

令和 2 年 5 月 15 日現在

機関番号：14101

研究種目：挑戦的研究（萌芽）

研究期間：2017～2019

課題番号：17K19807

研究課題名（和文）小児がん経験者に対する健康管理支援ツールの開発

研究課題名（英文）Development of digital tools to support health management of childhood cancer survivors

研究代表者

堀 浩樹（Hori, Hiroki）

三重大学・医学系研究科・教授

研究者番号：40252366

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 3,700,000円

研究成果の概要（和文）：小児がん経験者の長期フォローアップの課題を抽出し、改善策を提案する目的で研究を実施した。小児がん経験者の病識・健康管理意識を高めるために必要な病名告知の実施率は過去20年間で増加していたが、小学生以下では低い実施率が続いていた。子どもの病名告知への希望は強いが、親の意識との差が顕著であり、社会意識の向上が課題と考えられた。小児がん診療施設では、年間約300名程度の経験者対象の専門外来を開設しており、成人診療科へ移行、経験者への情報提供を課題として捉えていた。小児がん経験者の嗜好にあった教育ツールとして開発したゲームを用いた教育プログラムは、経験者の健康管理意識向上と知識獲得に有効であった。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本研究では、日本における子どもを対象にしたがん告知について、その実施率と社会意識の歴史的変遷を明らかにすることで、小児がん患児の診療と長期フォローアップにおける課題を抽出し、解決策を提言した。特に、本邦も批准している子どもの権利条約に基づく子どもの権利の尊重に関する課題を明らかにし、改善に向けての方向性を提示した。さらに、新しい患者教育の方策として、教育用ゲームツールを開発し、その有効性の確認と今後の活用方法の提言を行った。この研究成果を用いて、小児がん経験者への患者教育の充実を図ることができると考える。

研究成果の概要（英文）：This study revealed the challenging tasks in long-term follow-up for childhood cancer survivors and proposed the remedial measures. The practice of cancer disclosure to children steadily increased for the last 20 years in Japanese institutions, but the performing rate for younger children remained low. The gap on hope for truth-telling between parents and children was not changed for 20 years. Cancer education for the society should be enhanced to improve this situation. The major pediatric cancer centers in Japan take care of approximately 300 patients per year averagely and regard the transition to adult clinics and information provision as issues to be work on. This study also produce a novel educational program for the patients using game tools. The program was proved to be effective for increases in their health management awareness and knowledges on late effects.

研究分野：小児科学、血液腫瘍学、医学教育学

キーワード：小児がん がん告知 小児がん経験者 晩期合併症 長期フォローアップ 健康管理意識 患者教育 教育用ゲーム

科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。

## 様式 C-19、F-19-1、Z-19（共通）

### 1. 研究開始当初の背景

小児がんに対する治療成績の向上に伴い、小児がん経験者の晩期合併症が注目されている。晩期合併症には、疾患・治療特異的な合併症とともに、生活習慣が大きく関与する生活習慣病への早期罹患、長期の入院、社会生活や就学の制限、後遺障害による社会参加能力の低下に起因する心理社会的健康課題が含まれる。このような晩期合併症の対策として、小児がん経験者を対象にした長期フォローアップ体制の充実による晩期合併症の予防、早期発見と早期介入が必要である。一方、これまでの我が国の小児がん診療においては患児に対して積極的な病気の説明が実施されておらず、また、乳幼児や10歳以前の学童では病気の理解ができなかったり、正確な理解の持続が難しいことがあり、自身の病名や晩期合併症リスクに対する認識を持たずに成人する場合が多くみられる。そのような例では、小児慢性特定疾患治療研究事業による医療費補助期間の終了とともに長期フォローアップから離脱することが多い。特に、無症状期間を経てから発症する晩期合併症（二次がんなど）、成人期以降に判明する晩期合併症（妊孕性低下など）に対する理解が不十分である場合、長期フォローアップの過程で受診を中断することがある。さらには、思春期患者、思春期に入った小児がん経験者では、医療機関受診へのアドヒアランス低下の課題があることが知られている。

国が推進するがん対策推進基本計画においても小児がんと思春期・若年成人世代（AYA）のがんが、重点課題として取り上げられ、成人専門診療科との連携、就労支援、生殖医療など長期的なケアの充実が図られている。

