

資料

小児慢性特定疾患治療研究事業に再登録
されなかった慢性腎疾患患児の経過加藤 忠明, 原田 正平, 掛江 直子
顧 艶紅, 竹原 健二

〔論文要旨〕

2005年度小児慢性特定疾患治療研究事業(慢性腎疾患)に登録されたが、2006年度に再登録されなかった2,546人の患児の経過に関して質問紙調査を行い、有効回答1,534人を得た。非継続症例の中には、治療例や死亡例の報告がみられ、逆に再発や悪化は比較的少なかった。小慢事業に再登録されなかった場合も含めて患児の経過を把握することにより、慢性腎疾患の全体的な病像が判明する。非継続となった理由は、制度上の理由、家族の都合、経過が順調を合計すると92.7%であり、未受診、治療を中断し経過が不明との回答は5.9%であった。慢性腎疾患の死亡例の経過では、透析等各種の治療を行いながら死亡していた症例の他、詳細不明のまま急に亡くなった13歳以上の患児が数人報告されたので、今後の対策が急務である。

Key words : 小児慢性特定疾患, 慢性腎疾患, 医療意見書, 非継続症例

I. はじめに

1974年度に制度化、そして、2005年度に法制化された小児慢性特定疾患治療研究事業(以下、小慢事業)は、対象疾患の研究に資する医療給付等を行う事業である¹⁾。患児家族は、医療意見書を添えて申請書を保健所に提出し、承認された者に対して、医療費助成を受けるための医療受診券が交付される¹⁾。その医療意見書の内容は、厚生労働省を經由して個人情報保護に十分配慮した電子データとして全国登録、集計されている^{2,3)}。その解析結果は研究報告書やホームページ等で公表されている(<http://www.nch.go.jp/policy/shoumann.htm>, <http://mhlw-grants.niph.go.jp/niph/search/NIST00.do>)。

しかし、申請書が提出されなくなった患児の経過は不明である。そこで、厚生労働省に継続して報告されなかった非継続症例の経過に関して、2008年に一部の疾患群で全国的な質問紙調査を行った⁴⁾(<http://www.nch.go.jp/policy/shoumann18/hikeizoku20.htm>)。それ以外の疾患群も順次、調査予定であり、調査票が届いた際は、ご協力いただければ幸いである。小慢事業では医療意見書の電子データから患児が発病後登録中の経過の概要は把握できるので、その内容の確認と共に、非継続後の経過を全国レベルで把握し、今後の保健・医療に役立つ資料とすることが望まれる。

その結果は、予備調査も含めて疾患群ごとに異なっていた^{4,5)}。そこで2009年2月の「小児保健研究」編集委員会において、非継続症例の

A Questionnaire Study on the Progress of the Patients with Chronic Renal Disease who were not re-Registered for the Medical Aid Program for Chronic Pediatric Diseases of Specified Categories

Tadaaki KATO, Shohei HARADA, Naoko KAKEE, Yan-Hong GU, Kenji TAKEHARA

国立成育医療センター成育政策科学研究部(研究職)

別冊請求先: 加藤忠明 〒157-8535 東京都世田谷区大蔵2-10-1

Tel : 03-3416-0181 (内線4250) Fax : 03-3417-2694

経過、および今後の望まれる対策に関して、疾患群ごとにまとめ直し、資料として順次載せることとした。

II. 対象と方法

2005年度小慢事業（慢性腎疾患）に申請、承認された患児8,667人中8,235人（95.0%）は、研究の資料とすることへの同意書を提出し、登録された。そのうち2006年度に再登録されなかった2,546人を対象とした。全国99ヶ所の地方自治体（実施主体）のうち2008年8月までに厚生労働省に医療機関名も含めて報告のあった79ヶ所の実施主体の患児を対象とした。個人情報保護のため氏名、住所等は自動的に削除された電子データを用いて、医療機関に対して質問紙調査を行った。

