

小児慢性特定疾患のキャリアオーバー患者の 実態とニーズに関する研究

研究代表者 尾島 俊之（浜松医科大学医学部健康社会医学講座教授）

研究要旨 我が国における小児慢性特定疾患（小慢）のキャリアオーバー患者の実態とニーズを明らかにし、今後の保健医療福祉施策の検討に資することを目的とした。(1) キャリアオーバー患者家族調査、(2) 49歳以下の国保被保険者における小児慢性特定疾患受診状況分析、(3) キャリアオーバー患者の医療費負担把握のためのレセプト情報の活用と小児慢性特定疾患助成の対象外となる直前の医療費の状況、(4) 患者調査個票によるキャリアオーバー患者数推計、(5) 年齢階級別受給者数からの外挿によるキャリアオーバー患者数の推計の各分担研究を実施した。研究の結果、キャリアオーバー患者の医療費自己負担（年額）は、中央値3万6千円であったが、20万円以上の患者が9.5%に見られた。また医療費自己負担（年額）が20万円以上で、所得（等価所得、年額）が150～250万円の患者では経済的に苦しいとの回答が84.2%に達した。国保レセプトによる受診者一人あたり点数では、血液及び免疫、循環器系の疾患、尿路生殖器系疾患で平均値が高額であった。小慢給付データでは、その他の酵素欠損、第IX因子欠乏症、遺伝性腎炎、成長ホルモン分泌不全性低身長症で月当たりの小慢給付額と自己負担額の合計の中央値が5万円を越えていた。キャリアオーバー患者のストレスや悩みの原因として自分の仕事に関するものが47.5%と最も多かった。また、退職・転職した患者において、雇用先に必要であった配慮として、休暇・短時間勤務、職務内容、医療、職場内における相談支援体制などの意見が多かった。以上の結果から、疾患名を指定したキャリアオーバー患者全てへの一律の医療費助成の必要性は必ずしも高くないが、高額療養費制度等の充実・制度の啓発、また就職及びその後の職場での支援の強化が重要であると考えられた。

研究分担者

山縣 然太朗（山梨大学大学院医学工学総合研究部社会医学講座教授）

谷原 真一（福岡大学医学部衛生公衆衛生学教室准教授）

西連地 利己（獨協医科大学公衆衛生学准教授）

上原 里程（自治医科大学地域医療学センター公衆衛生学部門准教授）

野田 龍也（浜松医科大学医学部健康社会医学講座助教）

研究協力者

徳本 史郎（浜松医科大学医学部健康社会医学講座特任助教）

A. 研究目的

児童福祉法を根拠にした小児慢性特定疾患（小慢）は、11疾患群514疾患が指定され、18歳未満（引き続き治療が必要な場合には20歳未満）の患者について、医療保険制度の自己負担分に対する公費助成が行われている。現在の制度では、20歳以上に至ると、この制度の対象外となり公費助成が終了となる。近年、医

療技術の向上等により、小児期に命を落とすことなく、また治癒もせずに、20歳以上も引き続き治療が必要となる事例が多く見られるようになった。このような事例がキャリアオーバー患者と呼ばれている。

平成22年3月に第174回通常国会参議院予算委員会の中で当時の鳩山由紀夫総理大臣によって、キャリアオーバー患者を含んだ難病対策全体のあり方について、厚生労働省の中に検討チームを設置して検討していきたいという答弁が行われた。それを受けて厚生労働省内での検討が進められている。

この課題に関する先行研究としては、平成17～18年度厚生労働科学研究費補助金（子ども家庭総合研究事業）「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」（主任研究者 加藤忠明）がある。この研究では、医療機関及び患者会を通じた患者へのアンケート調査、医療施設に対する医師への調査、特定の2県における過去に受給した患者への調査が行われている。しかしながら、より包括的な患者の実態及び直近の状況を明らかにする必要がある。一方で、駒松（J Nurs Studies NCNJ; 8:20-30, 2009）は、小慢のキャリアオーバーと成育看護の課題について論文レビューによってまとめており、疾患の理解や心理社会的問題の理解等の重要性を述べている。

