

「移行期医療支援センター」と連携する、小児リウマチ担当拠点病院の  
設置・併設のための基礎資料作成に資する研究

研究分担者 森 雅亮 東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科 寄附講座教授  
宮前多佳子 東京女子医科大学病院膠原病リウマチ痛風センター医学部 准教授

### 研究要旨

移行期班独自の取り組みとして、当初 2019 年度から 3 年間で、小児リウマチを専門的に扱う施設が存在しない「小児慢性特定疾病児童成人移行期医療支援モデル事業」施設と連携する分野別拠点病院を設置するためにその基礎資料を作成することを成果目標とし、2019 年度は「モデル事業実施機関 11 施設へ小児リウマチ疾患の対応につきアンケートを実施する」ことで研究を開始した。しかし、このモデルは試験的な位置づけとして一時的に設置されたものであることが判明したため、アンケートの対象を、自治体ごとに設置された「移行期医療を総合的に支援する機能（移行期医療支援センター）」に切り替えることにした。しかし、難病診療連携拠点病院に相当する移行期医療支援センターが設置された自治体は、2020 年 3 月時点では 3 自治体に過ぎないことが明らかになった。

そこで、上記の現状から、当初の計画を大幅に変更し、2020-2021 年度の 2 年間で「全国都道府県の移行期医療支援センター未設置の自治体向けに、分野別拠点病院設置のための基礎資料を作成する」ことを最終目標とした研究活動を行うこととした。そのため、各都道府県の難病診療拠点病院および難病診療分野別拠点病院に対して、移行期医療支援についてのアンケート調査を実施した。膠原病・リウマチ科を診療科として有している病院施設のうち 64 施設から詳細な回答があり、既に着手している施設は 20 施設（31.7%）、将来の取り組みとして検討している施設は 40 施設（64.5%）に上ることが明らかになった。今後、難病診療拠点病院および難病診療分野別拠点病院の連携が構築される際に、上記データ資料を参考にして移行期医療支援センターの設置を促す活動を引き続き行っていく必要があると考えている。

### A. 研究目的

今後都道府県に設立予定の「移行期医療支援センター」に、難病診療拠点病院および難病診療分野別拠点病院に併存する、あるいは連携できる小児リウマチ担当部署を組織するための基礎資料を作成すること。

### B. 研究方法

当初、年度毎の目標を以下のように設定した。

2019 年度：モデル事業実施機関 11 施設へ小児リウマチ疾患の対応につきアンケート実施

2020 年度：アンケート結果をもとに、分野別拠点病院設置の必要性を検討

2021 年度：必要性に応じ、分野別拠点病院設置のための基礎資料を作成 2019 年度は、「小児慢性特定疾病児童成人移行期

2019 年度は、「小児慢性特定疾病児童成人移行期医療支援モデル事業」へアンケートを行うべくモデル事業の骨子および成果を検討することとした。しかし、このモデルは国が試験的な位置づけとして一時的に設置されたものであることが後日判明したため、アンケートの対象を「移行期医療を総合的に

支援する機能（移行期医療支援センター）が設置された自治体」に変更し準備を進めた。しかし、2020 年 3 月時点では移行期医療支援センターを既に設置している 3 自治体（千葉県、埼玉県、大阪府）と近々予定している 4 自治体（東京都、神奈川県、静岡県、長野県）と少数に過ぎないことが明らかになった。

このため、2020 年度からは、研究方法の転換を余儀なくされ、各都道府県に設置された難病診療連携拠点病院および難病診療分野別拠点病院に対して、移行期医療支援センターの設置状況および移行期医療への意識調査に切り替えることにし、アンケート調査を実施した（資料 1）。

### C. 研究結果

2021 年 11 月現在、難病診療連携拠点病院 74 施設と難病診療分野別拠点病院 49 施設の計 123 施設が全国に分布していることを把握できた。このうち 79 件（64.2%）から回答を得、膠原病・リウマチ科を診療科と有する施設 64 件から詳細な回答を回収した（資料 2-1）。既に小児-成人期の連携体制の整備に着手している施設は 20 施設（31.7%）、将来の取り組みとして検討している施設は 40 施設（64.5%）に上ること

