

# 小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資する研究

## 「総括研究報告」(令和4年度)

研究代表者 檜垣 高史

(愛媛大学大学院医学系研究科 地域小児・周産期学講座 寄附講座教授)

### 研究要旨

#### 【研究目的】

平成27年1月より、都道府県、指定都市、中核市、児童相談所設置市（以下「実施主体」という）は、幼少期から慢性的な疾病に罹患していることにより、自立に困難を伴う小児慢性特定疾病児童等（以下「小慢児童」という）について、地域支援の充実により自立促進を図るため、小児慢性特定疾病児童等自立支援員（以下「自立支援員」という）を配置する等して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」という）を実施している。

先行研究で、『好事例集』（平成28-29年度）、『小児慢性特定疾病児童等自立支援事業取組資料集』、『保健所における小児慢性特定疾病児童等相談支援等好事例集』、『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』、『きょうだい児支援取組事例集』（平成30-令和2年度）などを作成した。

さらにニーズや課題を分析し、自立支援員をはじめ医療・保健・教育・就労・福祉などの多分野の専門職を含む関係者に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のバージョンアップを実施することにより、小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資することを目的として、以下の研究を計画した。

その結果、各自治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・量的向上が可能となり、さらには任意事業の活性化や立ち上げ等に資する成果が期待される。

#### 【研究方法】

##### 【研究1】小慢児童及びその家族の自立支援に関する真のニーズを把握

- 1 相談支援の実態調査
- 2 自立支援を受けた患者及び家族からの声を把握
- 3 自立支援に関する尺度開発
- 4 自立支援事業全国実施状況調査（経年的比較）

##### 【研究2】自立支援員の資質向上をめざした研修の在り方に関する研究

- 1 先行研究で作成した相談対応モデル集の試用・評価
- 2 情報共有シート（就園、就学、就職）を用いた支援実績の検討

##### 【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

##### 【研究4】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

- 1 関連施策との連携における現状分析及び課題抽出

#### 【結果と考察】

研究1-1では、相談支援個票を用いて全国の協力施設における相談対応の内訳、実件数、連絡調整した関係機関などを明らかにした。7団体（9地方公共団体）を対象とし、相談対応4336件を分析した。「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「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」が上位を占めた。「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」を検討する基礎データとなる。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開催した。自立支援員の交流により情報収集および情報共有を行うことができ、自立支援事業の展開に寄与するものと思われた。

研究1-2では、複数自治体において、自立支援事業による支援を受けた患者及び家族、きょうだいに対

して、インタビューを実施した。聞き取り内容を検討し、小慢児童等の社会的自立を見通した支援になっているかどうか検証を進めている。

研究1-3では、小慢児童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**を開発した (Frontiers in Pediatrics 2022)。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調査し290名から有効回答を得た。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日本語版は、I-T相関分析の結果などから、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。プレコンセプションケアの知識を測定する尺度を、デルファイ法を用いて開発した。

