

筑波大学

博士（医学）学位論文

障害児の医療利用状況と家族の健康及び

社会生活の実態把握

—障害児と家族のための医療提供体制の充実に向けて—

2015

筑波大学大学院博士課程人間総合科学研究科

山岡 祐衣

# 目次

## 第1章 背景

1. 小児科医療の発展と長期入院児の存在	5
2. 増加する在宅医療へのニーズ	6
3. 変化する障害児の定義と新たなニーズ ～重症心身障害児と超重症児について	8
4. 重症心身障害児・超重症児者を対象に研究する必要性	11
5. 子育て環境の変化と障害児を育てる親の介護負担	13
6. 介護する家族の負担について	15
7. 本研究の構成と目的	16

## 第2章 研究1. 超重症児・準超重症児における医療利用状況の実態把握

1. 背景	19
2. 方法	20
3. 結果	23
4. 考察	32
5. 結語	36

## 第3章 研究2. 超重症児・準超重症児をケアする家族における健康と社会生活との関連について

1. 背景	37
2. 方法	38
3. 結果	41

4. 考察	53
5. 結語	60
第4章 研究3. 障害児の親の精神的健康状態とその関連要因の検討 ～国民生活基礎調査を用いて	
1. 背景	63
2. 方法	65
3. 結果	72
4. 考察	75
5. 結語	80
第5章 考察	91
第6章 結語	103
第7章 謝辞	104
第8章 参考文献	105
第9章 資料	115

# 第1章 背景

## 1. 小児科医療の発展と長期入院児の存在

新生児医療及び産科医療、医療機器や治療技術の発展に伴い、日本は世界一低い新生児死亡率と乳児死亡率を達成している。一世紀の間に、新生児死亡率は80人／出生1000人（1990年）から1.0人（2013年）に、乳児死亡率も153.8人（1990年）から2.1人（2013年）まで改善した<sup>1,2</sup>。死亡率は低出生体重児においても目覚ましく改善しており、例えば、1980年では極低出生体重児（出生体重が1000g以上1500g未満）の20.7%は新生児期に死亡していたが、2000年にはその死亡率は3.8%まで低下し、超低出生体重児（出生体重が1000g未満）においても著明に改善している（500g以上1000g未満で55.3%→15.2%、500g未満で91.2%→62.7%<sup>3</sup>）。

医療技術の発展と共に救命率は改善したが、同時に新生児治療室（Neonatal Intensive Care Unit: NICU）に1年以上入院している長期入院児の存在が社会的に注目を集めるようになった。全国で年間約210例はNICUに長期入院している<sup>4</sup>と報告されており、小児救急領域でも救命救急後に状態は安定したが長期にわたって慢性期病棟に入院し退院できない児の存在が全国には204名いて、特に人工呼吸器を装着している児では退院の見込みが低いことが報告された<sup>5</sup>。以上のように、長期入院児は新生児医療や救急医療の「出口問題」として、その後どこに退院するかが大きな社会問題となるようになった。

## 2. 増加する在宅医療へのニーズ

NICU への長期入院は必ずしも児にとっての生活しやすい環境とは言えず、重症心身障害児施設入所児と比較すると重症心身障害児施設の方が治療よりも療育などの機会があり、障害児にとってより良い関わりができるのではないかとも言われている<sup>6</sup>。NICU に長期入院している児はどこに退院すればよいのだろうか？

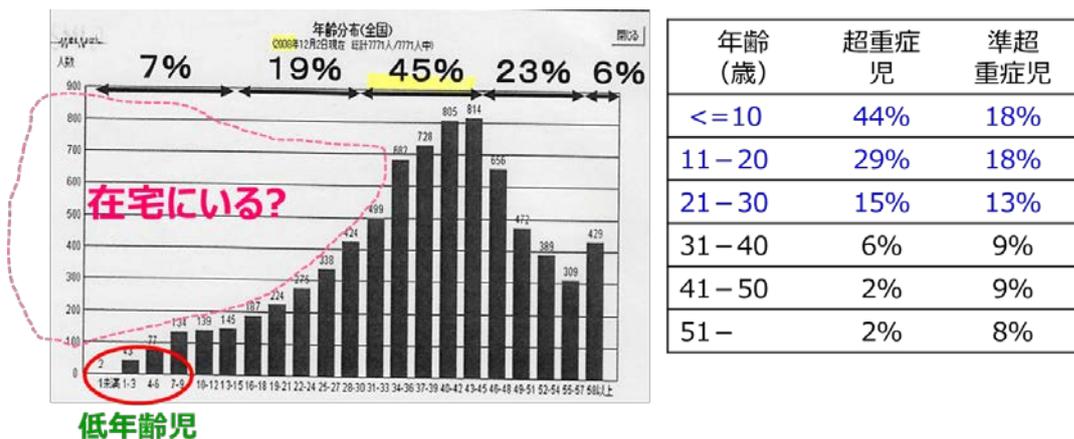
重症心身障害児施設は退院先の一つの可能性である。しかし現在、長期入院児が移行しやすい状況とは言い切れないのが現状である。国内には、公立・法人立の重症障害児施設と、国立（精神・神経センター武蔵病院）・独立行政法人国立病院機構の重症心身障害児（者）病棟を合わせて、193カ所、19010床設置されているが、入所率は96-97%に達している<sup>7</sup>とされている。重症心身障害児の実態を把握し、臨床・研究に寄与するため、国立病院機構病院の重症心身障害児病棟を結んだSMID（重症心身障害児；Severe motor and intellectual disabilities）ネットワーク・システムが構築され、国立精神・神経センターと国立病院機構に入所している約7700人の重症心身障害児・者の情報がSMIDデータベース<sup>8</sup>という形で2000年より集積されている。SMIDデータベースを用いた研究によると、2001年の入所者年齢のピークは33歳であったが2008年には43-45歳にシフトし高年齢化していることや、入所者の64%が21年以上入所しており死亡に至るまで施設で生活していることが多いと言う実態が報告されていた。また高年齢化に加えて、障害の重症化も認めており、2001年の入所者のうち準超重症児（者）は488,710人、超重症児（者）は1,198人であったが、2008年には準超重症児（者）は676,781人（1.39倍）、超重症児（者）は1,457人（1.22倍）にまで増加していた。超重症児・準超重症児の割合は低年齢ほど高く、10歳未満の62%、11-20歳の47%、21-30歳の28%を占めていた<sup>9</sup>（図1）。年少児は障害の重度な人が多いにも関わらず、2008年の時点で15歳以下の入所者全体の7%しかおらず、低年齢の障害児ほど重度な障害でなければ入所が困難な状況があると推察される。入所待機

児・者は全国推計で 3000 人いる<sup>7</sup>とも言われており、重度な医療的ケアを持つ障害児が施設に入所することが困難であり、必然的に在宅に退院した人が増加していると考えられる。

在宅医療のニーズの高まりは、退院した児の医療的ケアが増加し、高度化していることも理由の一つである。例えば、超低出生体重児の3歳時点での在宅酸素療法の利用割合を5年ごとに比較すると、その割合は少しずつ増えてきている（1990年3.6%、1995年3.7%、2000年5.1%<sup>10</sup>）。他にも人工呼吸器を装着して1年未満でNICUを退院する児の数が、2009年出生児は2006年出生児の2倍以上いた<sup>11</sup>という報告もあり、在宅で実施する医療ケアの増加及び高度化によって、より重症な医療的ケアを持つ児や在宅に移行していると考えられ、退院後の生活を長期的に支援していく医療提供体制が必要となってきた。

上記のように、重度な医療的ケアを必要とする障害児を対象とした在宅医療に対するニーズは年々増大している。小児在宅医療にとっては「入口問題」であり、重度化・複雑化した医療的ケアを持ちながら地域で生活する障害児を支援する、さらに介護する家族を支援することができる体制整備が求められてきている。

図1 入所している重症心身障害児・者の年齢分布と重症度

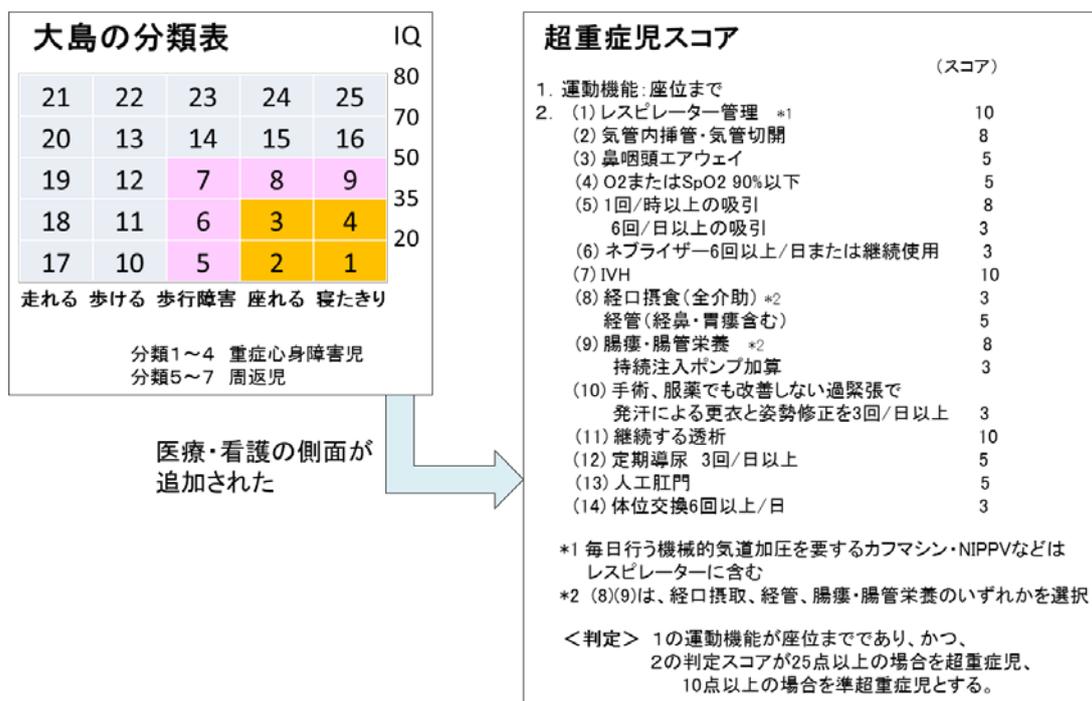


（佐々木 征、2011. 厚生労働省精神・神経疾患研究開発費「重症心身障害児（者）の病因・病態解明、治療・療育、および施設のあり方に関する研究」<sup>9</sup>より引用、筆者加筆）

### 3. 変化する障害児の定義と新たなニーズ ～重症心身障害児と超重症児について

日本では 1960 年代より運動障害と知的障害が重複した児は、重症心身障害児 (Severe Motor and Intellectual Disabilities: SMID) と呼ばれていた。支援の一つとして施設入所があり、その施設入所選定の基準が必要となり、重症心身障害児の定義が生まれるようになった。1967 年児童福祉法の改正に伴い、重症心身障害児の入所対象が「重度の精神薄弱および重度の肢体不自由が重複している児」と定義された (43 条の 4)。さらに、1968 年に大島は重症心身障害児施設の入所対象選定基準として、身体機能と知能指数に基づいて分類する「大島の分類表 (以下、大島分類と称す)」を作成した<sup>12</sup> (図 2)。寝たきり又は座位が出来る児で、知能指数が 35 よりも低い場合、大島分類の 1~4 に当てはまり、これが重症心身障害児 (SMID) の定義として汎用されるようになった。しかしながら、大島分類は身体機能と知能指数に基づいているため、近年の医療技術の発展に伴う医療的ケアの複雑さや重度さを評価することは困難であった。そのため 1995 年鈴木らによって、「超重症児スコア」が作成された<sup>13-15</sup> (図 2)。超重症児スコアは医療・介護の内容を点数化し、25 点以上で超重症児、10 点以上で準超重症児と定義された。超重症児スコアは 1996 年から診療報酬に含まれるようになり、入院時における医療的ケアが複雑かつ重度であるため、「超重症児加算」を算定できるようになった。

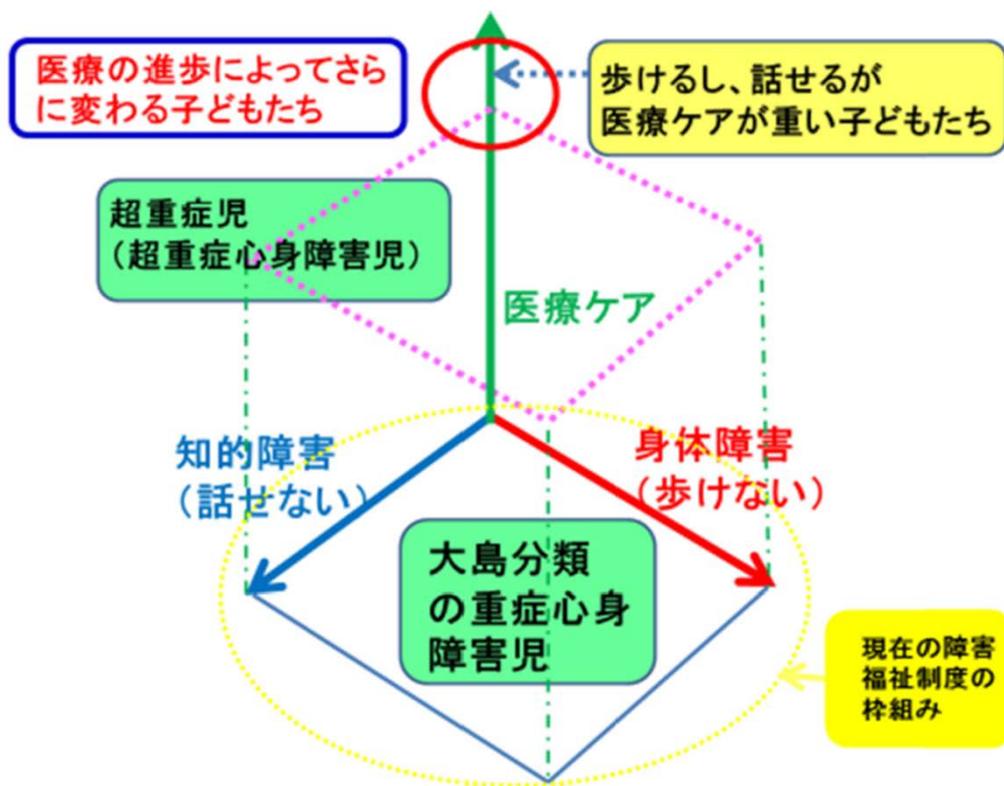
図2 大島の分類表<sup>12</sup>と超重症児スコア<sup>15</sup>の比較



さらに近年の医療技術の発展により、「歩ける」又は「話せる」などの運動機能や知的機能が保たれているために、大島分類で言うところの重症心身障害児の定義には当てはまらないが、医療的ケアは非常に重たい児の存在が指摘されるようになっている。例えば短腸症候群のような中心静脈栄養管理・人工肛門の管理・腸洗浄等を必要とする児や、重度の先天性心疾患術後で気管切開・人工呼吸器・経管栄養はあるが知能指数は高く自分で動くことができる児などの存在である。図3は、前田氏<sup>16</sup>が示した、障害児の変化と福祉制度とのギャップを表現した図である。現状の福祉制度は身体障害と知的障害を尺度とした大島分類を基盤とした重症心身障害児を対象としている。しかし現在の障害児を取り巻く状況は変化しており、医療的ケアが高度化し看護・介護のニーズが高い超重症児の存在が出現し、さらに、医療的ケアは重いが身体障害や知的障害がそこまで重度ではない児の存在も出現するようになった。そのため、現行の制度設計では、医療的ケアの高度な超

重症児や動ける障害児への対応が想定されていないということが指摘されている。このような児に対しても、在宅医療、ケア提供体制を整えていくことが求められているのが現状である。

図3 障害児の変化と福祉制度における新たなニーズ

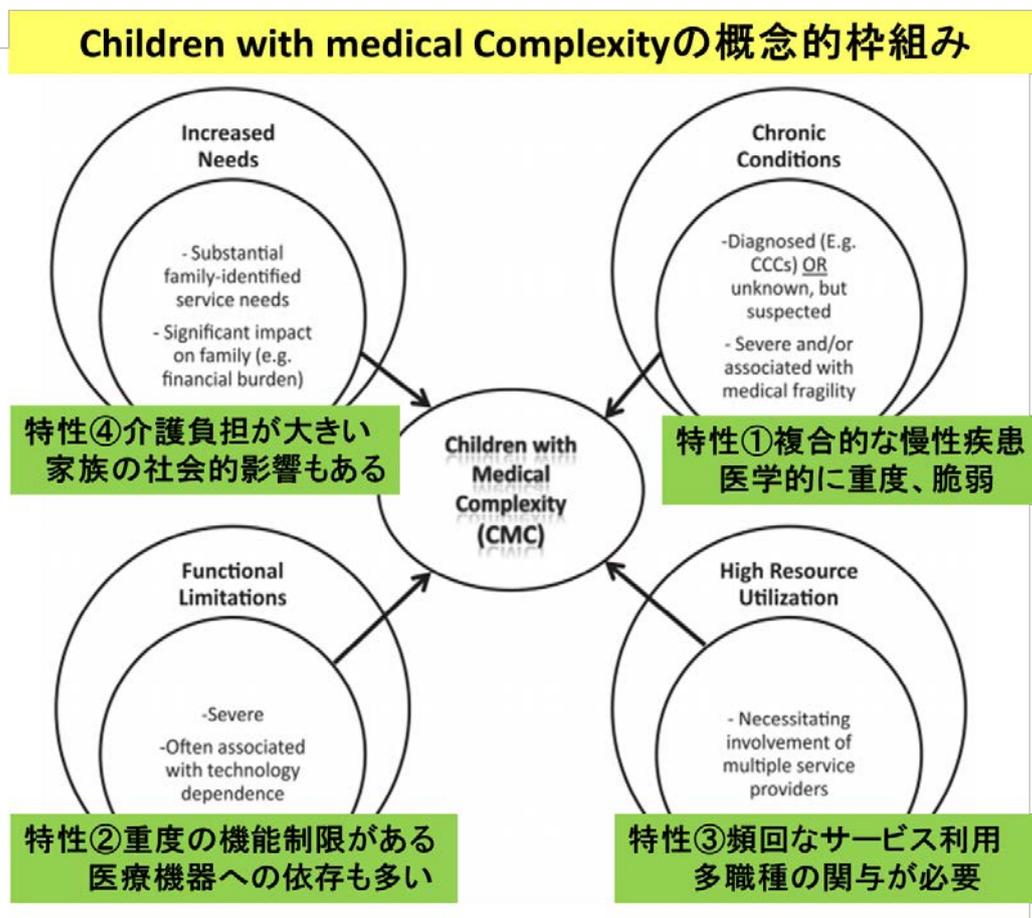


(図は、前田浩利「小児在宅医療の推進に関する研究<sup>16)</sup>」より引用)

#### 4. 重症心身障害児・超重症児者を対象に研究する必要性

海外でも障害児の定義は様々であるが、米国の母子保健局は 1981 年に慢性的な身体的、発達の、心理的にリスクがあり医療的ケアを必要とし、通常の子どもが必要とする量や種類を越えたサービスを必要とする児 (“Children with special health care needs are those who have or are at increased risk for a chronic physical, developmental, behavioral, or emotional condition and who also require health and related services of a type or amount beyond that required by children generally”) を、Children with Special Health Care Needs (CSHCN) と定義した<sup>17</sup>。その CSHCN の中で、最も医学的に不安定で高度な医療的ケアが必要となる児の存在が指摘されるようになり、Children with medical complexity (CMC) と呼ばれるようになった。CMC は図 4 に示した 4 つの特性を持つと定義されている。1) Chronic conditions : 複合的かつ慢性的な疾患を持つ、2) Functional limitations : 機能制限が重度であり、医療機器を要することが多い、3) High Resource Utilization : 医療利用頻度が高い、4) Increased Needs : 医療的ケアのニーズが高く、家族に社会的・経済的な影響をもたらす、とされている。この CMC の概念的枠組みは、高度な医療的ケアが必要であり、医療機器を利用することが多い超重症児・準超重症児に近い特性を持つ障害児であると考えられる。CMC は、CSHCN に対する既存のケアシステムでは家族のニーズに十分に対応しきれていない可能性があり、CMC の人数は少ないが、児自身や家族のウェルビーイング、ヘルスケアシステムに与える影響は大きいため、実態を把握して効果的なヘルスケアシステムについて検討していく必要があると言われており<sup>18</sup>、日本においても超重症児に対する医療提供体制を整備していくためには、超重症児に焦点を当てた実態把握が求められるだろう。

図4 Children with medical complexity (CMC)の概念的枠組み



Cohen E et al, Children with medical complexity: an emerging population for clinical and research initiatives. Pediatrics. 2011 Mar;127(3):529-38. <sup>18</sup>より (日本語訳は筆者加筆)

## 5. 子育て環境の変化と障害児を育てる親の介護負担

このような障害児を支える家族の状況は、どのようになっているだろうか？現在、日本は平均寿命が世界一長く、超高齢化社会と同時に少子化社会を迎えている<sup>19</sup>。65歳以上人口は年少人口（0～14歳）を1997年に上回り<sup>20</sup>、合計特殊出生率は年々減少して2012年には1.41人まで低下した<sup>21</sup>。このような社会の変化と共に、子どもを持つ世帯の割合も全世帯のうちの4分の1以下となった<sup>22</sup>。また、子どもを持つ世帯の約8割が核家族世帯であり、祖父母と同居している三世帯世帯は16%と年々減少している。また6割の母親が就労しており、多くの母親は核家族の中で育児、家事、介護、就労の役割を担っているのが現状である<sup>22</sup>。このような子育て環境の中では、主に母親が障害児のケアにおいて中心的な役割を担うことが多い。特に障害児を育てる場合、子どもが障害を持つということは予期しない、望んだわけではない経験である。母親は希望する・しないに関わらず、主介護者としての役割を引き受けることになり、時にその役割は子どもの一生を通じて続くこともある<sup>23</sup>。

障害児を介護することは、様々な要因が関連しながら保護者のストレスや介護負担に繋がり、介護をしている親自身の健康にも影響を与えていると言われている。Rainaはシステマティックレビューをもとに、図5に示す介護負担感の概念モデルを提唱した<sup>23</sup>。介護の発生する前に家庭環境として社会的経済的な背景要因（socio-economic status）があり、障害児の日常活動動作（Activity Daily Living: ADL）や問題行動など児の特性が介護負担に関連する。ケアの必要性（Caregiving demand）やサービスが家族を中心としたサービスになっているか（Perception of formal care as being family-centered）などが、介護者の自己肯定感などの心理的な面（self-perception）に関連し、ストレス対処方法（Social support, Family function,

Stress management) によって、介護者の健康 (Psychological health, Physical Health) に影響を与える。以上のように、介護者の多面的な要因について評価していくことが必要である。

図5 介護プロセスと介護負担感の概念モデル

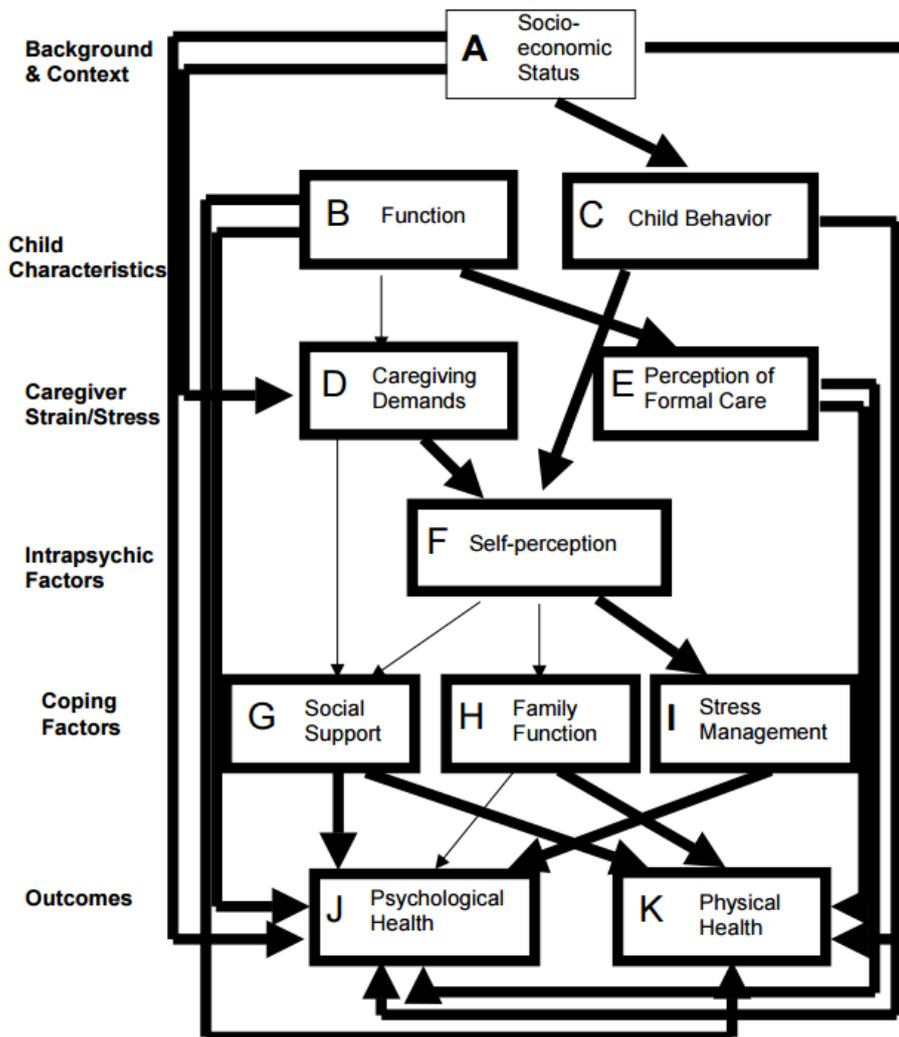


Figure 1  
Conceptual Model of Caregiving Process and Caregiver Burden Among Pediatric Population