が明らかになった(資料 2-2)。

#### D. 考察

移行期医療の現状を探るために、初めは「小児慢性特定疾病児童成人移行期医療支援モデル事業」に対し、次いで「移行期医療支援センターが設置された自治体」を対象にしたアンケート調査を画策していたが、ほぼ移行期医療支援センターは稼働していないことが判明した。このため、各都道府県に設置された難病診療連携拠点病院および難病診療分野別拠点病院に対して、移行期医療支援センターの設置状況および移行期医療への意識調査を行うこととした。その結果、膠原病・リウマチ科を診療科と有する施設の約 30%は「小児-成人期の連携体制の整備」に着手しており、約 2/3 の施設では今後の取り組みとして検討していることが判明した。全国的に、小児・移行期リウマチ・膠原病診療の体制が構築されていく芽生えを感じる事ができたことは意義が大きい。

#### E. 結論

本研究は、紆余曲折を経て実施することが出来たが、今後都道府県に設立予定の「移行期医療支援センター」に、分野別拠点病院としての小児リウマチ担当施設を設置・併設するためには、基礎資料の作成が必要である。そのための有益なデータが本研究で得られたと考えている。

しかし、本研究において、各都道府県に設置された難病診療連携拠点病院と比較して、移行期医療支援センターのシステム作りは全く整備されていない現状が把握できた。今後の展開として、2015～2016 年度厚生労働科学研究「若年性特発性関節炎を主とした小児膠原病の診断基準・重症度分類の標準化とエビデンスに基づいたガイドラインの策定に関する研究」において全国調査を行った結果に作成し、日本小児リウマチ学会 HP で公開した「小児リウマチ中核施設」ネットワークを現状に即して改良し、これから設置・併設する移行期医療支援センターと有機的に結合させることも検討しても良いのではないかと考える。

#### F. 健康危険情報

特になし

#### G. 研究発表

1. 論文発表  
<英文のみ>

1. Tanaka Y, Kuwana M, Fujii T, Kameda H, Muro Y, Fujio K, Itoh Y, Yasuoka H, Fukaya S,

Ashihara K, Hirano D, Ohmura K, Tabuchi Y, Hasegawa H, Matsumiya R, Shirai Y, Ogura T, Tsuchida Y, Ogawa-Momohara M, Narazaki H, Inoue Y, Miyagawa I, Nakano K, Hirata S, Mori M. 2019 Diagnostic criteria for mixed connective tissue disease (MCTD): From the Japan research committee of the ministry of health, labor, and welfare for systemic autoimmune diseases. *Mod. Rheumatol.* 31(1):29-33. 2021.

2. Shimizu M, Shimbo A, Yamazaki S, Mori M. Concurrent lupus enteritis and cystitis. *Pediatr. Int.* 63(9):1142-1143. 2021.

3. Shimbo A, Akutsu Y, Yamazaki S, Shimizu M, Mori M. Clinical images: Giant iliopsoas bursitis in systemic juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis Rheumatol.* 73(7):1328-1328. 2021.

4. Yamazaki S, Akutsu Y, Shimbo A, Shimizu M, Segawa Y, Mori M. Childhood-onset systemic lupus erythematosus with trisomy X and the increased risk for bone complications: a case report. *Pediatr. Rheumatol.* 19(1):20. 2021.

5. Sobue Y, Kojima T, Ito H, Nishida K, Matsushita I, Kaneko Y, Kishimoto M, Kohno M, Sugihara T, Seto Y, Tanaka E, Nakayama T, Hirata S, Murashima A, Morinobu A, Mori M, Kojima M, Kawahito Y, Harigai M. Does exercise therapy improve patient-reported outcomes in rheumatoid arthritis? A systematic review and meta-analysis for the update of the 2020 JCR guidelines for the management of rheumatoid arthritis. *Mod. Rheumatol.* 32(1):96-104. 2022.