研究1-4では、自立支援事業全国実施状況調査で、経年変化を捉え課題を分析した。

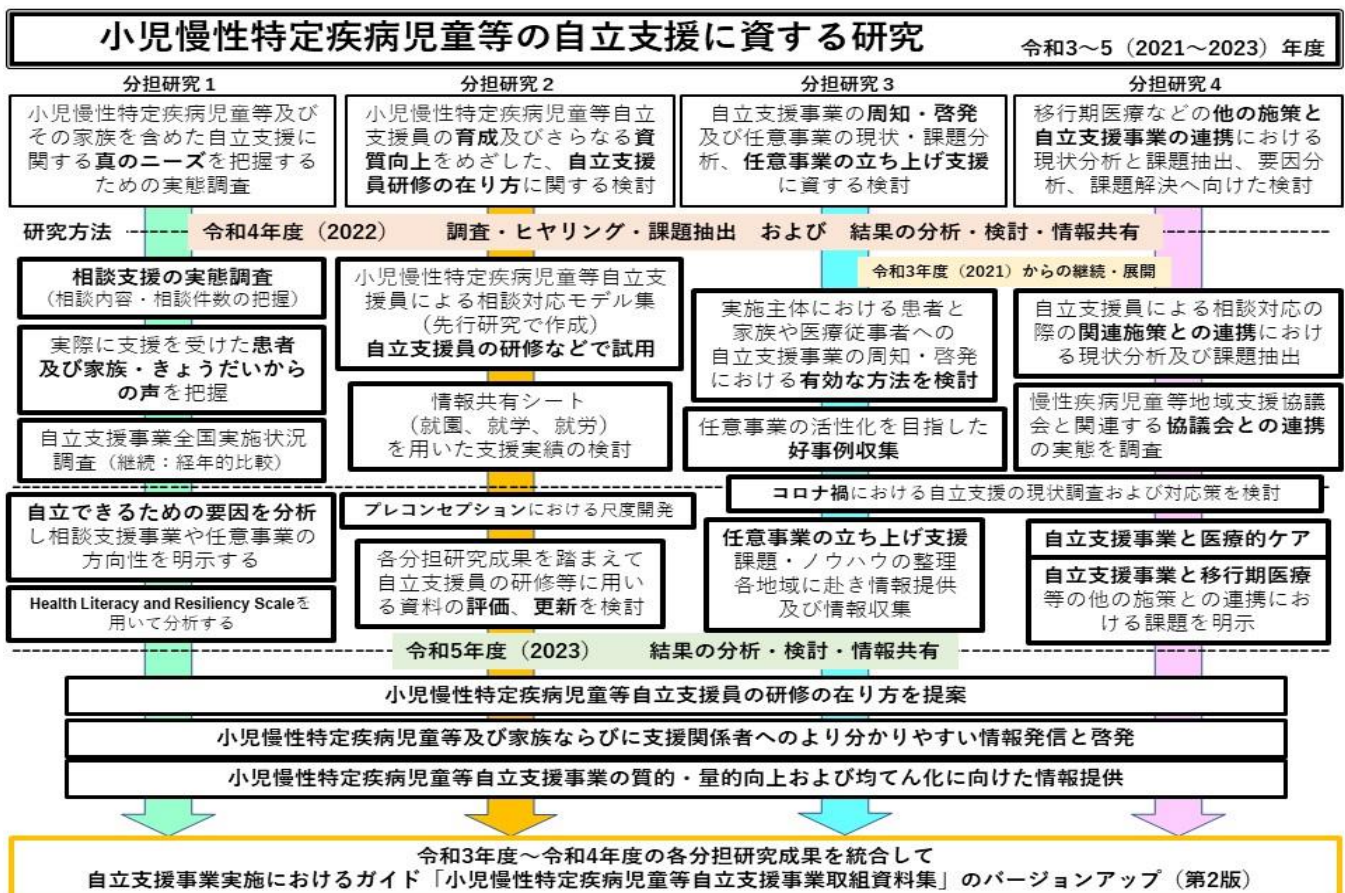
研究2-2では、就園に向けた『ガイドブック』『就園のための情報共有シート』の活用促進において、「情報共有シート」を活用し就園に至ったケースが報告され、園が必要と考えている情報が網羅されていること、各項目の情報を詳細に書くことで園側の受入れが良いことなどが明らかになった。

研究3の、自立支援事業に関するWEB調査では、認知度は低いが、65.6%が必要であると回答しており、周知・啓発の重要性が示された。小児慢性特定疾病児童等自立支援事業ポータルサイトにおいて情報を共有し、小児慢性特定疾病児童等自立支援事業関連相談窓口を開設し、関係者からの相談に対応している。

研究4では、自立支援事業と移行期医療支援センターとの連携について調査中である。小児がんサバイバーと母親の就労状況に影響する因子について検討した。早期介入の重要性の観点から、今年度よりNICU入院患者に対するニーズ調査などを新規研究として追加した。