諸外国において、キャリアオーバーに特化した先行研究はほとんどないが、希少疾患に関しては種々の検討が行われている。イギリスにおいては Rare Disease UK がメッセージを発しており、人口1万人に5人以下の希少疾患は6000疾患もあり合計すると患者数は国民の17人に1にも登り、決して希なものではないことを述べている。米国においては、NORD (National Organization for Rare Disorders) による患者支援や、ORDO (National Institutes of Health, Office of Rare Diseases Research)による

研究等が活発に行われている。

以上のような状況において、我が国における小慢のキャリアオーバー患者の実態とニーズを明らかにし、今後の保健医療福祉施策の検討に資することがこの研究の目的である。

B. 研究方法

(1) キャリーオーバー患者家族への調査

全国の医療施設を対象とした一次調査と、個々のキャリアオーバー患者を対象とした二次調査とを行った。

一次調査は、独立行政法人福祉医療機構が運営するWAMNETを用いて検索した全国の医療機関のうち、入院施設を備えた小児科、内科、外科、精神科（障害者施設等を含む）を標榜する全ての病院12,678施設を対象とした。平成23年8月から11月にかけて郵送法により実施した。調査項目は、キャリアオーバー患者を診ているか否か、診ている場合は患者数や患者の基本属性などである。

二次調査の対象は、一次調査で「キャリアオーバーした患者を診ている」と回答した施設のうち、二次調査に協力可能と回答した施設を受診する患者またはその家族である。二次調査票はまず研究班事務局から協力可能な施設に郵送した。そして、主治医の判断で、該当患者が調査対象期間に外来受診する場合は外来で二次調査票を直接手渡しするか、該当患者宛に二次調査票を郵送するかの二通りの方法を選択できるようにした。記入した二次調査票は、無記名で患者から直接研究班事務局へ郵送することにより回収した。二次調査票の研究班事務局からの送付は平成23年8月から行い、平成24年2月9日までの返送分について分析を行った。調査項目は、患者の基本属性、医療・福祉施策の利用状況、医療費等の支出、就労状況などである。

(2) 49 歳以下の国保被保険者における小児慢性特定疾患受診状況分析

K 県国民健康保険（国保）被保険者の 2010 年 5 月診療分の医科レセプトの内、電子化されたレセプトに記載された全ての傷病名をコード化し、小慢に該当する傷病名を少なくとも一つ有するレセプトについて集計した。なお、疾患の重症度や発症時期は問わずに集計した。K 県国保連合会を通じて各市町村に本研究の意義を説明し、データ使用の了解を得た。個人の特定が可能な情報は K 県国保連合会の側で削除し、外部データとの連結不可能な匿名化を実施した。

分析において、対象疾患が小慢に該当するものに限定されることから、対象者の年齢は 0～50 歳未満とした。対象者の年齢の算出は 2010 年 4 月 1 日時点での満年齢とした。

小慢の定義は、恩賜財団母子愛育会（事業管理部）による「小児慢性特定疾患早見表（登録管理用）平成 19 年度版」に準拠した。電子化されたレセプトに記載された全ての傷病名を ICD10 に沿って分類し、小慢に該当する傷病名が記載されているものを抽出した。

(3) キャリーオーバー患者の医療費負担把握のためのレセプト情報の活用と小児慢性特定疾患助成の対象外となる直前の医療費の状況

厚生労働省では、医療費適正化計画の作成、実施及び評価に資するため、全国の診療報酬明細書（レセプト）のデータベースを構築している。平成 23 年度から研究者等が医療サービスの質の向上に資するエビデンスを得るための分析等に利用できることになった。そこで、本研究班では、当該レセプト情報の利用申請を行った。

また、キャリーオーバー患者の医療費負担の状況を推察する参考にするために、平成 22 年度に「小児慢性特定疾患の登録・管理・解析・

情報提供に関する研究」班（松井班）が収集した小慢治療研究事業の給付データを再分析した。松井班では、協力が得られた自治体（4 県 4 市）について平成 21 年（2009 年）11 月から平成 22 年（2010 年）の 3 月分の小慢治療研究事業の連名簿による給付データを収集した。対象は、入院・入院外・調剤とした。データは連結不可能匿名化されていた。なお、小慢事業に係る高額療養費の自己負担額は従来、一律に一般所得区分が適用されていたが、2009 年 5 月から所得区分別の適用に変更となったため、移行が完了したと思われる 11 月以降のデータを分析の対象とした。