(Raina P et al, Caregiving process and caregiver burden: conceptual models to guide research and practice. BMC Pediatr. 2004 Jan 14;4:1. <sup>23</sup>より引用)

## 6. 介護する家族の負担について

介護に伴う時間的な負担と身体的健康への影響についての国内の報告としては、超重症児・準超重症児 230 人を対象とした調査<sup>24</sup>では介護者の睡眠時間は中央値で 5 時間と短く、重症心身障害児 120 人の母親への調査<sup>25</sup>では 53.3%の母親が睡眠時間は 6 時間未満であり、夜間にケアのために起きる回数が 2 回以上の人が 6 割を占めていた。松井ら<sup>26</sup>の報告でも、夜間に人工呼吸管理、口鼻腔吸引、気管内吸引、胃瘻注入などを行っている、介護負担感が高かった。在宅脳性麻痺児の母親（58 名）では抱きかかえの介護や入浴介助と腰痛が有意な関連があり、腰痛が重度な母親は平均 11.4 時間介護に従事していた<sup>27</sup>。人工呼吸器を装着している児の保護者（37 例）を対象とした調査<sup>28</sup>では 79%が療育費の自己負担額が大きく、68%がレスパイト施設の利用が不便であると答えていた。また、療育センターに通園している重症心身障害児の親 202 人への調査<sup>29</sup>では、介護者の約半数が慢性疾患を抱えており、超重症児の在宅生活を継続したい希望はあるが、あと 10-20 年後に限界がくるだろうと回答していた。

介護する保護者の精神的健康に関する報告としては、発達障害児の家族の 3 割が精神的健康度が低い（General Health Questionnaire; GHQ で 8 点以上、神経症が疑われる）<sup>30</sup>ことや、発達障害児の母親を対象にソーシャルサポートと抑うつに関連について検討した調査<sup>31</sup>でも、道具的・情緒的ソーシャルサポートが乏しい母親ほど抑うつ傾向であると報告されている。小児科外来通院をする家族（401 人）への調査<sup>32</sup>では、配偶者や家族の協力が乏しい場合や、月 1 回以上の受診がある場合、精神的健康度が低いと報告されている。斎藤ら<sup>33</sup>の報告では、在宅人工呼吸器療法・在宅酸素療法・在宅腹膜灌流法・在宅中心静脈影響法などを受ける慢性疾患児において、家族の精神的負担、ストレスによる在宅医療を中断した症例や、治療・児の受け入れに対する家族の拒否的な態度による在宅医療施行

が困難な症例が少なからず存在していることを報告していた。家族の社会生活への影響については、江尻・松澤らの報告<sup>34</sup>では、特別支援学校に通学している障害児を養育している母親の就労率は37.2%と低く、育児・ケアと就労との両立は困難であると7割が答えていた。

以上のように、国内での障害児に対する調査では主に介護負担を身体的健康、精神的健康の面から報告していることが多いが、超重症児（CMC）の特性である医療サービス利用が高いことに関連した介護負担の報告は乏しい。また、障害児とその家族を対象にした研究は一施設から複数施設における限られた対象者における報告が多く、全国規模の実態把握は乏しい。前述した介護プロセスと介護負担感のモデルにおいても、自己肯定感やストレス対処など心理的な側面が精神的健康や身体的健康の両者に関係していると指摘されており、障害児をケアする家族の心理面を支援していくことが家族の介護負担感を軽減するために重要であると考えられる。

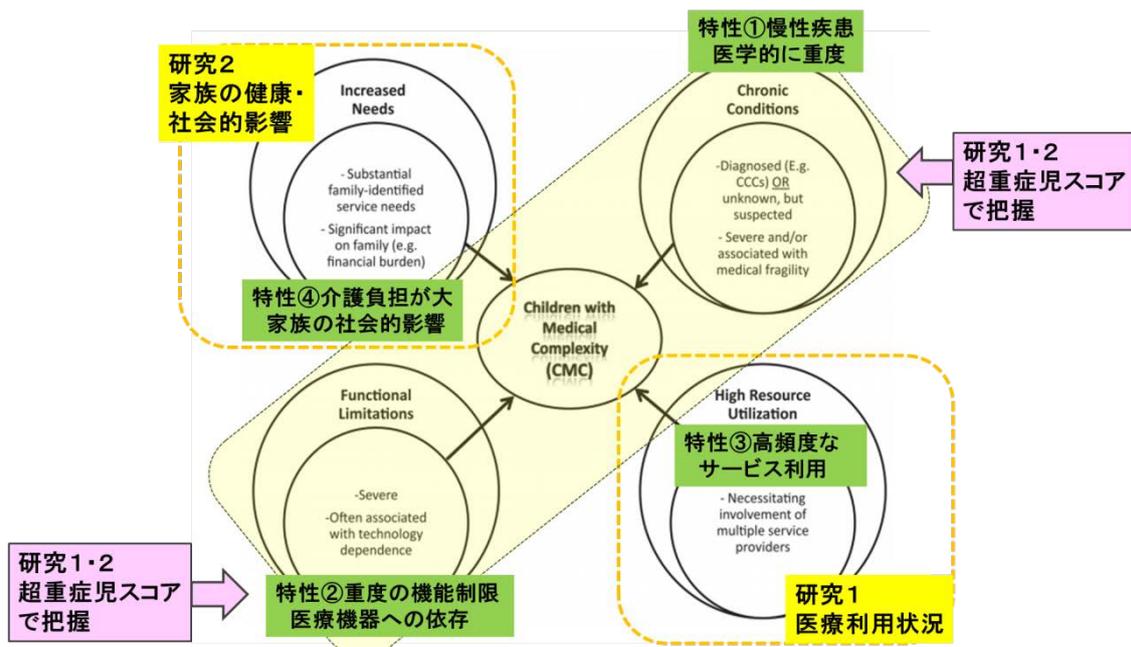
## 7. 本研究の構成と目的

本研究の狙いは、障害をもつ児の健康や生活をより良く継続していけるように医療的提供体制を充実させていくために、現在の医療制度の中で障害児のケアをする家族の介護負担を把握することである。そのため研究1では、障害児の中でも医療的ケアが高度で介護負担が大きい超重症児・準超重症児を対象に、医療利用状況の実態を把握する。研究2では超重症児・準超重症児の医療利用状況を把握した上で、医療利用に伴う家族の健康や社会生活への影響について実態を把握する。

図4を参考して研究1・2の位置づけを示したものが図6である。CMC（研究1・

2で対象とする超重症児・準超重症児と近い概念と考えられる)の4つの特性に当てはめて考えると、研究1・2では超重症児スコアを用いることで障害児の複合的な慢性疾患の状況(呼吸器、消化器など複数臓器に障害を持つ状態)と、医療機器の利用も含めた高度な医療的ケアの状況を把握する。そして研究1では、頻回な医療利用状況について検討し、研究2では高頻度な医療利用状況の障害児を育てている家族の健康や社会生活の実態について調査する。その結果、研究1・2を通して、CMC(≒超重症児・準超重症児)の特性を詳細に把握することができる。研究1・2では超重症児スコアを用いることで丁寧に医学的にも看護的にもケアが重度な障害児である超重症児・準超重症児を抽出し、今まであまり評価されていなかった医療利用状況とその家族の社会生活における介護負担について検討することが新しい試みであり、その結果、既存の大島分類で定義される重症心身障害児ではとらえきれていなかった、より高度な医療的ケアを必要とする障害児が抱える問題点や家族のニーズを明らかにすることが目的である。

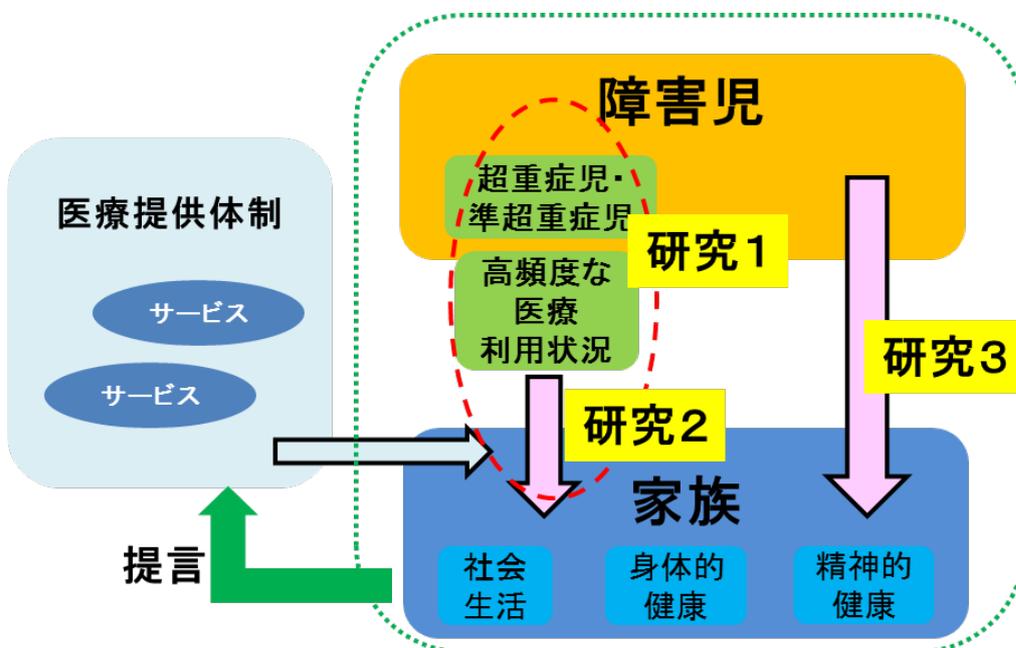
図5 CMCの概念的枠組みに研究1・2における位置づけ



その後、研究3では二次データ（国民生活基礎調査）を用いて、より幅広い定義となる障害児を対象として捉え、保護者の介護負担を表す一つの側面としての精神的健康度に着目し、低い精神的健康度と関連する要因について検討することで、介護する親への支援策について検討する。

研究の全体像を図7に示す。超重症児も含めた障害児をケアする家族の介護負担を軽減するには、医療利用状況への対策や必要なサービスの拡充など医療提供体制の充実が必要と考えられる。研究1～3の結果を踏まえ、障害児及び家族が身体的・精神的・社会的にも健康な状態で在宅療養生活を継続することができるように、医療提供体制の充実に向けた提言を行うことが本研究全体の目的である。

図7 研究全体の構成



## 第2章

### 研究1.

#### 超重症児・準超重症児における医療利用状況の実態把握

##### 1. 背景

医療技術の発展に伴い、多くの子どもが生存することが可能になった一方、その子ども達は高度な医療機器や医療的ケアを要するようになり、「重症心身障害児」という障害児の定義から、「超重症児・準超重症児」という障害児の定義が新たに出現した（第1章参照）。超重症児・準超重症児は、米国・カナダ等で用いられている Children with medical complexity (CMC) という定義に近い存在であり、サービス利用が高く、医療機器に依存している場合も多い。そのような超重症児・準超重症児は、病院を退院した後でさえも、医学的に状態が不安定であるため、病院を中心とした医療利用が高頻度である状況がある。例えばアメリカにおける先行研究<sup>35,36</sup>では、医学的に重症になればなるほど、救急外来の受診回数や入院の回数が増加することが報告されている。しかしながら、日本国内における超重症児・準超重症児を対象とした医療利用状況に関して調査した研究は未だ乏しい。地域で持続的に療養生活を送ることができるよう、医療的ケアが高度な障害児の家族が抱える介護負担を減少するためには、医療利用状況を把握することは重要である。

そのため、本研究では、茨城県における超重症児・準超重症児の医療利用状況、特に病院における外来受診と入院について明らかにすることを目的に実施した。

## 2. 方法

### 1) 研究デザイン

本研究は茨城県内の3病院の診療記録を用いた観察研究である。茨城県は6095平方キロメートルの面積を持ち、人口は296万人である<sup>37,38</sup>。研究対象医療機関である筑波大学附属病院、土浦協同病院、茨城県立こども病院は茨城県内の小児救急中核病院であり、茨城県内の西部、南部、中北部に位置する。3病院とも総合周産期母子医療センターという産婦人科・新生児科の中核病院でもあり、超重症児・準超重症児は新生児医療や救急医療に関連した疾患や外傷で重度な障害を負うことが多いため、研究対象医療機関に適していると考えられる。

### 2) 超重症児スコアについて (表1)

1995年鈴木らによって作成された超重症児スコア<sup>13-15</sup>では、10点以上が準超重症児 (Children with Moderate Medical Complexity; Moderate-CMC)、25点以上が超重症児 (Children with High Medical Complexity; High-CMC) とされている。超重症児スコアは、入院時の重度なケアに対する加算 (超重症児加算) の基準として1996年から診療報酬に含まれている。超重症児スコアの妥当性の検討は科学的な論文として報告はされていないが、診療報酬として認められているため日本全国で幅広く使われている現実的なスコアであり、本研究で用いることとした。

### 3) 対象者の選出

本研究では高度な医療的ケアを必要とする超重症児・準超重症児を対象とする。対象者の定義には、二段階の手順を要した (表1)。第一に、診療報酬を用いて超重症児ス

コアに当てはまる外来診療行為を 2014 年度に実施していたかどうかについて調査した。超重症児スコアに当てはまる診療報酬の項目としては、在宅人工呼吸指導管理料、人工呼吸器加算、在宅気管切開患者指導管理料、人工鼻加算、採択酸素療法指導管理料、酸素ボンベ加算などがあり、この項目に応じて超重症児スコアが 5 点以上になる人を選出した（第一段階）。次に、5 点以上となった障害児の保護者、又は家でのケアについて熟知している主治医に対して、診療報酬に含まれない超重症児スコアの項目（吸引回数や体位交換の回数など）について直接聞き取り調査を行った（第二段階）。二段階の手順を要した理由は、何らかの診療報酬で 5 点以上の医療的ケアがある児で、さらに診療報酬の項目には含まれないが 5 点以上の家での医療的なケアを行っている児を抽出することで、診療報酬だけでは見落としがちな兼ねない介護負担の大きい障害児をも対象にすることができ、より丁寧なスコアリングとなり、詳細な介護負担を評価であると考えた。超重症児スコアが 10 点に満たない児や、そもそも歩くことが出来る児は対象から除外した（超重症児スコアでは、運動機能が座位までであることが前提条件である）。最終的に、10 点以上であった児を対象児とした。

表 1 超重症児スコアと対象者の選定方法

超重症児スコア	スコア	第一段階 (診療報酬)	第二段階 (聞き取り)
1 運動機能：座位まで			✓
2 (1) レスビレーター管理 *1	10	✓	
(2) 気管内挿管・気管切開	8	✓	
(3) 鼻咽頭エアウェイ	5		✓
(4) O2またはSpO2 90%以下	5	✓	
(5) 1回/時以上の吸引	8		✓
6回/日以上以上の吸引	3		✓
(6) ネプライザー6回以上/日または継続使用	3		✓
(7) 中心静脈栄養 (IVH)	10	✓	
(8) 経口摂取 (全介助) *2	3		✓
経管 (経鼻・胃瘻含む)	5	✓	
(9) 腸瘻・腸管栄養 *2	8	✓	
持続注入ポンプ加算	3	✓	
(10) 手術、服薬でも改善しない過緊張で発汗による更衣と姿勢修正を3回/日以上	3		✓
(11) 継続する透析	10	✓	
(12) 定期導尿 3回/日以上	5	✓	
(13) 人工肛門	5		✓
(14) 体位交換6回以上/日	3		✓

\*1 毎日行う機械的気道加圧を要するカフマン・NIPPVなどはレスビレーターを含む

\*2 (8)(9)は、経口摂取、経管、腸瘻・腸管栄養のいずれかを選択

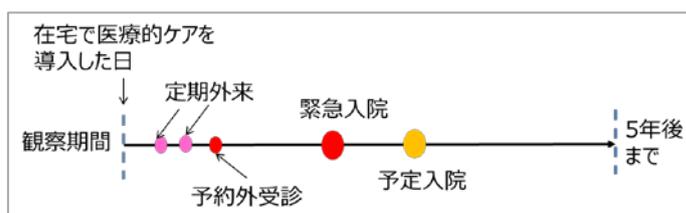
#### 4) 診療記録による情報

診療記録から収集した情報は、子どもに関する情報（年齢、性別、基礎疾患等）、家族の状況（世帯構成、居住地、記載があれば家族が抱える健康問題等）、医療利用状況（外来受診回数、入院回数、内服薬、骨折や褥瘡などの合併症等）である。外来受診回数と入院回数については、表 2 に示した定義をもとに、定期外来受診、予約外外来受診、予定入院、緊急入院に分けてカウントした。本研究では介護負担が最も重たいと予測された介護初期の時期に焦点を当てるため、在宅で医療的ケアが導入された時期からその後 5 年間における医療利用状況について評価することとした（図 1）。

表 2 用語の説明

用語	操作的定義
高度な医療的ケア	医療機器などを必要とするケア（気管切開、経管栄養、等）
在宅で医療的ケアを導入した時期	高度な医療的ケアを有して病院から退院した日 外来で高度な医療的ケアを導入した日
定期外来受診 (Regular visits; RV)	定期的な間隔での外来受診 (例. 30日分の内服薬が処方されている受診、次回予約が入っている受診、等)
予約外の外来受診 (Emergency visits; EV)	不規則な間隔での外来受診 (例. 次回予約よりも早い間隔での受診、時間外の受診、等)
予定入院 (Planned admission; PA)	医療者が事前に入院予約を入れている入院 (例. 検査入院、手術入院、等)
緊急入院 (Emergency admission; EA)	計画的な入院以外の入院 (例. 定期外来または予約外外来、紹介受診等からの緊急入院)
レスパイト入院 (Respite admission; RA)	入院目的に家族の休息が含まれる入院 (定期的に繰り返しているもの、単発のものも含む)
観察期間	在宅で医療的ケアを導入してから最大60ヶ月まで

図 1 医療利用状況の評価方法



### 5) 倫理的配慮

本研究は筑波大学附属病院の倫理委員会 (No.H26-209、2014 年 9 月 30 日)、土浦協同病院 (No.367、2014 年 11 月 20 日)、県立こども病院 (No.26 IRB-19、2015 年 1 月 6 日) に承認を受けて実施した。

## 3. 結果

### 1) 3 病院における超重症児者数

まず診療報酬記録に基づき超重症児スコアで 5 点以上となったのは、筑波大学附属病院で 120 人、土浦協同病院で 61 人、こども病院で 106 人に認められた (図 2)。その後外来で在宅での医療的ケアについても聞き取り調査を実施し、最終的に超重症児スコアが 10 点以上となったのは、大学病院で 45 人、土浦協同病院で 23 人、こども病院で 25 人であった。1 人、大学病院と子ども病院の両方で、別々の在宅での医療的ケアに関連する診療項目を算定されている児がいたが、この児は子ども病院により頻回に受診していたため、子ども病院の 1 人としてカウントした。そのため、最終的な合計人数は 92 人となった (表 3)。本研究での超重症児者のうち 4 割が超重症児、6 割が準超重症児であり、この傾向は 3 病院とも共通であった。女兒が男児より多く認められ、特に土浦協同病院で顕著であった。

図2 対象者選定の流れ

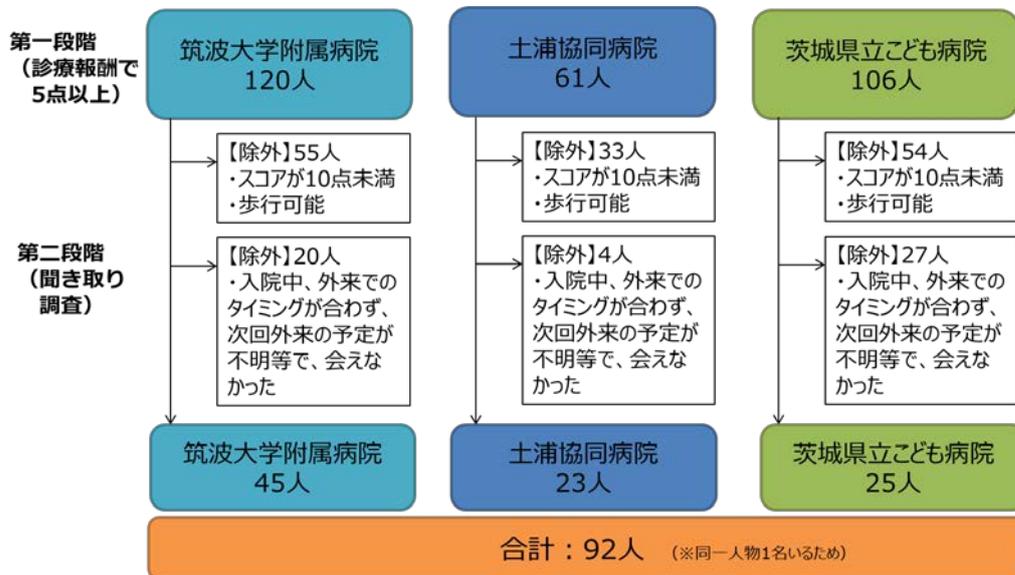


表3 3病院における対象者数と性別

	合計		大学附属病院		土浦協同病院		こども病院	
	n	(%)	n	(%)	n	(%)	n	(%)
25点以上	37	40.2	17	38.6	9	39.1	11	44.0
10~24点	55	59.8	27	61.4	14	60.9	14	56.0
男	40	43.5	23	52.3	6	26.1	11	44.0
女	52	56.5	21	47.7	17	73.9	14	56.0
合計	92	100.0	44	100.0	23	100.0	25	100.0

2) 茨城県の超重症児者数

図3は対象となった超重症児・準超重症児の茨城県内の居住地を示している。図中の人数はその市町村に住む人数を示しており、各重症児の居住地を正確に指している点ではない。この居住地マップによると、つくば市内に9人(9.8%)が居住し、次に多いのは日立市(8人、8.7%)、土浦市(6人、6.5%)であった。大学病院が主に西地区、土浦協同病院が南地区、こども病院が中北部地区をカバーしていることが認められる。



表 4 医療的ケアの実施状況

(複数回答, n=92)		n	(%)
呼吸	人工呼吸器	41	45.2
	気管切開	49	53.8
	エアウェイ	9	9.7
	在宅酸素	32	35.5
	吸引	1時間に1回以上 1日6回以上	33 23
栄養	ネブライザー	1日6回以上または継続	4 4.3
	中心静脈栄養	2	2.2
	経口全介助	4	4.3
	経鼻胃管、胃瘻	72	78.5
	経十二指腸栄養、腸瘻	10	10.8
その他	持続ポンプ	14	15.1
	過緊張による発汗・更衣3回/日以上	11	11.8
	腹膜透析	1	1.1
	導尿1日3回以上	5	5.4
	人工肛門	1	1.1
体位交換	1日6回以上	43	46.2

