

分担研究課題 小児慢性特定疾患治療研究事業の情報提供に関する研究

研究分担者 掛江 直子（国立成育医療センター研究所 成育保健政策科学研究室長）

研究要旨

小児慢性特定疾患治療研究事業では、公的な小児疾患データベースとしての社会的役割を意識し、「登録事業」として登録収集したデータを管理し、「情報発信事業」として医療専門家のみならず患者家族等の一般国民へ情報発信することにより、当該事業を有効に利活用することを目指している。

本分担研究課題では、情報発信事業の一環として、(1) 患者家族への説明用リーフレットの試作と評価、(2) 当該事業専用 HP の構築、(3) 対象疾患検索サイトならびに相談窓口検索サイトの設計および掲載データの収集・整理、(4) 患者間交流の支援、の 4 課題について取り組み、小児慢性特定疾患治療研究事業に関する情報の積極的な利活用を検討した。

研究協力者

加藤 忠明：国立成育医療センター研究所 成育
政策科学研究所

平井奈緒美：同上

岩戸 純子：同上

上里 志保：同上

奥山 虎之：国立成育医療センター臨床検査部

関する説明資料(リーフレット)を作成する等して、患者家族等の理解を得ることを目指した。

また、当該事業専用の HP を構築することにより、当該事業を利用している患者家族のみならず、今後当該事業を利用するかもしれない一般国民に対する当該事業の周知を目指してきた。さらに、HP 内に様々な情報を掲載するのみならず、必要な情報が簡便に入手できるよう各種検索サイトを設計し、当該事業の有効なかつ適切な利活用の在り方を検討することを目的とした。

A. 研究目的

小児慢性特定疾患治療研究事業では、公的な小児疾患データベースとしての社会的役割を意識し、1) 登録事業、2) 基盤研究事業、3) 情報発信事業、4) 応用研究事業の四つの柱を設け、総合的かつ多角的視座から質の向上を目指している（図 1 小児慢性特定疾患治療研究事業体制図(試案)を参照のこと）。本分担研究においては、これらの事業のうち特に 3) 情報発信事業 に焦点をあて、医療専門家のみならず患者家族等の一般国民へ広く情報発信することにより、当該事業への理解を深め、当該事業が適切かつ有効に利活用されるべく検討を進めてきた。

特に、患者家族等においては、当該事業の福祉的側面（医療費助成）は知られているものの、研究的側面についてはあまり理解されていない点が倫理的に問題をされてきた。この点については、当該事業によって収集保管しているデータの研究利用に

B. 研究方法

今期 3 箇年において、本分担研究課題では、情報発信事業の一環として、(1) 患者家族への説明用リーフレットの試作と評価、(2) 当該事業専用 HP の構築、(3) 対象疾患検索サイトならびに相談窓口検索サイトの設計および掲載データの収集・整理、(4) 患者間交流の支援、の 4 課題について取り組んできた。

まず(1)では、当該事業におけるデータの研究利用に関する同意取得の形骸化に対する対応策として、当該事業の研究的側面への理解を深めるために、当該事業によって収集保管しているデータの研究利用に関する説明資料（リーフレット）を試作し、実施主体担当者を対象としてその評価を行った。

また(2)では、小児慢性特定疾患治療研究事業への理解を深めより広く当該事業を利活用いただくために、小児慢性特定疾患治療研究事業に関する情報を積極的に発信するための専用 HP を設計・構築した。

さらに(3)では、当該 HP 上において、①当該事業の対象疾患の検索サイト、②各自治体に設置された小児慢性特定疾患治療研究事業の相談窓口情報検索サイト、といった患者家族等のニーズの高い内容を検索できるプログラムを開発した。特に①については医学専門家の協力を仰ぎ、各サイトに掲載すべき情報の作成・整理作業を進めた。また②については全国の主管課（都道府県・指定都市・中核市等）112 箇所に対し、郵送法にて各自治体の窓口情報、申請手続き情報等の調査を実施した。

(4)においては、当該事業の対象疾患患者の家族からの問い合わせ等から、稀少疾患であるが故に患者会や親の会といったピア・サポート・グループが組織されていない疾患が多く存在し、それらの疾患患者家族は情報や支援が不足していることが推察された。そこで問合せのあった稀少疾患患者家族に対し、ニーズ調査を行い、その対策を検討した。

C. 研究結果

(1)の結果としては、当該事業によって収集保管しているデータの研究利用に関する説明資料（リーフレット）を試作した。また、当該事業の実施主体担当者を対象としてその評価を行った結果、回答したほとんどの実施主体から本リーフレットの今後の使用を希望する回答が得られたことから、当該事業における研究的側面の周知不足に対する対策として、実施主体担当者からは一定の評価が得られたと言える。

