

研 究

小児慢性特定疾患治療研究事業における登録状況の解析 (横紋筋肉腫を例として)

榊村 智美¹⁾, 加藤 忠明¹⁾²⁾
原田 正平¹⁾, 斉藤 進²⁾

〔論文要旨〕

小児慢性特定疾患治療研究事業（以下、小慢事業）の登録状況に関して、従来より精度を高めて解析する手法を考案するため、平成10～15年度に登録された延べ2,368例の横紋筋肉腫患児について縦断的解析を行った。発症後1年未満に登録された患児の割合は81.9%であり、これは発症後に他の医療費助成制度を利用せずに、まず小慢事業に登録された割合と考えられる。横紋筋肉腫で新規申請した後に他の疾患名に登録し直した患児の割合は1.2%であった。今後は、国立成育医療センター内に構築される予定の慢性疾患登録データベースより、このような解析が他の疾患でも容易に実施できるようにしていきたい。

Key words : 小児慢性特定疾患治療研究事業, 横紋筋肉腫, 全国的な登録, 縦断的解析, 医療費助成制度

I. 研究目的

小児慢性特定疾患治療研究事業（以下、小慢事業）は平成17年度に法制化された¹⁾。500種類以上の小児慢性疾患に関して、全国規模の毎年約12万人分のデータが積み重ねられる貴重な研究事業である。その医療意見書に基づく全国的な集計解析は毎年、厚生労働科学研究として実施されている²⁾。

しかし、その登録データに関する従来の解析手法では、登録作業中に生じることのある欠損値を含む単年度ベースの解析が多く、二次調査をしないと精度を高められないなど、いくつかの問題点が残されていた。そこで、医療意見書の登録データをコンピュータ内で自動的に集計

解析することにより、少しでも精度を高めて登録データを容易に解析する手法を考案した。横紋筋肉腫患児について縦断的解析を行うことにより、小慢事業に登録される1年以上前に発症して他の医療費助成制度を利用していたと考えられる症例、また、経過とともに登録疾患名が変更になった症例を解析した。

II. 研究対象

平成10～15年度小慢事業に登録された延べ690,811人の中で、全国の横紋筋肉腫患児延べ2,368人について解析した。平成10～12年度は、全国すべての実施主体からの事業報告であった。平成13年度は、千葉市を除く86カ所の実施主体からの報告であった。平成14年度は、奈良

An Analysis on the Registration Status of the Medical Aid Program for
Chronic Pediatric Diseases of Specified Categories

[1755]

Tomomi MASUMURA, Tadaaki KATO, Shohei HARADA, Susumu SAITO

受付 05. 9. 9

採用 06. 3. 8

1) 国立成育医療センター成育政策科学研究部（研究職/小児科医師）

2) 日本子ども家庭総合研究所母子保健研究部（研究職）

別刷請求先：榊村智美 国立成育医療センター研究所 〒157-8535 東京都世田谷区大蔵2-10-1

Tel : 03-3416-0181 Fax : 03-3417-2694

市・倉敷市が追加された89カ所すべてからの報告であった。平成15年度は、さいたま市、川越市、船橋市、相模原市、岡崎市、高槻市が追加された95カ所のうち、京都府・京都市を除く93カ所からの報告であった。

III. 研究方法

解析の際には以下の3点に配慮した。①文部科学省・厚生労働省の「疫学研究に関する倫理指針」(平成14年6月17日, 平成16年12月28日全部改正)を遵守して施行した。②治療研究事業として研究の資料にすることへの同意を患児(保護者)から得た。③集計内容には、自動計算された患児の発病年月齢や診断時の年月齢は含まれているが、プライバシー保護のため、患児の氏名や生年月日、また意見書記載年月日等は自動的に削除されている電子データを使用して解析した³⁾。データは小慢事業独自のID番号が付けられており、それをもとに各年度のデー

タを照合して個々の症例を縦断的に集計し、極力欠損値を減らしデータの精度を高められるように配慮して解析した。

横紋筋肉腫の平成10~15年度の新規登録例について、新規登録時年月齢と発症年月齢の関係を調べ、発症後1年未満で登録された人数、および1年以上経過してから登録された人数を集計した。また、横紋筋肉腫として新規登録された患児が、その後継続登録時に疾患名が変更された症例を解析した。