分析においては、小慢助成の対象外となる直前の自己負担額を把握するため、対象データの中から 19 歳のデータのみを抽出し、医科（入院および入院外）および調剤の合計の自己負担額を人月単位に合計した。さらに、その対象人月及び自己負担額を告示疾患名別に集計し、平均値、標準偏差、25 パーセンタイル値、中央値、75 パーセンタイル値を算出した。

(4) 患者調査個票によるキャリーオーバー患者数推計

国立成育医療研究センターのホームページにおいて公表されている小慢治療研究事業の登録人数（平成 20 年度）と、厚生労働省の平成 20 年患者調査による 0～19 歳における総患者数について、両調査の患者数の比が、その後の年代においても変わらないと仮定し、患者数を推計した。具体的には、患者調査による性・年齢階級・傷病分類別総患者数をベースとして、小慢の各疾患を患者調査の傷病分類に合わせて分類し、傷病分類ごとに、「小慢患者数／患者調査による総患者数（千人単位）」の比を算出した。さらに、患者調査における傷病分類ごとの 20～39 歳における総患者数に上述の比を乗じた。そして、20 歳以降の発症者が生じな

いモデルを設定して推計を行った。

患者調査による総患者数の推計にあたっては、統計法第33条に基づき、平成20年患者調査に係る調査票情報の提供の申出（従前の目的外使用申請）を行い、得られた個票データを用いた。具体的な分析方法としては、(1) 患者調査個票データより ICD-10 コードを用い、小慢患者と思われる個票を抜粋し、傷病、性・年齢階級別に、患者数、診療間隔等の集計を行った。(2) 小慢に該当すると思われる傷病名ごとまたは疾患群ごとに、次の式により、疾患別小慢総患者数を推計した。

$$\text{疾患別総患者数} = \text{疾患別入院患者数} + \text{疾患別初診外来患者数} + \text{疾患別再来外来患者数} \times \text{平均診療間隔} \times \text{調整係数 (6/7)}$$

(5) 年齢階級別受給者数からの外挿によるキャリアオーバー患者数の推計

年齢階級別小慢登録患者数を基礎データとして用いた。方法は、まず疾患毎に、0～19歳について年齢5歳階級別に患者数を集計した。次に、0～19歳の4階級全体、および10～19歳の2階級で、年齢階級が1段階上がる毎での患者数の増減について、回帰分析を行った。そして、2種類の回帰係数のうち、値が小さい回帰係数を以後の操作において採用した。最後に、15～19歳の患者数を出発点にして、年齢階級が1段階上がる毎にその増減数の変化があるものとして、20～39歳の患者数を推計した（モデル1）。

加えて、18歳と19歳の患者数からの回帰係数を算定し、また

19歳の患者数を見て、それらの方が小さい場合にはそれを採用する推計を行った（モデル2）。

(倫理面への配慮)

アンケート調査及び国保レセプト分析においては、疫学研究に関する倫理指針の規定に基づき、各研究分担者の施設での倫理審査委員会の承認を得て行った。アンケート調査の実施においては、文書等により研究の趣旨を説明し、同意の得られた者のみから回答を得た。また、研究の実施に当たって個人を同定できる情報は取り扱わなかった。

図1 医療費自己負担の分布(年額)

