

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
分担研究報告書

小児慢性特定疾病児童等の自立支援に資する研究

小児期にある慢性心疾患患者の年代別の不安・困りごとと支援の課題に関する研究

研究分担者： 落合亮太（横浜市立大学学術院 医学群 医学研究科 看護学専攻）
研究協力者： 城戸貴史（静岡県立こども病院 地域医療連携室）
研究代表者： 檜垣高史（愛媛大学大学院医学研究科地域小児・周産期学講座）

研究要旨

【目的】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。

【方法】本研究は、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。

【結果】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歳以上の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。

【結論】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。

A. 研究目的

ファロー四徴症に代表される先天性心疾患は、小児慢性特定疾病（以下、小慢）16疾患群の一つである「慢性心疾患」に相当し、788の告示疾病のうち99疾病を占める。近年、先天性心疾患患者の9割以上は成人期を迎え、成人期に達した先天性心疾患（以下、成人先天性心疾患）患者は国内で約50万人、年間9千人の増加が見込まれ、将来、全人口の1%近くに達する可能性がある。成人患者の増加に伴い、先天性心疾患領域でも自立支援の重要性が増している。

全国心臓病の子どもを守る会（以下、守る会）は、主に先天性心疾患患者の保護者と本人を会員とする当事者団体である。守る会は1960年代に設立され、会員数は2023年現在で約3300世帯を数える。また、内部組織として15歳以上の患者本人からなる全国心臓病友の会がある。守る会は約5年ごとに会員世帯を対象に「生活実態アンケート」を実施している。生活実態アンケート調査では、利用できる社会保障制度の違いなどを考慮して、18歳未満の患者用と18歳以上の患者用の2種類の調査を実施している。両者に共通して、

通院・入院状況、医療費助成や所得保障を含む社会保障制度の利用状況を調査している。また、18歳未満では就園、就学状況、18歳以上では就労状況なども調査している。過去の調査結果の一部は学術雑誌に掲載されている^{1,2,3}。

近年、研究における患者・市民参画 (Patient and Public Involvement, PPI) の必要性が強調されている。患者・市民参画は、患者・市民と共に、または患者・市民によって研究が行われることと定義される。結果的に患者にとって重要な問題に確実に焦点が当たることで、研究の妥当性と全体的な質を向上させることができると考えられており、報告ガイドラインも作成されている⁴。生活実態アンケート調査は、当事者団体である守る会が主体的に実施する調査であり、患者・市民参画という観点からも患者の生活実態を詳細に把握できている可能性がある。

本研究班、および関連する厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等克服研究事業「先天性心疾患を主体とする小児期発症の心血管難治性疾患の救命率の向上と 生涯にわたる QOL 改善のための総合的研究」(研究代表者 大内秀雄) 研究班は、医療専門職の立場から過去の生活実態アンケート調査の監修を行ってきた。本報告は2023年に実施された最新の「生活実態アンケート2023」のうち、主に18歳以上の対象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する。

B. 研究方法

1. 研究デザイン

生活アンケート実態調査2023は紙媒体、およびWebフォーム形式の自記式質問紙を併用した横断研究である。

2. 調査対象

本研究は、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から提供を受けた「生活アンケート調査2023」調査の結果を対象とした。対象者の適格基準は、調査を実施した2023年4月時点で全国心臓病の子どもを守る会およびその内部組織である全国心臓病の友の会会員約3300世帯のうち、調査への参加に同意した者を対象とした。質問紙への回答は18歳未満の患者については原則として保護者に、18歳以上の患者については患者本人にそれぞれ依頼した。

同調査では18歳未満の患者用と18歳以上の患者用の2種類の調査を実施したが、本研究では、小慢自立支援事業における最終的な目的である患者の自立に関わる内容であり、また小慢自立支援事業との関連が深い移行期医療とも関連することを鑑みて、18歳以上の患者データを主な分析対