#### 4) 基礎疾患

多くの超重症児の基礎疾患は、表 5 に示した通り新生児疾患や神経筋疾患（急性脳炎・急性脳症は除く）、先天異常、多発奇形など、生まれた時に始まっているものが多い。医療技術や医療機器の発展に伴い、超低出生体重児（Extremely low birth weight; ELBW、出生体重 1000g 未満）でも生存が可能となっている。本研究では、ELBW の児は 5 人認められている。また、4 人は外因による超重症児となっており、3 人が溺水、1 人が窒息であった。

表 5 基礎疾患

疾患名	n	(%)
神経系疾患	脳奇形・二分脊椎(14)、脳性麻痺・てんかん(13)、低酸素性脳症(3)、脳炎・脳症(7)	37 40.2%
新生児疾患	超低出生体重児(5)、新生児仮死・低酸素性虚血性脳症など(16)	21 22.8%
筋疾患	筋ジストロフィー(6)、脊髄筋萎縮症(4)、先天性ミオパチー(2)	12 13.0%
染色体異常	13トリソミー(1)、18トリソミー(2)、21トリソミー(1)、その他(4)	8 8.7%
多発奇形	Joubert症候群、先天性四肢短縮症など	8 8.7%
その他	色素性幹皮症(1)、ミトコンドリア異常症(1)	2 2.2%
外因	溺水(3)、窒息(1)	4 4.3%
	92	100.0%

### 5) 観察期間と医療的ケア導入時の年齢

本研究ではなんらかの医療的ケアを在宅で開始してから最大5年間（60ヶ月）の医療利用状況について後方視的に記述した。観察期間は児の導入時期に応じてそれぞれ違うが、約半数の障害児で最大60ヶ月観察することができた（図4）。観察期間の中央値は50ヶ月であり、四分位範囲（IQR）は28-60ヶ月であった。図5は在宅における医療的ケアの導入した西暦とその時の児の年齢を示したものである。超重症児の数は年々増加しており、7割の児が2歳未満で在宅での医療的ケアを導入していた。特に2歳未満児における超重症児の増加が顕著である。

図4 観察期間

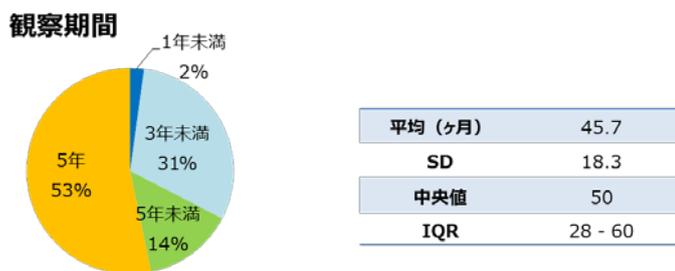
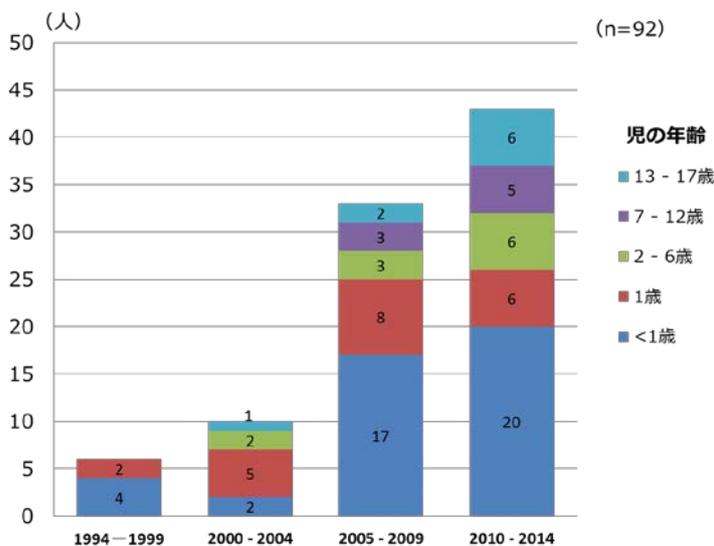


図5 在宅で医療的ケアを導入した年と、その時の児の年齢



## 6) 医療利用状況

### ①外来受診

表 6 の外来受診は本研究で着目した医療利用状況のアウトカムの一つである。3 病院のうち、土浦協同病院では人工呼吸器管理の児に対し、小児科医による訪問診療を実施している（6 人）。土浦協同病院の訪問診療は月に 1 回であり、他科受診や検査が必要な場合は病院の外来を受診している。これらの超重症児では外来受診利用の状況が異なると考えられるため、かかりつけの病院からの訪問診療の有無で分けて結果を示すこととした。観察期間（中央値 50 か月）の中で、訪問診療を受けていない超重症児では、定期外来受診を各々の観察期間における月あたりの回数に換算すると、中央値で全ての外来受診回数は月 1.6 回（年 18.8 回）で、予約外外来受診は月 0.3 回（年 3.2 回）であった。訪問診療を受けている超重症児では、各々の観察期間における月あたりの回数では、中央値で全外来受診回数は月 1.0 回（年 12.2 回）で、予約外外来受診は月 0.21 回（年 2.5 回）であった。

予約外の外来受診は予期しないものであり、家族にとってストレスが多いものである可能性がある。予約外の外来受診（合計 1261 ケース）の受診理由について調査したものが、表 7 である。多くの受診理由が内因性のものであり、発熱や呼吸器症状、消化器症状等であった（1,152 人、91.4%）。しかしながら、外因性理由による受診も 101 ケース（8.0%）に認められ、例えば経管栄養のトラブルや、呼吸器の不調や気管カニューレのトラブルであった。また災害に関連した緊急受診も認められた（地震、竜巻、停電等）。超重症児は電力を必要とする人工呼吸器や在宅酸素、吸引器などを使用しているため、災害には脆弱であることが伺えた。

表 6 外来受診回数

	かかりつけ病院から 訪問診療なし(n=86) 1)			かかりつけ病院から 訪問診療あり(n=6) 2)		
	延べ回数 (回)	観察期間1年当たりの回数 Median	IQR	延べ回数 (回)	観察期間1年当たりの回数 Median	IQR
定期外来受診	8~176	14.6	11.6 - 19.6	10~48	10.7	7.8 - 13.7
予約外外来受診	0~55	3.2	1.9 - 5.0	1~15	2.5	1.4 - 3.3
<b>定期 + 予約外外来受診</b>	<b>11~221</b>	<b>18.8</b>	<b>13.8 - 23.5</b>	<b>11~58</b>	<b>12.2</b>	<b>10.9 - 16.6</b>

- 1) 訪問診療なし(86人)中、予約外外来受診は、かかりつけ病院に予約外受診をしたことがない2人を除いた84人の値である。
- 2) 訪問診療あり(6人)は土浦協同病院から定期的訪問診療を受けている児であり、定期外来受診回数は、訪問診療の回数と予定の外来受診(検査など)の回数を合わせた値、予約外外来受診回数は、予約外の病院への受診回数である。

表 7 予約外の外来受診の理由

(n=90*)	件数 (n=1261)	%
<b>内因性</b>	1152	91.4%
<b>在宅関連**</b>	101	8.0%
<b>その他***</b>	11	0.9%

- \*他のかかりつけ病院があり、一度も予約外受診をしたことがなかった2人を除いている  
 \*\*胃瘻、経管栄養、気切、呼吸器に関するトラブルでの受診  
 \*\*\*その他の内訳：震災、竜巻による停電(5), 転落(4), 交通事故(1), 打撲(1)

## 7) 医療利用状況

### ②入院回数

表 8 の入院回数は本研究で着目した医療利用状況のアウトカムのもう一つである。3 病院のうち、土浦協同病院では人工呼吸器管理の児に対して定期的なレスパイト入院を実施している（8 人）。定期的レスパイト入院は、家族と医療従事者が事前に計画を立てて実施しており、通常 3 ヶ月に 1 回、約 1 週間以内としている。これらの超重症児は医療利用状況が異なる可能性があるため、レスパイト入院の有無で分けて記述することとした。医療機関への入院は 4 種類あり、かかりつけ病院（自病院）への予定入院（レスパイト入院はここに含まれる）、自病院への緊急入院、他病院への予定入院（リハビリテーション入院や手術入院等）、他病院への緊急入院と分けられる。本研究では診療情報や診療情報提供書などから自病院・他病院への入院回数を算出した。観察期間のうち、レスパイト入院を実施していない超重症児では、中央値で年間 2.0 回の入院（うち 1.2 回は緊急入院）を経験していた。一方、レスパイト入院を実施している超重症児では、中央値で年間 4.4 回（うち 0.97 回は緊急入院）を経験していた。予約外外来受診のうちの緊急入院の割合は、レスパイト入院をしていない超重症児では 43.4%であるが、レスパイト入院を実施している超重症児では 36.0%であった。

表 8 入院回数

	定期的レスパイト入院 なし (n=84) <sup>1)</sup>			定期的レスパイト入院 あり (n=8) <sup>2)</sup>		
	延べ回数 (回)	観察期間1年当たりの回数 Median	IQR	延べ回数 (回)	観察期間1年当たりの回数 Median	IQR
自院への予定入院 (レスパイト入院含む)	0~8	0.40	0 - 0.80	2~18	3.1	1.6 - 4.2
自院への緊急入院	0~26	1.0	0.40 - 1.7	0~10	1.0	0.52 - 1.6
他院への予定入院	0~5	0	0 - 0.20	0~3	0	0 - 0.30
他院への緊急入院	0~7	0	0 - 0.20	0	0	0
<b>全ての入院回数</b>	<b>0~30</b>	<b>2.0</b>	<b>1.4 - 2.8</b>	<b>4~25</b>	<b>4.4</b>	<b>3.3 - 5.2</b>
<b>緊急入院回数</b>	<b>0~26</b>	<b>1.2</b>	<b>0.6 - 1.8</b>	<b>0~10</b>	<b>1.0</b>	<b>0.52 - 1.6</b>
<b>予約外の外来受診のうち、 緊急入院になった割合 (%)</b>	43.4%			36.0%		

1) かかりつけ病院で定期的レスパイト入院を実施していない児を対象とする  
2) 土浦協同病院にて、定期的にレスパイト入院を実施している児を対象とする

## 8) その他の医療状況

### 8-1) 内服薬 (表 9)

超重症児は複合的な医療的ケアと高頻度な医療利用が必要である。加えて、超重症児では内服薬の数も多い。対象者の内服薬数は観察期間開始時に平均 4.2 剤であったが、観察期間終了時には平均 7.2 剤に増加していた。

表 9 内服薬の数

	range	平均 (剤)
観察期間開始時 (n=90)	0~16	4.2
観察期間終了時 (n=89)	0~16	7.2

注) 毎日使用する吸入薬・貼付薬も含む  
下剤、軟膏、点眼は含まない

### 8-2) 侵襲的治療 (表 10)

超重症児は基礎疾患や複雑な医療状況により、様々な侵襲的治療を経験している。対象者のうち、12 人 (13.1%) は誤嚥予防の治療 (喉頭気管分離術等) を実施し、9 人 (9.8%) は筋緊張亢進に伴う側彎や骨折に対する治療 (ボトックス治療、バクロフェン髄腔内投与術等) を実施していた。脳室腹腔内シャント造設は 6 人 (6.5%) に認められた。脳室腹腔内シャントは在宅移行前の入院中に実施される侵襲的な処置ではあるが、退院後の感染予防やシャント不全など合併症に注意して生活すべき処置であるため、同表に記載した。

表 10 侵襲的な治療内容

n=92		人数	(%)
誤嚥予防目的	喉頭気管分離術	11	12.0%
	声門閉鎖術	1	1.1%
筋緊張・痙性の緩和目的	ボトックス	6	6.5%
	バクロフェン髄腔内投与術	3	3.3%
麻痺性股関節脱臼	内転筋切離術、大腿骨減捻内反骨きり術	6	6.5%
側弯症	側弯症手術	1	1.1%
その他の手術	ASD閉鎖術	1	1.1%
	口蓋扁桃摘出術	1	1.1%
水頭症	脳室-腹腔(VP)シャント術*	6	6.5%

### 8-3) 合併症

超重症児は関節の拘縮や筋緊張の亢進、抗痙攣薬の多剤内服、栄養不足などにより骨折をしやすい。本研究では、骨折は全体の 10.9% (10 人) に認められた。褥瘡は寝たきりの患者 (特に高齢者) によく認められる合併症ではあるが、本研究で褥瘡を認めた児は 4 人のみであった。

### 9) 家族の状況

92 人中、4 人の障害児が双子で出生し、超低出生体重児、多発奇形、新生児仮死であった。3 人の障害児は同胞にも障害児が存在していた (筋ジストロフィー、脳性麻痺、二分脊椎)。26 人の児 (28.3%) が一人っ子であり、32 人 (34.8%) は同胞内での年少児であったが、一方 26 人 (28.3%) では年下の同胞が存在していた。観察期間の間に、10 人の家庭で新たに同胞が出生していた。主介護者となることが多い母親では、診療報酬で確認しえた範囲内で、精神疾患や精神的不調を呈していた母親が 7 人 (7.6%) で認められた。

## 4. 考察

国内の研究で把握した限りでは、本研究は超重症児スコアを用いて医療利用状況を調査した初めての研究である。茨城県内の 92 人の超重症児は、9 割近くが経管栄養を要し、約半数で気管切開があり、45%は人工呼吸器を使用していた。これらの超重症児は、最大 60 ヶ月の観察期間の中で、中央値で年間 19 回の外来受診と年間 2 回の入院を要していた。

超重症児の発生率は、0-19 歳人口 1000 人あたり 0.19~0.45 人と報告されている。

この発生率は杉本らの報告<sup>39</sup>に基づいており、小児科学会が主導となって実施された8府県の調査の結果であり、表11に示している。発生率を0.3人/1000人、入院率が平均29%という結果から茨城県の超重症児の数を推計すると163人となり、在宅に116人がいることになる。本研究で対象とした92人は在宅にいる超重症児数(推計)の79.2%を占めており、研究対象機関は3病院だけではあったが比較的高い補足率であると考えられる。茨城県内の小児救急二次医療圏では11の医療機関が存在している<sup>40</sup>が、研究対象となった3病院は小児救急や新生児医療で高度な医療技術を提供しており、茨城県内の超重症児に対する病院ベースの医療サービス(外来・入院)の大半を担っていると推察された。年々医療技術は進歩し、超重症児の数は増加していく可能性があるため、今後さらに全国規模でも超重症児・準超重症児の疫学的調査は必要である。

表11 超重症児数の比較

	宮城県	千葉県	神奈川県	滋賀県	奈良県	大阪府	兵庫県	鳥取県	茨城県(推計)★	茨城県(本調査)
依頼施設数	12	27	48	9	10	60	31	5		3
回答数	12	31	29	9	10	51	31	5		通院患者のみを対象
施設回答率(%)	100%	48%	60%	100%	100%	85%	100%	100%		
超重症児総数(a)	142	99	157	88	65	287	201	54	163	
超重症児	59	33	60	35	23	116	102	16		37
準超重症児	83	66	97	53	42	171	99	38		55
入院・入所中(b)	39	33	46	30	18	76	83	18	47	-
入院率(%)	27%	33%	29%	34%	28%	21%	41%	33%	29%	-
在宅にいる超重症児総数(a-b)	103	66	111	58	47	211	118	36	116	92 (79.3%)
0-19歳人口(2005年)**	464,000	1,133,000	1,667,000	293,000	271,000	1,695,000	1,084,000	119,000	544,118	544,118
超重症児総数(a)発生率/1000	0.31	(0.09)*	(0.09)*	0.3	0.24	0.26	0.19	0.45	0.3	0.17

\* 千葉、神奈川は回収率が悪く発生率は参考値

\*\*0-19歳人口、茨城県は2010年国勢調査より

★8府県の先行研究で提示された超重症児発生率0.3/1000人と、平均入院率29%より、推計した値

--- 点線で囲んだ部分は先行研究より引用(杉本ら、2008年、日本小児科学会雑誌)

また、図5で示した超重症児の数は年々増加しており、特に2歳未満で顕著であった。超重症児スコアの計算は現在の状況(2014年度)に基づいており、対象児が死亡したり、引っ越ししたり、長期施設に入院した場合や、医療の重症度が変化してケアが必要なくなったためにスコアが改善した児は対象に含まれていない可能性がある。しかし、2歳未

満の障害児の数は持続的に増加しており、同様の傾向が先行研究でも認められる。重症心身障害児 (SMID)データベース<sup>8</sup>では73の国立病院機構と1つの国立センターに入所している7000人以上の重症心身症障害児について2000年以降データを収集している。SMIDデータベースを用いた研究によると、2001年に施設に入所していた準超重症児(者)は488,710人、超重症児(者)は1198人であったが、2008年には準超重症児(者)は676,781人、超重症児(者)は1457人まで増加していた。超重症児・準超重症児の割合は低年齢ほど高く、10歳未満の62%、11-20歳の47%、21-30歳の28%を占めており<sup>9</sup>、低年齢層で超重症児・準超重症児は増加してきている。また施設はほぼ満床であり、重症化していても入所できない低年齢の障害児は在宅医療に移行していると考えられ、今後も超重症児への在宅医療ニーズは増加していくと考えられる。

超重症児は医療機器への依存度が高く、内服薬も多く、複数回手術を受けていることや、複数臓器にまたがる慢性疾患を抱えていることなど、医学的に脆弱性を持つ。そのため在宅での療養生活を続けるためには、量的にも質的にも十分な医療的サービスを提供する必要がある。本研究において、訪問診療やレスパイト入院を受けていない超重症児では、家族は毎年19回の外来受診と2回の入院のため児を病院に連れて行かなければならなかった。こども病院の入院では通常家族の付添は不要であるが、他2病院では基本的に入院期間中ずっと家族の付添が求められる。通院も入院も家族にとっては負担になるが、特に予約外の受診や緊急入院は事前に予期しえたものではないため、大きな負担となることが想像される。一方、訪問診療を受けている超重症児では年間の外来受診が13回であるが、そのうち73%は訪問診療であるため、実際に病院に連れてきているのは年間平均3.5回に過ぎない。同時にレスパイト入院も受けているので、年4回病院に入院するが、合わせて合計7.5回病院に連れてくることになり、訪問診療やレスパイト入院を実施していない児の19回に比較するとより少ない回数となる。

レスパイト入院を実施すれば、医療者は超重症児の状態をより詳細に観察するこ

とが出来る。外来では実施が困難な検査や呼吸器の調整なども実施することが出来る。レスパイト入院を実施することは児の状態管理に良い影響を与え、緊急入院を減らすことが出来るのだろうか？緊急入院回数の差は、レスパイト入院の無い児で年間 1.2 回、レスパイト入院実施の児で 0.97 回と非常に小さいものであった。本研究では対象者数は少なく、レスパイト入院の効果を検証することにはいたらなかったため、今後の研究においてより多い人数で詳細に医療利用状況を調査し、医療提供側の負担も考慮した上で、レスパイト入院がどのような影響を児とその家族に与えるのかについて検討していく必要がある。

予約外外来受診と緊急入院の回数について今回調査したが、受診や入院の基準は、児の健康状態だけではなく、病棟のベッドの空き状況、家族の付添の可能性、自宅で経過観察できるかどうか、訪問診療や訪問看護が受けられるかどうかなど、様々な要因が関係し、病院における入院の閾値は異なるため、比較することは難しい。しかしながら、先行研究の報告<sup>41</sup>では、国内の 1024 人の医療利用状況について調査し、アメリカと比較して日本の子どもは 2.5 倍地域のクリニックを受診し、病院の外来を 11 倍受診していると報告していた。医療利用状況は国によって異なるが、超重症児にとっても準超重症児にとっても、外来受診の回数が共に多い状況にあり、家族の介護負担は大きいことが推察される。本研究では訪問診療を受けている児の数は限られていたが、今後の研究では病院主体のサービスと地域主体のサービスの組み合わせがどのように家族の介護負担や外来受診、入院回数を減らすことができるかについて検討していく必要がある。

本研究における限界は、第一に、対象者数が 92 人と限られていることである。2014 年の診療報酬の項目を利用したため、在宅に医療的ケアをもって退院していたとしても、2014 年より前に死亡した例、引っ越した例、施設に入所した例、改善にともない医療的ケアが不要になった例については把握できていない。しかし、3 病院からの対象者選定ではあったものの、県内の超重症児推測数の 79.2%を把握することができたと考えられた。

第二に、医療利用状況に関する情報は 3 病院の診療記録に限られていたことであ

る。診療記録から自病院への外来受診や入院、他病院への入院は把握することができたが、他病院・診療所への受診については把握することは出来ていない。入院回数は他病院への紹介状や診療情報提供書があるため信頼度は高いが、本研究で報告した外来受診回数は最低限の数である。つまり、超重症児とその家族は年間 19 回よりももっと多い回数、医療機関を受診していると推察される。

第三に、外来受診や入院による負担状況は児の基礎疾患や状態によって異なることである。本研究では病院主体の医療サービスの利用状況として外来回数と入院回数を把握したが、例え予定された受診や入院であったとしても、基礎疾患の悪化の程度や病院への通院の距離、疾患に対する家族の受容や考え方などで、受診や入院のストレスや負担感は異なってくるだろう。そのため、医療利用状況は家族の介護負担の 1 つの指標にはなりうるが、その他にも家族の健康状態や社会生活に対する影響に関する調査や医療費の負担など多面的な評価が必要であり、どのようなケア・コーディネーションがその児と家族にとって負担が少ないか、在宅療養生活を継続可能かということを、評価していく必要がある。

## 5. 結論

超重症児は頻回な通院と入院という病院主体の医療サービスに高頻度に利用していた。地域で療養生活を継続していくためには、家族の介護負担を軽減するために、病院主体の医療サービスだけではなく、在宅主体の医療サービスの両者を組み合わせたケア・コーディネーションが必要である。

## 第3章

### 研究2. 超重症児・準超重症児をケアする家族における健康と 社会生活との関連について

#### 1. 背景

生活を送る超重症児の数が増加していることは、医療者にとってだけでなく、家族にとって大きなチャレンジである。超重症児（Children with medical complexity）は複数の複合的な慢性疾患を抱え、医療機器を必要とするような機能制限があり、医療利用頻度は高く、病院主体と地域主体の医療サービスを必要とするという特性を持つ<sup>18,42</sup>。病院を退院後、家族はたいてい主介護者としての役割と、ケア・コーディネーションの主体者としての役割を引き受けることになる。米国における全国障害児調査<sup>43</sup>では、介護者はケア・コーディネーションに週2時間、介護に週11-20時間費やし、介護に関連した経済的問題を56.8%が抱え、仕事を辞めたり（54.1%）、就労時間を制限したり（45.6%）していると報告されている。

日本でも全国在宅障害児・者等実態調査（平成23年生活のしづらさなどに関する調査<sup>44</sup>）は実施されているが、身体障害者手帳や療育手帳の保持者の人数やその疾患についての報告が主であり、生活のしづらさに関連した報告はあるが障害児に特定した結果の記載はなく（65歳未満と65歳以上で報告されている）、さらに介護者の詳細な実態についての報告は含まれていない。国内で実施された障害児の介護者に対する研究では、介護者の健康や介護負担について報告されているが、限られた対象者のみを対象としていることが多い。重症心身障害児、または超重症児を介護するということは、家族にとっては介護時

間が長く<sup>25,27</sup>、睡眠時間は短く<sup>24</sup>、介護者は腰痛などの健康問題を抱え<sup>27,29</sup>、生活の質は同年代よりも低い<sup>45</sup> ことなどが報告されている。しかしながら、家族の経済状況や仕事などの社会生活への影響に関する報告は乏しい。大阪府で実施された51人の超重症児の家族に対する調査<sup>46</sup>では、在宅に医療機器をもって退院したときに3人の父親が仕事を変え、15人の家族が引っ越したり家を改修したりしており、37.3%の家族が介護に伴う経済的負担を感じていた。在宅での療養生活を維持するためには、介護者の身体的精神的な側面だけではなく、社会的な経済的な側面からも、介護に伴う負担を評価していく必要がある。そのため本研究では研究1で調査した超重症者の家族を対象に、介護者の健康及び社会的状況について調査することを目的に実施する。

## 2. 方法

### 1) 研究デザインと対象者

本研究は質問紙を用いた横断研究であり、筑波大学附属病院にて実施した。研究対象者は研究1に参加した筑波大学附属病院に通院する超重症児の家族（n=45）であり、外来にて研究の目的を説明して研究への参加を依頼し同意を得た。質問紙に回答した家族にはお礼としてQUOカード（1000円分）を渡した。家族は外来の待合室で診察を待つ時間の中で質問票に回答するようにお願いした。