### 【結論】

相談支援の実態調査および支援を受けた患者及び家族からの声を調査し、真のニーズを把握した。小慢児童のニーズ評価に適した指標と考えられる尺度を開発した。小慢児童が自立できるための要因を分析することにより、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になる。「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)」(仮称)をバージョンアップすることなどにより、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 愛媛県立中央病院 小児医療センター 小児医療センター長  
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 講師／京都府山城南保健所 所長  
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  
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  
管崎宏文 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  
山田晴絵 旭川市役所 課長補佐  
榎本淳子 東洋大学文学部 教授  
塩之谷真弓 中部大学現代教育学部幼児教育学科 准教授  
風間邦子 長野県健康福祉部 小慢自立支援員  
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  
関根沙綾 聖路加国際大学大学院看護学研究科小児看護学 大学院生  
秋山直美 公立大学法人横浜市立大学大学院医学研究科看護学専攻 大学院生  
清水由佳 NPO法人カシオペア 理事長  
赫多久美子 立教大学 専任講師／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  
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

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

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 京都大学大学院医学研究科人間健康科学系専攻家族看護学講座成育看護学 准教授

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

水野芳子 東京情報大学 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

西村幸 公益財団法人日本訪問看護財団松山相談支援センター 管理者

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

榊田夏代 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

中井美穂 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 研究補助員

### A. 研究目的

平成 27 年より実施されている小児慢性特定疾病児童等自立支援事業（「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。

小慢児童の自立を支援するためには、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、医療・保健・福祉・教育・就労等の分野の専門職を含む関係者間で連携して対応していくべきである。難病・小児慢性特定疾病地域共生ワーキンググループにおいて「自立支援員の更なる資質向上のために、自立支援員の研修の在り方を見直すことが必要」との意見があった。

相談支援事業は全ての実施主体において実施されているが、任意事業の実施率はまだ低い。任意事業を活性化させ立ち上げを支援するためには、任意事業の現状を分析し、好事例を周知するとともに、各地域の小慢患者及びその家族、医療従事者、地域の支援関係者に任意事業について認識されることも重要である。

自立支援事業と他の施策等との連携が必要であり、連携の実態、課題について検討する必要がある。令和 4 年度には、下記の 4 課題について研究を計画した。

1 小慢児童及びその家族、きょうだい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

2 自立支援員の資質向上をめざした研修の在り方に関する検討

3 任意事業の現状および課題の分析及び任意事業の活性化を目指した立ち上げ支援に関する検討

4 移行期医療等の他の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

令和 5 年度には、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」のバージョンアップをめざす。

これらの成果により、小慢児童の尚一層の健全育成が図られることに相まって、慢性疾病や難病等の医療水準ならびに生活水準の向上が図られ、小慢児童及びその保護者・きょうだい児がより一層安心して暮らすことのできる地域社会の実現が期待できる。

## B. 研究方法

小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資する研究として、3年の研究期間（2年目）において、下記の研究を行う。令和4～5年度に、下記の4課題について分担研究を計画した。

### ■【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

##### ●1-1 相談支援の実態調査（相談内容・相談件数の把握）

令和3年度に作成した相談支援個票（Ver.1）を調整して完成させる。研究協力者である自立支援員が関わった相談の内容及び件数、関連施策との連携等の実態調査を、対象を拡大して進め、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し、助言集を作成する。

##### ●1-2 実際に自立支援を受けた患者及び家族からの声を把握

成人した小児慢性特定疾病患者及び家族を対象に、相談相手や、過去の学校生活、卒業後の生活、きょうだい関連、就労関連、疾病関連などについて、困りごとや悩み事と当時の支援や対応の状況などを具体的に調査し、インタビューガイドなどを作成して自立のための要因分析を行う。

##### ●1-3 自立支援関連の尺度開発

プレコンセプション支援における尺度開発、及び **Health Literacy and Resiliency Scale** を用いて自立支援に関する真のニーズを把握し分析する。

##### ●1-4 自立支援事業全国実施状況調査（継続：経年的比較）

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する。

##### ●1-5 コロナ禍における自立支援の現状調査および対応策の検討

### ■【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 先行研究で作成した自立支援員による相談対応モデル集の試用・評価・更新

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自立支援員の研修に資する機会等における教材として試用、評価、検討し、バージョンアップする

##### ●2-2 先行研究で作成した情報共有シート（就園、就学、就職）を用いた支援実績の検討

小慢患者及びその家族と関係者が情報を共有するための情報共有シートの試用結果をもとに、支援効果を評価、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 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