IV. 研究結果

1. 発症年齢

平成10~15年度の横紋筋肉腫新規登録例401人のうち、疾患登録時年月齢または発症時年月齢が不明であった20人を除く381人について、新規登録時年齢と発症年齢の関係を調べた(表1)。発症年齢は、1歳が45人(11.8%)で最も多く、次いで0歳40人(10.5%)、2歳・

表1 新規登録時年齢と発症年齢(平成10~15年度)

	新規登録時年齢																				計		
	0歳	1歳	2歳	3歳	4歳	5歳	6歳	7歳	8歳	9歳	10歳	11歳	12歳	13歳	14歳	15歳	16歳	17歳	18歳	19歳	20歳	(人)	(%)
0歳	24	7(7)	4	2		1	1	1														40	10.5
1歳		30	9(8)	1	1	1			1					1	1							45	11.8
2歳			22	5(3)	4	1	1	1			1			2				1				38	10.0
3歳				28	7(6)	1		2														38	10.0
4歳					17	9(5)			1	1					1							29	7.6
5歳						13	1(1)			1			1		1							17	4.5
6歳							17	4(1)		1	2											24	6.3
7歳								11	3(2)		1			1	1	1						18	4.7
8歳									7	1(0)		1					1			1		11	2.9
9歳										10	1(2)							1				12	3.1
10歳											8	4(4)	1	1								14	3.7
11歳												6	3(3)									9	2.4
12歳													6	7(5)	1	1						15	3.9
13歳														12	7(7)							19	5.0
14歳															10	4(4)	1	1				16	4.2
15歳																16	2(1)					18	4.7
16歳																	8	1(1)				9	2.4
17歳																		8	1(1)			9	2.4
18歳																						0	0.0
19歳																						0	0.0
20歳																						0	0.0
																						計381人 不明 20人	100.0

注) () 内の人数は、発症年齢と新規登録時年齢は異なるが、発症後1年未満に登録した人数

3歳各々38人（10.0%）の順であった。乳幼児の発症が多く、他の調査結果とはほぼ同様であった⁴⁾。

2. 発症から登録までの期間別の登録数

発症後1年未満、および1年以上経過してから登録された人数は、全体ではそれぞれ312人（81.9%）、66人（17.3%）、不明3人（0.8%）であった（図1）。発症年齢別では、9歳以降の発症例に発症後1年未満に登録された人数の割合が高く、11、13、15～17歳発症例では100%であった。低年齢での発症例では発症後1年未満に登録された人数の割合が低い傾向にあり、0～8歳の発症例では64～90%であった。

3. 疾患名の変更症例

平成10～15年度に横紋筋肉腫として新規登録された401人のうち、その後5人（1.2%）が診断を変更していた。変更後の疾患名は、悪性リンパ腫2人（新規登録8か月後、11か月後）、Ewing肉腫2人（同1か月後、8か月後）、悪性骨腫瘍1人（同11か月後）であった（表2）。

V. 考 察

1. 小慢事業の登録率と問題点

小慢事業に登録された場合、医療費助成を得られるという利点があり、比較的多くの患児が登録されている。大阪府地域がん登録において、小児がん全体では、小慢事業を情報源とした登録率は74.6%であり、医療機関からの自主届出