### 2) 質問紙の項目

質問紙は、家族の介護状況や負担に関する様々な項目を含み、回答に約30～60分を要した。内容としては、家族に関する項目（世帯構成、家族の年齢、住居の種類）、介護

状況（介護時間、睡眠時間、夜間ケアのために起きる時間、ソーシャルサポート、学校での介護状況）、介護負担（通院に必要な人員、通院に要する時間、通院や入院のために仕事を休んだことがあるかどうか、健康状態、在宅生活への満足度）等である。

通院に関する介護負担に関しては、下記の質問にて尋ねている。「お子さんの外来受診は、誰が連れてきていますか？2人以上で連れてくる場合は、一緒に来る人全員にチェックをつけて下さい」→（回答：父親、母親、兄のきょうだい、祖父、祖母、父母の友人、訪問看護師、訪問介護士、その他）という質問で付添に必要な人数を確認し、外来に要する時間は「病院に到着までにかかる時間」「受付から診察終了までにかかる時間」として質問している。また、「お子さんの体調不良・外来受診・入院によって、父親／母親が普段の仕事を休んだことは、概ね年間何回くらいありましたか？」→（回答：仕事を休むことはなかった、有休／介護休暇を使った、有休／介護休暇は使えなかったが、仕事時間の調整をした、就労していない、から選択して回数を答える、年\_\_\_\_\_回）、という質問で仕事への影響を聞いている。

経済状況に関しては、「お子さんの日常的な医療的ケアにおいて、自己負担額はどれくらいかかりますか？」という質問と、「在宅療養生活を行うために、在宅物品で購入したもの、レンタルしたものはどのようなものがありましたか？また、他に当てはまるものはありますか？→（選択肢）車の改修、車の購入、家の改修、引っ越し」、「現在の暮らしの経済的な状況は、どう感じていますか→（選択肢）大変ゆとりがある、ややゆとりがある、普通、やや苦しい、大変苦しい」という質問で尋ねている。

身体的健康と精神的健康については、健康関連 QOL（Health-related Quality of Life; HRQOL）の尺度である SF-8™（8-Item Short-Form Health Survey）、K6 質問票日本語版（Kessler-6; K6）、及び Zarit 介護負担尺度日本語版の短縮版（Short version of the Japanese version of the Zarit Caregiver Burden Interview; J-ZBI\_8）を用いた。まず、SF-8™ は 8 つの質問項目から構成された尺度として普及しており、日本語に翻訳され妥当性も検証されてい

る<sup>47</sup>。8つの質問項目は過去1ヶ月の健康の異なる側面を測定することができ、身体機能 (Physical Functioning ; PF)、日常役割機能 (身体) (Role Physical; RP)、体の痛み (Bodily Pain; BP)、全体的健康観 (General Health; GH)、活力 (Vitality; VT)、社会生活機能 (Social Functioning; SF)、日常役割機能 (精神) (Role Emotional; RE)、心の健康 (Mental Health; MH) の8項目と、身体的サマリースコア (Physical Component Summary; PCS)、精神的サマリースコア (Mental Component Summary; MCS) が算出される。スコアリングは日本の標準得点から平均50点、標準偏差10点になるように計算されている<sup>47</sup>。より高い得点ほど良い健康状態を反映し、スコアは0~100点の範囲を取る。

次に、介護者の介護者の精神的健康度を評価するために心理的苦痛 (psychological distress) を測定する Kessler 6 (日本語版 K6 スコア) を用いた。K6 スコアは沢山の国々で使用されており<sup>48</sup>、日本語版の妥当性も検証されている<sup>49</sup>。6つの質問項目から構成され、過去1ヶ月の間の非特異的な心理的苦痛の程度について尋ねている。5段階のリッカートスケール (0~4点) で評価し、合計得点は0~24点の範囲で、5点以上が心理的苦痛を感じているカットオフ値とされている。さらに、13点以上が DSM-IV (4th edition of the Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders) で定義される重症精神疾患 (Serious Mental Illness; SMI) のスクリーニングに用いられるカットオフ値とされている<sup>50</sup>。

更に、介護者が経験する介護負担を評価するため、Zarit 介護負担尺度日本語版の短縮版 (J-ZBI\_8) を用いた。Zarit 介護負担尺度は様々な国々で使用されており日本語版にも翻訳され、短縮版も作成されている<sup>51,52</sup>。短縮版の J-ZBI\_8 は Personal Strain (介護そのものによって生ずる負担) に関する5項目と Role Strain (介護者が介護を始めたためにこれまでの生活ができなくなるできなくなるによりことにより生ずる負担) に関する3項目から構成されている。高得点は介護者が感じる負担が高いことを示し、得点は0~32点の範囲をとる。荒井ら<sup>53</sup>によると、J-ZBI\_8 で13点以上あることが、抑うつ症状であることを示す Center for Epidemiological Studies Depression Scale (CES-D) の16点以上と高い感

度・特異度を示し、介護負担に関連する抑うつ症状のスクリーニングのカットオフ値になりうると報告されている。

最後に、介護者には在宅移行後の満足度を「在宅に帰って良かったか」という質問にて尋ねており、さらに気管切開と胃瘻造設している人を対象に、「気管切開をして良かったか」「胃瘻にして良かったか」についても質問し、「良かった、やや良かった、どちらとも言えない、やや悪かった、悪かった」、の5段階評価で回答を得た。(質問票は、最終章に資料として添付した。)

### 3) 倫理的配慮

本研究は筑波大学附属病院倫理委員会で承認を得て実施した (Document No. H27-36, May/18/2015)。

## 3. 結果

研究1で対象となった筑波大学附属病院に通院する45人の超重症児・準超重症児のうち、41人から質問紙への回答を得た(回答率91.1%)。この人数は研究1全体の44.6%を占めた。

### 1) 家族背景 (表 1, 2)

回答者は 41 名で、9 割の回答者が母親であり、児の重症度を示す超重症児スコアは研究 1 から抽出し、中央値は 21 点 (IQR 16-26) であった。ほとんどの世帯が両親ともに同居しており、祖父母 1 人以上と同居している割合は 36.6% であった。児以外の子ども数は 0~3 人、平均 1.1 人であり、障害児一人よりは同胞も一緒に育てている家庭の方が多かった。父親・母親の年齢では、10 代・20 代前半の若年者はいなかった。95% とほとんどが持ち家に住んでおり、茨城県の特性として持ち家世帯が多いことが考えられた。主にケアを行う人は、母親は全員ケアに関わっており、次に父親が 36.6% であり、訪問看護師と回答した人は非常に少なく 4 人のみであった。

表 1 対象となる障害児とその家族の基本属性

世帯の状況		n	(%)	
回答者	母親	37	90.2%	
	父親	3	7.3%	
	両親	1	2.4%	
<b>超重症児スコア 1)</b>		<b>21</b>	<b>16 - 26</b>	
<b>(median, IQR)</b>				
<b>超重症児の割合 (25点以上)</b>		<b>31.7%</b>		
同居家族	父親	40	97.6%	
	母親	41	100.0%	
	父方祖父	8	19.5%	
	父方祖母	10	24.4%	
	母方祖父	2	4.9%	
	母方祖母	3	7.3%	
	* 少なくとも祖父母 (1人以上) と同居	15	36.6%	
	同胞	26	63.4%	
	同胞の人数 (mean, SD)	1.1	0.9	
	(range)	0 - 3		
両親の年齢	父	(mean, SD)	42.8	6.6
		(range)	31 - 61	
	母	(mean, SD)	41.6	6.8
		(range)	29 - 57	
住居の種類	持ち家	39	95.1%	
	貸家	2	4.9%	

表 2 介護者の続柄

	n=41	n	%
主にケアを行う人 (複数回答可)	母親	41	100.0%
	父親	15	36.6%
	祖父	2	4.9%
	祖母	4	9.8%
	訪問看護師	4	9.8%
	訪問介護士	0	0.0%
	その他(同胞、学校看護師)	2	4.9%

2) 介護状況 (表 3)

医療的ケアに関しては、「医療的ケア（食事介助、経管栄養、吸引、吸入、投薬、体交、入浴介助など）に要する時間は、1日あたり、合計で概ね平均してどれくらいですか？」という質問項目に関して、平均 8.1 時間（中央値 7 時間）という回答であった。超重症児・準超重症児はケアの種類・頻度が多く、ケアだけで1日の1/3の時間を費やしていることになる。中には 24 時間（2 人）、20 時間（1 人）と答えている人もおり、物理的に 24 時間持続的にケアをしているわけではないと思われるが、それでも日常の中で途切れることなく児をケアしている状況が存在していることを伺えた。介護者の睡眠時間は平均 5.5 時間（中央値 5.5 時間）であり、睡眠中にケアで起きる回数は平均 2.4 回（中央値 2 回）認められた。殆どの回答者は母親であり主介護者であることが想定され、その母親達は7時間もの長い時間を介護に費やす一方で、睡眠時間は短く、さらにケアのために複数回その睡眠を中断していると考えられた。

表 3 介護状況

		range	mean, SD	median	IQR
医療的ケアに要する時間（時間）	n=39	1.5~24	8.1, 5.6	7	4 - 10
介護者の睡眠時間（時間）	n=41	3~8	5.5, 1.2	5.5	4.5 - 6.5
睡眠中にケアで起きる回数（回）	n=40	0.5~5.5	2.4, 1.2	2	1.5 - 3

### 3) ソーシャルサポート（表 4）

ソーシャルサポートの利用可能性について把握するため、「手助け・用事を頼める人は、何人いますか？」という質問を尋ねたところ、22人（53.7%）が2人以上いると答えしており、誰もいないと答えたのは2人（4.9%）のみであった。頼める用事の内容としては、「日常的な家事（掃除、買い物など）」、「障害のあるお子さんのケア（医療的ケアを含む）」、「他のお子さんのケア（面倒をみる、送り迎えする、等）」から複数回答してもらくと、約8割の人が障害児のお世話（日常的なケア、医療的ケア含む）を頼んでいた。その他の項目で、患児と遊ぶことを頼む、という人が1人いた。

表 4 介護者のソーシャルサポート

n=41		人数	%
<b>手助け・用事を頼める人の人数</b>	5人以上	1	2.4%
	4人	2	4.9%
	3人	8	19.5%
	2人	11	26.8%
	1人	17	41.5%
	いない	2	4.9%
	<b>頼める用事の内容</b> (複数回答可)	日常的な家事	18
障害のあるお子さんのケア		34	82.9%
他のお子さんのケア		17	41.5%
その他（患児の遊び相手）		1	2.4%

### 4) 医療利用に関連する負担について（表 5）

超重症児・準超重症児は高頻度な医療利用を必要とする特性があり、研究1では年間19回の外来受診と2回の入院を要していた。高度な医療的ケアをもつ障害児を病院に連れて行って連れて帰るということは、移動時に呼吸器や吸引器、経管栄養、SpO2 モニタ

一などの医療機器も一緒に持ち運び、さらに車からバギーなどの移乗に加え、吸引などのケアを適宜必要とするため、物理的にも時間的にも家族の負担は大きい。そのため、本研究では、誰が外来受診に付添い、外来受診に要する時間について質問した。

超重症児・準超重症児の外来受診では全ての事例で通常母親が付添い(n=41, 100%)、父親が付添うことも約半数の児 (n=19, 46.3%) で認め、さらに祖父又は祖母の付添いも認められた (n=10, 24.4%)。合計すると、24人 (58.5%) が外来受診に2人以上の大人を必要としており、訪問介護士と一緒に受診する人は1人のみで、むしろ友人というインフォーマルなサポートを得て、外来受診をしている人も認められた。また受診にかかる時間は、複数科受診する児の特性もあり非常に長く、家から病院までで中央値40分 (IQR 30-50分)、受付から診察終了までで中央値180分 (IQR 120-240分)、家を出て家に帰るまでを合計すると4時間 (中央値) を要していることが分かった。つまり、外来受診に2人の成人が必要である理由は、移動そのものや移動中のケア提供に対する人手だけではなく、長い待ち時間中にケアの提供が必要となり人手が必要になる可能性があると考えられる。

さらに、父親・母親それぞれに受診のために仕事を休んだことがあるかどうかについてと、その仕事を去年1年間で何回休んだかについて質問した。就労をしていない父親はおらず、母親は約7割が就労はしていなかった。仕事を休んだことがある父親 (25人、61.0%) のうち、年間に5.0回 (中央値) 仕事を休んでいた (range: 1.5-30, IQR: 2.5-14.5)。9人 (22%) の父親は、年に12回以上休んだことがあった。仕事を休んだことがある父親のうち、約1/3は有給や介護休暇を利用して休んでいるが、約1/3は時間の調整をして外来に連れてきていた。就労をしている母親のうち、仕事を休んだことがある母親 (6人、6.5%) においては、中央値で年間に12回仕事を休んでいた (range: 2.5-27, QR: 10-20)。6人中4人が有給や介護休暇、育休を利用して休んでいた。

表 5 医療利用に関する家族の介護負担

外来受診を誰と来るか (n=41)				
母親	41	100.0%		
父親	19	46.3%		
祖父	4	9.8%		
祖母	6	14.6%		
父母の友人	1	2.4%		
訪問看護師	0	0.0%		
訪問介護士	1	2.4%		
※外来に2人以上で来る	24	58.5%		
受診の負担：時間		range	median	IQR
外来受診時にかかる時間(n=41)				
a. 家から病院まで (分)		7 - 90	40	30 - 50
b. 受付から診察終了まで (分)		30 - 420	180	120 - 240
c. 家から家まで 合計(分) $c=a*2+b$		74 - 500	240	200 - 300
外来受診で仕事を休んだかどうか		n	%	
父親	就労はしていない	0	0.0%	
	仕事を休むことはなかった	13	31.7%	
	<b>休んだことがある</b>	<b>25</b>	<b>61.0%</b>	
		range	median	IQR
父親	<b>休んだ回数 (回/年) n=28</b>	1.5 - 30	5	2.5 - 14.5
	休んだときの状況 (複数回答)	n	%	
	有休/介護休暇を使った	13	35.7%	
	有休/介護休暇ではなく、仕事時間の調整をした	13	35.7%	
		n	%	
母親	就労はしていない	30	73.2%	
	仕事を休むことはなかった	1	2.4%	
	<b>休んだことがある</b>	<b>6</b>	<b>6.5%</b>	
		range	median	IQR
母親	<b>休んだ回数 (回/年) n=5</b>	2.5 - 27.5	12	10 - 20
	休んだときの状況 (複数回答)	n	%	
	有休/介護休暇を使った	4	66.7%	
	有休/介護休暇ではなく、仕事時間の調整をした	2	33.3%	

5. 利用している医療福祉サービス、および社会保障制度 (表 6)

最も多く利用されている在宅医療サービスは、訪問看護で 15 人 (36.6%) が利用していた。訪問リハビリテーションが 6 人 (14.6%)、訪問介護は少なく 2 人のみ (4.9%) であった。デイサービス (通園事業や日中一時支援事業) を利用している人は 12 人 (29.3%) に認めるが、家族と離れて夜間泊まることでレスパイト・ケアになりうる短期入所 (6 人、14.6%) やレスパイト入院 (1 人、2.4%) と少ない利用状況であった。訪問看護の利用頻度は平均 5.2 回/月、デイサービスは平均 5.6 回/月であり、週 1-2 回が最も多く認められ

る利用頻度であった。利用している人が少ない短期入所やレスパイト入院では、その実施頻度はさらに少なく、短期入所は平均2.8回／月、レスパイト入院は平均2回／年であった。

福祉制度としては、身体障害者手帳は95%が有しており、特に37人(90.4%)が身体障害者手帳1級であり、11人(26.8%)は療育手帳を有していた。超重症児・準超重症児の保護者は政府や市町村から財政的な援助を受けることができ、例えば、小児慢性特定疾患による医療費助成(n=11, 26.8%)や、産科医療保障制度(n=2, 4.9%)、特別児童扶養手当(n=25, 61.0%)、自立支援医療費(n=2, 4.9%)、在宅障害児福祉手当(n=2, 4.9%)、ストマ補助(n=1, 2.4%)などを利用していた。

表6 医療福祉サービス利用状況と社会保障制度

サービス利用状況	(n=41)	n	%
利用割合	訪問リハビリテーション	6	14.6%
	訪問看護	15	36.6%
	訪問介護(訪問入浴含む)	2	4.9%
	短期入所	6	14.6%
	レスパイト入院	1	2.4%
	リハビリテーション入院	7	17.1%
	通園通所施設・デイサービス(日中一時預かり)	12	29.3%
平均利用頻度	訪問リハビリテーション (n=6)	5.2	(回/月)
	訪問看護 (n=15)	6.5	(回/月)
	訪問介護 (n=2)	7.3	(回/月)
	短期入所 (n=6)	2.8	(回/年)
	レスパイト入院 (n=1)	2	(回/年)
	リハビリテーション入院 (n=6)	1	(回/年)
	通園通所施設・デイサービス (n=11)	5.6	(回/月)
社会保障制度	(n=41)	n	%
利用割合	身体障害者手帳(うち、1級37人 2級2人)	39	95.1%
	療育手帳	11	26.8%
	小児慢性特定疾患の医療補助制度	11	26.8%
	特別児童扶養手当	25	61.0%
	産科医療保障制度	2	4.9%
	自立支援医療費	2	4.9%
	その他(在宅障害児福祉手当2、ストマ補助1)	3	7.3%

## 6. 学校の状況（表 7）

41 人中、現在就学しているのは 26 人（63.4%）であり、10 人は未就学の年齢であり、5 人は学校卒業の年齢（4 人は高校卒業年齢、1 人は高校に行っていない児を含む）であった。就学児のうち、1 人を除いて 25 人が特別支援学校であり、そのうち 7 人は特別支援学校から訪問教育を受けていた。平均出席日数は月 13.4 回であり、家族の付添が必要な人（12 人）では、平均付添時間が 3.4 時間であった。登校方法（訪問教育でもスクーリングがある場合も含むので人数は 22 人となっている）は、22 人ともスクールバスではなく、家族での送迎で登校していた。

表 7 学校の状況

社会参加：学校		
未就学	10人	24.4%
<b>就学している</b>	<b>26人</b>	<b>63.4%</b>
卒業した	5人	12.2%
就学中の児の場合(n=26)	通常学校	1人
	特別支援学校	18人
	訪問教育	7人
平均出席日数 (n=22)	(日/月)	13.4日
家族の付添時間 (n=12)	(時間/日)	3.4時間
登校方法 (n=22)	スクールバス	0人
	家族で送迎	22人

## 7. 経済的状況（表 8）

質問票において、日常的な医療的ケアにおける自己負担額について尋ねたところ、22 人（53.7%）が月 1 万円未満の自己負担額がかかっており、11 人（26.8%）が月 1 万円以上 5 万円未満の自己負担額がかかっていた。購入するものとしては、脱脂綿、消毒用アルコール、トロミ剤、タオル、口腔ケア用品、キッチンペーパー、ビニール袋など、医療機

関で受け取る在宅物品以外にも日常的ケアにおける消耗品や必需品への購入による経済的負担の存在が認められた。また、在宅療養生活をするために、車を新たに購入した人が 14 人 (34.1%)、車の改修をした人が 1 人 (2.4%)、家を改修した人が 9 人 (22.0%)、家を引っ越しした人も 5 人 (12.2%) に認められた。さらに、主観的経済状況について尋ねた設問では、16 人 (39.0%) が苦しい、1 人 (2.4%) が大変苦しいと答えていた。普通と答えたのは 19 人 (46.3%) であり、良いと答えたのは 3 人のみ (7.3%) であった。

表 8 経済的状況

経済的負担		(人)	(%)
日常的ケアにおける自己負担額	購入するものはなし	8	19.5%
	1万円未満/月	22	53.7%
	5万円未満/月	11	26.8%
	5万円以上/月	0	0.0%
在宅療養するために (複数回答可)	車を新たに購入した	14	34.1%
	車を改修した	1	2.4%
	家を改修した	9	22.0%
	家を引越した	5	12.2%
暮らしの様子	大変ゆとりがある	0	0.0%
	ややゆとりがある	3	7.3%
	普通	19	46.3%
	やや苦しい	16	39.0%
	大変苦しい	1	2.4%
	無回答	2	4.9%

## 8. 健康状態 (表 9)

表 9 は、介護者の健康関連 QOL の尺度である SF-8 の結果を示している。対象者 35 人の 8 項目の各点数と PCS および MCS の平均点は、国民標準値 (20-79 歳の 2248 人を対象とした調査から算出されている)、および 40 代女性の標準値 (主介護者である母親の平均年齢が 41.6 歳であるため比較対象とした) と比べても低く (図 2)、社会生活機能につ

いて尋ねた「家族や友人との普段の付き合いが、身体的・精神的理由で、どのくらい妨げ  
 されましたか?」という項目で、最も低い値 (43.8 点) となった。障害児のケアに伴う身  
 体的・精神的理由で、親しい家族や友人との付き合いが妨げられていることが推察された。

精神的健康度については、介護者の K6 スコアの中央値は 4 点 (IQR: 0-7) であつ  
 たが、5 点以上が 18 人 (43.9%) に認められ、13 点以上は 3 人 (7.3%) に認められた。加  
 えて、介護負担に関する J-ZBL\_8 では中央値は 8 点で (IQR: 4-13)、抑うつの可能性がある  
 13 点以上は 10 人 (24.4%) に認め、最も高い人は 29 点であった。

また、自覚症状があると答えた保護者は 21 人、51.2%認められ、最も多いのが整  
 形外科的症状 (13 人, 31.7%) であり、次に頭痛 (7 人, 17.1%) が多かった。

表 9 介護者の健康関連 QOL (Quality of Life)

SF-8 scales		介護者			参考 40代女性	参考 国民標準値
		range	mean	SD	mean	mean
身体機能	PF	16.7 - 53.5	45.5	8.0	49.4	49.8
日常役割機能 (身体)	RP	27.9 - 54.1	45.0	7.9	49.4	50.1
体の痛み	BP	38.2 - 60.4	49.2	8.0	48.6	50.1
全体的健康感	GH	40.4 - 63.4	48.1	5.7	49.4	50.0
活力	VT	38.5 - 60.0	47.8	5.8	50.2	50.1
社会生活機能	SF	26.0 - 55.1	43.8	9.1	49.4	50.0
日常役割機能 (精神)	RE	31.4 - 54.2	46.9	5.9	49.7	49.9
心の健康	MH	27.6 - 56.9	46.5	6.21	48.5	49.7
身体的サマリースコア	PCS	23.2 - 59.3	46.0	8.7	48.2	48.6
精神的サマリースコア	MCS	20.3 - 59.7	45.8	7.4	48.7	49.4

\*参考値はSF-8日本語版マニュアル より

図 2 介護者の健康関連 QOL と比較

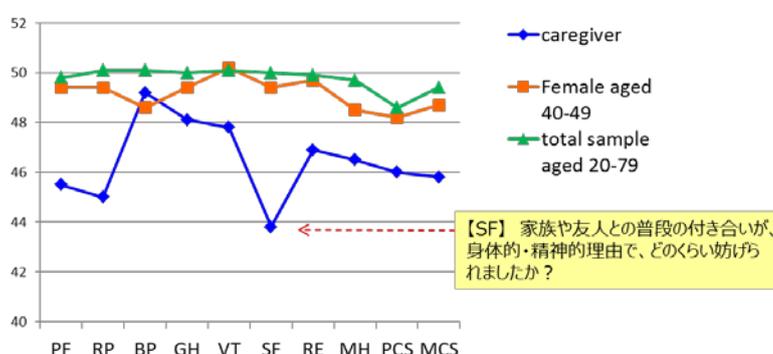


表 10 精神的健康と身体的健康

介護者の健康			range	median	IQR
精神的健康 (n=41)	K6	(0-24)	0 - 22	4	0 - 7
介護負担	J-ZBI 8	(0-32)	1 - 29	8	4 - 13
有訴者割合				n	(%)
自覚症状の有無	有り			21	51.2%
自覚症状の内容 (複数回答)	整形外科症状：肩こり・頸椎症(4)、腰痛・腰椎ヘルニア(3)、膝痛・関節痛(6)			13	31.7%
	消化器症状：腹痛、逆流性食道炎			2	4.9%
	頭痛			7	17.1%
	感冒症状			2	4.9%
	その他：自律神経不調(1)、だるい(1)、めまい(1)、肌荒れ(1)			4	9.8%