自立支援事業の周知・連携方法および自立支援事業全国実施状況調査の結果をもとに、有効な方法を検討する。各地域に赴いて情報提供するとともに、実際の情報を収集する。ホームページに自立支援事業関連相談窓口を開設し、支援ニーズの把握及び方策を検討する。

### ■【分担研究4】

#### 移行期医療施策そ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 自立支援員による相談対応の際の関連施策との連携における現状分析及び課題抽出

自立支援員が関わる関連施策との連携等を調査し、移行期医療施策、周産期医療から医療的ケアを含めた関連施策との連携における課題抽出、要因分析、課題解決へ向けた検討を行う。

##### ●4-2 慢性疾病児童等地域支援協議会と関連する協議会との連携の実態を調査

慢性疾病児童等地域支援協議会と関連する協議会等との連携の実態を調査する。

### ★【総括】

研究成果を踏まえ、自立支援員研修、任意事業の立ち上げ支援、自立支援事業の周知・啓発、その他の自立支援事業の発展に資する「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）」を作成する。

（倫理面への配慮）

究班全体における倫理面への配慮としては、「人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針」（令和3年3月23日 文部科学省・厚生労働省・経済産業省）を遵守して研究を進める。

現状としては、基本となるデータは、個人情報を含むものではなく、倫理的に問題は生じないと考える。また必要な場合には倫理委員会での承認を得た。

## C. 研究結果 および D. 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 「小児慢性特定疾病児童等自立支援員による相談支援の実態調査」

小慢自立支援員が相談対応する場における相談実態を明らかにした。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（小慢さぼーとせんたー）（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） を調査対象とし、調査期間は 2022 年 4 月～2023 年 3 月の 12 か月間 とした。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。

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、中国・四国、九州・沖縄、東北、東海・北陸において開催した。（北海道、近畿、関東甲信越地区は、現在調整中）自立支援事業の積極的な実施及び内容の充実を図るために、小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の相談支援事業におけるモデル対応集に挙げられる架空事例について、情報を収集した。

### ●1-2 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

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本格調査に向け、令和3年度に自立支援事業による支援を受けが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、検討を進めている。令和5年度は更にインタビューを重ね、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ている。

成人した小児期発症慢性疾患患者の きょうだいを

対象として、当事者による評価をもとに、今後の自立支援事業の発展のための方策を検討するために、インタビュー調査を開始した。

### ●1-3 自立支援関連の尺度開発

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（Frontiers in Pediatrics 2022）、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 $\alpha$ 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。

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。調査項目を、多領域有識者においてデルファイ法を用いて抽出した。開発した本尺度を用いて、全国の患者対象調査を準備中である。

### ●1-4 自立支援事業全国実施状況調査

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、全国 135 実施主体を対象に、必須事業及び任意事業の実施状況、慢性疾患児童等地域支援協議会の設置・運営状況等を訊ねる調査票を作成し、質問紙調査を実施し分析した。

その結果、小児慢性特定疾病児童等自立支援事業の取組みのうち、必須事業については、ほぼすべての実施主体において何らかの取組みがなされていることが確認された。一方、任意事業については、何らかの事業を実施しているとの回答が 49.6%、約半数の実施主体で実施しており、これは前年度に比べ僅かながら増加がみられた。他方、任意事業が実施できない理由としては、ニーズ（どのような任意事業が求められているのか）が把握できていない、予算が確保できない、どのように実施してよいかわからない等が挙げられた。ニーズの把握については、約 75%の実施主体が既に把握に努めていることが明らかとなっており、今後、具体的な任意事業の展開に繋がることが期待される。

本年度も前年度に続き、新型コロナウイルス感染症の感染拡大防止対応が求められ、対面で開催を予定していた自立支援等を自粛する判断を行った実施主体があったものの、制限がある状況下においても様々な工夫をして事業を実施した実施主体が前年度と比較すると多くみられた点は評価できる。患者・家族も生活に様々な制限がある状況下で更なる支援を必要としていることが推察されることから、必須事業の更なる充実、任意事業のより積極的な展開が強く期待される。また、新型コロナウイルス感染症感染拡大に伴う行動制限の解除により、今後の事業の活発化にも期待する。