小児がん経験者の晩期合併症対策として、小児がん／AYA 世代がん患者とその経験者に対する支援体制の整備とともに、臨床現場におけるがん患者の病気の理解や健康管理能力の向上に向けての取り組みが求められる状況がある。

### 2. 研究の目的

本研究では、小児がん経験者が、晩期合併症の発病と進行を抑制することで、長期的な心身の健康を維持し、社会参加することを促進するため、小児がん患者の病気の理解と健康管理意識に関する課題を検討し、望ましい患者ケア、患者支援の方策の提案を目指した。

具体的には、本邦での小児がん診療におけるがん告知の歴史的变化と現状を明らかにし、抽出された課題の解決方法を提案することを一つの目的に掲げた。また、本邦における長期フォローアップ外来の開設状況と診療の実際を調査し、長期フォローアップ外来におけるがん告知と健康管理支援の現状を把握することを第二の目的とした。さらには、患者の病気の理解と健康管理意識の向上を目的とする教育プログラムの開発とその有効性評価を行うことを三つ目の研究目的とした。

### 3. 研究の方法

本研究では、以下の3つの研究を実施した。

- (1) 本邦における小児がん患児に対するがん告知の歴史的变化と現状を評価するため、小児がん診療医、小中学校に在籍する児童生徒とその親に対する質問紙調査を実施し、過去20年間に2回実施した同様の調査結果との比較検討を行った。さらに、長期フォローアップ外来での病気の説明の状況について調査した。
- (2) 長期フォローアップ外来を開設している全国11の病院（小児がん拠点病院と日本小児がん研究グループ長期フォローアップ委員所属施設から地域性を考慮して抽出）の長期フォローアップ担当者を対象に半構造化面接を実施し、長期フォローアップ外来の現状と課題を評価した。
- (3) はこだて未来大学システム情報科学部と日本小児がん研究グループ長期フォローアップ委員会とが協力して、小児がん経験者における晩期合併症の理解を促進し、その予防と軽減のための健康管理意識の向上を目的とする教育用ゲームツールの開発に取り組み、開発したゲームツールを用いた教育プログラムの有効性評価を行った。

### 4. 研究成果

（研究1）日本における過去20年間における小児がん患児に対する病名告知の実践と小児がんに対する社会意識の変化

まず、日本小児白血病研究会（JACLS）に所属する病院小児科における小児がん診療の実務責任者を対象に質問紙調査を実施した。調査（三重大学倫理委員会承認番号U2018-014）は、2018年に実施し、1998年と2008年の調査結果と比較した。それぞれの調査での対象数と回答率は、1998年43施設（81.1%）、2008年76施設（72.4%）、2018年55施設（91.7%）であった。病名告知に対する基本方針は大きく変化し、「積極的に実施している」と回答した施設割合は、1998年9.3%から2018年60.0%に増加していた（図1）。小学校低学年児童、高学年児童、中学校生徒に区分した実際の病名告知実施率は、年代とともに増加していた。2018年調査で過去一年間の各年齢層に対する実施率が80%以上であると回答した施設は、小学校低学年では36.4%、小学校高学年で56.4%、中学生では81.5%であった（図2）。2018年調査でも、低年齢の患児に対する実施率が低いことが明らかになった。発病時、年少であった小児がん経験者への病名告知については、2018年調査では、「理解可能な年齢の実施」が72.7%、「高校卒業以降に実施」が14.5%であった。また、小児がん経験者への継続的な説明と理解の確認についての質問では、52.7%が「積極的に実施」、45.5%が「希望がある場合に実施」と回答した。また、長期フォローアップでの説明では、96.4%が「晩期合併症についての説明」を実施し、85.5%が「健康管理の大切さ」を、92.7%が「長期フォローの必要性」を伝えていた。

