

令和 3 年 6 月 16 日現在

機関番号：21601

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2016～2020

課題番号：16K11990

研究課題名(和文) 小児・若年者甲状腺癌の長期フォローアップ体制の構築

研究課題名(英文) Building up a long-term follow-up system for patients with Pediatric, Adolescent, and Young Adult Thyroid Carcinoma

研究代表者

古橋 知子 (FURUHASHI, Tomoko)

福島県立医科大学・看護学部・准教授

研究者番号：30295761

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,800,000円

研究成果の概要(和文)：長期フォローアップ体制の構築に向けて、甲状腺癌の診断を受けた小児・AYA (Adolescent and Young Adult:思春期・若年成人) 世代に対する継続的支援内容の実態を明らかにした。また、二次がんとして甲状腺癌を経験する小児がん経験者にも焦点を当てながら、支援ニーズを探求した。これらを通して、小児・若年者甲状腺癌の長期フォローアップにおける問題点が明らかとなった。治療後のQOL (Quality of Life:生活の質) に配慮し、個々のライフイベントや環境等に応じた支援の重要性が示された。

研究成果の学術的意義や社会的意義

従来の20歳を区切りに未成年と成人に分けるのではなく、15～39歳をAYA世代とした国際的な分類に従い解析された「がん診療連携拠点病院等院内がん登録2016-2017年小児AYA集計報告書」が、2019年10月に出された。そこで、全がんに占める甲状腺がんの割合は、20～29歳で12%(第2位)、30～39歳で8%(第4位)という結果が示された。

本研究では、多くの小児・若年者甲状腺癌の継続的なフォローアップ実績を基に、実態を分析し、本年代のニーズに合わせた支援のあり方を導き出した。また長期フォローアップにおける甲状腺癌特有の問題点を示し、求められる支援体制を提言する意義は高いと考える。

研究成果の概要(英文)：In Order to build up a long-term follow-up system, we clarified the actual situation of continuous support for Pediatric, Adolescent, and Young Adult diagnosed with thyroid carcinoma. We also explored support needs, including childhood cancer survivors who experience thyroid carcinoma as a secondary cancer. Through these surveys, we found out the problems in a long-term follow-up for patients with Pediatric, Adolescent, and Young Adult Thyroid Carcinoma. It is important to consider the QOL (Quality of Life) after treatment and provide individual support according to life events and environment.

研究分野：小児看護学

キーワード：看護学

様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19 (共通)

1. 研究開始当初の背景

小児の甲状腺癌は小児期悪性腫瘍の約1%程度と稀である。以前より年少時に受けた放射線照射の影響が大きいと言われ、チェルノブイリ原発事故による放射線被曝症例では ret 遺伝子や p53 遺伝子の異常が報告され分子生物学的な検討が進んでいるが、多くの小児甲状腺癌の病因は明らかになっていない¹⁾。また、日本小児白血病リンパ腫研究グループ(以下 JPLSG と略す)の長期フォローアップ委員会が 2013 年に出版した本邦独自の「小児がん治療後の長期フォローアップガイドライン」には、甲状腺癌は「二次がん」として取り挙げられ、甲状腺癌そのもののフォローアップ方法は記されていない。小児がん経験者(Childhood Cancer Survivors, 以下 CCS と略す)のために JPLSG が作成した治療の総括である「治療サマリー」を含む、医療者と患者家族が共有できる情報源を目指した「長期フォローアップ手帳」は、外科手術が主な治療となる甲状腺癌への適用は難しく、小児・若年者甲状腺癌独自のフォローアップツールの考案が必要と考えた。

本邦における CCS の数は、20 歳以上の成人の 5 万人以上と推定される。東日本大震災後に福島県で 38 万人を対象に実施されている甲状腺検査は、CCS にとっては出現頻度が最も高いといわれる内分泌合併症に直面する機会ともなっている。発症時期や年齢によっては病名が未告知、受けた治療内容の詳細説明や晩期合併症のリスクの情報提供が不十分といった状況もあり、CCS 個々に配慮した対応が求められている。

これらの背景から、甲状腺癌に罹患した小児・若年成人およびその家族に対する継続的支援の実態および支援内容を分析し、その結果に基づき小児・若年者甲状腺癌のフォローアップのあり方について探求し、望まれる支援体制についての知見を発信していく必要があると考えた。

2. 研究の目的

- (1) 甲状腺癌に罹患した小児・若年成人およびその家族に対する継続的支援の実態調査に基づき、甲状腺癌独自の長期フォローアップツールを考案し、その試用結果を明らかにする。
 - (2) 甲状腺検査を受ける小児がん経験者の長期フォローアップや晩期合併症に関する認識や実態、既存のフォローアップガイドライン²⁾³⁾に基づき実施したフォローアップの実態を明らかにする。
- (1)と(2)の結果に基づいて、小児・若年者甲状腺癌の長期フォローアップ体制の構築を行う。