### ■【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 先行研究で作成した自立支援員による相談対応モデル集の試用・評価・更新

令和 4 年 9 月 1～2 日に開催された第 12 回自立支援員研修会（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共催）において、先行研究で作成した情報共有シート（就園、就学、就職）を、教材として試用し、評価するとともに、周知・啓発した。

#### ●2-2 先行研究で作成した情報共有シート（就園、就学、就職）を用いた支援実績の検討

先行研究において作成した「小児慢性疾患児童の就園に向けての『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患児童の支援モデル構築（令和 5 年度）を目指している。

令和 4 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。

さらに、令和 4 年度は、『ガイドブック』、『情報共有シート』を試用し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、現在継続中である。明らかになった内容から支援効果の評価、検討を行い、『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患児童の支援モデル構築を目指している。

現時点で 4 名のインタビューが終了している。いずれも自立支援員や保育園看護師が「情報共有シート」を活用し就園に至ったケースであった。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。

### ■【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 自立支援事業についての周知・啓発状況について

自立支援事業の認知状況を把握するためにインターネットによる WEB 調査を行い、解析し公表した。全国の医療者に対する意識調査で、自立支援事業の認知状況に関する重要な研究である。

全国の 26 歳から 69 歳までの医師 815 人から回答を得た。小児期発症慢性疾患の子どもを診療することがある医師は 56%、小児期発症慢性疾患を持った成人を診ている医師は 71%であった。自立支援事業を知っているかどうかの質問に関しては、71.3%の医師が知らないと回答した。自立支援の必要性については 65.6%が必要であると回答した。実際に自立支援事業を紹介したことがある医師は 14 名（本設問に対する回答数 32 名）と少なく、自立支援事業は特定領域の医師にはなじみ深いものであるが、幅広い領域での活用はなされていないと考えられ、周知・啓発の重要性が示された。

ブロック別小児慢性特定疾病児童等自立支援員連絡会では、自立支援員の交流により、ニーズや好事例を知り、自立支援事業としてできることを知るなど、情報共有を行うことができた。また、自立支援員同士の情報交換により、各都道府県での事業の質の向上を図ることが可能になり、任意事業の展開に寄与するものと思われる。

小児慢性特定疾病児童等自立支援事業ポータルサイトにおいて情報を共有しており、成果物などのダウンロードが可能である。[\(https://www.m.ehime-u.ac.jp/shouman/result/\)](https://www.m.ehime-u.ac.jp/shouman/result/) また、小児慢性特定疾病児童等自立支援事業関連相談窓口を開設し、関係者からの相談に対応している。

#### ■【分担研究4】

#### 移行期医療施策そ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 自立支援員による相談対応の際の関連施策との連携における現状分析及び課題抽出

本年度は小児がんサバイバー（CCS）と母親の就労状況に影響する因子について検討した。対象は、聖路加生涯コホート研究に参加した18歳以上のCCS 69名と11病院のCCSの母親171人である。その結果、CCSの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、CCS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ることから、CCSの母親に対する心理的支援は就労を促進する可能性がある。がん治療終了後の母親の雇用にも影響するため小児がんの治療期間をカバーする休暇制度の確立が必要であることがわかった。

移行期医療支援センターの設置状況は、依然として7自治体のみで、令和4年度は、新たな設置は進んでいない状況であった。今後の検討課題として、

1 移行期医療支援センターを小児科側または成人診療科側に設置した場合のメリットとデメリットについて、2 移行支援の実績について、3 対象疾患・領域を広げていくための方策について、4 移行支援コーディネーターと小慢自立支援員との連携について、5 連携先について、6 小児慢性特定疾病児童等自立支援事業と連携について、7 移行期医療支援センターの運営において苦労している点、困っている点についてはなどの具体的な情報収集が必要であることが示された。（笠原班と連携）

分担研究3において、移行期医療の認知状況についても合わせて調査した。（インターネットによる

WEB調査）移行期医療を知らないと回答した人が、全体の4割で、知らないまたはあまり興味がないと回答した人は6割を占めていた。しかし、移行期医療の必要性については、とても必要または少し必要と考えている人は69.2%と7割近くを占めており、移行医療体制の提案や周知の重要性があらためて示された。