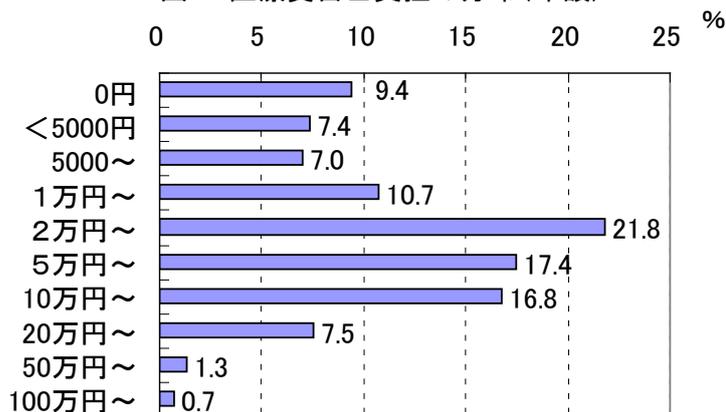
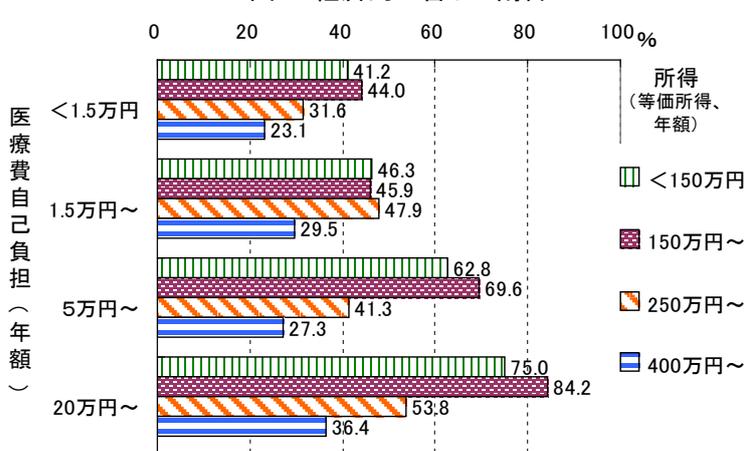


図2 経済的に苦しい割合



C. 研究結果

(1) キャリーオーバー患者家族への調査

医療機関でのキャリーオーバー患者受診状況の把握に関する一次調査では、全国 640 施設から総計 6356 人のキャリーオーバー患者が報告された。そのうち 76.6%は小児科から報告された。

キャリーオーバー患者または家族を対象とした二次調査の結果からは、20 歳以降も 73%の患者は毎月あるいは 2~3 か月ごとに医療機関を受診しており、11%は入院治療を要していた。医療費助成を受けていない患者は全体の 59%であった。

キャリーオーバー患者の医療費自己負担(年額)の分布を図 1 に示す。医療費自己負担の中央値は 3 万 6 千円、25 パーセンタイル値が 1 万円、75 パーセンタイル値が 10 万 8 千円であった。また、20 万円以上の患者が 9.5%に見られた。医療費自己負担(年額)を傷病群別に比較すると、中央値では糖尿病、慢性呼吸器疾患、膠原病で高い結果であった。医療費自己負担は 0 円~100 万円超まで分布しており、同一疾患群においても、最小値から最大値の間には大きな差が見られた。医療費自己負担(年額)と所得(世帯所得を世帯員数の平方根で除して世帯員数が異なる世帯を比較可能にした「等価所得」、年額)別の経済的に苦しい者の割合を図 2 に示す。医療費自己負担が 20 万円以上で、所得が 150~250 万円の患者では経済的に苦しいとの回答が 84.2%に達した。

平日の主な活動が仕事であると回答したのは全体の半数であ

るが、20~24 歳では仕事が 38%で通学が 32%と就学中の患者も多かった。仕事をしていない患者の 11%は求職活動をしたが就職できないと回答していたが、そのうち求職活動支援制度を活用したのは 20 歳代の患者のみであり 30 歳以上での利用はなかった。日常生活でのストレスや悩みがある者は 68.3%であった。ある者について、ストレスや悩みの原因(主なもの)を図 3 に示す。最も多いのは「自分の仕事」47.5%、次いで「自分の病気や介護」33.3%などであった。

退職・転職を経験した者は 32.9%であった。退職・転職の理由として「疾患の病状が悪化」、「疾患への理解・配慮がなかった」とした者について、継続的な就職に当たり、雇用先にとどのような配慮が必要だと思いますかと聞いた結

図3 ストレスや悩みの原因(主なもの)