### 9. 在宅生活に対する満足度（表 11）

在宅生活に対する満足度については、41 人中 36 人（87.8%）が在宅に帰って「良かった／やや良かった」という回答を得た。気管切開については「良かった／やや良かった」が 14 人（回答者 19 人中の 73.7%）、胃瘻については「良かった／やや良かった」が 17 人（回答者 22 人中の 81.2%）であり、胃瘻の方が満足度は高かった。気管切開は「どちらとも言えない／やや悪かった」が 22 人（回答者の 21.1%）に認められた。

在宅に帰って「良かった」という回答の理由は、「家族と一緒に過ごすことができる、病院に入院していると付添いが大変だった、家で子どもの成長を感じられる」等であった。在宅生活に対して「どちらとも言えない」という回答の人は、「良かったよりも不安を感じる」と答えていた。また、気管切開に対して「良かった」と答えていた人は、「吸引がしやすい、肺炎になる回数が減る、呼吸が楽になった」等の意見があったが、気管切開に対して「どちらとも言えない」という回答の人は、「子どもは喋れなくなった、呼吸には楽かもしれないが介護負担（吸引など）は増した」という意見が認められた。胃瘻に関して「良かった」と答えた人は、「嘔吐する回数が減った、経管栄養よりも自己抜去が減った、体重が増えた」等と言う栄養を確実に取れるメリットが挙げられており、「どちらとも言えない」と答えた人はいなかった。

表 11 在宅生活への満足度

満足度		人	(%)
在宅に帰って良かった (n=41)	良かった	36	87.8%
	やや良かった	1	2.4%
	どちらとも言えない	2	4.9%
	やや悪かった	0	0.0%
	悪かった	0	0.0%
	無回答	2	4.9%
気管切開をして良かった (n=19)	良かった	11	57.9%
	やや良かった	3	15.8%
	どちらとも言えない	4	21.1%
	やや悪かった	0	0.0%
	悪かった	0	0.0%
胃瘻にして良かった (n=22)	良かった	18	81.8%
	やや良かった	4	18.2%
	どちらとも言えない	0	0.0%
	やや悪かった	0	0.0%
	悪かった	0	0.0%

## 10. 今後の要望

最後に、「今後在宅療養生活を続けていくために、どのような支援・サービスを希望しているか、ご意見を何でも教えて下さい」という自由記載の空欄を設けたところ、33人の保護者から回答を得た。そのうち20人が、短期入所・レスパイト入院・デイサービス（日中一時支援事業、保育園）などの「人工呼吸器のような高度な医療的ケアを要する超重症児・準超重症児を預けることができる場所」に対する希望を述べており、特にそのような施設が県北に集中しているため、県南地域で乏しいことが指摘されている。医療的ケアが複雑で高度なため、サービス提供側から利用を断られた経験があるという記載や、柔軟性にサービスが使えない（緊急の理由がしにくい、予約が取りづらい、等）ことも述べられていた。5人の保護者は退院後に必要な情報を得ることやサービスのコーディネーショ

ンに対する要望を述べており、1人の保護者は介護により働けないため経済的援助を必要としていると述べていた。

#### 4. 考察

研究2は超重症児・準超重症児を介護する家族の健康や社会生活への影響、特に医療利用に関連した介護負担に焦点を当てた調査を実施した。超重症児・準超重症児の特性である高頻度な医療利用状況に着目した家族の社会的影響に関する報告は、今まであまり報告されていなかった新たな知見と言える。

##### 1) 医療利用に関連する介護負担について

本研究では、外来受診に伴う家族の社会的影響について調査し、父親で外来受診のために仕事を休んだことある人が半数以上（61.0%）に認められた。休んだというのが、一日なのか、半日なのか、数時間なのかまでは把握できていないが、休んだ回数は年間5.0回（中央値）というのは非常に多い回数であると考えられる。移動に人手が必要なだけでなく、長い外来受診（受付から診察までの時間が中央値で180分）の経過の中で、栄養の注入や痰の吸引、投薬などをする必要が出てくると考えられ、ますます一人では受診できない状況と言える。大学附属病院であり高度な検査や治療を実施する場合があることや、複数診療科を受診することが多いためと受診時間が長くなってしまうのだと考えられるが、その結果母親・父親ともに仕事を休んでも受診のために連れてくる体制をとらざるを得ない状況があると考えられる。さらに、訪問介護士などによる移動支援を受けている人は非常に少なく、家族介護力だけに頼っているのが現状であった。Yotani<sup>54</sup>らは、重症心身障

害児（大島分類Ⅰ）の介護負担が高い人ほど移動支援のニーズが有意に高いと報告していた。研究1で年間19回の外来の受診回数があることと、受診の際には父親も付き添って仕事を休まなければならない状況を考えてみると、経済的負担も大きくなると推測される。研究2の調査で母親は7割が就労しておらず、就労したい人もいるかもしれないが、この医療利用状況では厳しいと考えられる。質問票の自由記載の要望欄において、働きたいけども働けない、経済面で苦しいなどの意見もあり、表8の経済面に関する調査でも自己負担額が毎月1万未満かかる人が半数認められた。受診のための移動支援や、経済面での利益を少しでも得られるように母親の就労時間を短時間でも確保をする等のデイサービスの充実など、家族の社会的経済的負担に対する支援も必要と考えられる。さらに、受診回数の減少や介護負担の軽減のために、在宅医療サービス（訪問診療、訪問看護、訪問介護）の導入や利用頻度の増加も必要な支援策の一つである。更なる研究として、病院中心の医療サービスと地域の医療サービスのケア・コーディネーションがどのように家族の社会経済的側面への影響を減らすことが出来るかについて、検証して行く必要がある。

## 2) 家族の介護状況について

保護者の介護状況は先行研究と似た結果をみとめている。先行研究では、脳性麻痺児を介護する母親は介護時間の平均が11.4時間と報告<sup>27</sup>しているし、重症心身障害児の母親の86.5%は8時間以上介護しており<sup>25</sup>、特にJ-ZBIで介護負担が高い群では介護時間は平均13.2時間とより長くなっていた<sup>45</sup>。本研究においては、介護時間は中央値で7.0時間であり、18-24時間と回答している保護者が4人認められた。超重症児への医療的ケアは一日に何回も実施しなければならず、例えば経管栄養が1回数時間かかるものが1日4回であったり、1日に6回以上体位交換をしたり、1時間に1回以上の吸引が必要であったりする。医療的ケアだけではなく日常的なケアとして、入浴や更衣、歯磨きなどのケアも必要であ

り、実際にケアに従事している時間が 24 時間ということは物理的には有り得ないのかもしれないが、介護者は一日中ずっと何らかのケアをしているように感じているのだと推察された。

本研究における介護者の睡眠時間は 5.5 時間だが、ケアのために何回も起きており (0.5~5.5 回)、十分な睡眠時間が取れていないことが推察された。先行研究においても障害児の介護者の睡眠時間の短さは指摘されており、小沢ら<sup>24</sup>は東京都多摩地区、島根県、高知県で超重症児者の保護者の睡眠時間は中央値で 5 時間と報告している (超重症児スコアはそれぞれ平均 23.2 点、22.0 点、21.3 点、本調査では平均 22.2 点と重症度もほぼ同等である)。矢次ら<sup>25</sup>は、重症心身障害児の母親の半数で睡眠時間が 6 時間未満であると報告しており、Meltzer ら<sup>55</sup>は人工呼吸器を装着している障害児の親は平均睡眠時間が 391 分であり、夜間に 32 分起きてケアをしていると報告している。睡眠時間の長さだけでなく睡眠の中断時間も問題であり、松井ら<sup>26</sup>は、夜間に人工呼吸器管理、口鼻腔吸引、気管内吸引、胃瘻注入を実施していた母親の介護負担 (JZBI 得点) が有意に高くなっていたと報告しており、介護者である保護者の健康状態への影響が懸念される。

このような状況の中での介護は負担が大きいと、保護者がソーシャルサポートを持っているかどうかと、何らかの用事を頼める人がいるかについて調査した (表 3)。その結果、用事を頼める人は半数以上が 2 人以上いると回答していた。そのサポートが得られる頻度や時間についても今後調べていく必要がある。障害児にとっても遊びの関わりは重要であるが、頼む用事の質問項目に含め損ねてしまっていたのは、反省点である。障害児が在宅療養生活を継続していくうえで、家族が求めているニーズは、医療的ケアのサポート、同胞児への関わりをサポート、日常的な家事や用事をこなすためのサポートだけでなく、障害児自身の生活や QOL をよりよくするための支援を求めていることも重要な点である。家族の必要とするニーズと障害児自身の QOL を向上させるためのニーズを多面的に評価していくことは、今後の検討課題である。

### 3) 家族の健康状態について

表 9 において、家族の身体的健康、精神的状態、介護負担、自覚症状について報告した。SF-8 については、回答者は 9 割母親なので 40-49 歳女性の標準値（2007 年国民標準値より<sup>56)</sup>を参考にすると、調査対象である保護者の身体的サマリースコア、精神的サマリースコアの平均点は、ともに標準値の 25~50%tile に位置していた。土岐ら<sup>45)</sup>の報告では、同年代の女性と比較すると重症心身障害児の母親は健康関連 QOL（SF-36 で測定）が低下しており（mean, SD: 43.6, 6.4）、本研究では SF-36 の短縮版である SF-8 で同様に低下していた（mean, SD: 41.6, 6.6）が、下位項目で違いを認めた。前報告では体の痛みが最も低く、本研究では社会生活機能が最も低い値であり、介護にともなう身体的・精神的状況から友達つきあいや家族との活動が制限されている可能性が考えられた。超・準超重症児は高度な医療的を必要としている基礎疾患から体調変化をきたしやすく、友人に会うなどの約束も立てづらい可能性や、受診にも時間と人手がかかり、その受診頻度や入院頻度も高いことから、物理的にも時間的にも家族の社会生活への参加が難しくなるという点において、QOL の低下につながっている可能性が考えられる。児が特別支援学校に行ったとしても、学校まで運転して連れて行き、学校で 3-4 時間付添いをしないと行けない場合があったり、本研究ではデイサービスの利用割合は 3 割未満であったが、たとえ児がデイサービスに行ったとしても週に 1-2 回の利用であったり、限られたサービス利用にとどまっている。介護者が自分自身のために使える時間を増やせるように、在宅での医療サービスや、児を預けられる地域のサービスを充実させていく必要がある。

さらに精神的苦痛を表す K6 スコアの結果から、5 点以上の人は 17 人認められ、この 17 人は精神的苦痛 (psychological distress) を感じている状態であることが推測される。13 点以上の人は 3 人認められ、重症精神障害 (serious mental illness) が疑われる点数であり、精神科受診も勧めるべき状態にある可能性が高い。最も K6 スコアが高かった 22 点の人は

準超重症児（超重症児スコア 10 点）の親であった。K6 スコアは医療的ケアが高度になるにつれて増加する可能性はあるが、それ以外にも個々の状況（疾患、家族構成、親の障害への受容度や理解等）に影響を受けている可能性がある。しかしながら、保護者の半数弱が 5 点以上の低い精神的健康状態であり、これは日本人全体の 5 点以上の割合（27.8%）<sup>57</sup>よりは明らかに高い。医療従事者は介護者の精神的健康度にもっと着目すべきである。

介護負担に関しては、J-ZBI\_8 で中央値が 8 点であり（IQR: 4-13）、平均値は 9.3 点（標準偏差 6.2 点）であった。重症心身障害児の介護者 42 人を対象とした先行研究<sup>58</sup>では、J-ZBI\_8 の点数は 8.2 点（標準偏差 6.6 点）であり、本研究の方が介護負担の点数は高い結果であった。CES-D で 16 点以上に値する抑うつ状態である可能性が疑われる人（J-ZBI-8 で 13 点以上）は 25.6% で認められ、この割合も先行研究（重症心身障害児の親 69 人に対する調査で、CES-D16 点以上は 26.1%）<sup>59</sup>と近い値であった。そのため、J-ZBI\_8 は介護者の介護負担と精神疾患の状態を評価する指標として今後も有用であると考えられた。

さらに、介護負担が大きい場合、介護者は様々な健康問題<sup>20,30,32,43</sup>を抱える場合がある。本研究では介護者の自覚症状については、13 人（31.7%）の介護者が腰痛や肩痛など整形外科的疾患を抱えており、7 人（17.1%）は頭痛を患っていたが、通院しているかどうかについては調査できていない。家族自身が健康問題に対してセルフケアを取れているかどうかの評価は今後の課題である。

小児科外来では児の身体的状態の診察が中心であり、どうしても母親の身体的・精神的健康にまで注意が及ばないことがある。病院の小児科医だけでなく、看護師、Medical social worker（MSW）、訪問看護師や訪問介護士なども、母親の体調や精神状態に注意を向けることは重要である。しかし、実際に通院するには時間がなく介護負担が大きいことがそもそもの問題であり、母親が自分自身の健康状態に気を配れるような物理的（時間的）・精神的ゆとりをもてるような支援体制の構築が望まれる。

#### 4) 家族の要望

回答者の80.5%にあたる33人の保護者が自由記載の欄に様々な意見や要望を記述して下さり、直接要望を把握することが出来る大変貴重な機会を得た。最も強い要望は、デイサービス、短期入所などのレスパイト・ケアの拡充への要望であり、18人の保護者(回答者の54.5%)が記載していた。デイサービス、短期入所の空きが無いことや、高度な医療的ケアに対応できるだけのスタッフがい無いといった理由で断られた経験をしていた。介護者の希望としては、同胞の学校行事の時や、介護者自身が病気になった時など、必要になった際に柔軟に利用できる地域サービスと、特別支援学校への入学前や卒業後の定期的に通うことができる地域サービスの両者を希望していた。特に医療的ケアが高度な人工呼吸器を装着している児について言及すると、茨城県内に人工呼吸器を要する児が短期入所することができる施設は3か所しかなく、それぞれ1-2床のベッドしかないので、数か月の予約待ちの上で2-3日短期入所をするというのが現状である。加えて、その3施設ともが県北に位置し県南にないため、連れて行くのに時間がかかる上にまたすぐに迎えに行く必要があり、児の不安定な体調から長期的に事前の予約が立てにくいこと等から、短期入所が行いにくい実態が認められた。県南地区でのレスパイト・ケアの充実喫緊の課題である。

他には、地域で利用可能なサービスのコーディネーションに対する要望が挙がっており、例えば訪問薬剤師、訪問診療可能な眼科、整形外科、皮膚科等、さらには訪問でのヘアカットサービスの希望もあり、そのような情報を提供してくれるシステム整備の要望も認められた。数人の保護者が退院後の生活の中で、誰に相談してよいか分からず不安を感じていた。高齢者に対する介護保険の仕組みの中では、ケアマネージャーが高齢者及びその家族に情報提供したり、サービスの調整を行ったり、家族の相談を聞いて医療従事者と連携する役割を持つ。しかし、残念ながら障害児への医療福祉提供体制の中で、ケアマネージャーは存在しておらず、家族が自ら情報を集めたり、サービスを探したりしているのが現状である。2005年に成立した障害者自立支援法<sup>60</sup>では、障害者又は障害児の保護

者が、障害福祉サービスを適切に利用することが出来るように、「相談支援事業」の一環として「サービス利用計画」を作成し調整連絡を行うことと規定されている。しかしながら、相談支援事業が十分に機能しているとは言い難く、その原因としては医療従事者がこの相談支援事業について殆ど知らない、又は福祉職の人が超重症児・準超重症児の医療状況を把握できていない等、医療と福祉の連携不足が挙げられる。医療的ケアが重度な障害児が今後地域で生活を続けていくためには、病院中心のサービスと地域におけるサービスのバランスを取りながら、コーディネーションしていくことが必須である。そして家族中心の介護の中で負担を感じている現状を改善するために、医療従事者と福祉の専門家の間で情報共有し連携していくことが重要である。

本研究2における限界は以下のものが挙げられる。第一に、対象者数は限られており、調査医療機関は一施設である。外来受診や入院に関連する介護負担は、外来での待ち時間の長さや、複数の専門科の受診・検査などを受ける必要性があることなど、大学附属病院という特性から影響を受けている可能性がある。そのため、今後は対象者数を増やして複数の医療機関で同様の研究を実施し、医療利用状況がどのように家族の健康や社会生活に影響を与えるかについて詳細な調査を実施する必要がある。

第二に、本研究では父親・母親の仕事への影響を調査したが、どの程度の影響であったのか、例えば数時間の欠席なのか、半日や一日なのかといった詳細な情報や、仕事の種類に関する情報は把握できていない。今後の研究としては仕事への影響の詳細だけではなく、さらに家族の介護に対する態度や職場での介護での欠席に対する支援や評価なども含めて調査することで、障害児の介護が家族に与える社会的な影響を、より物理的な影響、心理的な影響の側面から検討することができると考えられる。

第三に、家族へ在宅療養生活への満足度について、全体的満足度、さらに気管切開と胃瘻に対する満足度を質問したが、頻回な医療利用状況や地域サービスについての主観的な評価や、今後の児との生活に対する希望や期待について調査できていない。病院中

心の高頻度な医療利用状況は家族にとっては負担が大きいと考えられるため、仕事への影響については調査したが、その医療利用状況そのものに対する家族の受け止め方や児の健康状態に対する認識についても評価すべきであった。更なる研究にて、児の健康状態と医療利用状況に対する認識の両者を把握して評価することは、どのような障害児に対して、どのように病院中心と地域中心の医療サービスのバランスをとるかという、個々の状況に合わせた医療提供体制の整備に対する知見として役立つ可能性があると考えられる。

## 5. 結論

超重症児・準超重症児の保護者は非常に大変な介護という“仕事 (informal care work)”に従事している。その介護による影響は、就労への支障や健康問題、QOLの低下、経済的負担などに認められた。その一方で、身体的に、精神的に、そして社会的にも困難な状況であっても、家族は超重症児・準超重症児を在宅で育てることに満足感や喜びを感じていた。そのような児と家族の在宅療養生活をサポートするためにも、病院中心のサービスだけではなく、地域におけるサービスの拡充と、個々の状況を反映させてサービスを組み合わせるケア・コーディネーションの向上が必要である。

## 第4章

### 研究3. 障害児の親の精神的健康状態とその関連要因の検討 ～国民生活基礎調査を用いて

本研究は日本の障害児と親の精神的健康の現状について諸外国にも報告し、比較検討できるようにするため、英語で投稿した。そのため博士論文においても、先に日本語で要旨を提示し、内容は英語で記載する。

## 要旨

【背景】障害児の親は主介護者としての役割を持ち、精神的問題を抱えることがある。障害児とその家族を支援するため、低い精神的健康度と関連する要因について把握することは必要である。

【方法】統計法に基づいて厚生労働省に二次利用申請を行い、利用の承認を受けた平成22年度の国民生活基礎調査を使用して分析した。6歳以上17歳未満の障害児を各世帯から1人抽出し、その障害児を介護する親と突合して549組のペアを作り、研究対象とした。Kessler-6 (K6) スコアを用いて K6 5点以上（低い精神的健康度を示す）と5点未満で2群に分けて、低い精神的健康度と関連する要因について検討した。

【結果】障害児（549人）の自立状況は、57.6%が外出時に介助が必要であり、座位や寝たきりであった。主介護者の9割弱が母親であり、K6 5点以上の人は44.4%に認めた。単変量解析（カイ二乗検定）で低い精神定期健康度と有意な関連を認めたのは、児が通院している、介護者が母親である・症状がある・通院している・活動制限がある・ソーシャルサポートが乏しい、であった。多変量解析（ロジスティック回帰分析）では、低い精神的健康度と有意な関連を認めたのは、介護者が症状がある（Odds ratio (OR), 05% Confidence Interval (CI): 3.26, 1.97-5.39）、介護者が活動制限がある（OR, 95%CI: 2.95, 1.38-6.32）、ソーシャルサポートが乏しい（OR, 95%CI: 9.31, 1.85-46.8）、三世代世帯である（OR, 95%CI: 0.49, 0.26-0.92）、世帯支出が低い（OR, 95%CI: 1.92, 1.05-3.54）であった。

【考察】障害児の親が自身の健康問題を抱えていたり、ソーシャルサポートが乏しい時や経済的に苦しい状況にある場合に、精神的健康度について考慮していく必要がある。今後は更に障害の詳しい状況や家族の社会生活、サービス利用なども含めた詳細な実態調査が必要である。

# **Mental health of parents with disabled children and related characteristics: based on Comprehensive Survey of Living Conditions**

## **1. Background**

The number of children with disabilities is gradually increasing in Japan. In 2011, there were 225,000 children with physical disabilities who received “Physical Disability Certificate (*Shintai Syougaisya Tecyou*)” or intellectual disabilities who received “Mental Disability Certificate (*Ryouiku Tecyou*)” living at home in Japan, accounting for 1.1% of the total population of persons under 18 years of age<sup>44,61</sup>. Physical Disability Certificate includes person with visual impairment, hearing impairment, speech difficulty, physically disabled, internal organ disorders including respiratory disorder, cardiac problems, and so on. Mental Disability Certificate targets person with intellectual disorder that found less than 18 years old.

Over five years, from 2006 to 2011, the percentage of children with disabilities rose by 7%, whereas the total population of persons under 18 years of age decreased by 4%. Furthermore, pervasive developmental disability has gained increasing attention recently. Teachers reported that 6.5% of children in primary schools experience strong difficulties in learning and behavior (i.e., hyperactive or impulsive tendency) despite the absence of an intellectual disability<sup>62</sup>. The possible reason for increasing the number of children with disability varies depends on each disease or disability. For example, the mortality rate of infants who were born with extremely low birth weight (500 – 1,000g) has been improving year by year from 55.3% in 1980 to 15.2% in 2000<sup>63</sup>.

Follow-up survey for children with extremely low birth weight at age of six showed that 16.8% of them had cerebral palsy and 20.3% of them had intellectual disability<sup>64</sup>. Furthermore, average maternal and paternal age of having a first child have become later gradually in Japan: 30.6 years old for mothers and 32.6 years old for fathers in 2014<sup>65</sup>. Previous research reported that higher age of mothers at birth was related to increase of child with intellectual disability<sup>66</sup>, and higher age of fathers at birth was associated with an elevated risk of high-functioning autistic-spectrum disorder<sup>67</sup>. However, despite of types of disability, parents usually play essential roles as primary caregivers.

Although becoming a caregiver of a child is an unexpected 'career' for parents<sup>23</sup>, caring for a child with a disability can impose multiple strains on the parents due to health problems<sup>68-70</sup>, financial costs<sup>71-73</sup>, time demands, and hindrance of social participation, such as a working career<sup>74,75</sup>. For example, Montes & Halterman estimated that families with a member that has Autism spectrum disorder experienced a 14% loss of annual income, or a loss of \$6,200. Furthermore, family composition has gradually shifted over recent decades, and there are more nuclear, single-parent, and families with working mothers than before<sup>76</sup>. Nuclear family accounted for nearly 80% of all household with children, and 60% of mothers had a job in 2011<sup>76</sup>. Among household with children less than six years old, paternal involvement for housekeeping or child rearing is scarce compared to mothers: only 12 minutes per week for housekeeping and 39 minutes per week for child rearing, comparing to mothers who spent 3.6 hours for housekeeping and 3.4 hours for child rearing on average<sup>77</sup>. In these situations, mothers sometimes undertake responsibility for caregiving to a child with disability in fewer supports from family members.

Under these difficult situations of raising a child with a disability, parents tend to experience mental health problems. For example, elevated levels of depressive symptoms were seen among mothers of children with epilepsy<sup>78</sup> or children with developmental disabilities<sup>79</sup>, and higher psychological distress was reported among parents of children with pervasive developmental

disorders<sup>80</sup>.

Furthermore, mental health problems of parents may place children at risk for adverse health outcomes. Multiple previous studies have demonstrated that maternal depression was significantly associated with child behavioral and emotional problems<sup>78,81</sup>, or health-related quality of life<sup>78</sup>. Depressed mothers were reported to show negative parenting behavior<sup>82</sup>, and lower quality of supervision<sup>83</sup>. Therefore, it is important issue to evaluate parental mental health toward better health outcome of children with disability.

Previous studies conducted in Japan have examined mental health of caregivers with General Health Questionnaire<sup>84</sup>, caregiving burden with Japanese version of the Zarit Caregiver Burden Interview<sup>59,85</sup>, or psychological distress with Kessler 6 (K6) scale<sup>80</sup>. However, these studies targeted limited study populations, such as parents of children with disabilities from one to several medical facilities or patients' associations. Therefore, this study aimed to examine the mental health of parents (hereafter referred to as caregivers; CGs) of children with disabilities in Japan with K6 which has been widely implemented in many countries<sup>48</sup> to assess psychological distress using secondary data of cluster sampling in Japan.

