

小児の結節性硬化症における医療費助成・社会福祉制度の利用状況に関する研究

分担研究者 佐久間 啓 東京都医学総合研究所

脳・神経科学研究分野 プロジェクトリーダー

研究要旨

小児の結節性硬化症における医療費助成・社会福祉制度の利用状況を明らかにするため、希少てんかん症候群登録システム（RES-R）データベースの情報に基づいて、医療費助成制度（子ども医療費助成・小児慢性特定疾病医療費助成・重症心身障害者医療費助成・難病医療費助成・自立支援医療）並びに社会福祉制度（療育手帳・身体障害者手帳・精神障害者保健福祉手帳）の利用／取得状況を調査した。未就学児24名のうち、てんかん有病率は95.8%、精神神経障害（TAND）有病率は25%、学童30名のうちてんかん有病率は93.3%、TAND有病率は46.6%であった。多くが小児慢性特定疾患制度や療育／身体障害者／精神保健福祉手帳を利用していたが、未就学児では乳幼児医療を使用しているケースが少なくないと予想された。結論として、社会福祉制度については概ね重症度と障害の種類に相応のものが利用されていた。医療費助成制度の利用状況も高かった。

研究協力者

中井 理恵 1 東京都医学総合研究所 脳・神経科学研究分野、2 大阪大学 大学院医学系研究科小児科学

A. 研究目的

結節性硬化症は脳・皮膚・腎などの全身の多臓器に病変を生ずる疾患であり、神経系を中心に複合障害を持つことが多い。生涯にわたり薬物治療や外科治療を必要とすることから医療費の負担が大きく、てんかん、自閉症、精神発達遅滞の合併による障害に対して様々な社会福祉制度によるサポートが必要となる。しかしこれらの制度が実際にどの程度利用されているかについてはまとまったデータがない。そこで本研究は、小児の結節性硬化症における医療費助成・社会福祉制度の利用状況を調査することを目的とした。

B. 研究方法

希少てんかん症候群登録システム（RES-R）データベースの情報に基づいて、医療費助成制度（子ども医療費助成・小児慢性特定疾病医療費助成・重症心身障害者医療費助成・難病医療費助成・自立支援医療）並びに社会福祉制度（療育手帳・身体障害者手帳・精神障害者保健福祉手帳）の利用／取得状況を調査した。

（倫理面への配慮）

研究実施にあたり関係機関における倫理委員会で承認を受け、研究参加者から同意を取得した。

C. 研究結果

未就学児24名のうち、てんかん有病率は23/24人（95.8%）、精神神経障害（TAND）有病率は6/24人（25%）であった。10/24人（41.6%）が小児慢性特定疾患を未取得であり、乳幼児医療を使用しているケースが少なくないと予想された。療

育／身体障害者／精神保健福祉手帳の取得者はそれぞれ5／2／1人であった。学童30名のうちてんかん有病率は28/30人(93.3%)、TAND有病率は14/30人(46.6%)で、普通学級9人、特別支援学級・学校21人であった。25名が小児慢性特定疾患制度を、3名が重度心身障害者医療費補助制度を利用していた。療育／身体障害者／精神保健福祉手帳の取得者はそれぞれ5／2／2人であった。

研究の実施経過：2021年4月よりRES-Rデータベースの情報を取得し、解析を実施した。

D. 考察

未就学児では小児慢性・難病の医療費助成制度を利用していない割合が高く、乳幼児医療費助成でカバーされていると考えられた。学童の大部分は何らかの医療費助成制度を利用していた。また特に学童では、てんかんや知的発達症などの精神・神経合併症が高い医療・福祉ニーズと関連すると考えられる。

E. 結論

社会福祉制度については概ね重症度と障害の種類に相応のものが利用されていることが明らかとなった。医療費助成制度の利用状況も高かったが、いずれも小児の制度を利用しており、今後は成人の状況も調査しながら移行期医療の課題についても検討したい。

G. 研究発表

論文発表

- 1) Nosadini M, Eyre M, Sakuma H, Dalmau J, Dale RC, *Lim M, et al. Use and Safety of Immunotherapeutic Management of N-Methyl-d-Aspartate Receptor Antibody Encephalitis: A Meta-analysis. JAMA Neurol. 2021;78:1333-1344.

- 2) Nosadini M, Thomas T, Sakuma H, Dalmau J, Lim M, *Dale RC, et al. International Consensus Recommendations for the Treatment of Pediatric NMDAR Antibody Encephalitis. Neurol Neuroimmunol Neuroinflamm. 2021;8:e1052.
- 3) *Nishida H, Kohyama K, Kumada S, Takanashi JI, Okumura A, Horino A, Moriyama K, Sakuma H. Evaluation of the Diagnostic Criteria for Anti-NMDA Receptor Encephalitis in Japanese Children. Neurology. 2021;96:e2070-e2077.
- 4) Horino A, *Kuki I, Inoue T, Kawawaki H, Shiomi M, *Sakuma H, et al. Intrathecal dexamethasone therapy for febrile infection-related epilepsy syndrome. Ann Clin Transl Neurol. 2021;8:645-655.
- 5) *Yamanaka G, Takamatsu T, Sakuma H, Yoshimoto T, Kato M, Kawashima H, et al. Interleukin-1 β in peripheral monocytes is associated with seizure frequency in pediatric drug-resistant epilepsy. J Neuroimmunol. 2021;352:577475.
- 6) Mizuguchi M, Ichiyama T, Imataka G, Okumura A, Goto T, Sakuma H, et al. Guidelines for the diagnosis and treatment of acute encephalopathy in childhood. Brain Dev. 2021;43:2-31.

学会発表

- 1) 佐久間啓. 脳発達とてんかんにおけるミクログリアの役割. 第54回日本てんかん学会学術集会. 2021.9.23～25. Hybrid (名古屋)

- 2) 佐久間啓. Pediatric anti-NMDA Receptor Encephalitis: Pathophysiology, Diagnosis, and Treatment. 第54回日本てんかん学会学術集会. 2021.9.23～25 (9.24). Hybrid (名古屋)
- 3) 佐久間啓. 指定難病・小児慢性特定疾患としての稀少てんかん. シンポジウム「てんかんの希少難病」. 第54回日本てんかん学会学術集会. 2021.9.23～25 (9.24). Hybrid (名古屋)
- 4) Sakuma H. Pathogenesis of New-Onset Refractory Status Epilepticus (NORSE) and Febrile Infection Related Epilepsy Syndrome (FIRES). 13th Asian and Oceanian Epilepsy Congress. 2021.6.10-13 (6.11), Virtual.

H. 知的財産権の出願・登録状況（予定を含む。）

1. 特許取得

無し

2. 実用新案登録

無し

3. その他

無し