象とした。なお、本研究で示す結果は、守る会が2024年1月に開催された第25回日本成人先天性心疾患学会総会・学術集会 市民公開シンポジウムにおいて公開した資料に基づいている。18歳未満の患者データの詳細については、2024年7月に開催される第60回日本小児循環器学会総会・学術集会で公表予定である。

3. 調査方法

守る会事務局より、各支部へ調査票を郵送し、各支部が適格基準を満たす所属会員宛に調査票を郵送した。調査票の回収は紙媒体での回答を希望する対象者については郵送、Webフォームでの回答を希望する対象者については調査票に同封したQRコードからWebフォームにアクセスしてもらいオンラインにて行った。調査期間は2023年4月～2023年8月であった。

4. 調査内容

自記式質問紙を用いて、下記の項目を尋ねた。

- 1) 対象者基礎情報: 患者本人および保護者の年齢、心疾患名、手術歴、術式、一般状態区分、チアノーゼの有無、医療機器の使用状況、通院頻度など
- 2) 福祉制度の利用状況: 障害者手帳の有無と級数、療育手帳の有無と種別、通院・入院時に利用した公的医療費助成、障害年金受給状況など
- 3) 就労状況: 就労状況、雇用形態、雇用枠、年収、必要な配慮、職場への疾患の開示状況、新型コロナウイルス感染症の影響など

5. 分析方法

各調査項目について、記述統計量を算出した。対象者の治療状況は研究班で協議の上、18歳未満は「手術なし・不要」「二心室修復術後」「フォンタン術後」「姑息術のみ・未治療」「心筋症」「不整脈疾患」、18歳以上の対象者は「単純」「中等症」「複雑」「心筋症」「不整脈疾患」に分類した。対象者の年代は学齢期を考慮して18歳未満の対象者については「0-6歳」「7-12歳」「13-15歳」「16-17歳」に、18歳以上については「10代」「20代」「30代」「40代」「50代」「60代以上」に分類した。各年代における各調査項目の分布を比較した。統計解析パッケージには Microsoft Excel、および IBM SPSS ver.27.0 を用いた。

倫理面への配慮

本研究は、研究班が守る会から単純集計結果の提供を受け、研究班として対象者の治療状況の分類など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ものである。結果の提供は、事務局が支部名や年齢など、個人が特定できる情報をあらかじめ削除あるいはカテゴリカル・データに加工したうえで行なった。研究班へ

の監修依頼は守る会理事会の承認を得て行った。

なお、生活アンケート調査における回答は匿名とし、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。

C. 研究結果

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 歳以上を対象者に限定すると、46 名 (15.1%) が在宅酸素を利用していた。また、心疾患以外の疾患 (以下、重複疾患) のあるものが 133 名 (43.6%) であった。定期通院している者は 278 名 (91.1%) で、うち 85 名 (30.9%) が複数病院に通院していた。通院で利用されている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者は 136 名 (44.6%) で、入院で利用されている公的医療費助成は、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。

身体障害者手帳保有者は 242 名 (79.3%)、療育手帳保有者は 42 名 (13.8%) であった。20 歳以上の患者 269 名のうち、障害年金受給者は 89 名 (33.1%) 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。また、雇用枠は障害者雇用が 83 名 (43.9%) と最多で、次点が一般雇用 78 名 (41.3%) であった。年収は 400 万円未満の者が 67 名 (75.7%) を占めた。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。学生を除いた 20 歳以上の未就労 63 名のうち、障害年金を受給している者は 30 名 (47.6%) であった。

D. 考察

本報告では、守る会が 2023 年に実施した生活実態アンケート 2023 の結果の一部を報告した。本研究結果と前回の 2018 年の調査結果の比較からは、以下が示唆される: 1. 医療費助成では変わらず重度障害者医療費助成が最も利用されているが、難病医療