次に、小児がんについての社会意識の変化を調査する目的で小中学校に在籍する児童生徒とその親を対象にした質問紙調査を実施した。調査（三重大学倫理委員会承認番号 U2018-014）は、2018年に実施し、1998年と2008年の調査結果と比較した。それぞれの調査での対象数と回答率は、1998年調査では、子ども548(68.4%)、親548(68.4%)、2008年調査では、子ども438(63.9%)、親443(64.7%)、2018年調査では、子ども320(44.7%)、親322(44.7%)であった。まず、子どもにがんに対する認識について尋ねたところ、「子どもでも罹る」、「治る病気」と答えた割合は調査実施年とともに増加し、2018年調査では、それぞれの回答割合は、89.5%、66.0%であった(図3A)。また、「予防できる」と回答した子どもも増加していた(2018年調査、42.0%)。これは、学校での成人がんについてのがん教育の成果と推測される。親では、「不治」の回答割合が減少し、「治癒可能」の割合が増加していた。「治癒可能」「難治」「不治」と回答した親の割合はそれぞれ18.9%、70.8%、10.4%であった(図3B)。また、子どもが病気に関する知識を得る情報源として、テレビ、親、本の順に多く、インターネットとする回答が急速に増加していた(2018年調査、47.8%)(図4)。病名告知に対する親の考えは、「条件により実施すべき」とする回答が増加していたが、「積極的に実施すべき」は、過去20年間でほとんど変化はなかった。(図5)。子どもに対する「がんにかかったときに病名を知りたいか」という質問と親への「子どもががんになったときに病名を伝えるか」という質問への回答は、子どもと親の思いに乖離が見られた(図6)。2018年調査で、「がんであっても病名を知りたい」とする子どもは78.9%である一方、「がんの場合、病名は伝えない」とする親は、53.7%であった。この子どもと親の思いの乖離は、1998年、2008年調査と同様であった。

以上の結果から、小児がん診療医の病名告知の意識は向上しているが、その実施は患児の年齢に大きく依存していることがわかった。さらに親の病名告知に対する意識の変化は乏しく、親の同意が実施率停滞の背景にあると推測された。社会へのがん教育の一層の強化が必要と思われた。また、子どものがんの病名告知に対する希望は強く、診療現場での子どもの権利(知る権利・参加する権利)の尊重に基づく診療実践の変革が必要である。

(研究2) 小児がん経験者に対する長期フォローアップを積極的に実施している施設における長期フォローアップ外来の開設状況と病名告知・健康管理指導の実践

全国の11施設の長期フォローアップ担当者を対象にインタビュー調査を実施した。開設頻度は、月1-8回で中央値は4回、1年間のおおよその受診者数は、50-1000名で中央値289名であった。担当医師数は、1-7名、中央値3名で、看護師、臨床心理士、チャイルド・ライフ・スペシャリスト、医療ソーシャルワーカーなどが医師とともに参加していた。インタビューの内容については、テキストマイニングソフトを用いて単語頻度解析・注目語情報による解析を行った。図7に「治療」「晚期合併症」を注目語とする解析結果を例示する。頻出単語として、「移行」「紹介」「内科医」「専門家」など成人専門診療科への移行に関連する単語、「告知がない」「資料」など情報に関する単語が抽出された。

(研究3) 小児がん経験者の健康管理意識の向上のためのゲームツールを用いた教育プログラムの有効性評価

はこだて未来大学システム情報科学部の教員と学生の協力を得て、小児がん診療の専門家の監修の下、10歳以上の児童生徒と思春期・若年成人(AYA)を対象にする2種類の教育用ゲームを開発した。学童用は、FUN QUESTと名付けたロールプレイゲーム、AYA対象は、START LINE plusと名付けたノベルゲームで、ともに診断や治療などの個々の診療情報を入力することで、プレイヤー(小児がん経験者)が主人公になった物語が展開し、その過程で注意すべき晚期合併症や生活上の注意を学習するというものである。本研究では、これらのゲームツールを利用した患者教育プログラムの有効性を評価した(三重大学医学部附属病院倫理委員会承認番号No.1533)。対象者は、三重大学医学部附属病院小児科長期フォローアップ外来を受診した小児がん経験者で、83名(児童生徒25、AYA58)が同意し、介入前評価を行った。その後、63名(児童生徒21、AYA42)が1か月間の介入(自宅でゲームの使用)と1か月後の評価を終了し、さらに6か月評価、12か月後評価にそれぞれ56名(学童18、AYA38)、49名(児童生徒18、AYA31)が継続して参加した。介入前後の評価は、表1に示す健康管理能力尺度、自己肯定意識尺度、教育内容に関する知識試験を用いて行った。