## **2. Methods**

### **Study population**

The present study utilized data from the 'health questionnaire' and 'household questionnaire' of the Comprehensive Survey of Living Conditions: CSLC (Kokumin Seikatsu Kiso Chousa in Japanese) in 2010<sup>76</sup>, which was a nationwide cross-sectional survey conducted by the Ministry of Health, Labour and Welfare in June 2010. CSLC employed a stratified random cluster sampling

method based on enumeration districts (EDs) from Census as primary sampling unit. The entire land of Japan is divided into 982,000 EDs, and each ED includes approximately 50 households. CSLC in 2010 randomly selected 5,510 EDs from Census in 2005<sup>76</sup>, and all household in the sampled cluster (EDs) were asked to participate in the study. CLSC in 2010 surveyed 289,363 households, and collected questionnaires from 229,785 households, which covered 609,019 household members. The respondents were all household members, except for individuals who were hospitalized or institutionalized during the survey period. All questionnaires were conducted by self-administration, as long as the respondent as at least 6 years old. For those who were less than 6 years old, next-of-kin responded to the questionnaire. The response rate was 79.4% of all households.

The flow chart (Figure 1) indicates how samples were extracted for our quantitative analysis. First, we extracted ‘children’, defined as persons under 18 years of age, from the entire sample of the CSLC (n=102,668). Second, to detect children with disabilities and their main caregivers (CGs), we examined the responses to the question, “Does he/she need assistance or supervision?” (n=767). This question was asked for children aged 6 and over. Third, we only included children whose main CGs were their own parents (n=683) because this study was focused on the mental health status of parents. Fourth, children who had received care for less than one year, and these children were excluded from our study sample to avoid including children who suffered from acute injury or disease (N=576). As the severity of disability, we categorized care-demanding status into four levels. Level 1 indicates that a child has a disability but can go out by oneself, and children with level 1 status was defined as mild disability (n=233). We included children with care levels 2 to 4 (n=316) as moderate to severe disability, which were defined as follows: level 2, ‘the child is independent at home but needs assistance to go out (level 2)’; level 3, ‘the child needs assistance in activities of daily life and mainly stays in bed in a sitting position’; and

level 4, 'the child is bedridden and requires assistance with all activities of daily life, such as egestion, meals, and changing clothes'. Fifth, we selected one child who had more severe disability or child who was youngest when multiple children with disability lived in the same household, and excluded non-corresponding 27 children. Finally, we merged child (care-recipient)-based data with parent (main CG)-based data according to the question that identified the main CG for each child within a household. Conclusively, we included 549 dyads of children (233 children with mild disability, 316 children with moderate to severe disability) and their parents in our study population.

#### Mental health measures

The health questionnaire of CSLC asked several questions related to physical health and mental health such as having symptom, visiting hospital, having any stress, having activity restriction, and Kessler 6 (K6) score. We decided to use the Japanese version of the K6 score of psychological distress as an outcome variable to assess mental health status of the CGs because The K6 has been widely implemented in many countries<sup>48</sup>, and the Japanese version of the K6 has been validated<sup>49</sup>. Kessler and his colleagues developed 6-item short screening instruments to ask respondents how frequently they experienced symptoms of non-specific psychological distress during the past 30 days. Non-specific psychological distress is a widespread indicator of mental health and is the core dimension that people with a wide range of mental disorders have typically experienced<sup>86</sup>. All six items are examined using a 5 point scale (0-4), with the total score thus ranging from 0 to 24. Kessler et al.<sup>86</sup> originally developed K6 to have good precision in the 90th-99th percentile range of the population distribution of non-specific psychological distress. The K6 showed excellent performance in detecting 30-days Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders 4th Edition (DSM-IV) mood and anxiety disorders among community respondents.

For detecting DSM-VI mood and anxiety disorders, the Areas under Receiver operating characteristics (ROC) curves (hereafter, it called as AUC) was 0.94 with K6 in interview survey<sup>49</sup>, and also 0.93 with K6 in self-reported questionnaire<sup>87</sup>. Sakurai et al. reported the optimal cutoff point on K6 was 4/5 with sensitivity of 100% and specificity of 68.7% for screening mood and anxiety disorders in self-reported questionnaire<sup>87</sup>. This cutoff point of K6 score was comparable to Center for Epidemiologic Studies – Depression Scale (CES-D) with cutoff point of 15/16. Scored 16 and over in CES-D indicates clinical depression in Japan. CSLC included self-reported questionnaire with K6, therefore, this study employed cutoff point for 4 or 5 and over with K6 to assess non-specific psychological distress.

#### Explanatory variables

This study referred the conceptual model of caregiving process and caregiver burden among pediatric population<sup>23</sup> at the selection of explanatory variables from the questionnaire. This model was developed based on literature review and previous theoretical models to guide future research to focus on caregiver's health in pediatric filed by Raina et al<sup>23</sup>. There are five types of factors (i.e. Background/Context, Child characteristics, Caregiver Strain/Stress, Intrapsychic factors, and Coping Factors) related to Outcomes of caregiver's health. The CSLC surveyed various characteristics of each individual and household as shown in Table 1. Table1 showed the list of available variables from Household and Health questionnaire, and also indicated explained variable as “K6 score” and other explanatory variables. Among explanatory variables, factors of child, caregiver, and household were colored with orange, yellow, and green. Each explanatory variables were fitted into the conceptual model as shown in Figure 2.

First, this study used variables such as “CG's sex”, “CG's educational status (graduated from junior high school/high school, or above school)”, “CG's working status (having a job or not)”,

“house ownership”, and “household expenditure” as socioeconomic status of family in the background/context factors. This study utilized the item of household monthly expenditure as indicator of financial situation. To adjust the number of household members, household monthly expenditure was divided by the square root of the household size as same as the calculation of adjusted household disposable income from OECD standard<sup>88</sup>.

Second, the variables of “child sex”, “child age”, and “disability level” were used as child characteristics including function which associated with caregiving demands and willingness of receiving formal care. In addition, “long period of care-demanding status (less than 5 years or above)”, “child’s health care utilization”, and “child’s activity restriction” were extracted to use as explanatory variable of caregiving demands which cause caregiver’s strain or stress. The question for health care utilization was “Do you currently have regular outpatient visits to hospital, clinic, Japanese Traditional Massage, Acupuncture, Moxacautery, Judo-Orthopedics, or regular home visits by a physician?” Having regular visits to any kind of health care facility noted above was coded as ‘1’ for “yes” or otherwise ‘0’. The question for activity restriction was “Have you ever become bedridden, or experienced inability to conduct usual activity due to health problems, such as being absent from work or school or not being able to conduct housekeeping task, at least one day during last month?” Activity restriction was coded as ‘1’ for “yes” or otherwise ‘0’.

Third, obtaining informal support from household members or outside of family is coping factor for caregiving strain. CLSC has variables of social support such as “household composition” and “having few people to consult with (hereafter referred to as ‘low social support’)”. With regard to household composition, ‘three generation family’ was coded as ‘1’, and ‘0’ for ‘one parent or two-parents’ due to focus on the effects of support from grandparents.

Forth, physical health is assumed as one of health outcome among caregivers in the model. However, this study especially focused on mental health of CG’s and physical health may influence

psychological health of CGs themselves. Furthermore, physical health may influence psychological health. Therefore, variables of physical health such as “CG’s having symptom”, “CG’s health care utilization (i.e. visiting hospital)”, “activity restriction”, “smoking habits”, and “health habits (i.e. receiving health checkups or not)” were also included as explanatory variables in this study.

### Statistical Analysis

This study used K6 score as dependent variable with the cutoff point of 4/5. Scored 5 and over with K6 was coded as ‘1’ to express having psychological distress, or otherwise ‘0’. To examine the association between the psychological distress of the CG and the child, caregiver, and household characteristics, we performed Student’s t-test for continuous variables (age), the Fisher’s exact test for two variables (CG sex, having someone to consult with), and the  $\chi^2$  test for other dichotomous variables (Child’s sex, disability level, duration of being in need of care, working status, hospital visits, activity restriction, family composition, having own house, and so on). Monthly household expenditure was used as a dichotomous variable, with a group encompassing households with expenditures in the lowest 25th percentile and a second group encompassing those above the 25th percentile. Furthermore, we conducted multivariable logistic regression with forced entry of the child, CG, and household variables shown in Figure 2 after examining multicollinearity. Child age showed relatively high correlation with CGs age ( $\gamma=0.56$ ), therefore, only child age was included into the model. Both variables of house ownership and household monthly expenditure represented socioeconomic status, and I selected household expenditure to put into the multivariable logistic regression. Finally, standard error was calculated to adjust intra-cluster correlation by clustered sandwich estimator. I referred STATA manuals 13 to use variance estimator option

([http://www.stata.com/manuals13/xtvce\\_options.pdf](http://www.stata.com/manuals13/xtvce_options.pdf) ). In addition, I also conducted sub-population analysis without 79 subjects who were in same clusters (i.e. 2-3 children per one cluster) to confirm the effects of sampling from the same cluster. This study used STATA SE, version 13 (Stata Corp., College Station, TX, USA; 2013) for all analyses.

Although CSLC is stratified random cluster sampling survey, previous studies reported that there were some limitations for estimating nationwide population-based estimation. Firstly, after stratifying by prefecture and designated cities where the population was more than 500000, a constant number of clusters were randomly sampled<sup>89</sup>. CSLC is not strictly based on probabilistic sampling according to the distribution of demographic characteristics<sup>90</sup>. The sampling method of CSLC assumes consistent distribution of demographic characteristics among prefectures. Secondary, clusters (EDs) were not sampled from entire EDs to reduce burden for responders who answered other population-based survey which the government conducted within a few years (i.e. National Survey of Family Income and Expenditure)<sup>91</sup>. For example, CSLC in 2007 excluded 320,000 EDs from total 930,000 EDs, and sampled clusters randomly from 610,000 EDs. In this manner, the sampling weights the government offers are only useful for expanding the estimated totals of the number of households or household members from a sample to the subnational level. Thirdly, Hashimoto<sup>91</sup> pointed out the discordance for distribution of age and sex between Census and CSLC due to the possibility of sampling design and also response rate of CSLC. Yamada<sup>92</sup> reported gradual decrease of response rate for CSLC: 12% decrease from 1996 to 2010 in Household and Health questionnaire. Response rate induce non-sampling error which leads to biased estimation. Yada<sup>93</sup> calculated adjusted sampling weights from the ratio of the distribution of demographic characters between CSLC and Census to adjust varied response rate among generations with microsimulation. Ikeda et al.<sup>89</sup> conducted simulation analysis to compare 2-stage cluster sampling of household with probability proportional to size with

conventional stratified sampling of a constant number. They reported multistage probabilistic sampling survey increased overall accuracy of population estimation. In this way, the methodology for estimating whole population using CSLC is still developing among researchers. Therefore, I did not adjust the sample weights in the analysis to estimate caregivers of children with disabilities nationwide.

#### Ethical Consideration

This study was approved by the official ethical review board of the University of Tsukuba (Document No.862, May/14/2014). In addition, under Article 33 of the Statistics Act, the head of an administrative organ or an incorporated administrative agency, etc. may utilize questionnaire information pertaining to statistical surveys, when finding that it would contribute to the development of academic researches. Therefore, this study obtained permission for secondary use of 2010 CSLC data according to the Statistics Act.

### **3. Results**

#### Characteristics of child, parents, and household

Table 2 shows the child, parent (main CG), and household characteristics. The mean age of the children was  $11.1 \pm 3.4$  years old, and 64.9% of the children were boys. 11.3% of children were bedridden or stayed in a sitting position in their daily lives. A total of 73.6% of children had received more than five years of care, and the percentages of those children who

required regular hospital visits or had activity restrictions were 51.2%, and 21.9%, respectively.

The mean age of the CGs was  $41.4 \pm 5.6$ , and 91.8% of the CGs were mothers. Half of the CGs had graduated from junior or high school, and less than 50% of them were currently employed. The proportion of CGs who regularly visited hospitals was 29.1%; however, 10.6% of them were visiting hospitals due to mental health problems. Furthermore, 15.1% of the CGs had experienced activity restriction during the last month due to their own health problems. The total K6 score among the CGs indicated the prevalence of psychological distress; 44.4% of CGs had a K6 score of 5+, and 8.9% had a score of 13+, which indicates serious mental illness. Among the 549 included households, 7.1% were single-parent families, and most households contained two parents or three generations. The median monthly household expenditure was 115,000 yen, and it ranged from 16,000 to 1735,000 yen.

#### Univariate analysis for CG psychological distress and related factors

Table 3 presents the univariate analysis of CG psychological distress and related factors. CG psychological distress was significantly correlated with child's visiting hospital ( $p=0.007$ ), mother as CG ( $p=0.002$ ), CG having symptom currently ( $p<0.001$ ), CG's visiting hospital ( $p<0.001$ ), CG having activity restriction ( $p<0.001$ ), and low social support ( $p=0.005$ ).

#### Multivariable logistic regression for caregiver mental health

The results of the multivariable analysis are shown in Table 4. After adjusting for the child, CG, and household covariates, CG having a current symptom (OR, 95% CI: 3.26, 1.97 – 5.39), CG activity restriction (OR, 95% CI: 2.95, 1.38 – 6.32), low social support (OR, 95% CI: 9.31, 1.85 – 46.8), three generation family (OR, 95% CI: 0.49, 0.26 – 0.92), and being in the lower 25th percentile group for monthly household expenditure (OR, 95% CI: 1.92, 1.05 – 3.54) were

significantly associated with CG psychological distress.

Due to cluster sampling, observations might have correlation within cluster and show incorrect standard error (SE). With of clustered sandwich estimator (2) in table 5, SE showed almost similar value with unadjusted analysis (1), but slightly wider in low social support. Even after examining within cluster correlation, five explanatory variables remained significantly as risk factors for CG's psychological distress; having current symptom, activity restriction, low social support (having no one to consult with), one or two parents family, and lower household expenditure. In addition, I conducted sub-population analysis (3) in table 5, which excluded 79 subjects within same clusters (2-3 subjects per one cluster). Three explanatory variables, having current symptom, activity restriction, and low social support, showed significant association with psychological distress. However, both of household characteristics such as three generation family and lower expenditure lost significant associations in this analysis. Comparing subjects 470 (group A: in unique clusters) and 79 subjects (group B: in 2 or 3 subjects per cluster), the proportion of three generation family in family composition differed from 13.0% in group A and 18.6% in group B ( $p=0.234$ ,  $\chi^2$  square test). The lower 25%tile of household expenditure showed similar proportion obviously in both groups, however, lower expenditure subjects in group B showed slightly higher proportion for having psychological distress as 60.0%, compared with 49.4% among lower expenditure subjects in group A ( $p=0.578$ , Fisher exact test). The subjects in the same cluster might have similar tendency especially for household factors. Therefore, the power would be decreased in only group A because of not for only analyzing smaller sample size, but also excluding the similar tendency group. To keep sample size and adjust cluster-related correlation, the adjustment method of (2) might be better estimation than the subpopulation analysis of (3).

## 4. Discussion

This study examined the types of factors that influence CG mental health using secondary data obtained from CSLC. We found that almost half of the CGs had psychological distress (K6 scored 5 and over) and that 8.9% of the CGs may have a serious mental illness (K6 score of 13 and above). Among the CGs, those who had any symptom currently, those who had experienced activity restriction, those who had lower social support, those who lived in single- or two-parent households, and those whose household expenditure belonged to the lowest 25th percentile were significantly more likely to have psychological distress.

The proportions of CGs with children with disabilities who had been suffering psychological distress and serious mental illness were higher than those for the overall Japanese population; in 2013, the Ministry of Health, Labor, and Welfare reported that 67.3% of community dwellers had a K6 score of 0 to 4, whereas only 2.6% of community dwellers had a K6 score of 15 or greater<sup>57</sup>. The mean and standard deviation (SD) of the K6 scores of the CGs in the current study was  $5.31 \pm 5.45$ . The mean K6 score of CGs of children with disabilities was higher than the mean score previously obtained for CGs of elderly persons, which Oshio reported to be  $4.29 \pm 4.46$ <sup>94</sup>. They used six-year panel data obtained from a nationwide population-based survey named “The Longitudinal Survey of Middle-Aged and Older Adults” and targeted CGs of 50-59 years of age, whose care recipients were most commonly their parents or parents-in-law. In another prior study<sup>80</sup>, the mothers of children with pervasive developmental disabilities had a similar mean K6 score,  $5.3 \pm 5.1$ , to that observed in the current study. Hence, much attention should be given to CGs with children with disabilities because they have a higher prevalence and severity of psychological distress than the overall population.

Currently having a symptom was another risk factor for psychological distress in CGs. Consistent with previous findings, severe somatic symptom was associated with increased psychological distress and health care utilization<sup>95</sup>. However, visiting a hospital was not significantly associated with psychological distress in the current study. Health care providers need to be aware of the possibility of CGs having psychological distress when they present with any subjective symptom, regardless of whether they visit a hospital.

Activity restriction was another risk factor for CG psychological distress. Of 52 CGs who had any type of activity restriction, half experienced 1-2 days of the restriction and nine (17.3%) experienced activity restrictions of over 7 days during the month prior to completing the survey. In this study, CGs were asked about their experiences with activity restrictions due to their own health problems. Physical health problems, mental health problems, or both could have caused the activity restriction. It is important to assess both the physical and mental health of CGs, and the effects of physical and mental health status on the social roles of CGs.

Being part of a three-generation family was a protective factor for CGs against the development of psychological distress. In previous studies, positive support from non-spousal family members also reduced the negative effects of the child's disability on parental mental health<sup>96</sup>, and informal support from a spouse, extended family members, or friends was associated with parental well-being<sup>97</sup>. Therefore, support from not only the spouse but also other family members is helpful for mothers who are taking care of a child with a disability. Ueda et al.<sup>98</sup> examined the mental health of Japanese CGs of children (over six years of age) with a disability. In her study, no support from the spouse or grandparents was a significant risk factor of poor mental health of the CG. Health care providers should be aware of the importance of social support from grandparents in addition to the spouse or partner and should ask CGs about the availability of social support from family members. In addition, the present study showed highest odds ratio (OR, 95%CI: 9.31, 1.85

– 46.8) for low social support (having no one to consult with). The lack of personal resource for CGs may have greatly affected their mental health. However, the current study did not examine what type of support, such as support from grandparents, friends, neighbors, or professionals, or what extent of support (frequency of access to the support) are the most protective against mental health problems in CGs. Further research should be performed to determine the most effective support in both qualitative and quantitative aspects.

Lower monthly expenditure, which was a surrogate variable for lower income, was significantly correlated with psychological distress in the current study. The household expenditure increases parallel to household income, however, the disparity of income is wider than the expenditure of household<sup>99</sup>. However, the household expenditure was significantly lower among parents with psychological distress even though the disparity of household expenditure might be smaller than actual income gaps. Because children with disabilities usually utilize higher health care services more frequently than other children<sup>17</sup>, they tend to have much higher health care expenditures and out-of-pocket expenditures<sup>100</sup>. Furthermore, family members may have to decrease their working hours or stop working to care for the child, especially a child with a more medically complex condition<sup>43</sup>. Thus, lower income families with children with disability may have greater financial burdens leading to parental psychological distress. However, another possible relationship between low income and parental psychological distress should be considered because this study was cross-sectional. Socioeconomic disadvantage may be a consequence of raising a child with a disability, or the cause of the disability. Spencer and Strazdins<sup>101</sup> performed a cohort study and found that socioeconomic disadvantage preceded the onset of chronic disabling conditions in children. Families with lower income tend to experience psychosocial and physical stressors, such as family turmoil, violence, and house problems<sup>102</sup>. Therefore, the CGs of lower income families in the present study may have experienced psychological distress before the onset of the

child's disability, or the onset of the child's disability may have exacerbated the CG's psychological distress that resulted lower income due to caring for the child. Future longitudinal studies should examine the changes in psychological distress among CGs overtime, and health professionals should pay attention to the support CGs receive to decrease their psychological distress in regards to supporting the child's health development.

#### Limitations and Future Directions

The current study has several limitations. First, the information regarding children's characteristics was limited. This study focused on children with disabilities in regards to severity of care needs; however, the questionnaire did not include the diagnoses of diseases or disabilities, the severity of behavioral problems, or the child's communication abilities. The children may have had cerebral palsy, congenital heart disease, autism, or a learning disability. Furthermore, we did not obtain information on medical care at home, such as medications, tubal feeding, and suctioning. Future studies should collect a more detailed medical history in regards to the underlying diseases and medical care required at home. Second, except for regular hospital visits, this study was unable to examine health care service use, such as home-visit nursing care, physician home-visit, rehabilitation service at home or at a hospital, and acute hospitalizations or emergency department visits. Home health services may have protective effects on CG mental health by maintaining the child's health regularly, and emergent health care use may indicate the level of difficulty of taking care of the child. Third, this study selected only one child from one household if there were several children at same house. I selected one child who had more severe disability, or youngest child, and excluded non-corresponding 27 children. To confirm robustness of outcome, I performed multi-logistic regression analysis with children with milder disability, or oldest child in

the family. Even this confirmation, risk factors related to psychological distress showed significance consistently. Finally, the study sample size was relatively small, though the current study obtained subjects from cluster sampling survey. It is necessary to evaluate the actual conditions of children with disabilities and families in nationwide survey. The National Survey of Children With Special Health Care Needs was a nationwide survey conducted in the US that examined medical care use and unmet medical care needs<sup>43</sup>. The current study used LSLC, which aimed to examine the living conditions of Japanese families; however, it did not focus on children with disabilities and their families. Although the survey on persons with physical disabilities conducted by the Ministry of Health, Labor, and Welfare<sup>44</sup> targeted children and adults with disabilities, it did not collect detailed information on medical care use or CG characteristics. A nationwide survey of children with disabilities and CGs is urgently needed to support the health of both disabled children and their families in Japan. The Carers Act was issued in 2014 by the United Kingdom and clearly states that local authority has the duty of assessing the carer's needs for supporting adults and children with disabilities<sup>103</sup>. In the United States, the American Academy of Pediatrics launched the Task Force on the Family and proposed several recommendations to assist families in functioning well and meeting the children's needs<sup>104</sup>. Family support is vital for promoting the child health care system and protecting the health and rights of CGs. Further attention should be paid toward the effects of health problems of CGs on the health of their children with disability and to the rights of CGs to live healthy and participate in society. Lastly, secondary data analysis is meaningful for researches in public health field to utilize database which large population of people participated toward future policy implications. Improvements of sampling and analysis methods, raising awareness toward public to increase response rate, and balanced feasible implementation to fit actual situations are needed to make accurate estimation of nationwide population from complex design sampling survey.

## **5. Conclusion**

This study encourages health care providers to pay more attention to the mental health of CGs, especially for CGs having health problems of their own, activity restrictions, or low social support and for CGs of lower income families. Further research should examine more detailed information regarding the disease and disability of children, their medical service use, and the quality and quantity of the CGs' social support to improve the method of providing supporting service for both children with disabilities and their families in nationwide survey.