費助成の利用者が増加している、2. 障害者雇用枠の利用者は継続して多い、3. 疾患開示の割合は増加している可能性がある。以下、それぞれについて簡潔に述べる。

生活実態アンケート 2023 では、難病医療費助成が通院で 22%、入院で 28% の対象者に利用されていた。2018 年の調査では各 15%、12% であった⁵ことを考えると、難病医療費助成の利用者は増えていると推察される。18 歳 (延長して 20 歳) までは小児慢性特定疾病医療費助成が利用できるが、20 歳以上は利用できる医療費助成制度が限定されることが以前から指摘されている²。2015 年の指定難病の対象拡大に伴い、成人期における難病医療費助成の利用可能性が高まり、守る会で制度の学習も進めている。今回の結果はこれらを反映したものと思われる。難病医療費助成の利用状況については今後の推移を見守りつつ、対象となりうる患者にはさらなる周知を図る必要がある。

障害者雇用枠での就労者は 44% で、2018 年の 43%⁵ と同程度であった。障害者手帳を有する患者にとって、障害者雇用枠の利用は有用な選択肢の一つであることが改めて示された。2013 年の生活アンケート調査結果では、一般雇用と障害者雇用の比較で年収や労働時間、親との別居率に統計学的に有意な差は示されなかった³。一方で、臨床では障害者雇用であっても必要な合理的配慮を受けられていない、昇進しづらい、継続雇用が難しいとの声を聞くことがある。障害者雇用枠利用のメリット・デメリットを含め、希望する働き方を早い段階から検討する必要性が指摘され、関係者のための情報共有シートも作成されている⁶。今後、これらの支援が小慢自立支援事業の中でも普及していくことが期待される。

生活実態アンケート 2023 における就労者のうち、上司に疾患を開示している者は、一般雇用で 66%、障害者枠 89% であり、2018 年の各 38%、58%⁵ から 3 割近く増加していた。この理由として、新型コロナウイルス流行に伴い、感染や重症化リスクを避ける目的で職場に疾患開示をした者が多かったこと、多様性に対する社会の理解が深まったことなどが考えられる。疾患開示は義務ではないが、前述の情報共有シートでも重要な検討事項として挙げられている。誰に、どこまで疾患について伝えるかに関する意思決定支援が、小慢自立支援事業や成人移行支援の一環として実施されることが望ましいだろう。

E. 結論

全国心臓病の子どもを守る会が 2023 年に実施し、本研究班および関連する研究班が監修を行った「生活実態アンケート 2023」の結果の一部を報告した。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。

1:423-434.

引用文献

1. Ochiai R, Ikeda Y, Kato H, Shiraishi I, Parents' Association of Heart Disease C. Social independence of adult congenital heart disease patients in Japan. *Pediatr Int* 2017;59:675-681.
2. 落合亮太, 檜垣高史, 賀藤均, 秋山直美, 城戸佐知子, 丹羽公一郎, 他. 成人先天性心疾患患者の医療費負担と社会保障制度利用に関する実態調査. *日本成人先天性心疾患学会雑誌* 2015;4:55-68.
3. 秋山直美, 落合亮太, 檜垣高史, 賀藤均, 城戸佐知子, 丹羽公一郎, 他. 親と離れて暮らす成人先天性心疾患患者の特徴. *日本小児循環器学会雑誌* 2020;36:313-320.
4. Staniszewska S, Brett J, Simera I, Seers K, Mockford C, Goodlad S, et al. GRIPP2 reporting checklists: tools to improve reporting of patient and public involvement in research. *BMJ* 2017;358:j3453.
5. 心臓病児者と家族にとって必要な社会保障制度とは 生活実態アンケート2018調査報告書. 2021. (Accessed 3月30日, 2023, at <http://www.heart-mamoru.jp/media/2023127-210539-488.pdf>.)
6. 落合亮太, 秋山直美, 猪又竜, 榎本淳子, 城戸貴史, 西朋子, 他. 就労に向けて当事者・支援者が確認・検討していくべき項目に関する調査. 厚生労働省科学研究費補助金(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」分担研究報告書 202

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

1. 論文発表

該当なし

2. 学会発表

該当なし

H. 知的財産権の出願・登録状況 (予定を含む)

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

研究成果の刊行に関する一覧表

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の 編集者名	書 籍 名	出版社名	出版地	出版年	ページ

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年