3. 研究の方法

(1) 甲状腺癌に罹患した小児・AYA 世代を対象とした観察研究

2014 年 4 月～2016 年 3 月の間に甲状腺癌と診断され、A 病院の甲状腺内分泌外科を受診され、担当医師と看護師とが協働して継続的支援をした 81 名(男性 30 名、女性 51 名、治療方針検討時の平均年齢 16.9 歳)の診療記録を分析対象とし、記述統計、内容分析を行い、治療経過および要した支援の実態を明らかにした。

の結果から明らかになったフォローアップにおける問題点に基づき、強化や改善を要する支援内容、有用なツールの検討を行った。

を踏まえて考案した新たな支援・ツールの使用を 2020 年 7 月より開始し、長いスパンでの評価を要する問題の実態および要因を探っている(現在継続中)。

(2) 小児がん経験者の甲状腺癌を含む内分泌合併症に焦点をあてた前向き観察研究

申請時に「甲状腺検査を受ける小児がん経験者」としていた調査対象を、実現可能性の面から、A 病院の「甲状腺・内分泌診療センターを受診している CCS」と「放射線照射歴を有し小児腫瘍内科を受診する CCS」に変更し、2019 年 1 月より調査を開始した。計 21 名の CCS から同意を得、既存のフォローアップガイドライン²⁾³⁾に沿って CCS 個々の晩期合併症リスクを評価し、立案した長期フォローアップ計画に基づくケアを提供した。その過程で CCS の晩期合併症に関する認識や実態、フォローアップにおける課題を明らかにし、小児・若年者甲状腺癌長期フォローアップへの示唆を得た。

4. 研究成果

(1) 治療をめぐる意思決定において小児・若年者甲状腺癌で特に配慮すべき側面

甲状腺癌の場合、手術を目的とした入院における平均在院日数は、調査(1)-□の結果 5.9 日と短く、それ以外は外来対応となる。医療者とかかわる機会は、ほぼ「点」となることを意味し、小児期に発症する多くのがんとは一線を画す。また穿刺吸引細胞診によって甲状腺癌と判定されても、所見によっては「甲状腺癌取扱い規約」に基づき経過観察となる場合もある⁴⁾。調査(1)-□では、81 名中 3 名がセカンド・オピニオンを受けた。13 名が経過観察を選択し、このうち 2 名は途中で転院した。約 3 か月～1 年半(平均 9 か月)の経過観察期間を経て、6 名が手術へと方針を切り替えた。

治療の時期について、診断後できるだけ早い治療を希望する発言を 25 名がした。悪いものを抱える負担を 6 名が表出し、「子どもの場合、進行が速い」との認識も見られ、早い治療を希望する背景には「転移の心配」と「受験や就職など後に控えるライフイベントとの兼ね合い」があった。

治療時期をめぐっては、親子での意見の相違が8組にみられた。

治療をめぐると意思決定においては、「点」ごとに小児・AYA世代が抱く負担感や価値観をとらえ、保護者のみならず、祖父母、学校関係者など小児・AYA世代を取り巻く環境とその状況や影響など多面的に把握し、丁寧な対話を積み重ねる重要性が示された。小児・AYA世代およびその家族が病気や治療を十分に理解し、意思決定プロセスにおいて本人の意向が尊重され、納得して選択することができるように、援助を「線」として紡いでいくことが求められる。

声の出し難さ・嘔声

治療をめぐると意思決定においては、手術によって発声に影響がでる可能性(2名)や、その持続期間(1名)の心配を3名が口にしました。これとは別に「声の出し難さ・嘔声」への心配を術前から抱いていたことを、術後の会話を通して判明した方も3名いた。この背景には、後述の「手術創」と同様に、術後に控えた卒業式、面接試験など、小児・AYA世代にとって「一生に一度」や「一生を決める」大事なライフイベントに影響を及ぼす懸念があった。また周囲に甲状腺癌に罹患し手術を受けたという事実を隠したいという気持ちを抱くが故という方もいた。

術中に神経刺激装置で神経温存が確認されていても、術直後に声の出し難さやかすれを3割が自覚し、併せて小・中学生には発声への恐怖が観られた。退院後も声の症状が持続した8名中6名は、4か月以内に消失した。

妊娠・出産への影響

甲状腺はホルモンに関係する臓器であるとの認識から、治療を検討する段階で妊娠・出産への影響について5名が心配を口に、それはすべて保護者からの表出であった。心配の具体的な観点としては、甲状腺に疾患を有することによる影響(1名)、甲状腺全摘による影響(1名)、LT4製剤服用による影響(3名)があった。