6. Sobue Y, Kojima M, Kojima T, Ito H, Nishida K, Matsushita I, Hirata S, Kaneko Y, Kishimoto M, Kohno M, Murashima A, Morinobu A, Mori M, Nakayama T, Sugihara T, Seto Y, Tanaka E, Hasegawa M, Kawahito Y, Harigai M. Patient satisfaction with total joint replacement surgery for rheumatoid arthritis: a questionnaire survey for the 2020 update of the Japan college of rheumatology clinical practice guidelines. *Mod. Rheumatol.* 32(1):121-126. 2022.

7. Mori M, Yamazaki S, Naruto T. The Benefits and Respective Side-Effects of PE Therapy for Intractable Kawasaki Disease. *J Clin*

- Med. 10(5):1062. 2021.
8. Tanaka E, Kawahito Y, Kohno M, Hirata S, Kishimoto M, Kaneko Y, Tamai H, Seto Y, Morinobu A, Sugihara T, Murashima A, Kojima M, Mori M, Ito H, Kojima T, Sobue Y, Nishida K, Matsushita I, Nakayama T, Yamanaka H, Harigai M, Systematic review and meta-analysis of biosimilar for the treatment of rheumatoid arthritis informing the 2020 update of the Japan College of Rheumatology clinical practice guidelines for the management of rheumatoid arthritis. *Mod. Rheumatol.* 32(1):74-86. 2022.
  9. Fujita Y, Sato Y, Takagi Y, Nakazato Y, Shimizu M, Mori M, Yoshihara S. Hemophagocytic lymphohistiocytosis associated with primary cutaneous gamma-delta T-cell lymphoma presenting with subcutaneous panniculitis in a 12-year-old girl. *Pediatr. Blood Cancer.* 68(7): e29035. 2021.
  10. Tomiita M, Kobayashi I, Itoh Y, Inoue Y, Iwata N, Umebayashi H, Okamoto N, Nonaka Y, Hara R, Mori M. Clinical practice guidance for Sjögren's syndrome in pediatric patients (2018) - summarized and updated. *Mod. Rheumatol.* 31(2):283-293. 2021.
  11. Takei S, Igarashi T, Kubota T, Tanaka E, Yamaguchi K, Yamazaki K, Itoh Y, Arai S, Okamoto K, Mori M. Clinical Practice Guidance for Childhood-Onset Systemic Lupus Erythematosus -Secondary publication. *Mod. Rheumatol.* 32(2):239-247. 2022.
  12. Shimizu M, Shimbo A, Yamazaki S, Segawa Y, Mori M. Septic arthritis of the pubic symphysis in a patient with SLE. *Pediatr. Int.* 64(1): e14875. 2022.
  13. Ichimura Y, Konishi R, Shobo M, Inoue S, Okune M, Maeda A, Tanaka R, Kubota N, Matsumoto I, Ishii A, Tamaoka A, Shimbo A, Mori M, Morio T, Kishi T, Miyamae T, Tanboon J, Inoue M, Nishino I, Fujimoto M, Nomura T, Okiyama N. Anti-nuclear matrix protein 2 antibody-positive inflammatory myopathies represent extensive myositis without dermatomyositis-specific rash. *Rheumatology (Oxford).* 61(3): 1222-1227. 2022.
  14. Mori M, Akioka S, Igarashi T, Inoue Y, Umebayashi H, Ohshima S, Nishiyama S, Hashimoto M, Matsui T, Miyamae T, Yasumi T. Transitioning from pediatric to adult rheumatological healthcare: English summary of the Japanese Transition Support Guide. *Mod. Rheumatol.* 32(2):248-255. 2022.
  15. Yanagimachi M, Fukuda S, Tanaka F, Iwamoto M, Takao C, Oba K, Suzuki N, Kiyohara K, Kuranobu D, Tada N, Nagashima A, Ishii T, Ino Y, Kimura Y, Nawa N, Fujiwara T, Naruto T, Morio T, Doi S, Mori M. Leucine-rich alpha-2-glycoprotein 1 and angiotensinogen as diagnostic biomarkers for Kawasaki disease. *PLoS One.* 16(9): e0257138. 2021.
  16. Brunner HI, Abud-Mendoza C, Mori M, Pilkington CA, Syed R, Takei S, Viola DO, Furie RA, Navarra S, Zhang FC, Bass DL, Eriksson G, Hammer AE, Ji BN, Okily M, Roth DA, Quasny H, Ruperto N. Efficacy and safety of belimumab in paediatric and adult patients with systemic lupus erythematosus: an across-study comparison. *RMD Open.* 7(3):e001747. 2021.
2. 学会発表  
<海外>
1. Mori M. JSCI Symposium. Progress in IL-6-targeting therapies- bilateral translation between bench and clinic -. IL-6 and its targeting therapy in systemic juvenile idiopathic arthritis and adult Still's disease. FOCIS 2021 Virtual Annual Meeting. USA. 2021. 6. 8.
  2. Mori M. Usefulness and positioning of infliximab in acute treatment of Kawasaki disease. (Sponsored seminar by Mitsubishi Tanabe Pharma) The 13th International Kawasaki Disease Symposium. Tokyo. 2021. 10. 29.
  3. Mori M. Recent perspectives on vasculitis-related diseases from Japan. Advances in treatment for Kawasaki disease. ACR Convergence #ACR21. USA. 2021. 11. 7.
- <国内>
1. 森 雅亮. 教育講演. 小児でみられる血管炎の診かた・考え方. 第44回日本小児皮膚科学会学術大会. 大阪. 2021. 1.