## 6. Figures & Tables

Figure1. Flow of selecting samples

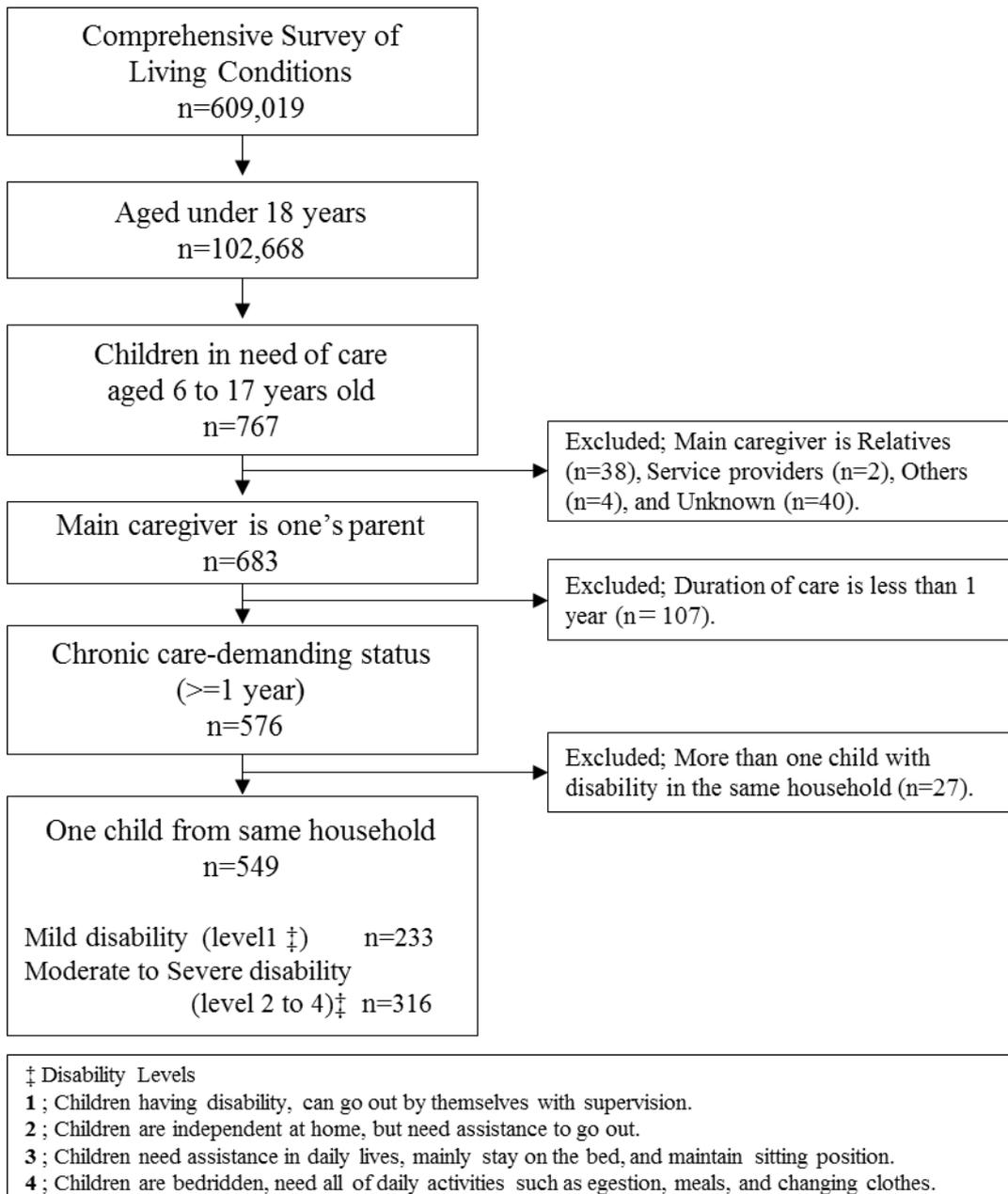


Figure 2.

The conceptual model of caregiving process and caregiver burden among pediatric population and used variables from questionnaire in multivariable logistic regression

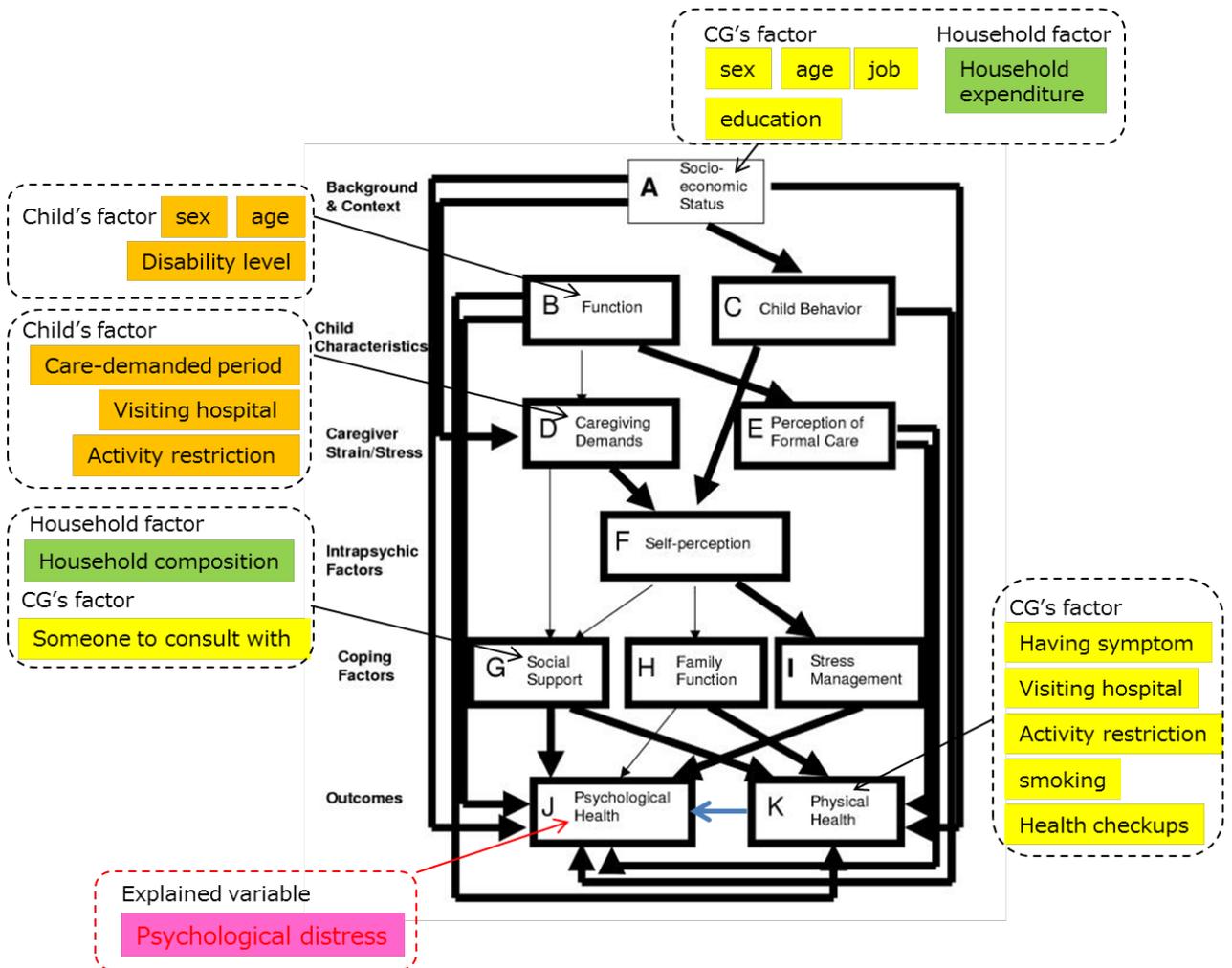


Table 1. List of variables in questionnaire and how to use variables in the analysis

<b>(1) Household questionnaire</b>		<b>variables for merge</b>		
*	enumeration district number	merge (1) + (2)		
*	area unit number			
*	household number			
1. The situation of household			<b>variables of household</b>	
1	Number of household members			
1-1	Single household or not			
2	Household members who do not live together			
3	Type of house		Background	
4	Number and area of rooms			
5	Household monthly expenditure		Background	
5-1	Expenditure for childraring under 6 years old			
5-2	Expensiture for sending money to other family			
6	Type of houshold composition		Social support	
2. The situation of household members			<b>variables of child</b>	<b>variables of caregiver</b>
*	number of household member			
1	The person who earn the most in the family			
2	Relationship with head of household			
3	Sex	merge (1) + (2)	Child characteristics	
4	Birth date		Child characteristics	Background
5	Suposure or not			
6	Medical insureance			
7	Receiving pension or not			
8	Childraring for the child under 6 years old			
<Question for 6 years old and over>				
9	Need assistance or supervision (6 years old and over)		defining "child with disability"	
9-1	Disability level		Child characteristics	
9-2	Care-demanding period		Caregiving demands	
9-3	Certification of long-term care need			
9-4	Caregiver (number of household member)	merge child + caregiver		defining "caregiver"
9-5	Relationship of caregiver with care-recipient			
9-6	Sex of caregiver			Background
<Question for 15 years old and over>				
10	Graduation from school			Background
11	Pay for pension			
12	Having a child who live separately			
12-1	The place of child who live separately			
13	Working status			Background
14	Days and hours of working per week			
15	Year of starting job			
16	Type of job			
17	Employment or self business			
17-1	class of working status			
17-2	size of the company			
18	Willingness for work			
18-1	type of hoping job			
18-2	can work immediately or not			
18-3	seeking a job			
18-4	the unable reason for working immediately			

<b>(2) Health questionnaire</b>		<b>variables for merge</b>	<b>variables of child</b>	<b>variables of caregiver</b>
	*	enumeration district number		
	*	area unit number	merge (1) + (2)	
	*	household number		
1		Sex	merge (1) + (2)	Child characteristics
		Birth date		Child characteristics
2		Admitted to hospital or not		
3		Having a symptom or not		Physical health
	3-1	types of symptom		
	3-2	Treatment for the symptom		
4		Visiting a hospital or not		Caregiving demands
	4-1	types of disease		Physical health
5		household monthly expenditure for treatment		
6		Having any effects on daily living		
	6-1	types of effects		
7		Having activity restrictions at least one day during last month		Caregiving demands
8		Self-reported health status		Physical health
<Question for 12 years old and over>				
9		Having anxiety or stress		
	9-1	reason for anxiety or stress		
	9-2	source for consulting about stress		Social support
10		K6 score		Psychological health
11		Smoking habits		Physical health
<Question for 20 years old and over>				
12		Receiving health checkups during last year		Physical health
	12-1	the place of health checkups		
	12-2	suggestion for visiting a physician		
	12-3	pay attention to healthy habits		
	12-4	the reason for not receiving health checkups		
13		Receiving cancer checkups during last year		

Table 2. Characteristics of children, parent as main caregiver, and household

Children (n=549)		n (%)
Age	(Mean, SD) (range)	11.1, 3.4 ( 6 - 17 )
Sex (Male)		356 (64.9)
Bedridden status / Morbidity		
1 Able to go out by oneself with supervision		233 (42.4)
2 Need assistance to go out		254 (46.3)
3 Able to maintain sitting position		23 (4.2)
4 Bedridden		39 (7.1)
Duration of being cared was more than 5 years		404 (73.6)
Visiting hospital regularly (yes)		281 (51.2)
Activity restriction due to own health condition (ie. school absence) in during last month (yes)		120 (21.9)
<hr/>		
Parent (Main caregiver)		
Age	(Mean, SD) (range)	41.4, 5.6 ( 28 - 60 )
Female		504 (91.8)
Graduation from junior high school or high school		257 (50.7)
Working status (yes)		267 (48.6)
Having a symptom in a few days		244 (44.4)
Visiting hospital regularly (yes)		160 (29.1)
Visiting hospital due to mental health problem		17 (10.6)
Activity restriction due to own health condition (ie. job absence) in during last month (yes)		83 (15.1)
Total score of K6 (Median, IQR)		4 (0 - 8)
Scored 5 and over		244 (44.4)
Scored 13 and over		49 (8.9)
Not having someone to consult with		25 (4.5)
Not visited health checkups during last year		254 (46.3)
Smoking experience (Everyday, occasional, or previously)		117 (21.3)
<hr/>		
Household		
Family composition	- Single parent	39 (7.1)
	- Two parents	400 (72.9)

- Three generation family	95 (17.3)
- Other	15 (2.7)
House ownership	372 (67.8)
Monthly household expenditure ( ¥10,000 / the square root of person in household) (median, IQR)	11.5 (9.0-15.0)
(range)	(1.6 - 173.5)

---

‡ ¥10,000 / the square root of person in household

[Missing subjects] Child: age (0), sex (0), disability (0), duration of being cared (0), visiting hospital (31), participation restriction (54). Caregiver: age (0), sex (0), education (42), working status (2), having symptom (14), visiting hospital (13), activity restriction (26), k6 (33), low social support (67), health checkups (11), smoking (20). Household: family composition (15), house ownership (0), monthly household expenditure (0).

Table3. Association caregiver's mental health and characteristics of children, caregiver, and household

		K6 score < 5		K6 score ≥ 5		p
		n	(%)	n	(%)	
<b>Child</b>						
Age (n=514)	(mean, SD)	272	(11.3, 3.4)	244	(11.0, 3.3)	0.232
Sex (n=516)						
Male		176	(52.2)	161	(47.8)	0.761
Female		96	(53.6)	83	(46.4)	
Bedridden status / Morbidity (n=516)						
1:Able to go out with supervision		116	(53.7)	100	(46.3)	0.702
2-4: Need assistance to go out, Sitting position, or Bedridden		156	(52.0)	144	(48.0)	
Duration of being in need of care (n=516)						
More than 1 year		72	(54.1)	61	(45.9)	0.703
More than 5 years		200	(52.2)	183	(47.8)	
Visiting hospital regularly (n=494)						
No		135	(59.0)	94	(41.0)	<b>0.007</b>
Yes		124	(46.8)	141	(53.2)	
Activity restriction (n=476)						
No		193	(53.6)	167	(46.4)	0.401
Yes		57	(49.1)	59	(50.9)	
<b>Caregiver</b>						
Age (n=514)	(mean, SD)	272	(41.2, 5.7)	244	(41.4, 5.5)	0.715
Sex (n=516)						
Male		31	(75.6)	10	(24.4)	<b>0.002</b>
Female		241	(50.7)	234	(49.3)	
Education (n=475)						
graduate from junior high, or high school		119	(49.2)	123	(50.8)	0.149
graduate from college, or others		130	(55.8)	103	(44.2)	
Working status (n=514)						
No		139	(51.9)	129	(48.1)	0.753
Yes		131	(53.3)	115	(46.7)	
Having a symptom in a few days (n=512)						

No	188	(66.9)	93	(33.1)	<b>&lt;0.001</b>
Yes	81	(35.1)	150	(64.9)	
Visiting hospital regularly (n=513)					
No	212	(58.7)	149	(41.3)	<b>&lt;0.001</b>
Yes	57	(37.5)	95	(62.5)	
Activity restriction (n=507)					
No	248	(58.1)	179	(41.9)	<b>&lt;0.001</b>
Yes	21	(26.3)	59	(73.8)	
Having someone to consult with (n=472)					
Yes	246	(54.9)	202	(45.1)	<b>0.005¶</b>
No	2	(8.3)	22	(91.7)	
Visited health checkups during last year (n=514)					
Yes	146	(54.3)	123	(45.7)	0.406
No	124	(50.6)	121	(49.4)	
Smoking experience (n=515)					
Never	209	(52.1)	192	(47.9)	0.669
Every day, occasional, or previously	62	(54.4)	52	(45.6)	
<b>Household</b>					
Family composition (n=516)					
Single parent, two parents	213	(51.2)	203	(48.8)	0.117
Three generation family	52	(60.5)	34	(39.5)	
Having own house (n=516)					
Yes	192	(54.5)	160	(45.5)	0.222
No	80	(48.8)	84	(51.2)	
Monthly household expenditure‡(n=516)					
Upper 25% tile and over	223	(53.6)	193	(46.4)	0.407
Lower 25% tile	49	(49.0)	51	(51.0)	

‡ ( ¥10,000 / the square root of person in household)  $\chi^2$  test ¶ Fisher exact test

[Missing subjects] Child: age (35), sex (33), disability (33), duration of being cared (33), visiting hospital (55), participation restriction (73). Caregiver: age (35), sex (33), education (74), working status (35), having symptom (37), visiting hospital (36), activity restriction (42), low social support (77), health checkups (35), smoking (34). Household: family composition (33), house ownership (33), monthly household expenditure (33).

Table 4. Factors related to caregiver's mental health ( $K6 \geq 5$ ) in multivariable logistic regression

(n=379)		OR	95% CI		
Child	Age	0.95	0.88	—	1.02
	Sex (ref. female)	0.77	0.46	—	1.27
	Disability level 2-4 (ref. level 1)	1.33	0.80	—	2.21
	Longer cared duration (ref. <5 years)	1.20	0.69	—	2.09
	Regular hospital visits (ref. no)	1.58	0.98	—	2.55
	Had activity restriction (ref. no)	0.74	0.41	—	1.32
CG	Sex (ref. male)	1.93	0.68	—	5.52
	Working status (ref. no)	1.39	0.84	—	2.30
	<b>Having current symptom (ref. no)</b>	<b>3.26</b>	<b>1.97</b>	—	<b>5.39</b>
	Regular hospital visits (ref. no)	1.48	0.86	—	2.55
	<b>Had activity restriction (ref. no)</b>	<b>2.95</b>	<b>1.38</b>	—	<b>6.32</b>
	<b>Having someone to consult (ref. yes)</b>	<b>9.31</b>	<b>1.85</b>	—	<b>46.83</b>
	Had no health checkups during last year. (ref. yes)	1.26	0.78	—	2.04
	Never smoke (ref. having smoking experience)	1.06	0.57	—	1.99
	Graduate from junior high school or high school (ref. junior college or above)	1.25	0.78	—	2.03
Household	<b>Three generation family (ref. one or two parents)</b>	<b>0.49</b>	<b>0.26</b>	—	<b>0.92</b>
	<b>Low 25%tile group of monthly household expenditure ‡ (ref. 75%tile of higher income group)</b>	<b>1.92</b>	<b>1.05</b>	—	<b>3.54</b>

‡ ¥10,000 / the square root of person in household)

Hosmer-Lemeshow gof: p=0.374

Table 5. Within-cluster correlation analysis and sub-population analysis

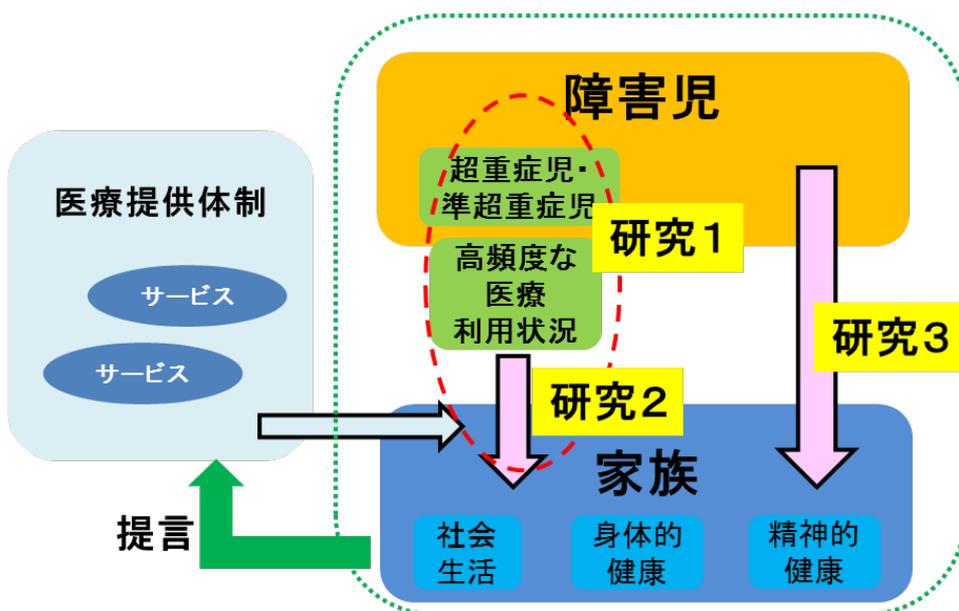
		1) Multiple logistic regression (n=379)				2) clustered standard error estimation (n=379)				3) Sub poputaion analysis (n=326)			
		SE	OR	95%CI		SE	OR	95%CI		SE	OR	95%CI	
Child	Age	0.04	0.95	0.88	— 1.02	0.04	0.95	0.88	— 1.02	0.04	0.94	0.87	— 1.02
	Male	0.2	0.77	0.46	— 1.27	0.19	0.77	0.47	— 1.26	0.21	0.76	0.44	— 1.32
	Disability level 2-4	0.35	1.33	0.80	— 2.21	0.35	1.33	0.79	— 2.23	0.36	1.31	0.76	— 2.26
	Longer cared duration	0.34	1.2	0.69	— 2.09	0.34	1.20	0.69	— 2.09	0.31	1.03	0.57	— 1.86
	Regular hospital visits	0.39	1.58	0.98	— 2.55	0.38	1.58	0.98	— 2.53	0.43	1.60	0.95	— 2.70
	Had activity restriction	0.22	0.74	0.41	— 1.32	0.21	0.74	0.42	— 1.3	0.23	0.72	0.39	— 1.33
CG	Female	1.04	1.93	0.68	— 5.52	1.03	1.93	0.68	— 5.52	0.83	1.52	0.53	— 4.41
	Working	0.36	1.39	0.84	— 2.3	0.36	1.39	0.83	— 2.32	0.45	1.61	0.93	— 2.80
	<b>Having current symptom</b>	0.84	<b>3.26</b>	<b>1.97</b>	— <b>5.39</b>	0.83	<b>3.26</b>	<b>1.98</b>	— <b>5.36</b>	0.80	<b>2.88</b>	<b>1.67</b>	— <b>4.95</b>
	Regular hospital visits	0.41	1.48	0.86	— 2.55	0.39	1.48	0.88	— 2.48	0.47	1.59	0.89	— 2.85
	<b>Had activity restriction</b>	1.15	<b>2.95</b>	<b>1.38</b>	— <b>6.32</b>	1.10	<b>2.95</b>	<b>1.43</b>	— <b>6.11</b>	1.24	<b>3.00</b>	<b>1.33</b>	— <b>6.76</b>
	<b>Not Having anyone to consult</b>	7.67	<b>9.31</b>	<b>1.85</b>	— <b>46.8</b>	8.25	<b>9.31</b>	<b>1.64</b>	— <b>52.9</b>	8.39	<b>10.1</b>	<b>1.96</b>	— <b>51.6</b>
	Had no health checkups during last year	0.31	1.26	0.78	— 2.04	0.31	1.26	0.79	— 2.03	0.33	1.26	0.75	— 2.12
	Never smoke	0.34	1.06	0.57	— 1.99	0.35	1.06	0.56	— 2.01	0.49	1.38	0.69	— 2.77
	Graduate from junior high school or high school	0.31	1.25	0.78	— 2.03	0.30	1.25	0.79	— 2.00	0.34	1.30	0.78	— 2.18
	Household	<b>Three generation family</b>	0.16	<b>0.49</b>	<b>0.26</b>	— <b>0.92</b>	0.16	<b>0.49</b>	<b>0.26</b>	— <b>0.92</b>	0.20	0.59	0.30
<b>Lower 25%tile group of monthly household expenditure</b>		0.60	<b>1.92</b>	<b>1.05</b>	— <b>3.54</b>	0.63	<b>1.92</b>	<b>1.02</b>	— <b>3.64</b>	0.57	1.69	0.88	— 3.26

## 第5章 考察

研究1・2を通して、茨城県内の超重症児・準超重症児の医療利用状況や家族の介護負担について調査し、研究3において障害児を介護する親の精神的健康度について検討した。研究1・2から高頻度な医療利用状況と家族に与える影響が明らかになり、受診時の移動支援の必要性や、病院中心の医療サービスではなく地域における在宅中心の医療サービスの必要性を認識した。さらに研究3から介護者自身の健康問題やサポートの乏しさが精神的健康度に関係していることが判明した。

これらを総括し、家族の介護負担の軽減に向けたサービスの充実や医療提供体制の整備についての提言と、障害児と家族を焦点にあてた研究の必要性について考察する(図1)。

図1. 博士論文の構成



## 1). 質的・量的なサービスの充実 ～レスパイト・ケアに着目して

研究1・2において、超重症児・準超重症児の医療利用状況は非常に頻回で、受診にも人手と時間を要し、父親の就労にも影響を与えることが明らかになった。同時に、病院中心の医療サービスに依存しており、在宅での医療サービスの利用は乏しく、研究2の対象者数は限られてはいるが、訪問看護利用者が36.6%、訪問介護は4.9%であった。小児の在宅医療分野では、地域における医療・介護サービス及び資源の不足は以前から指摘されており、小児科学会が中心となって実施された8府県の超重症児の調査<sup>39</sup>では在宅生活を送る超重症児（準超重症児も含む）のうち、訪問診療の利用は7%、訪問看護の利用は18%、訪問介護の利用は12%に留まっていると報告されていた。この先行研究は2008年の報告であり、本研究では訪問看護の利用頻度は増加しているものの、長い介護時間と高度で複雑な医療的ケアを要する状態を考えると、在宅での医療サービスの質的・量的な拡充が必要であると考えられる。