調査内容は、「調査時点の症例の経過」、「調査時点で小慢事業への申請の有無」、「申請した場合は申請疾患名」、「申請しなかった場合は、その理由」、「死亡した症例は、死亡年月、死因と経過」であった。調査票は2008年11月に発送し、2009年2月末までに返送された内容を集計解析した。そして、1998～2006年度小慢事業の電子データと共に患児の経過をまとめた。

III. 結果

返送数は1,578通（回収率62.0%）、ほとんど無記入等を除いた有効回答は1,534人であった。

1. 2005年度小児慢性特定疾患治療研究事業（慢性腎疾患）に登録された患児の経過

慢性腎疾患群全体と主な慢性腎疾患に関し

て、2006年度非継続症例の経過を表1に示す。

慢性腎疾患群全体としては、2006年度に継続登録された6,005人中の治癒10人（0.2%）、死亡3人（0.0%）と比較して、非継続症例では治癒139人（9.1%）、死亡7人（0.5%）が多く報告された。逆に継続症例での不変1,801人（30.0%）、再発852人（14.2%）、悪化246人（4.1%）に比べて、非継続症例では不変326人（21.2%）、再発64人（4.2%）、悪化44人（2.9%）の割合は少なかった。再発した64人に関しては、調査時点で29人がネフローゼ症候群で、5人は病理診断名で再申請し、また、再申請しなかった患児でその理由が記載されていた25人中11人は年齢が対象外であった。悪化した44人中24人は調査時点で慢性腎不全など各種の疾患名で再申請し、また再申請しなかった場合の理由は16人中、年齢が対象外、または他の医療費助成制度の利用が各々5人ずつであった。

ネフローゼ症候群は、法制化に伴い「半年間で3回以上再発、または任意の1年間に4回再発」との対象基準が設定された¹⁾。そのため非継続症例中の割合は、寛解176人（39.5%）が比較的多く（ネフローゼ症候群の2006年度継続症例1,630人中、寛解は394人、24.2%）、逆に再発59人（13.2%）は比較的小なかった（同、再発は811人、49.8%）。

IgA腎症の非継続症例は、寛解67人（26.9%）と改善74人（29.7%）が比較的多かった。膜性腎症、メサンギウム増殖性腎炎、膜性増殖性糸球体腎炎、巣状糸球体硬化症など他の病理診断名での非継続症例も同様の傾向がみられた。2006年度非継続症例数/継続症例数でみると、

表1 2006年度小児慢性特定疾患治療研究事業、非継続症例の経過
（慢性腎疾患群全体と、主な慢性腎疾患）

人数（%）

経過	慢性腎疾患群全体	ネフローゼ症候群	IgA腎症	水腎症
治癒	139(9.1)	23(5.2)	30(12.0)	20(11.3)
寛解	371(24.2)	176(39.5)	67(26.9)	17(9.6)
改善	329(21.4)	41(9.2)	74(29.7)	62(35.0)
不変	326(21.2)	50(11.2)	34(13.7)	57(32.2)
再発	64(4.2)	59(13.2)	2(0.8)	0(0.0)
悪化	44(2.9)	6(1.3)	2(0.8)	2(1.2)
死亡	7(0.5)	1(0.2)	1(0.4)	0(0.0)
不明	254(16.5)	90(20.2)	39(15.7)	19(10.7)
合計	1,534(100)	446(100)	249(100)	177(100)

紫斑病性腎炎160人/437人に対して、膜性腎症93/343, メサングウム増殖性腎炎32/145, IgA腎症249/1,172, 膜性増殖性糸球体腎炎30/200, 巣状糸球体硬化症28/245の順に非継続症例の割合が少なくなっていた。