2. 森 雅亮. ランチョンセミナー. 全身エリテマトーデス診療ガイドライン 2019』および『小児全身性エリテマトーデス診療の手引き 2018』に即した、小児期および移行期全身性エリテマトーデス(SLE)治療の実際. 第55回日本小児腎臓病学会学術集会. 金沢. 2021. 1.
3. 森 雅亮. 共催セミナー. 免疫抑制薬使用による免疫不全状態下でのCOVID-19感染症～最近の知見からのエビデンスを中心に～. 第4回日本免疫不全・自己炎症学会総会学術集会. 東京. 2021. 2.
4. 謝花幸祐, 松井利浩, 當間重人, 森 雅亮. ワークショップ. 移行期・成人期の少・多関節炎若年性特発性関節炎と若年関節リウマチ患者の診療実態の相違点-CoNinJaとNinJaを用いた解析-. 第65回日本リウマチ学会総会・学術集会. 神戸. 2021. 4.
5. 松井利浩, 浦田幸朋, 川畑仁人, 川人豊, 小嶋雅代, 佐浦隆一, 杉原毅彦, 島原範芳, 辻村美保, 中原英子, 橋本淳, 橋本求, 房間美恵, 宮前多佳子, 村島温子, 森 雅亮, 矢嶋宣幸. メディカルスタッフによる関節リウマチ患者支援の実態に関するアンケート調査～ライフステージに応じた関節リウマチ患者支援ガイド作成に向けて～. 第65回日本リウマチ学会総会・学術集会. 神戸. 2021. 4.
6. 井上祐三朗, 梅林宏明, 松井利浩, 西山進, 宮前多佳子, 森 雅亮. ワークショップ. 小児発症リウマチ性疾患患者の自立評価指標の確立. 第65回日本リウマチ学会総会・学術集会. 神戸. 2021. 4.
7. 森 雅亮. 免疫不全状態が懸念される状況下でのロタウイルスワクチン接種～免疫不全状態における予防接種ガイドライン(追補版)に即して～. 第30回日本外来小児科学会年次集会. 2021. 8. 21.
8. 清水正樹, 西岡謙一, 岩田直美, 八角高裕, 梅林宏明, 中岸保夫, 大倉有加, 岡本奈美, 金城紀子, 水田麻雄, 矢代将登, 安村純子, 脇口宏之, 久保田知洋, 毛利万里子, 森 雅亮. 全身型若年性突発性関節炎に合併したマクロファージ活性化症候群に対する治療. 第30回日本小児リウマチ学会学術集会. 東京. 2021. 10. 16.
9. 森 雅亮. ランチョンセミナー. 川崎病における冠動脈病変発症阻止を目指して～大量ガンマグロブリン+インフリキシマブ+血漿交換による段階的治療の実用性～. 第42回日本アフェレシス学会学術集会. 東京. 2021. 10. 17.
10. 森 雅亮. 血管炎シンポジウム. 小児リウマチ学から見た川崎病. 第41回日本川崎病学会 総会・学術集会. 東京. 2021. 11. 20.