表1. 使用した評価方法

	FUN QUEST 対象者	START LINE plus 対象者
健康管理能力尺度	学校生活スキル尺度(小学生版)	Perceived health competence scale 日本語版
	学校生活スキル尺度(中学生版)	
自己肯定感尺度	Perceived competence scale for children 日本語版	ローゼンバーグ自己肯定意識尺度
知識評価	研究者作成の知識試験	研究者作成の知識試験

いずれの年代においても健康管理意識と獲得した知識は、介入前と比較し、介入後1、6、12か

月で有意に増加していた。自己肯定意識は、介入後1か月では有意に増加したが、6か月後には介入前に比較し有意な増加はなかった。また、効果の持続については、学童では、健康管理意識と獲得した知識は12か月間良好に維持されたが、AYAでは時間とともに減少した(図8)。以上の結果より、児童生徒やAYAの嗜好にマッチしたゲームを利用する教育プログラムは有効であると結論付けたが、一度のみの介入ではなく、教育の継続が必要であると思われた。また、今後、医療者による患者教育を補完する教材としての活用も期待される。

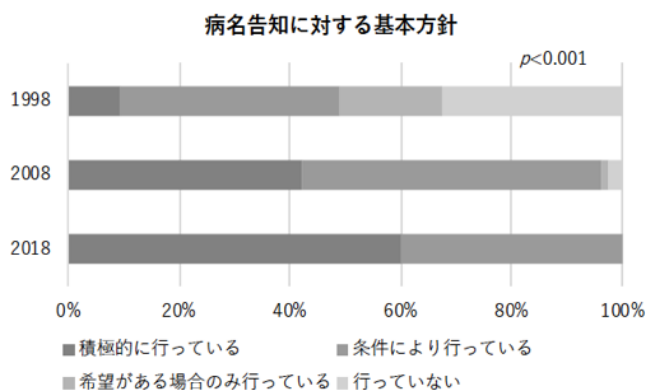


図1. 日本小児白血病研究会参加施設実務担当者の病名告知に対する考えの変化

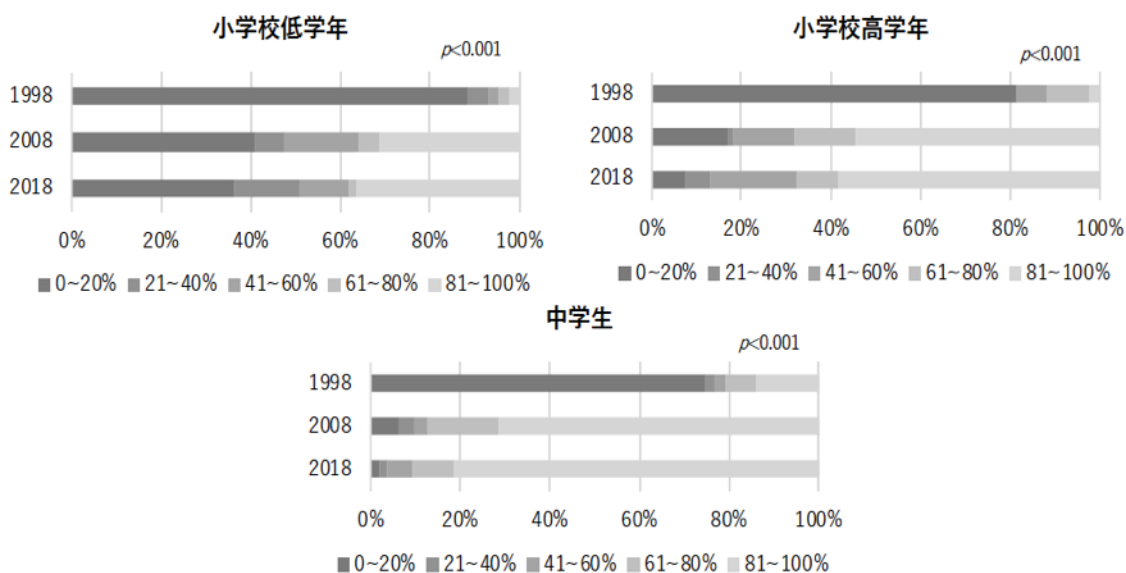


図2. 日本小児白血病研究会参加施設での病名告知実施率の変遷

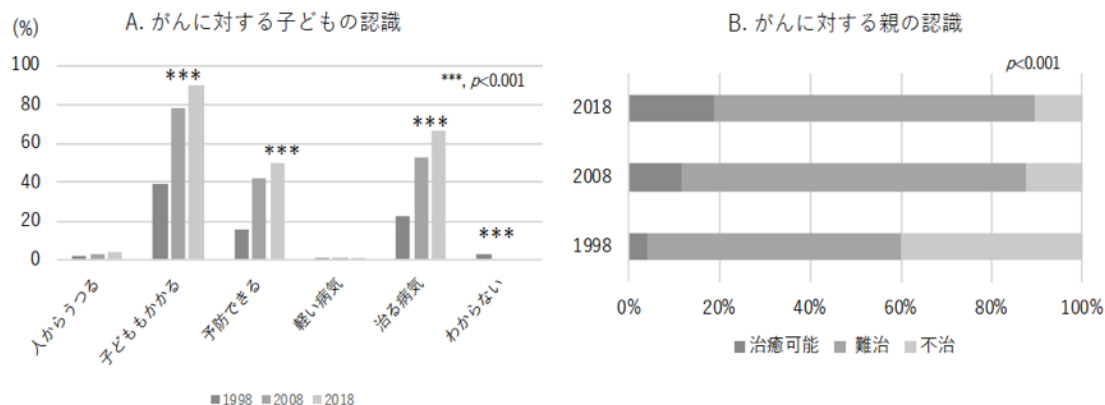


図3. 子どもと親のがんに対する認識

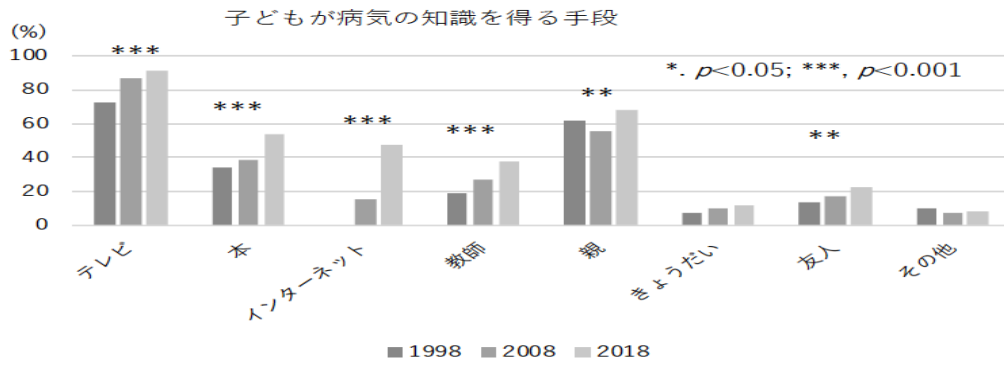


図 4. 子どもが病気の知識を得る手段の変遷

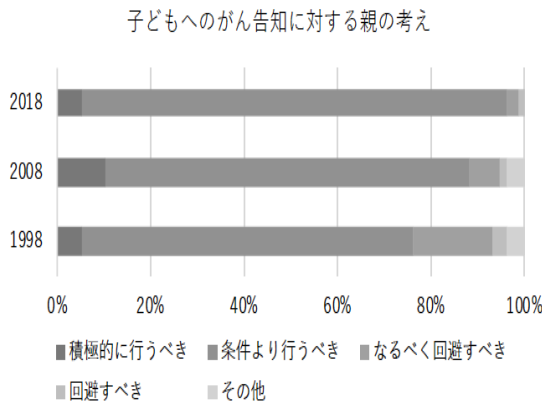