自立支援事業の特徴である早期介入の重要性の観点から、今年度よりNICU入院患者に対するニーズ調査、NICU退院児に対する自立支援事業などを、新規研究として追加した。成果報告会で提案し公表した。

##### ●4-2 慢性疾病児童等地域支援協議会と関連する協議会との連携の実態を調査

慢性疾病児童等地域支援協議会については、関連する協議会と共同で設置しているかどうか、および共同設置している協議会について、自立支援事業全国実施状況調査のなかで調査中である。

#### E. 結論

相談支援の実態調査および支援を受けた患者及び家族からの声を調査し、真のニーズを把握した。小慢児童のニーズ評価に適した指標と考えられる尺度を開発した。小慢児童が自立できるための要因を分析することが可能になり、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になるものと思われる。さらに情報収集を進めていくことにより、先行研究の結果とも合わせて、「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）」（仮称）をバージョンアップすることなどにより、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。

これらの成果により、小慢児童の尚一層の健全育成が図られ、小慢児童及びその保護者・きょうだい児がより一層安心して暮らすことのできる地域社会の実現が期待できる。

研究成果は、令和5年2月12日に、成果報告会（HYBRID開催）において公表し、情報を共有した。

#### F. 健康危険情報

なし

#### G. 研究発表

##### 1. 論文発表



1. ○Niinomi K, Mihira H, Ochiai O, Misawa A, Takigawa K, Kashiki N, Kakee N, Takata H, Ishida Y, ○Higaki T (2022) Hospital support for siblings of children with illness in Japan *Frontiers in Pediatrics* 2022; 10: 927084
2. 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* 2022 in press
3. Oyunsuren Munkhjargal, Oka Y, Tanno S, Shimizu H, Fujino Y, Kira T, Ooe A, Eguchi M, ○Higaki T. Discrepancy between subjective and objective sleepiness in adolescents. *Sleep Med.* 2022 Aug;96:1-7.
4. ○Sekine S, Kobayashi K, ○Ochiai R, ○Higaki T. Content validity of the Japanese version of the health literacy and resiliency scale for youth with chronic illness. *Front Pediatr* 2022;10:978079.
5. Ishida Y, Kamibeppu K, Sato A, Inoue, M, et al Karnofsky performance status and visual analogue scale scores are simple indicators for quality of life in long-term AYA survivors received with allogeneic hematopoietic stem cells transplantation during childhood. *Int J Hematol.* 2022, 116(5). 787-797.
6. Kobayashi K, Ishida Y, Yoshimoto-Suzuki Y, Hasegawa D, Hosoya Y, Saito, G, Nagase, K, Gunji, M, Manabe, A, Ozawa, M Factors Related to Employment in Childhood Cancer Survivors in Japan: a Preliminary Study *Front Pediatr.* 2022, DOI:10.3389/fped.2022.961935
7. Okada H, Irie W, Sugahara A, Nagoya Y, Saito M, Sasahara Y, Yoshimoto Y, Iwasaki F, Inoue M, Sato M, Ozawa M, Kusuki S, Kamizono J, Ishida Y, et al. Factors associated with employment status among mothers of survivors of childhood cancer: a cross-sectional study. *Support Care Cancer.* 2023, 31(3):168.
8. Yoshimoto-Suzuki Y, Hasegawa D, Hosoya Y, Saito, G, Nagase, K, Gunji, M, Kobayashi, K, Ishida, Y, Manabe, A, Ozawa, M Significance of active screening for detection of health problems in childhood cancer survivors. *Front Pediatr.* 2022, 10.947646. doi:10.3389/fped.2022.947646
9. Niinomi K, Mihira H, Ochiai R, Misawa, A, Takigawa, K, Kashiki, N, Kakee, N, Takata, H, Ishida, Y, Higaki, T Hospital Support for Siblings of Children With Illness in Japan. *Front Pediatr.* 2022,10.927084. doi:10.3389/fped.2022.927084
10. Kuno M, Yamasaki S, Fujii N, Ishida Y, Fukuda, T, Kataoka, K et al Characterization of myeloid neoplasms following allogeneic hematopoietic cell transplantation. *Am J Hematol* 2022,97(2),185-193.
11. Hayakawa A, Sato I, Kamibeppu K, Ishida Y, Inoue, M, et al Impact of chronic GVHD on QOL assessed by visual analogue scale in pediatric HSCT survivors and differences between raters: a cross-sectional observational study in Japan. *Int J Hematol.* 2022,115(1):123-128
12. Ozono S, Sakashita K, Yoshida N, Kakuda H, Watanabe K, Maeda M, Ishida, Y, Manabe, A, et al. A nationwide survey of late effects in survivors of juvenile myelomonocytic leukemia in Japan. *Pediatric blood & cancer.* 2023, 70(2):e301268.
13. ○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;
14. ○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——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;
15. ○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 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)
16. 三谷義英、安河内聡、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 (2022) 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・日本心エコー学会・日本産科婦人科学会)
17. 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