#### H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得  
特になし
2. 実用新案登録  
特になし
3. その他  
特になし

資料 1. 各都道府県の難病診療拠点病院および  
難病診療分野別拠点病院へのアンケート調査内容

Q1: 貴施設では、上にあげた 7 疾患を扱う膠原病・リウマチ科を診療科としてお持ちですか？  
 はい (→Aにおすすみください)  いいえ (→Bにおすすみください)

A. Q1で「はい」とご回答いただいた方にご質問です

Q2: 診療されている疾患をご選択ください (複数回答可)  
 原発性抗リン脂質抗体症候群(PAPS)(疾患番号 48)  シェーグレン症候群(SS)(同 53)  
 全身性エリテマトーデス(SLE)(同 49)  成人ステル病(ASD)(同 54)  
 多発性筋炎/皮膚筋炎(PM/DM)(同 50)  若年性特発性関節炎(JIA)(同 107)  
 混合性結合組織病(MCTD)(同 52)  その他( )

Q3: 貴施設では、どのような取り組みを始められていますか？(複数回答可)  
 医療機関間の連携  
 患者相談  
 診療医の紹介・斡旋  
 関係者への教育  
 小児期および成人期それぞれの医療従事者間の連携体制の整備  
 その他

Q4: 貴施設では、今後どのような取り組みを行いたいと考えていますか？(複数回答可)  
 医療機関間の連携  
 患者相談  
 診療医の紹介・斡旋  
 関係者への教育  
 小児期および成人期それぞれの医療従事者間の連携体制の整備  
 その他

B. Q1で「いいえ」とご回答いただいた方にご質問です

Q2: 貴施設では、他の医療施設と連携して自己免疫疾患の患者さんの診療を行っていますか？  
 はい (連携しているご施設名 )  
 いいえ  
 わからない

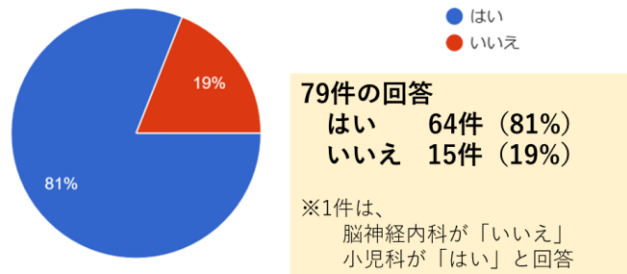
Q3: 貴施設では、自己免疫疾患の患者さんを今後診療されるご予定はありますか？  
 はい  いいえ  わからない

Q4: Q3で「はい」とご回答いただいた方にご質問です。  
 どちらの施設で診療されるご予定ですか？  
 ご自身の施設  他の医療機関と連携  
 上記の両方

アンケートは以上になります。ご協力いただき誠にありがとうございました。  
 本研究の結果がまとまりましたら、ご協力いただいたご施設に成果書を送らせていただきます。

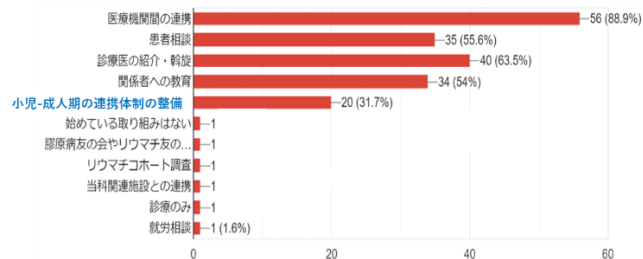
資料 2-1. 難病診療拠点へのアンケート調査結果

Q1: 貴施設では 7 疾患を扱う膠原病・  
リウマチ科を診療科としてお持ちですか？



資料 2-2. 難病診療拠点へのアンケート調査結果  
(上記 Q1 で「はい」と回答した施設に対して)

Q3: 貴施設ではどのような取り組みを  
始められていますか？(複数回答可)



Q4: 貴施設では今後どのような取り組みを  
行いたいと考えていますか？(複数回答可)