図 5. 子どもへのがん告知に対する親の考えの変遷

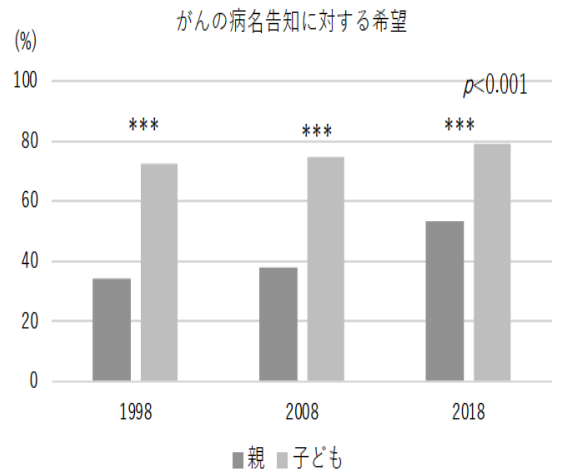


図 6. 子どもががんに罹患したとき、知りたいと考える子どもと伝えると考える親の割合

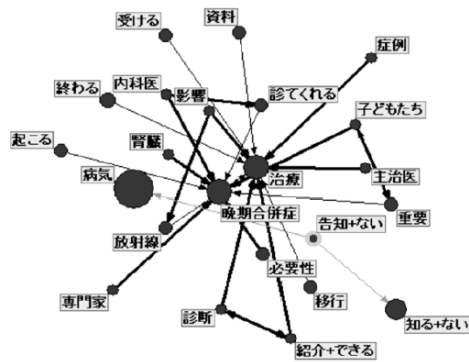


図 7. 長期フォローアップ担当者へのインタビュー内容のテキストマイニング解析結果の一例

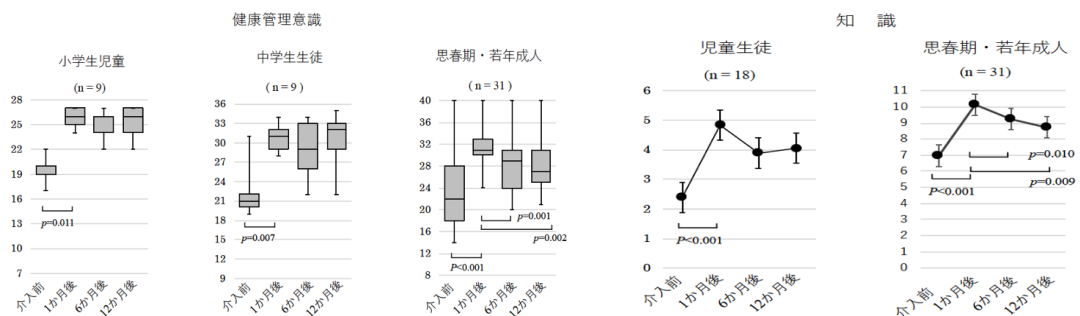


図 8. ゲームツールを利用した教育プログラムの効果 - 健康管理意識と知識の変化

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計4件（うち査読付論文 4件／うち国際共著 0件／うちオープンアクセス 0件）

〔学会発表〕 計5件（うち招待講演 1件／うち国際学会 2件）

1. 発表者名 Hiroki Hori, Yukiko Tsunematsu.
2. 発表標題 Changes in the practice of truth-telling to cancer children and the social awareness in Japan over the last 20 years.
3. 学会等名 第50回国際小児がん学会（50th SIOP）（招待講演）（国際学会）
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 Daisuke Masumoto, Misako Nambu, Etsuko Yamaguchi, Miho Maeda, Kentaro Kihira, Takao Deguchi, Hiroki Hori.
2. 発表標題 Development of computer-based self-learning tools for childhood cancer survivors.