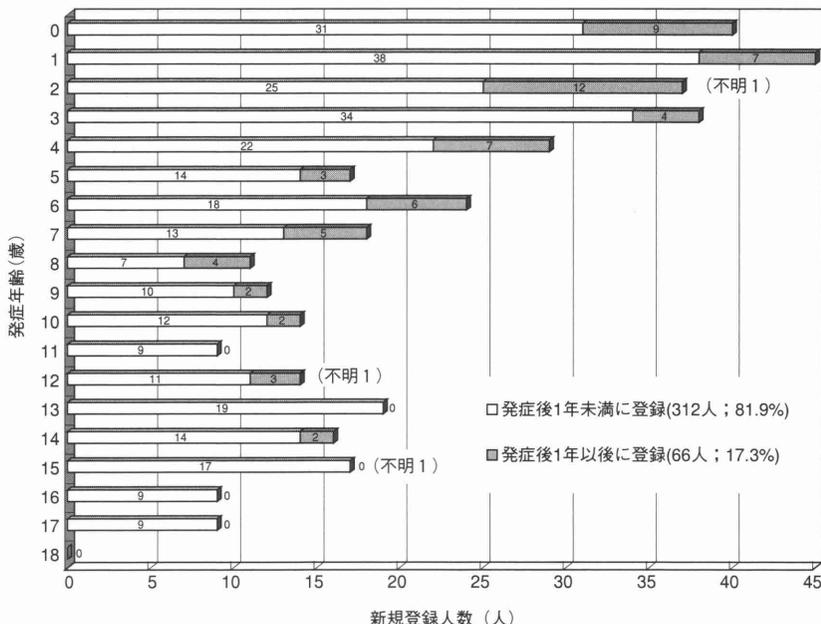


図1 H10～15新規登録例について、発症年齢ごとの発症後1年未満・以後の新規登録人数

表2 横紋筋肉腫新規登録者のうち疾患名に変更があったもの

発症年月齢	記入年月齢		変更時年月齢	新・疾患名
3歳0か月	3歳1か月	→	4歳0か月（11か月後～）	悪性リンパ腫
16歳0か月	16歳1か月	→	16歳9か月（8か月後～）	悪性リンパ腫
2歳9か月	3歳2か月	→	3歳3か月（1か月後～）	Ewing肉腫
3歳7か月	3歳8か月	→	4歳4か月（8か月後～）	Ewing肉腫
9歳7か月	9歳11か月	→	10歳10か月（11か月後～）	悪性骨腫瘍

などの各種情報源の中で最もその貢献度が大きかった⁵⁾。

しかし、小慢事業に新規登録される対象患児には3つの問題点、すなわち研究の資料にすることへの非同意者が含まれない点、また他の医療費助成制度利用者が含まれない点、そして経過中に他の疾患名に変更する患児がいる点が存在する²⁾。非同意者の問題に関しては、平成15年度に横紋筋肉腫を含む「悪性新生物」の非同意割合(非同意者数/全申請数)が7.2%であり、非同意者数の把握が可能になったので問題点は改善した²⁾。単年度の登録数が全申請数の(100-その年の非同意割合)%にあたり、これにより非同意者数を算出できる。そこで、本研究では後二者の問題点について検討した。既存の資料をもとに、それらの問題点を少しでも解消するための手法をどのようにしたら効果的か、横紋筋肉腫を一例として検討した。

発症後1年未満に登録された患児の割合は81.9%であった。公的な医療費助成制度は、通常重複しての申請は認められず、また、年毎に申請させる制度であることを考慮すれば、この81.9%は発症後他の医療費助成制度に再申請することなく小慢事業に登録された患児の割合と考えられる。発症後1年以上経過してから登録された患児の割合は17.3%であり、高額な医療費を要することを考慮すれば、小慢事業以外の医療費助成制度を利用していた割合と考えられる。

2. 小慢事業と乳幼児医療費助成制度

8歳以下での発症例は、発症後1年以上経過してから登録された人数の割合が比較的高かった。これは乳幼児医療費助成制度(以下、「乳」制度)を利用していたためと考えられる。「乳」制度は市区町村事業であり、地域によって対象年齢が異なり、所得制限があったり入院のみを対象としていたり大きな差がみられ、また年毎に助成範囲が拡大される傾向にある。厚生労働省「小児慢性特定疾患治療研究事業の今後のあり方と実施に関する検討会」の平成13年の資料によれば、全国的に「乳」を利用している割合は、3歳未満児が入院ほぼ100%、通院約95%、6歳未満児は入院約60%、通院約30%であっ

た⁶⁾。小慢事業の法制化に伴い一部自己負担の導入がなされたことにより、「乳」制度など他の医療費助成制度を利用する患児家族が増加する可能性がある。それらの利用状況を把握する必要性がさらに増加する。小慢事業の対象疾患の中で、継続して登録されやすい疾患に関しては、表1のような解析により「乳」制度の利用状況がある程度把握できると考えられる。

3. 疾患名の変更症例

横紋筋肉腫で新規申請した後に他の疾患名に登録し直した患児の割合は1.2%であった。医療費助成を得るために診断が確定されないうちに申請される患児がいるので、診断の信頼性をチェックする何らかの仕組みを検討する必要がある。