また(2)の結果としては、小児慢性特定疾患治療研究事業専用 HP を設計・構築した（現在構築中であり未公開である）。構造は以下の通りである。

- ・小児慢性特定疾患治療研究事業とは？
 - 小児慢性特定疾患治療研究事業の概要
 - 小児慢性特定疾患治療研究事業における給付について

- ・小児慢性特定疾患とは？（疾患検索サイト）
 - 疾患群別 索引
 - 50 音順 索引
 - ABC 順 索引
- ・各相談窓口紹介
 - 都道府県担当窓口（相談窓口検索サイト）
 - 専門医による相談窓口
 - 患者団体による相談窓口
 - 療育相談窓口
- ・研究報告
 - 研究班報告
 - 個別研究報告
- ・登録情報の研究利用について
 - 研究利用についてのご説明
 - 研究利用についての同意書
- ・その他（登録担当者の皆さまへ）
 - 行政機関（保健所等）の担当者の皆さまへ
 - 診断される医師の皆さまへ（申請に関する補助資料等）

(3)の結果としては、上記の内容にて構築中である HP 上において、①当該事業の対象疾患の検索サイト、②各自治体に設置された小児慢性特定疾患治療研究事業の相談窓口情報検索サイト、といった患者家族等のニーズの高い内容を検索できるプログラムを開発した。特に①対象疾患名の検索については、1) 疾患群別索引、2) 五十音順索引、3) ABC 順索引の 3 種類からの検索が可能となるよう設計した。これに伴い、小児慢性特定疾患治療研究事業の対象疾患に対し、疾患の読み仮名を付す作業、同一疾患に対して複数の疾患名がある場合のひも付け作業、英語表記とのひも付け作業等が必要となった。これについては医学専門家の専門的知識の提供が不可欠であったため、国立成育医療センター奥山虎之臨床検査部長の研究協力を得て、当該事業の対象疾患として 1391 疾患（当該事業対象疾患である 514 疾患に別称等を加えた疾患数）、さらに対象外の疾患として早見表に掲載されている 1629 疾患、合計 3020 疾患名という膨大な数の疾患名についての情報の作成・整理作業を進めた。また②については、保健所等の統廃合による体制変更、自治体毎の

業務分担の状況等の最新の情報を得ることができ、それらを基に検索サイトのデータファイルを作成中である。

(4)の結果としては、当該事業の対象疾患患者家族のニーズとして、「国内に同じ疾患の患者さんは何人くらいいるのか?」「他の患者さんはどこで治療を受けているのか?」「どんな治療を受けているのか?」等について情報が欲しいと感じている方がいることが明らかとなった。そこで、他の患者への取次ぎ方法について、図2のようなネットワーク構築支援案を提案した。

D. 考察

(1)の当該事業の保有データの研究利用に関する説明用リーフレットについては、一定の評価を得られた。今後は、軽微な内容の改訂を進めるとともに、より効率的な配布方法を検討し、実用化していく予定である。また、(2)の当該事業専用HPの構築についても、その枠組みが完成し、(3)に示す主な検索システムの構築も進んだことから、さらなる内容の充実を進めながら公開の段階に入る予定である。今後は、使用者からの評価を得ながら、適宜改善に努めていくこととなる。

(3)の①対象疾患名の検索システムは、小児難治性疾患の診断を受け、小児慢性特定疾患治療研究事業による医療費助成が受けられるかもしれないという情報を得られていない患者家族にとっては有効である。しかし、既に小児慢性特定疾患治療研究事業への登録がなされた患者家族にとっては、これだけでは有用性が認められないことから、今後は専門医による疾患や治療の説明といった患者家族の求める情報までもが入手できるように検討していく必要があるであろう。

また、②相談窓口検索サイトについても同様で、例えば引越し先での手続きをどうすればよいかといった心配を抱える患者家族にとっては、相談窓口が検索できることは有用であるが、さらには転居先での医療機関や療育相談等の情報等が求められるであろうことから、関連する支援情報についても今後も引き続き検討を続け、内容を充実させることが

必要であろう。

(4)の患者家族への情報提供について、情報提供者から受けている同意の範囲という観点からは、研究への利活用という枠組みを逸脱している可能性があることが危惧される。しかしながら、他の患者家族に、本人の許可なく個人情報を提供するのではなく、引き合わせを希望する患者家族から同じ稀少疾患患者の家族へ宛てた手紙を預かり、それを小児慢性特定疾患治療研究事業に登録されたデータを基に、同一疾患患者を治療している医師へ送り、医師から患者家族に手渡してもらい、最終的に患者家族が手紙の差出人に自ら連絡を取りたいと考えた場合に自発的に連絡をするという流れを考えた。このことにより、個人情報の漏洩もなく、また対象者の任意性は担保されることとなる。当面、この方法で稀少疾患患者家族間のネットワーク構築支援活動を研究的に進めていき、この方法の有効性がある程度見込めると判断した段階で、小児慢性特定疾患治療研究事業の説明文書中に、このような情報の利活用も行っていることを加筆するという対応を現在は考えている。