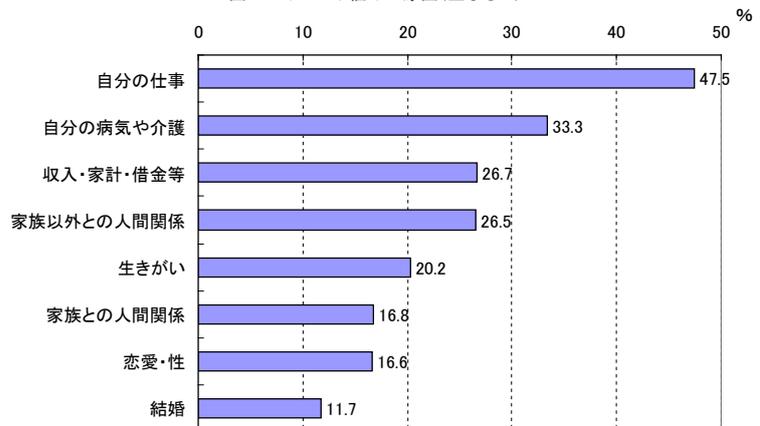
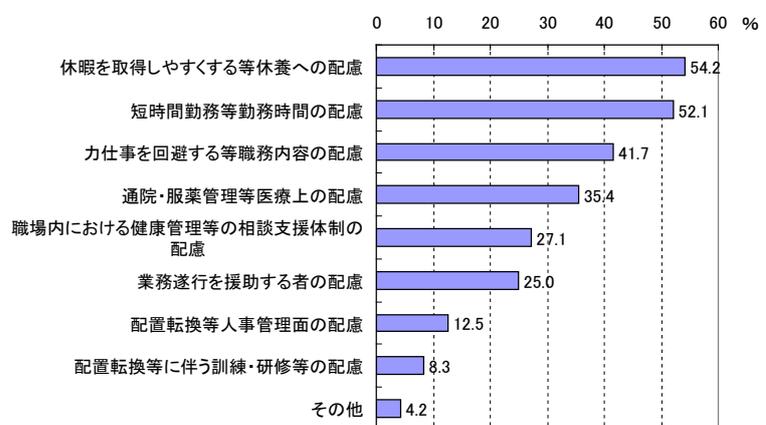


図4 雇用先に必要であった配慮(退職・転職者での集計)



果を図4に示す。休暇・短時間勤務、職務内容、医療、職場内における相談支援体制などの意見が多かった。

42%の患者では介護は必要がなかったが、介護が必要である場合の主な介護者は、母60%、父19%であった。

本研究からは、平成23年11月現在、日本全体での小慢キャリアオーバー患者数はおよそ12,500人程度（無回答の施設も同じ比率で患者がいると考えた場合）、少なく見積もると6300人（今回の調査で直接的に報告がされた人数）、多く見積もると47,500人（各施設において回答医師以外が主治医である患者数について報告されていないと考えた場合）と見込まれた。

（2）49歳以下の国保被保険者における小児慢性特性疾患受診状況分析（発症時期が成人後も含む）

受診者数は20歳未満では呼吸器系の疾患が最多、20歳以上では内分泌、栄養および代謝疾患が最多であった。受診者一人当たり点数では、血液および免疫、循環器系の疾患、尿路器系はいずれの年齢階級でも高くなっていた。疾病小分類別に一人当たり点数を検討した結果は、年齢によって上位に位置する疾病が異なっていた。

しかし、レセプトにおいては疾患の発症年齢や重症度は把握できず、対象者が実際に小慢の助成対象であったかの確認は不可能であり、把握には一定の限界がある（アレルギー性気管支炎など）。一方、血友病や先天奇形のように、小慢の助成を受けていたことがほぼ確実な疾病の一部は20歳以降も継続して受診していることが確認できた。

（3）キャリアオーバー患者の医療費負担把握のためのレセプト情報等の活用と20歳直前の

医療費の状況について

厚生労働省のレセプトデータベースの利用申請については、試行事業の初年度ということもあり、希少疾患のレセプト情報は個人が特定される恐れがあるなどとして、今回は承認されなかった。

そこで、自治体（4県4市）の小慢治療研究事業の対象外となる直前の19歳の給付データ（388人月）を分析した結果、「1から49までに掲げるもののほか、特定の欠損（活性異常）酵素名を冠したすべての疾患」（その他の酵素欠損）、「第Ⅸ因子欠乏症（血友病B）」、「遺伝性腎炎」および「成長ホルモン分泌不全性低身長症」で、1人月あたりの自己負担額（小慢治療研究事業での給付額と自己負担額を合算した金額）の中央値が5万円を超えていた。これらの疾患では20歳以降も負担が続いている可能性がある。また、上記の4疾患について、10歳～19歳の年齢別対象人月数は、年齢が上がるとともに、その他の酵素欠損は減少傾向、血友病B、遺伝性腎炎は14歳以降でほぼ一定、成長ホルモン分泌不全性低身長は減少傾向であった。また、10～19歳の年齢別自己負担額は、年齢が上がるとともに、その他の酵素欠損は上昇傾向、血友病Bはほぼ一定、遺伝性腎炎は19歳で急激に高く、成長ホルモン分泌不全性低身長は低下傾向であった。なお、サンプルサイズが小さいために、結果の解釈には慎重を要する。