18. ○掛江直子：小児慢性特定疾病 小児慢性特定疾病対策における自立支援・移行期支援,小児科診療 2022 秋増刊号, 診断と治療社 2022.10.20 ;118-124
19. ○掛江直子：医療倫理と研究倫理,『小児血液・腫瘍学(改訂第 2 版)』,診断と治療社, 2022.6.21;339-345
20. ○掛江直子：移行医療の支援体制,BRAIN and NERVE74 (6),医学書院, 2022.6.1;763-770
21. ○掛江直子：小児慢性特定疾病対策および難病対策,小児科 63(5)金原出版, 2022.5.1;483-492
22. ○掛江直子：胎児・小児をめぐる倫理的諸問題,生命倫理・医事法改定 第 3 版,医療科学社,2022.3.18 :161-183
23. 大園秀一, ○石田也寸志, 前田美穂, 大植孝治, 上別府圭子, 清谷知賀子, 竹之内直子, 長祐子, 湯坐 希, 家原知子, 宮村能子, 檜山英三, 松本公一, 大賀正一(2022) 小児期発症血液・腫瘍性疾患の成人への移行期支援に関する基本的姿勢・日本小児血液・がん学会雑誌 59(1)・58-65
24. ○石田也寸志 小児がん患者における新型コロナウイルス感染症 (COVID-19) 日本小児血液・がん学会雑誌 2022, 59(2) 151-162
25. ○石田也寸志 小児がん患者における新型コロナウイルス感染症 (COVID-19) -2022 日本小児血液・がん学会雑誌 2022, 59(3) 324-330
26. 賀藤均, 位田忍, 犬塚亮, ○落合亮太, ○掛江直子, 坂上博, 他. 小児期発症慢性疾患を有する患者の成人移行支援を推進するための提言. 日本小児科学会雑誌 2023;127:61-78.

## 2. 学会発表など

1. 檜垣高史 (2022) セッション 5 多領域専門職に必要な ACHD 診療の基礎知識 2 フォンタン患者における薬物治療. 第 26 回成人先天性心疾患セミナー 6 月、(WEB 開催)
2. 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
3. 落合 亮太, 秋山 直美, 檜垣 高史 (2022) パネルディスカッション「移行期医療」移行期医療支援センターの設置状況と期待される役割 第 58 回 日本小児循環器学会学術集会 7 月、北海道

4. 檜垣高史 (2022) 子どもたちのすこやかで明るい未来を支える健康教育の推進 -新しい時代をたくましく生きる力を育む養護教諭の役割-慢性疾患をのりこえていく子どもたちのためにできること 第 46 回 愛媛県学校保健会養護部会研修会 2022、8 月、愛媛
5. 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)
6. 檜垣高史 (2023) 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、愛媛
7. 檜垣高史 (2023) JSACHD-JCS ジョイントシンポジウム 開業医の先生と一緒に診る成人先天性心疾患診療、地域連携、移行期医療 「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、愛媛
8. 檜垣高史 (2023) 慢性疾患をのりこえていく子どもたちのために 自立支援から移行期支援・Lifelong Cardiology をめざして 第 43 回京都府小児保健研究会 2023 年 2 月、京都
9. 檜垣高史 (2023) 「小児慢性特定疾病への理解を深める」～成人期にむけた地域での支援体制について～ 病気を乗り越えていく子どもたちの自立への不安と就職支援 愛媛県障がい者一般就労移行等促進事業 2023 年 2 月、WEB 開催
10. 檜垣高史 (2023) 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」2022 (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に資する研究 (檜垣班) 成果報告会 2023 年 2 月 Hybrid 開催
11. 檜垣高史 (2023) 小児慢性特定疾病児童等自立支援事業について 2022 (令和 4) 年度 愛媛県・松山市 委託事業 (事業代表者) 小児慢性特定疾病児童等自立支援事業成果報告会 3 月 Hybrid 開催
12. Yasushi Ishida, Unique needs and concerns of childhood cancer survivors.2nd International Congress of Asian Oncology Society