E. 結論

小児慢性特定疾患治療研究事業に関する情報発信事業の基盤となるツールの整備を進めることができた。これにより、当該事業を利用している患者家族ならびに医療関係者が簡便に適切な情報に辿り着けるような情報提供方法が見えてきた。一方、社会的には未だ当該事業についての周知度は低いようで、小慢の対象疾患であるにも関わらず各自治体の子ども医療費助成制度を利用する患者が多い現状も指摘されている。これは当該事業の登録率低下の大きな要因であり、登録精度の観点からも改善が求められる。今後は、子ども医療費助成制度を利用する小慢対象疾患患者家族に対して、どのような方法でどのような情報提供をすることが有効であるか、引き続き検討する必要がある。

F. 健康危険情報 なし

G. 研究発表 なし

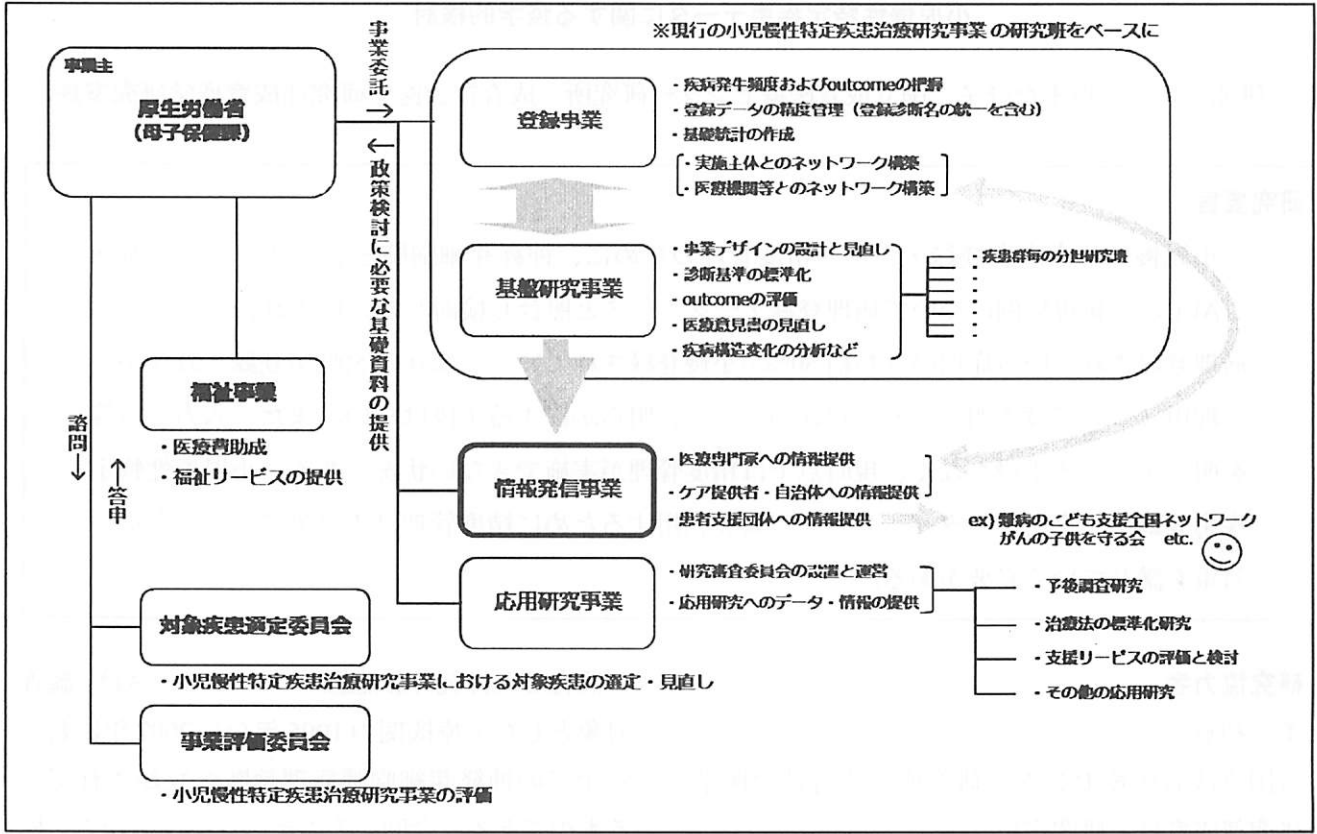


図 1. 小児慢性特定疾患治療研究事業体制図 (試案)



図 2. ネットワーク構築支援案