特に、医療的ケアが重度な障害児のケアを在宅で継続していくためには、研究の調査でも子どもを預けられる場所・サービスへの要望が多かったことから分かるように、家族への休息は必須である。レスパイト・ケアとは、代替りの人がケアを提供することで介護者に小休止を与えるサービス<sup>105</sup>を指すが、児の体調をみながらサービスの調整し、介護者にとっては罪悪感を感じることもあるなど、レスパイト・ケアを使用するまでには様々な試練を潜り抜ける（‘jumping through hoops’<sup>106</sup>）必要がある、と表現されることもある。それでも、介護者の介護負担の軽減や社会参加、他の家族のために使う時間の確保、児の社会参加や将来に向けた準備等を目的に、レスパイト・ケアに対するニーズは高い<sup>107</sup>。レスパイト・ケアの実施には日中に小児が家を離れて過ごす短期入所（ショートステイ）、デイサービス（日中一時支援事業）、レスパイト入院（病院で実施するもの、診療報酬に含まれていない）と、自宅で家族の代替りのケア提供者が介護する在宅レスパイト（ホームベースレスパイト）などが挙げられる<sup>108</sup>。

レスパイト・ケアを充実させていくためには、実際に取り組みを行っている先進的な地域、自治体、医療施設の例を、いくつか記載する。

ホームベースレスパイト（訪問レスパイトとも言う）については、訪問看護師や訪問介護士による長時間滞在であり、横浜市や熊本県での取り組みが報告されている。横浜市では非営利団体（NPO）が訪問看護師による訪問レスパイトサービスを運営しており、滞在時間は希望に応じて30分～12時間まで（平均3.3時間）と柔軟な取り組みを実施している<sup>109</sup>。最初の1時間を訪問看護として訪問し、その後数時間をヘルパーとして（障害者総合支援法による居宅介護事業としての訪問として）同じ訪問看護師が訪問することにより、長時間の訪問によるレスパイト・ケアの提供を可能としている。利用理由は、母親の仕事、母親自身の通院、同胞の学校行事への参加など母親外出に伴うものだけでなく、更には、障害児の受診やリハビリ時の付添い等もあり、児本人の外出支援や外出先での医療的ケアの依頼も受けている。障害児を預けたい場合、デイサービスは数そのものが少なく、日中短時間気軽に預けにくい現状があり、通常の訪問看護の訪問時間（1時間～1時間半）では家族の外出は困難であるが、本サービスでは自宅での長時間のレスパイト・ケアによって児を移動させずに安心できると言われている。熊本県では、研究者が中心となって訪問看護ステーションに依頼して研究費から助成する形で、人工呼吸器管理の児の家族に対し、定期的ホームベースレスパイトを提供している<sup>110</sup>。訪問看護師は1回6～8時間滞在し、月に2～4回実施していた。家族は看護師が長時間滞在することに対する戸惑いや気兼ねを感じる人もいたが、定期的な訪問を継続することで看護師と家族の安心感や信頼感は増強した<sup>110</sup>と報告されていた。このような取り組みを全国で展開していくためには財政的なサポートとトレーニングを受けた看護師の人手が必要である。特に医療的ケアの複雑な超重症児・準超重症児においては、デイサービスなどの自宅外の施設に行くよりも、児を移動させずに在宅で提供できるレスパイト・ケアは児及び家族にとって負担が小さく、有用であると考えられる。

地域で提供しうるレスパイト・ケアとしてはデイサービス（日中一時支援事業）や短期入所（ショートステイ）があるが、先行研究では高度な医療的ケアを有する児ほど、デイサービスやショートステイが利用できない実態があると報告されている。田中ら<sup>111</sup>は、医療的ケアを有する児の家族 142 人中、約半数がデイサービス又はショートステイを断られた経験があり、その理由は空床がない、医療スタッフが足りない、医療的ケアが高度である、休日には利用できない、等であった。

地域におけるレスパイト・ケアの先進的な取り組みとして、栃木県に重症障害児者用のレスパイト施設を併設した診療所がある<sup>112</sup>（筆者も実際に訪問し見学した）。人工呼吸器など重度な医療的ケアを持つ障害児を日中預けることができる施設であり、障害児の医療的ケアや遊びにも精通した看護師、介護士が勤務している。経営面としては、常勤の看護師と非常勤の介護士を雇う人件費は 1 日 20000 円程度かかるが、デイサービスに来ることを医療機関の受診とすると再診料の 1230 円しか収入にならず、障害者自立支援法に基づく日中一時支援事業を医療機関で行うこととしても 1 回収入は 10000 円にしかない。そのため、2008 年より宇都宮市が重症障害児者医療的ケア支援事業として、行政からのサポート体制も開始された（医療的ケアの内容と預かる時間によって、7500 円～24000 円の報酬が設定され、家族の自己負担額が 4 時間まで 500 円、4～8 時間が 1000 円に設定されている<sup>112</sup>）。在宅生活を送る障害児とその家族にとって、重症な障害児にも手厚いケアを提供してもらえるデイサービスは非常に貴重であるが、その反面、医学的に不安定な状態になりやすい児の特性から、サービス利用の突然のキャンセル（発熱や受診、入院等）が生じやすいという問題がある。経験のある看護師や介護士を一定数常に雇っていることで人件費がかかるため、行政からの財政的な援助が今後も必要である。また本施設の運営者からの報告<sup>112</sup>で重要な点は、デイサービスは子どもにとって楽しい場にしていないと家族が預けるときに罪悪感やためらいを感じてしまう、という点である。高齢者を専門としているデイサービスでは高度な医療的ケアを持つ障害児を扱うことに慣れておらず、さらに児

の発達や教育的支援という視点は抜け落ちていることが多い。家族にとっての休息という目的だけでなく、障害児自身の発達や成長、喜びにもつながるような障害児のニーズに合わせたデイサービスの場が増えることは、障害児・家族の生活の質を保つ意味でも非常に重要であると考えられる。

さらに、上記のレスパイト・ケアに加えて、急性期病棟を用いて実施する「レスパイト入院」は家族の介護負担を軽減するために考え得る一つの方策である。先行研究では、急性期病棟で超重症児が少なくとも2人以上長期入院していた57病院のうち、11病院(18%)しかレスパイト入院の体制を持っていなかったと報告されている<sup>113</sup>。レスパイト入院の欠点は、レスパイト入院を計画していても他の児の緊急入院(急性疾患)が生じればベッドが空いていない可能性や児の体調が急変する場合があることである。また現行の診療報酬ではレスパイト入院は認められていないため、治療や検査があくまでも入院の主目的であり、介護負担軽減は副目的という建前での入院形式をとる場合が多い。レスパイト入院の利点は、看護体制の手厚い急性期病棟で医療的ケアを超重症児に提供できることである。なぜならば超重症児は医療的ケアが複雑、頻回なため通常のデイサービスやショートステイでは断られてしまうことが多いため、家族の付添なしに急性期病棟で入院することができるのと家族にとっては休息を得やすい。医療従事者にとっても、レスパイト入院中に外来では実施することが困難な検査の実施することが出来たり、児の状態を長時間観察することが出来たりして、投薬・呼吸器設定の調整などの体調管理を行うこともできる。その結果、児の体調が安定し、緊急外来受診や緊急入院の減少に繋がる可能性も考えられる。レスパイト入院を実施可能にするために、日本小児科学会、日本周産期・新生児医学会は「地域一般小児病棟におけるレスパイト医療管理料」を診療報酬に導入するという要望書を厚生労働省に提出している<sup>114</sup>。残念ながら、本研究ではレスパイト入院を実施していた児の人数が少なく、レスパイト入院が緊急入院や緊急外来受診を減少させたか、または家族の介護負担がどの程度軽減したかについての効果検証を実施することはできなかった。

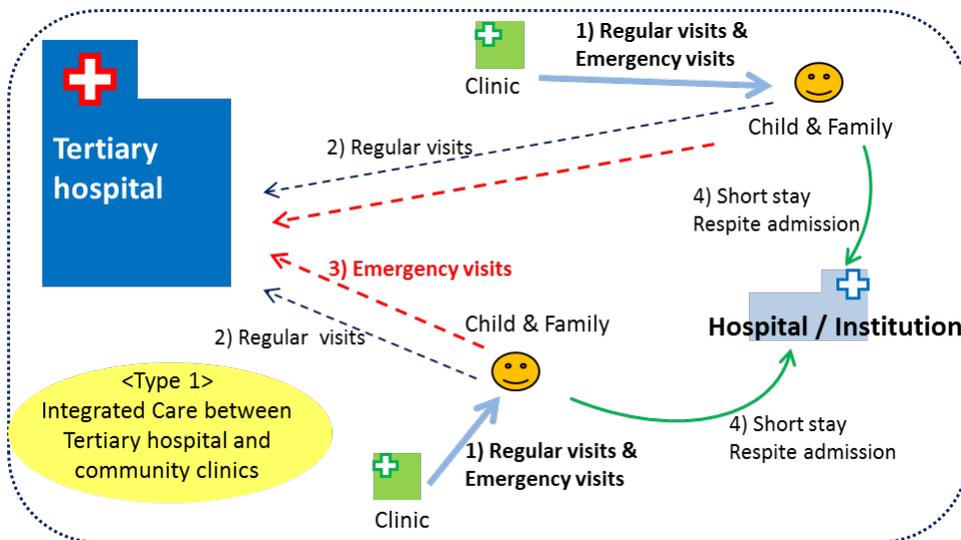
た。レスパイト入院が効果的な児とそうではない児もいると考えられ、限られた病院と地域のリソースの中で、適切なサービスの取捨選択が必要となると考えられる。

今後の研究では、これらそれぞれのサービスの特徴と利用者のニーズを踏まえた上で、どのような種類のサービスの組み合わせが、どのような児にとって有用であり、家族の健康や社会参加に良い影響を与えるかという、ケア・コーディネーションについても検討していくべきである。以上のような様々な地域の医療福祉サービスを利用して組み合わせるためにも、介護保険のケアマネジャーのような、ケア・コーディネートをする専門職が障害児とその家族にとっても必要である。

## 2). 高度な医療的ケアをもつ障害児とその親を支えるヘルスケアシステムとは

以上のようなレスパイト・ケアをそれぞれの地域において、量的にも質的にも充実させていくことは必要であるが、さらに長期的な視点で障害児を支える医療的提供体制の整備ならびに拡充も行っていく必要がある。土島は、在宅医療提供体制を整備していくにあたり、2つの方向性について言及している<sup>115</sup>。一つは、「総合病院－開業医連連携型（タイプ①）」であり、もう一つは「地域中核病院包括型（タイプ②）」である。タイプ①は米国およびカナダ等で“Integrated Care Coordination”と呼ばれるものに近く、タイプ②は“Hospital-based Comprehensive Care Coordination”に近いと考えられる。

図 1. タイプ①：総合病院－開業医連携型（Integrated Care Coordination）

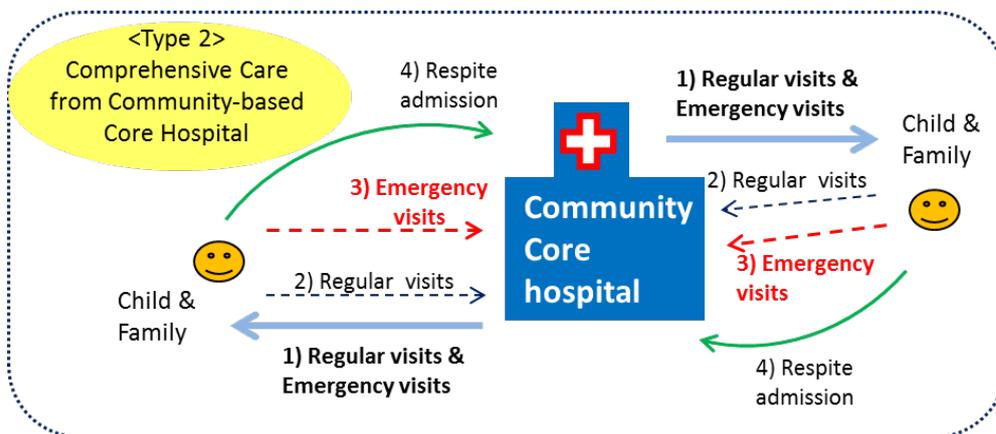


タイプ①の図では、医療利用の様子を矢印（1-4）と、実線は定期的な利用、破線は不定期な利用として示している。超重症児は多くの場合、三次医療機関で様々な治療を受け、医療的ケアを導入して在宅に退院する。地域の診療所が定期的な訪問診療を行い（矢印 1）、日常的な児の体調管理や胃瘻交換などのメンテナンス、さらに予防治療としての予防接種などを実施する。また発熱時などには、初期対応も提供する。超重症児は基礎疾患が複雑であるため、数か月に一度は検査や管理のために三次医療機関を受診したり（矢印 2）、体調不良で在宅での初期対応以上の検査や治療が必要な場合には救急受診を行う（矢印 3）。超重症児とその家族は、地域にレスパイト・ケアとして、短期入所やデイサービス、レスパイト入院などが出来る施設を利用することもできる（矢印 4）。このような体制を効果的に運営するためには、各医療機関は役割分担を明確にし、障害児の退院前から退院後も継続的に、施設間・医療者間で相談のしやすい連携体制を構築することが最も重要である。超重症児はたいてい新生児集中治療室（NICU）や小児集中治療室（Pediatric Intensive Care Unit: PICU）に入院した経験を持ち、その三次医療機関の医療者との信頼関係が強いため、三次医療機関から地域の医療提供体制に移行する際に、新たな信頼関係の構築とケア・コ

ーディネーションが必要となる。もしこのシステムが効果的に運用されれば、障害児の三次医療機関への受診回数は減少させることができ、また三次医療機関のバックアップ体制があることにより地域の診療所も重度な医療的ケアをもつ障害児の診療に携わることへの抵抗感も軽減させることができるだろう。

タイプ①のヘルスケアシステムを実施している諸外国の研究では、障害児の健康状態やケアの質、医療利用状況やその医療費などについて報告されていた<sup>116,117</sup>。例えば、カナダで実施されているシステム（Integrated care）では、診療所は地域の小児科医4人で運営されており、三次医療機関の診療看護師（nurse practitioner: NP）が毎週遠隔医療（telemedicine）に参加して実施されていた。NPと家族が相談した上で包括的ケアプランを作成しており、この方式を通して家族と医療提供者は満足度が高く、介護者のQOLは向上し、三次医療機関の関与をより減らすことが出来たと報告されていた<sup>116</sup>。

図2. タイプ②：地域中核病院包括型（Hospital-based Comprehensive Care Coordination）



このタイプ②では前図同様に、医療利用の様子を矢印（1-4）と、実線は定期的な利用、破線は不定期な利用として示している。地域中核病院が一次から三次までの医療的ケアを提供する形式となる。その地域における三次医療機関から退院することが多いた

め、その医療機関における同じ医療従事者から訪問診療を受けることが出来る（矢印 1）。訪問診療では通常の管理だけではなく、発熱など体調不良出現時の早期対応も行う。超重症児は特殊な検査や治療が必要なことがあるため数か月に 1 回は病院を受診する必要がある（矢印 2）、また体調不良が悪化した際にも受診することができる（矢印 3）。さらに、急性期病棟でレスパイト入院も提供する（矢印 4）。この医療機関は地域の中核病院として一次から三次までカバーする役割を持っており、さらに NICU 又は PICU を備えていることが多い。そのため他の三次医療機関（大学病院や子ども病院など小児重症患者の多い病院）と比較すると重症の障害児の数はそこまで多くはないが、一定数の超重症児が存在しており、包括的なヘルスケアの提供が可能である。家族は入院初期から同じ医療従事者に関わってもらえる安心感があるのが最大の利点だが、欠点としては、一病院で対応しているため緊急入院者が増加した場合に空床が無くなるなど、柔軟な対応が困難になる場合もある。タイプ①と同様に、ケア・コーディネーションは重要であり、家族の介護負担を軽減させるため、在宅でのサービス（訪問診療など）と病院でのサービス（受診やレスパイト入院）とのバランスをとることが必要となる。タイプ②と同様の病院が主体となった包括的ケア（Hospital-based comprehensive care programs）の報告は他国からもあり、一つのシステムティックレビュー<sup>118</sup>では、アメリカ、カナダ、オーストラリアから 33 のプログラムがあり、適切に、効果的に、家族や児を中心としたケアを提供されたと報告されていた。しかしながら、ケア提供は地域の医療者がすべきか、病院の専門医がすべきかについては、超重症児の複雑さや基礎疾患の多少さがあるため議論が分かれるところである<sup>119</sup>。

日本国内でも地域におけるサービスの利用可能性に違いがあり、医療従事者は地域のリソースとニーズのバランスを考慮して、ヘルスケアシステムを整備して行く必要がある。例えば、大阪小児科医会<sup>120</sup>では Integrated care system に近いシステムを構築しつつある。医療的ケアが複雑な超重症児・準超重症児が病院を退院する前に、大阪小児科医会は地域の診療所の医師に事前にどのような治療・ケアなら提供可能かどうかを調査している。

多くの地域の診療所の医師は内科医や家庭医であり、高齢者への在宅医療に従事しているが、高度な医療的ケアを持つ障害児への在宅医療に関わることに對してためらいや戸惑いを感じることもある。そのため、大阪小児科医会は地域資源のキャパシティと児および家族のニーズを組み合わせ、三次病院との役割分担を行い連携・調整をしている。さらに大阪府では、三次病院の急性期病棟の中でレスパイト入院用にベッドを確保できるように、府や市町村から補助金が出るような体制もとっている。レスパイト入院は横浜市では平成24年度から、「メディカル・ショートステイ」という名称で、市立病院・地域中核病院の7病院の協力のもと、小児科病棟の空床を利用してショートステイを実施している<sup>121</sup>。医療的ケアを要する児で利用希望がある児は事前に登録をしておいて、緊急時またはレスパイトなど事由を限定しないことになっている。利用したいときに児童相談所を通じて申し込みを行い、市の担当部署にいる看護師がコーディネーターとして各病院への連絡・調整を実施する。このようにして、超重症児・準超重症児とその家族を支援するための医療提供体制を整備し始めている地域も出てきている。茨城県内では特に、どのように医療的ケアの高度な障害児を支援していくのか、医療提供体制の構築が求められる。

### 3). 更なる研究の必要性 ～介護者への幅広い介護負担の評価と全国規模での実態把握

本研究1・2では、家族への負担の一側面として、外来受診回数、入院回数、外来受診時の付添人数、外来受診による仕事への影響、受診にかかる時間、経済的負担などについて調査した。外来で聞き取り調査の時に、保護者から「突然、看護師にならなければならなくなった」という発言があり、高度な医療的ケアを習得して介護せざるを得ない状況に追い込まれているという印象を受けた。障害児の家族は生まれた瞬間（障害が発生した瞬間）から親としての役割だけではなく、必然的に予期しないうちに介護者という役割

を担うことになる (“*unexpected career of caregiver for a child with a disability*”) <sup>23</sup> といわれているが、介護者だけではなく、医療行為のレベルの高い超重症児・準超重症児では、看護師に近い役割も担っていることが推察される。重度な医療的ケアを持つ障害児を育てるといことが、保護者の身体的・精神的健康にどれほどの影響を与えるのか、更には仕事や友人付き合いなども含めた社会的・経済的影響をどれほど受けるのか、という視点も含めた、包括的・多面的な在宅療養生活の評価と家族支援の体制構築が望まれる。アメリカ小児科学会では 1997 年に家族に関する特別委員会 (Task Force on the Family) を設立した <sup>104</sup>。特別委員会では、家族の身体的・精神的健康、社会環境や養育が子どもの健康やウェルビーイングに繋がっていると説きされており、家族中心の小児科診療の実施や政策提言、家族を支援し子どものニーズを満たすための研究を推奨している。子ども及び家族の健康・ウェルビーイングに焦点を当てた診療や研究が今後重要になってくると考えられる。

また、本研究 3 では国民生活基礎調査という約 60 万人が回答している調査を用いて、障害児とその家族の精神的健康状態との関連を検討したが、介護者の健康状態で検討したものは精神的健康度のみであり、更に障害児の定義には限界があり抽出しえた障害児は 549 名のみであり、全国の障害児と家族の現状を反映させられる結果には至らなかった。アメリカにおける障害児に関する全国調査 <sup>43</sup> では、調査項目に医療利用状況として、過去 12 か月間の外来受診回数、救急外来受診回数、学校欠席日数などが含まれており、家族の介護負担として、自己負担額、子どもの介護で仕事を休んだり辞めたりしたかどうか、などの項目が含まれている。カナダでの研究では *Children with medical complexity* <sup>122</sup> (超重症児・準超重症児にあたりと考えられる) は小児人口の 0.67% であるが、小児の医療費の約 1/3 を占めていることが報告されている。超重症児・準超重症児の数は増加傾向にあり、ますます医療費は増大していくことが予測されるため、外来受診頻度や入院頻度などの医療利用状況も介護負担の指標として評価していくことは重要である。そして、その医療利用状況や医療的ケアの実態を把握した上で、介護者である家族にどれだけの身体的に、精神

的に、そして社会的にも影響を与えるかまで検討することが、そして介護者である家族の希望に沿った在宅療養生活を継続していくために、必要であると考えられる。

最後に、子どもの身体的な健康状態、精神的な健康状態の評価を忘れてはいけない。緊急受診や入院は介護する家族にとって負担が大きいだけでなく、当然子ども自身にとっても負担が大きい。誤嚥性肺炎を繰り返すことは呼吸機能を低下させ、骨折や褥瘡は疼痛や苦痛を生じ、感染症は致命的になることもある。しかしながら、障害児にとって、健康状態を安定化させることだけが、在宅療養生活上で最も重要なことではなく、子どもたちの生活の質に対しても、着目すべきである。例えば、研究2において、介護する家族が他人にサポートを頼む用事として、「日常的な家事」「障害のあるお子さんのケア」「他のお子さんのケア」という項目を入れたが、「障害児と遊ぶこと」という項目は選択肢にいれていなかった。一人の回答者がこの回答をその他の欄に記載し、私の質問項目が医療的な側面に偏っており、障害児の生活の質に対する視点が欠けていたことを実感した。要望の自由記載においても、複数の保護者が障害児に対する訪問のヘアカットサービスを希望しており、このサービスも医療者では思いつきにくいものであった。どんなに重たい障害を持っていたとしても、全ての子どもに健康的な、幸せな生活を送る権利があり、超重症児・準超重症児の身体的健康だけでなく、家族の満足度や介護負担の軽減とともに、障害児自身のウェルビーイングにも注意を払うべきである。そして、さらなる研究として、様々なサービスをどのように組み合わせるかという、ケア・コーディネーションを通して、家族の負担軽減や、ケアの質の評価、子どもの健康状態の維持・改善について検討していく必要があると考えられる。

## 第6章 結語

本研究を通して、障害児をケアする家族は、医療的ケアが重度であると高頻度な医療利用状況を経験しており、その医療利用状況が家族の健康面や社会生活にも影響を与えていること、さらに障害児の家族自身が健康問題を抱えていることや、ソーシャルサポートが乏しい場合、精神的健康度が低いことが明らかになった。家族の介護負担は家族自身の身体的・精神的健康、社会的影響、及び児の医療利用状況から影響を受けるため、児と家族を含めた包括的な視点から評価することが重要である。病院中心の医療サービスと地域の医療サービスのバランスを取ったケア・コーディネーションが必要であり、特に家族の介護負担を軽減するためのレスパイト・ケアの拡充が求められる。障害児と家族の希望に沿った在宅生活が送れるように、柔軟な医療提供体制の充実と全国規模での実態把握が必要である。

## 第7章 謝辞

本調査においては、ご多忙な多大なご指導・ご助言、ならびにご協力を頂きました、筑波大学医学医療系小児科教授須磨崎亮先生、同小児科講師宮園弥生先生、同小児科講師田中竜太先生（茨城県立こども病院小児科診療副部長）、筑波大学附属病院看護師田村恵美様はじめ、多くの3医療機関の小児科の先生方、ならびに外来クラーク・医療秘書の皆様、ヘルスサービスリサーチ研究室の田宮菜奈子教授と研究室の皆様、深く感謝申し上げます。そして、外来で調査に同意して下さった保護者の皆様、質問紙調査に時間をかけて貴重なご意見を回答して下さった保護者の皆様にも厚く御礼を申し上げます。

本研究は公益財団法人在宅医療助成勇美記念財団の助成により実施しました。そのため、本文中の文章および図表の一部は、勇美記念財団研究助成報告書と同じ記載の部分があります。（勇美記念財団研究助成報告書「超重症児・準超重症児の医療利用状況と家族の身体的・精神的健康、社会的経済的影響について ～小児在宅医療を支える医療提供体制の課題に関して～」）

参照 [http://www.zaitakuiryo-yuumizaidan.com/data/file/data1\\_20151007053347.pdf](http://www.zaitakuiryo-yuumizaidan.com/data/file/data1_20151007053347.pdf)