4. 今後のあり方

現在の小慢事業では、毎年度、実施主体から厚生労働省に電子データが送られるので、そのデータをもとに個々の疾患を縦断的に解析するのは労力を要する。しかし今後は、国立成育医療センター内に専用のサーバーを置いて、子どもの病気に関するデータベースを構築する予定であり⁷⁾、その中で多くの小児慢性疾患に関して一人ひとりの患児のデータを縦断的に積み重ねて、医療意見書の登録データをコンピュータ内で自動的に集計解析することによって、少しでも精度を高めた解析を容易に実施できるようにしていきたい。

コンピュータ内の自動的、縦断的解析は、新規登録者では、他の医療費助成制度利用者の推計、また疾患名の変更症例の把握に役立つ。また継続登録者では、継続が中断された症例を自動的に抽出して二次調査を行うことにより患児の転帰を把握できる。今後の小慢事業の登録データの利活用が期待される。

VI. 結 論

- ① 横紋筋肉腫において、81.9%が発症後1年未満に小慢事業に登録されていた。
- ② 発症後1年以上経過してから登録された低年齢発症例の多くは、乳幼児医療費助成制度を利用していたと考えられる。

- ③ 小慢事業で横紋筋肉腫として登録後に、悪性リンパ腫、Ewing肉腫など他の疾患名へ変更した患児の割合は1.2%であった。
- ④ 慢性疾患のある子どもを疫学的に解析するためには、非同意者の把握、他の疾患名へ変更した患児の把握の他、乳幼児医療費助成制度などの他の医療費助成制度の利用状況を把握する必要がある。
- ⑤ 小慢事業対象疾患に関するコンピュータ内の自動的、縦断的解析は、新規登録者では、他の医療費助成制度利用者の推計、また疾患名の変更症例の把握に役立つと考えられる。

謝 辞

本研究は、厚生労働科学研究子ども家庭総合研究事業の資料の一部を再集計したものである。厚生労働省や実施主体の担当者、また医療意見書を記載された現場の医師など多くの関係各位に深謝いたします。

参考資料

- 1) 加藤忠明. 小児慢性特定疾患治療研究事業とその制度改正. 小児科, 2005; 46(10): 1645-1650.
- 2) 加藤忠明, 柳澤正義, 別所文雄他. 平成14, 15年度小児慢性特定疾患治療研究事業の全国登録状況. 平成16年度厚生労働科学研究「小児慢性特定疾患治療研究事業の登録・管理・評価・情報提供に関する研究」報告書, 2005: 9-30.
- 3) 加藤忠明, 柳澤正義, 齊藤 進, 他. 疾患の登録・集計システムの在り方. 平成9年度厚生省心身障害研究「小児慢性特定疾患治療研究事業の評価に関する研究」報告書, 1998: 28-59.
- 4) 大平陸郎. 軟部組織腫瘍. 柳澤正義監修. 小児慢性特定疾患治療マニュアル. 東京: 診断と治療社, 1999: 26-27.
- 5) 味木和喜子, 津熊秀明, 大島 明. わが国における小児がん登録の実現に向けて—地域がん登録からの提言—. 小児がん, 2002; 39(2): 150-158.
- 6) 加藤忠明: 公費負担制度. 五十嵐 隆, 渡辺 博, 田原卓浩編. 小児科研修医ノート. 第1版. 東京: 診断と治療社, 2003: 151-153.
- 7) 平成17年度厚生労働科学研究(子ども家庭総合研究事業)「子どもの病気に関する包括的データベースの構築とその利用に関する研究」報告書(主任研究者: 原田正平), 2006; 作成中.

[Summary]

Registered rhabdomyosarcoma patients in Japan (2,368 patients from 1998 to 2003) in the Medical Aid Program for Chronic Pediatric Diseases of Specified Categories were analysed longitudinally to increase the accuracy of the research method. Eighty two percent of the patients registered in less than one year after being diagnosed of the disease. These patients are considered to be registered in the Program without using the others. The rate of patients who first registered as rhabdomyosarcoma but changed to other diseases was 1.2%. Similar analysis are hoped to be done for many other diseases, by using the data base which is to be considered in the National Center for Child Health and Development.

[Key words]

Medical Aid Program for Chronic Pediatric Diseases of Specified Categories, Rhabdomyosarcoma, Nationwide Registration, Longitudinal Analysis, Medical Aid Program