3. 学会等名 第50回国際小児がん学会（50th SIOP）（国際学会）
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 松井帆波, 矢野加那子, 太田あす香, 舛本大輔, 富中美幸, 奥村陽介, 岡村 聡, 栗原康輔, 堀 浩樹.
2. 発表標題 小児がん患児への病名告知に対する子どもと親との認識の隔たり；過去 20年間の変化.
3. 学会等名 第123回日本小児科学会学術集会
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 太田あす香, 松井帆波, 矢野加那子, 舛本大輔, 富中美幸, 奥村陽介, 岡村 聡, 栗原康輔, 堀 浩樹.
2. 発表標題 本邦における小児がん患児への病名告知の変化.
3. 学会等名 第123回日本小児科学会学術集会
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 矢野加那子, 松井帆波, 太田あす香, 舩本大輔, 富中美幸, 奥村陽介, 岡村 聡, 栗原康輔, 堀 浩樹.
2. 発表標題 子どもの病気に関する知識と病気の説明に対する希望.
3. 学会等名 第123回日本小児科学会学術集会
4. 発表年 2020年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

本研究課題の主たる成果を2つの英語論文としてまとめており、一つは現在投稿中で、もう一つは2020年5月に投稿を予定している。

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	豊田 秀実  (Toyoda Hidemi)  (60525327)	三重大学・医学系研究科・准教授    (14101)	