術後の長期フォローアップのなかで、医師より本人に妊娠時の対応(甲状腺機能の確認)の話がなされたことに対して、保護者が驚きや心理的抵抗感を示す場合がある。また、本人からの妊娠・出産についての質問や相談は、診察前や診察後に設ける個室での面談時に多い。センシティブな内容として取り扱い、親子別々に支援をする機会を意図的に設けることや、対応する医療スタッフの性別や安心感をもって表現できる環境に配慮するなどの体制づくりが必要である。

(2)小児・若年者甲状腺癌の長期フォローアップにおける問題点

長期的経過のなかで評価が必要な問題として「手術創のケロイド・肥厚性瘢痕」、「甲状腺片葉切除術後のヨウ素制限」、「受診の途絶え」の3つが抽出された。これらの問題に対してはトータルケア、すなわち「診断から病気そのものの治療、加えて心理的、社会的、経済的なサポート、長期フォローアップまでをトータルケアと考え、子どもだけでなく、その子どもの家族のこともまでをケアすること」⁵⁾の視点をもち、多職種で支援にあたる体制が必要である。将来を見据え、治療後のQOL(Quality of Life : クオリティオブライフ)に配慮した協働的意思決定、予防的介入を心がける重要性が示された。

創部のケア

甲状腺癌の手術は、頸部前面の襟状切開により、自分では直視できず周囲から見え易い部位に創ができる。調査(1)- の結果から、治療をめぐると意思決定において15名が「創の位置や大きさ」について確認・質問し、情報ニーズは高い。特に制服やユニフォーム等の指定服の着用が求められている場合、衣服で創が隠れるかは重要な情報となる。治療時期を決めるうえで、入学式・卒業式・成人式、入試や就職試験など「一生に一度」や「一生を決める」ライフイベントでは、記念や証明として写真撮影を伴うことが多い。治療後に控える事柄を把握し、それに対する価値やニーズに応じて、被覆やカモフラージュなど複数の対応策の例を示し、一緒に考えることが重要である。

調査(1)- では、手術を受けた60名のうち49名(男性10名、女性39名)にケロイド・肥厚性瘢痕治療剤が処方され、このうちケロイド・肥厚性瘢痕形成が6名にみられた。

美意識は性別関係なく高まりつつある時代となり、外見変化に伴う苦痛は「自己イメージに関連する心理的苦痛や他者とのかかわりのなかで生じる相対的な苦痛」⁶⁾であることを認識し、ケアにあたる必要がある。自立や成長と共に変化しうる個々の信念、価値、生活環境、ニーズを把握すると共に、リザベン(トラニスト)内服、テープによる創固定に対するセルフケア能力と、それを補完する周囲から得られる支援の状況を見極める。小児・AYA世代が長期的視野からも考え、最善の選択をその都度にしてきたと思えるように、診察前後でのかかわりや相談しやすい環境づくりが肝要である。

ヨウ素制限

甲状腺片葉切除術後は、甲状腺ホルモン生産予備能力が低下し、ヨウ素の過剰摂取は甲状腺機能低下に繋がる。調査(1)- では、甲状腺片葉切除術後33名中7名に甲状腺刺激ホルモン(thyrotropin ; 以下TSHと称する)の上昇を認めた。ヨウ素制限によって自然改善が見込める可能性もあるが、甲状腺ホルモン生産予備能力低下の持続期間は個人差が大きい。TSH上昇を認めた7名のうち、2名は残存甲状腺全摘術と共に制限終了となった。残る5名中4名は、術後1

～1年半で一度 TSH<5.0 μU/ml となるものの、再上昇がみられた。

治療をめぐる意思決定の段階で、甲状腺片葉切除術後に LT4 製剤を服用する可能性について 8 名が質問をした。また甲状腺全摘術の場合にも、LT4 製剤を一生服用するかという質問・確認、服薬に伴う苦痛や嫌悪感、悲嘆の表出があった。

一方で、長期フォローアップのなかでは、甲状腺片葉切除術後のヨウ素制限について終了の目的が立たぬまま、制限が年単位で持続することへの苦痛が聞かれている。食事は生理的側面だけでなく、精神的安定、円滑な人間関係を育むといった心理的・社会的意義も大きく、QOL を左右する大きな要素である。

服薬や食事に対する価値は多様であり、年齢や薬剤服用歴から推し量れるものでもない。小児・AYA 世代およびその家族の価値観を尊重するためには、医療者自身の価値判断を認識し、感情を共有し、抱えている問題について話し合いながら、多角的に検討をする必要がある。ヨウ素制限の必要性、TSH 調節不良に伴うリスクなど「選択」に不可欠な情報の提供、小児・AYA 世代の理解と自己価値観に基づく選択を支え、内発的動機付けを高めるかかわりが求められる。

