, Sato S, Hirono K, Hosokawa S, Takechi F, Ishikawa Y, Hata T, Ichida F, Ohno S, Makita N, Horie M, Matsushima S, Tsutsui H, Ogata H, Takahashi H, Nagashima M; Electrocardiographic diagnosis of hypertrophic cardiomyopathy at pre- and post-diagnostic phases in children and adolescents: Circulation Journal, 2021 CJ-21-0376
 34. Miyoshi T, Honda T, Murakami M, Shinozuka F, Sadamoto K, Akazawa Y, **○Higaki T**, Yamaguchi O; The Clinical efficacy of High-Intensity plaques in Kawasaki disease : non-contrast T1-Weighted Magnetic Resonance Imaging: Circulation Reports. 2021; 25;3(6):356-357
 35. Akazawa Y, Inaba S, Sakaue T, Kurata M, Aono J, Yasugi T, Moritani T, **○Higaki T**, Eguchi M, Yamaguchi O; Active Aneurysm Thrombosis after Kawasaki Disease in an Adult: Insight into Anticoagulation Therapy: Journal Cardiology CASE, 2021 May;23(5):206-209
 36. Moritani T, Akazawa Y, **○Higaki T**, Eguchi M; Strayed guidewire into the epidural space during internal jugular vein puncture in a pediatric patient: European Heart Journal - Case Reports 2021 Sep 9;5(9):yt4347.
 37. Miwa S. Shinohara, Ryuji Niino, **Takashi Higaki**, Eiichi Ishii; Wheat Protein-Induced Enterocolitis Syndrome Complicated With Wheezing: An Approach to Diagnosis and Wheat Reintroduction: Cureus 13(8): e17141, August 13, 2021
 38. Akazawa Y, **Higaki T**, Moritani T, Yamaguchi O; Acute Mitral Valve Occlusion due to ASD Occluder: Eur Heart J. 2021 Nov 1;42(41):4283.
 39. Akazawa Y, **○Higaki T**, Takata H, Inaba S, Yamaguchi O; Right Ventricular Thrombus-Induced Myocardial Infarction after Fontan surgery in Pulmonary Atresia with Intact Ventricular Septum. Eur Heart J Case Rep. 2021 Nov 11;5(11):yt439.
 40. **○檜垣高史**、赤澤祐介；先天性心疾患・肺動脈疾患心・腎・脳の視点でとらえる循環器疾患 成人先天性心疾患の社会保障・就労・社会適応 秀潤社『循環器診療コンプリート』 2021；332-342
 41. **○檜垣高史**、高田秀実、赤澤祐介；特集 成人先天性心疾患エキスパートコンセンサス■1. 成人先天性心疾患の全体像を理解する 「2. 社会保障、医療支援はどうか」 医学書院『循環器ジャーナル』 2021；第 69 巻 3 号：353-362
 42. **○檜垣高史**、西朋子；健康面の困難への対応 病弱児の自立支援と就労 特別支援教育免許シリーズ 養護教育領域 建帛社：157-165. 2021
 43. **○檜垣高史**；小児慢性病への自立支援活動 Up-to-Date Pediatric Practice: ラジオ NIKKEI 放送内容集 45-50, 2021
 44. **○檜垣高史** (研究代表者)、掛江直子、三平 元、石田也寸志、落合亮太、高田秀実、滝川国芳、及川郁子、榎木暢子、三沢あき子、新家一輝 (研究分担者)、西朋子、宮田豊寿、谷田美佳 (研究協力者)、ほか；**小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集：厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業 (難治性疾患政策研究事業) 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 (平成 30-令和 2)、2021 年**
 45. **三沢あき子、掛江直子、三平 元、石田也寸志、落合亮太、高田秀実、滝川国芳、及川郁子、榎木暢子、新家一輝、○檜垣高史**、ほか；**保健所取り組み好事例集：厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業 (難治性疾患政策研究事業) 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 (平成 30-令和 2)、2021 年**
 46. 及川郁子、掛江直子、三平 元、石田也寸志、落合亮太、高田秀実、滝川国芳、榎木暢子、三沢あき子、新家一輝、**○檜垣高史**、ほか；**就園にむけたガイドブック：厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業 (難治性疾患政策研究事業) 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 (平成 30-令和 2)、2021 年**
 47. **三平 元、新家一輝、掛江直子、石田也寸志、落合亮太、高田秀実、滝川国芳、及川郁子、榎木暢子、三沢あき子、○檜垣高史**、ほか；**きょうだい児支援取組事例集：厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業 (難治性疾患政策研究事業) 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 (平成 30-令和 2)、2021 年**
- ② 学会発表
1. **○檜垣高史** 特別企画：厚生労働省科学研究ジョイントセッション (市民公開シンポジウム)【先天性心疾患の人が幸せに生きていくために本人と社会がすること】「先天性心疾患を乗り越えて—Life Long Cardiology—」. 第 24 回日本成人先天性心疾患学会総会・学術集会 (2023 年 1 月 13-15 日：愛媛)
 2. **○檜垣高史**、廣野恵一、落合亮太、木村正人、竹内大