- (AOS2022) Soul (Virtual Conference) 2022/6/17,
13. Yasushi Ishida, Hayashi M, Ogawa A, Ozono S, Okimoto Y, Inada, H, Kikuta A, Kinoshita Y, Matsumoto K, Horibe K, Maeda M, Yabe H, Yoneda A, Yanagisawa T, Manabe A (2022) Analysis of Childhood Cancer Survivors Receiving Hospitalization Benefits under the Heart-Link Mutual Insurance. The 54th congress of SIOP, Barcelona, 2022/9/28
  14. 石田也寸志、林三枝、小川淳、他 ハートリンク共済で入院給付金を受給した小児がん経験者の検討 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会. 2022/11/25、東京、ハイブリッド開催
  15. 林三枝、井上富美子、上別府圭子、小川純子、高橋和子、竹内菊博、笹崎義博、庄司義興、朴直樹、石田也寸志 ハートリンク共済による小児がん支援と運営状況. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会. 2022/11/25、東京、ハイブリッド開催
  16. 谷本英里、波多野恵、細谷要介、吉本優里、長谷川大輔, 真部淳、石田也寸志、小澤美和 包括的コホート研究による小児がんサバイバーの糖代謝・生活習慣の長期フォローアップ報告 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会. 2022/11/25、東京、ハイブリッド開催
  17. 石田也寸志 小児がんの晩期合併症と QOL 第 10 回 QOL-PRO 研究会学術集会.シンポジウム.2022/12/24、東京、WEB 開催
  18. 檜木 暢子「病気療養児の社会的自立と自立支援～小児慢性特定疾病児童等自立支援事業への評価に向けた予備調査から～」日本特殊教育学会第 60 回大会 (2022 理事会) 発表論文集 (CD-R), ポスター発表 60, P4-28, 2022.
  19. 仁尾かおり, 西田みゆき, 野間口千香穂, 小柴梨恵, 大戸真紀子(2022). テーマセッション 小児慢性疾患をもつ子どもの保育園・幼稚園への就園支援を考えよう! 「保育所等における小児慢性特定疾病児童の就園に関する実態の報告」.  
日本小児看護学会第32回学術集会(2022.7.10開催).
  20. 仁尾かおり(2022). 小児慢性特定疾病児童の保育所・幼稚園への就園支援. 第12回自立支援員研修会(2022.9.2開催).
  21. 野間口千香穂(2022). 慢性疾患をもつ子どもの支援-子どもの自立にむけて周りの大人ができること-. 宮崎県中央保健所 令和4年度こどもの健康に関する講演会(2022.12.20開催).
  22. 仁尾かおり(2022). 慢性疾患児の就園・就学、自立に向けた支援. 三重県令和4年度第4回母子

- 保健コーディネーター養成研修会(2023.1.20開催).
23. 仁尾かおり(2022). 慢性疾患のある子どもの成長・発達と自立支援. 大阪市保健所令和4年度難病・小児慢性特定疾病児童等保健師研修(応用編)(2023.2.1開催)
  24. 野間口千香穂(2023). 慢性疾患児の療養・生活支援:就園と自立支援を中心に. 第33回全国保育園保健研究大会(2023.2.5開催)
  25. 新家一輝: 病気や障害のある子どものきょうだい支援. 令和4年度愛知県小児保健協会学術研修会(2023年1月)

## H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む)

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