（4）患者調査個票によるキャリアオーバー患者数推計

患者調査（平成20年）は3つの調査からなり、「病院外来票」400,829レコード、「病院入院票」521,021レコード、「一般診療所票」280,124レコードの計1,201,974レコードの提供を厚生労働省から受けた。これよりICD-10コードにより小慢（514疾患）に対応すると思

われる個票を抽出し、総患者数を推計した。

傷病ごとに、小慢登録数と患者調査における0～19歳の総患者数の比を「小／患比」として算出した。疾患大分類別に見るといずれの傷病においても小／患比が1.0を下回った。

これを患者調査の20～39歳の患者数に単純に乗じて疾患大分類別の総患者数を算出すると、ICD-10コードを共有する小児慢性特定疾患以外の疾患の患者数も包含する等の理由から過大な推計となるため、20歳以降に患者数が増加する疾患群については登録患者数を上限として推計したところ、キャリアオーバー患者は7万6千人となり、比較的登録者数の多い24疾患を合算したキャリアオーバー患者数は3万3千人となった。

なお、単純に乗じて推計した総患者数はそれぞれ36万1千人と29万0千人であった。

(5) 年齢階級別受給者数からの外挿によるキャリアオーバー患者数の推計

推計の結果、20～39歳の患者数の合計はモデル1の場合は49,197人、モデル2の場合は11,045人となった。ただし、簡易な推計方法であることから、あくまでもひとつの参考値として見る必要がある。

D. 考察

(1) 医療費の実態

キャリアオーバー患者の医療費自己負担(年額)は、中央値3万6千円であった。これは、現行の高額療養費制度において70歳未満の低所得者の自己負担限度額が月額3万5400円であるのと比べると10分の1以下の負担額である。

本研究により、傷病の種類による医療費の高低の傾向が明らかになった。アンケート調査による自己負担額の中央値では糖尿病が最も高い結果であった。また、国保レセプトによる受

診者一人あたり点数では、血液及び免疫、循環器系の疾患、尿路生殖器系疾患で平均値が高額であった。さらに小慢受給者での分析では、「1から49までに掲げるもののほか、特定の欠損(活性異常)酵素名を冠したすべての疾患」について、医療費が高額であり、また年齢が上がるにつれて医療費も上がる結果であった。このような疾患では、より高額な医療費を要する傾向があると考えられる。

一方で、同じ疾患名でも個人によって医療費の差が非常に大きい結果であった。これらのことから疾患名を指定して、キャリアオーバー患者全てへの一律の医療費助成を行う制度の必要性は必ずしも高くないと考えられた。

一方で、年額20万円以上など医療費自己負担が高額になる患者も一定の割合でみられた。特に、医療費自己負担が年額20万円以上で、等価所得が年額150～250万円の患者では経済的に苦しいとの回答が84.2%に達した。所得がこの金額の者は、現行の高額療養費制度での低所得者には含まれず、若干それよりも所得が高いことになる。後述するように高額療養費制度の改善方向として、一般所得者のうちの比較的所得者の基準額を下げることや年間上限額設定の検討がなされたことは評価できる。

(2) キャリアオーバー患者数の推計

全国のキャリアオーバー患者数は、アンケート調査に基づく推計では12,500人(6,300～47,500人)となった。また、小慢受給者の年齢階級別人数から外挿した20～39歳での推計では49,000人、及び11,000人となった。その他、患者調査に基づいた20～39歳の推計では76,000人という推計値が得られた。これらの各種推計結果は、小慢受給者の登録管理データによる18歳や19歳の患者数を20倍した数字と概ね整合した結果が得られている。しかしながら、推計方法によってかなり幅のある種々の