二、田原昌博、倉岡彩子、佐々木孝、城戸佐知子、山岸敬幸。モーニング実践講座 テーマ：小児を取り巻く社会保障制度について。「小児科医のためのわかりやすい社会保障制度」。第126回日本小児科学会総会（2023年4月14日～16日：東京）

3. **○檜垣高史**；慢性疾患を乗り越えていく子どもたちのためにわたしたちができること 「研究班全体の説明」 令和4年度 厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業（研究代表者） 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（檜垣班）成果報告会 2023年2月 Hybrid 開催
4. **○檜垣高史**；小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の現状：「令和5年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業」 第13回 自立支援員研修会 2023年7月 東京（WEB 開催）
5. 小出沙由紀、**○檜垣高史**、赤澤祐介、薬師神裕子 当院の移行期・ACHDセンターにおけるプレコンセプションケアの現状報告 第59回 日本小児循環器学会学術集会 7月、横浜
6. **○T. HIGAKI**, Y. Oka, N. Takata, K. Matsubara, S. Koide, R. Katsuta, E. Kuribayashi, K. Moritani, H. Takata, M. Ota, T. Chisaka, T. Sugiyama, M. Eguchi, Y. Yakushijin, Y. Akazawa Importance Of Seamless Preconception Care For Patients With Congenital Heart Disease 8th World Congress of Pediatric Cardiology and Cardiac Surgery, August, Washington D.C
7. **○T. HIGAKI**, R. TASHIRO, H. TAKATA, M. OHTA, T. CHISAKA, T. MORITANI, R. WATANABE, T. MIYATA, Y. AKAZAWA, Y. ARIMOTO, K. KASHIWAGI, R. NIINO, K. KONISHI, O. MATSUDA, E. YAMAMOTO, M. EGUCHI, S. UCHITA Prevalence And Features Of Anomalous Aortic Origin Of A Coronary Artery And Preventing Out-of-hospital Cardiac Arrest ByIntroducing Echocardiography: A School Cardiac Examinations From Ainan Heart Project 8th World Congress of Pediatric Cardiology and Cardiac Surgery, August, Washington D.C
8. **○檜垣高史**；小児期から成人期への 移行期医療の必要性と課題。第2回 愛媛県医師会生涯教育講座 「移行期医療」、2023年10月 愛媛
9. **○檜垣高史**；慢性疾患のある子どもたちの自立をめざした、就園・就学、学習・復学支援の重要性：「令和5年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業」【アドバンス編】 テーマ：教育、第14回 自立支援員研修会 2023年11月、東京（WEB 開催）
10. **○檜垣高史**；(2022) 思春期・移行期の先天性心疾患の諸問題、就学・就労等の社会問題日本小児循環器学会 第13回教育セミナー アドバンスコース 2月
11. **○檜垣高史**；(2022) パネルディスカッション「移行期医療」愛媛県における、移行期・成人先天性心疾患センターの取り組みの現状と課題、第58回日本小児循環器学会学術集会 7月、北海道
12. **○檜垣高史**；(2022) 小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の事例紹介～慢性疾患・難病をのりこえていく子どもたちのために～、令和4（2022）年度小児慢性特定疾病児童等支援者養成事業（厚生労働省：国立成

育医療研究センター 難病の子ども支援全国ネットワーク）第12回 自立支援員研修会 2022 9月、国立成育医療研究センター（オンライン）

13. **○檜垣高史**；慢性疾患を乗り越えていく子どもたちのためにわたしたちができること；令和2年度 厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業（研究代表者） 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（檜垣班）成果報告会 2021年2月（WEB 開催）
14. **○檜垣高史**；自立支援事業の重要性と活性化のポイント～医療者と支援者の両方の立場から～「必要な任意事業を子どもたちに届けていくためには」令和3年度小児慢性特定疾病児童等自立支援事業担当者セミナー2021年10月、東京（WEB 開催）
15. **○檜垣高史**；小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の事例紹介：小児慢性特定疾病児童等自立支援事業（国立成育医療研究センター、難病の子ども支援全国ネットワーク） 第10回 自立支援員研修会、2021年10月 東京（WEB 開催）
16. **○檜垣高史**；小児を取り巻く環境の変化と日本における FCC の現状と未来 「社会で支える病気の子ども達と家族の現状と未来」 慢性疾患患児の自立支援について～ラ・ファミリエの取り組み～ 20th Anniversary Family-Centered Care Forum 2021年12月、東京（Hybrid 開催）

G. 知的財産権の出願・登録状況（予定を含む。）

1. 特許情報
該当なし
2. 実用新案登録
該当なし
3. その他
該当なし