水腎症の非継続症例は、改善62人(35.0%)と不変57人(32.2%)が比較的多く、慢性腎盂腎炎や慢性腎不全なども同様の傾向がみられた。しかし、2006年度非継続症例数/継続症例数でみると、水腎症177人/374人、慢性腎盂腎炎49/106に対して、慢性腎不全は41/235と少なかった。

遺伝性腎炎、腎低形成、多発性嚢胞腎などの先天性腎疾患は、非継続、継続ともに不変が43.5~83.3%と多かった。

2006年度小慢事業には再登録されなかったが、2008年度の調査時点では再申請したとの報告が351人(有効回答者の22.9%)にみられた。そのうち48人は、ネフローゼ症候群や腎炎との診断名から病理診断名になったり、また、腎機能障害が進行して慢性腎不全等になったり、2005年度小慢事業と異なる疾患名で申請していた。

小慢事業に継続申請しなかったとの回答は、死亡した7人を除き1,017人で、その理由が記載されていたのは1,000人であった。その内訳は、年齢が対象外:165人、疾患の対象基準外:413人、転院:160人、転科:4人、治療を中断:

125人(治癒18人、寛解50人、改善28人、不変6人、再燃2人、経過が不明21人)、他の医療費助成制度を利用:37人、未受診:38人、治癒:24人、寛解継続中:5人、移植後経過が順調:5人、逆流防止術後安定:2人、家族の希望:11人、通院頻度が少なく損する:4人、当院での診察不可:3人、研究利用に非同意:2人、申請し忘れ:1人、海外居住:1人であった。

2. 死亡した患児の発症から死亡までの経過

2005年度小慢事業に登録されたが、その後、今回の調査時までに亡くなった7人の患児に関して、発症から死亡までの経過の概略を表2に示す。

2006年度に再登録されなかった慢性腎不全、萎縮腎、腎血管性高血圧の患児58人中、5人(8.6%)が亡くなっていた。1), 3), 5)等の患児は、クレアチニン高値で腎機能障害が高度となり、透析等各種の治療を行いながら死亡していた。しかし、7)の自殺の他、2), 4), 6)の患児は、学校生活管理指導表Dで強い運動のみ制限されていたものの、詳細不明のまま急に亡くなっていた。

IV. 考 察

非継続症例の中には、治癒例や死亡例の報告がみられ、逆に再発や悪化は比較的少なかったが、それらの場合、調査時点では再申請してい

表2 2005年度小児慢性特定疾患治療研究事業(慢性腎疾患)に登録、その後亡くなった7患児の経過

最終登録時疾患名 死亡者数/有効回答者数	死亡時の年齢と性別:発症から死亡に至る経過
1~3) 慢性腎不全 3/41人	1) 2歳男児:新生児期に発症、血清総蛋白3.6g/dl, アルブミン2.0g/dl, クレアチニン4.6mg/dl, アルブミン製剤投与、透析など実施するも慢性腎不全にて死亡 2) 15歳女児:新生児期に発症、慢性間質性腎炎と登録されていたが、14歳時に慢性腎不全、学校生活管理指導表D、透析治療中経過は不変であったが、自宅にて心肺停止で発見、心肺停止の原因は不明 3) 17歳女児:7歳時に発症、13歳新規登録時慢性腎不全、クレアチニン9.2mg/dl, 透析治療中経過は不変、学校生活管理指導表A、腹膜炎から敗血症にて死亡
4) 萎縮腎 1/7人	4) 13歳男児:新生児期に発症、クレアチニン3.1mg/dl, 透析未実施、学校生活管理指導表Dで経過は不変であったが、突然死
5) 腎血管性高血圧 1/10人	5) 13歳女児:10歳時に発症、血圧180/136, クレアチニン6.6mg/dl, 学校生活管理指導表A、慢性腎不全進行、13歳の6月から乏尿・肺水腫、9月心肺停止
6) IgA腎症 1/249人	6) 14歳女児:12歳時に発症、クレアチニン0.7mg/dl, 学校生活管理指導表Dで経過は改善していたが、急性心筋炎(疑)にて死亡
7) ネフローゼ症候群 1/446人	7) 20歳男児:4歳時に発症、21回再発、血清総蛋白4.4g/dl, アルブミン1.8g/dl, ステロイド薬・免疫抑制薬にて治療中であったが、自殺にて死亡