値が算定されており、その精度には限界がある。

(3) 高額療養費制度等の充実・啓発

現在、医療費の自己負担額が高額になった患者に対して、傷病の種類によらずに利用することができる高額療養費制度がある。現在のこの制度では一般の場合に医療費の自己負担限度額（1か月あたり）について80,100円＋（総医療費－267,000円）×1%になるように設定されている。また、低所得者（住民税非課税者）については、自己負担限度額が35,400円に設定されている。さらに、同一月内に同一世帯で自己負担が高額になる人が複数あるときは合算できる制度（世帯合算）や、同一世帯で1年間に3回以上の高額療養費の支給を受けている場合は、4回目からの自己負担限度額が軽減される制度（多数該当）、世帯内の同一の医療保険の加入者について医療保険と介護保険の自己負担の合計が年単位で高額になった場合の支給制度（高額介護合算療養費）なども整備されている。また、平成19年度より高額療養費の現物給付化がされている。それまでの制度では自己負担額を一旦支払ってから申請により償還払いを受ける方式であったが、この制度により、あらかじめ保険者に申請し、高額療養費限度額適用認定証（限度額認定証）の交付を受けておけば、それを医療機関に提示することにより高額療養費の自己負担限度額を超えた分は窓口で支払わずに済むようになった。ただし、一部の健康保健組合では限度額認定証の発行をまだ制度化していないところもある。

今回のアンケート調査、特に自由記載において、高額療養費制度を十分に活用していないと考えられる回答も一部に見られた。まずは、高額療養費制度、また限度額認定証の制度等を始めとして、現行の保健医療福祉制度についてキャリアオーバー患者を診療する医師や、また患者に周知することが重要であると考えられる。

特に、20歳が近くなり、小慢の最後の更新申請時等において、リーフレット類を保健所から渡すなどのことも有効であろう。

また今回の調査において、年額医療費が20万円以上で、年額所得が150～250万円の患者において、経済的に苦しいとの回答が特に多い結果であった。高額療養費制度改善方向として、一般所得者のうちの比較的所得者の基準額を下げることや年間上限額設定の検討がなされたことは評価できる。

(4) 仕事に関する支援

今回のアンケート調査において、ストレスや悩みの原因として、「自分の仕事」との回答が最も多い結果であった。現在、5割以上の患者は仕事に就いているものの、仕事をしていない人のうち1割は「求職活動をしたが、就職できない」と回答していた。自由記載では、就職の面談において、疾病のことを話したところ採用に至らなかったとの声も聞かれた。一方で、求職活動支援制度を活用したのは20歳代の患者のみであり30歳以上での利用はなかった。まずは、就職支援の拡充・普及、また雇用主の理解の向上を図る必要があると考えられる。

一方で、一旦、就職したものの、退職・転職した者も少なからず見られた。継続的な就職に当たり、雇用先に必要であった配慮としては、休暇・短時間勤務、職務内容、医療、職場内における相談支援体制などの意見が多かった。各職場においてこのような配慮がなされるように、事業場への啓発や、またそのような配慮が促進されるような仕組みづくりが重要であると考えられる。

E. 結論

キャリアオーバー患者の医療費自己負担（年額）は、中央値が3万6千円であったが、20万円以上の患者が9.5%に見られた。また医療

費自己負担が年額 20 万円以上で、等価所得が年額 150～250 万円の患者では経済的に苦しいとの回答が 84.2%に達した。キャリアオーバー患者のストレスや悩みの原因として自分の仕事に関するものが 47.5%と最も多かった。また、退職・転職した患者において、雇用先に必要であった配慮として、休暇・短時間勤務、職務内容、医療、職場内における相談支援体制などの意見が多かった。以上の結果から、疾患名を指定してキャリアオーバー患者全てへの一律の医療費助成を行う制度の必要性は必ずしも高くないが、高額療養費制度等の充実・制度の啓発、また就職及びその後の職場での支援の強化が重要であると考えられた。

本研究による成果は、行政、診療担当医師、患者等の中で実態を共有し、保健医療福祉施策の検討等に資するため、ホームページ

(<http://carry.umin.jp>)、学会発表等により公表している。

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

尾島俊之、野田龍也、徳本史郎、谷原真一、西連地利己、上原里程、山縣然太郎. 小児慢性特定疾患キャリアオーバー患者数の検討. 日本公衆衛生雑誌 2011; 58(10 特別附録):359. (第70回日本公衆衛生学会総会, 秋田, 2011年10月19～21日.)

H. 知的財産の出願・登録状況

該当なし