たり、年齢制限のため対象外となった患児が比較的多かった。小慢事業に再登録されなかった場合も含めて患児の経過を把握することにより、慢性腎疾患の全体的な病像が判明する。

巣状糸球体硬化症や慢性腎不全など比較的重症な疾患の多くが継続登録されていた。一方、非継続となった場合、理由は、疾患の対象基準外413人、年齢が対象外165人など制度上の理由が57.8%と比較的多く、転院なども含めた家族の都合217人、治癒、寛解、改善など経過が順調132人を合計すると92.7%であり、小慢事業が医療費助成制度としてほぼ適正に運営されていることを示している。問題となる可能性のある未受診、治療を中断し経過が不明との回答は5.9%であった。

2006年の人口動態統計によれば、慢性腎疾患による1～19歳児の死亡は9人であった⁶⁾。今回の調査では、全国79/99の地域から同意を得られた95.0%の患児に関して、1,534人/2,546人の有効回答が得られ、約2年間分で7人の死亡例の報告があった。したがって、9人とほぼ同人数の結果であり、慢性腎疾患のある子どもの死亡に至る経過を全国レベルで把握できたと考えられる。小慢事業が制度化された直後の1975年の慢性腎疾患による死亡153人に比べて激減したものの、さらなる改善が望まれる⁷⁾。

人口動態統計によれば、子どもの死因として自殺は、10～14歳が第3位、15～19歳が第2位であり⁶⁾、何らかの障害や疾病をかかえながら学校や家庭での問題をきっかけに自殺に追い込まれる子どもが多い。慢性腎疾患の死亡例の経過では、詳細不明のまま急に亡くなった13歳以上の患児が数人報告されたので、心理的な支えをどうするかなど今後の対策が急務である。

謝 辞

本資料は、厚生労働科学研究費補助金「法制化後

の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」(研究代表者 藤本純一郎)、「成育疾患のデータベース構築・分析とその情報提供に関する研究」(研究代表者 原田正平)による。内容の一部は今後の日本小児保健学会にて発表予定である。ご協力いただいた患児家族、実施主体や厚生労働省の担当者、そして医療機関、ことに死亡症例をご報告いただいた担当医師に深謝いたします。

資 料

- 1) 倉辻忠俊監修. 小児慢性特定疾患早見表(登録管理用)平成19年度版. 母子愛育会. 2008.
- 2) 加藤忠明, 安藤亜希, 福田清香, 他. 平成18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20年度厚生労働科学研究「法制化後の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. 2009: 11-38.
- 3) 齊藤 進, 加藤忠明. 平成18年度小児慢性特定疾患治療研究事業の疾患群別, 実施主体別, 男女別, 診断時・発病時年齢階級別, 登録者数. 同上報告書. 2009: 198-277.
- 4) 加藤忠明, 原田正平, 安藤亜希他: 小児慢性特定疾患治療研究事業(慢性腎疾患, 慢性呼吸器疾患, 糖尿病, 慢性消化器疾患)の非継続症例の経過に関する実態調査. 同上報告書. 2009: 39-52.
- 5) 加藤忠明, 原田正平, 掛江直子, 他. 小児慢性特定疾患治療研究事業(先天性代謝異常, および神経・筋疾患)における非継続症例の経過に関する実態調査. 小児科臨床 2008; 61(5): 1063-1069.
- 6) 厚生労働省統計情報部: 平成18年人口動態統計下巻. 2008.
- 7) 加藤忠明. 近年の保健・医療の進歩と小児保健の課題. 小児保健研究 2008; 67(5): 701-705.