先に小児・若年者甲状腺癌で特に配慮すべき側面として触れた「妊娠・出産」については、長期フォローアップにおいても重要である。甲状腺片葉切除術後に TSH<2.5 μU/ml を維持していても、妊娠時に甲状腺機能低下をきたした例も出ている。そのためヨウ素制限の有無に関係なく、女性に対しては漏れなく、年齢や生活上の変化などから情報提供に最適のタイミングを判断しながら、情報不足による不利益を被ることがないように、予防的な介入が求められる。

受診の途絶え(フォローアップロス)

調査(1-)の結果、術後半年以上経過を追った 35 名のうち 3 名が、途中で約 8～15 か月間、受診が途絶えた(出現率 8.6%)。いずれも「高校生以上」、「通院に同行する親とは住まいが別」という共通点があった。その後、最低年 2 回の定期受診を要する「経過観察例(微小癌)」や LT4 製剤服用が欠かせない「甲状腺全摘術施行例」でも受診の途絶えが出現し、観察期間を 5 年とし、要因と対応策検討のための調査(1-)を計画した。2020 年 2 月以降、COVID-19 感染拡大に伴い電話診療も行われたが、これを機に居住地近くの医療機関への紹介希望も増加した。「受診の延期」との判別も難しくなり、期間を延長して調査(1-)を継続しているが、受診の途絶えのきっかけとして「節目を迎えての身辺多事」、「紹介希望歴有」が見え、また「家族からの受診勧奨」が受診再開に繋がった例も出てきている。

石田は、CCS の長期フォローアップにおける「フォローアップロス」の問題を記述し、医療側、経験者側、社会的・外的と 3 つの因子に整理している⁷⁾。本研究でも、治療方針検討時に「手術を受ければ定期通院は不要になる」といった希望的観測や誤認が 4 名から聞かれ、術後の定期受診のなかでも「5 年間再発しなければ治癒」といった独自の見解や自己判断も見られている。本人への truth-telling とリスク認知に必要な医療情報を繰り返し提供することは、受診の途絶えに伴う不利益を被ることを防ぐために重要である。また調査(1-)で 17 名から聞き取った内容から、受診の途絶えの対策として「診察待ち時間の改善」、「医療費負担や生命保険加入に関する案内や相談」の体制整備の必要性が示されている。

(3)小児・若年者甲状腺癌長期フォローアップのためのツール

継続的支援の実態調査後、その結果を踏まえ、当初の計画に従って甲状腺癌用の「長期フォローアップ手帳」を試作した。しかし 2019 年 12 月の「甲状腺癌取扱い規約」改訂に伴って T 分類や Stage 分類が変更となり、早くも内容修正が必要となった。また調査(2)から、集学的治療を受けた CCS には JPLSG 作成の「治療サマリー」の需要は高いことが見えたが、手術が主な治療となる甲状腺癌の場合には、自身の病気・病状の正確な理解および健康管理の媒体として、手帳の提供までは不要との見解に至った。代替えとして、リンパ節廓清や転移の正確な理解を促すためには視覚情報を用いた説明が必要であり、甲状腺の所属リンパ節の解剖図を診察室に備える改善を行った。病状理解・自己管理に不可欠な診療情報として、甲状腺腫瘍の位置(左右)の自記録を推奨していくこととした。

指示を受けたヨウ素制限の程度を過不足なく捉え、実施・継続を支えるために、ヨウ素制限グレード表の作成、ヨウ素限定 FFQ(改訂版食事調査票)の活用を検討した。またケロイド・肥厚性癬痕リスクに応じた手術創ケア方法を導くアルゴリズムの作成、最新のエビデンスに基づく形成外科診療ガイドラインで推奨されるケア用品を複数種類、見本として準備した。

(4)二次がんとして甲状腺癌を経験する小児がん経験者とその家族への配慮

調査(2)において 21 名のうち、内分泌代謝科専門医に 8 名が、内分泌・甲状腺外科専門医に 4 名が紹介、診察を受けていた。既に「長期フォローアップ手帳」が提供されていたのは 1 名のみであった。晩期合併症とそのリスクについてあらためて説明の場を設けた 2 名は、いずれも成人に達しており、説明ニーズは本人との面談の場で把握できた。

調査(1-)では、穿刺吸引細胞診による甲状腺癌との判定結果を子どもが受け止めきれぬかどうかを心配する発言が 6 名から聞かれた。このうち 4 名は本人や保護者にとって身近な人が癌に罹患し、死別体験をしている共通点があった。調査(2)でも、思春期にある CCS の保護者 2 名は、過去に経験した病気とその治療による晩期合併症についての説明は、時期尚早という意向を示した。

二次がんとして甲状腺癌を経験する場合、再び「がん」という病気と直面すること自体が本人はもとより保護者にも大きな痛みを伴うことを十分に理解し、配慮する必要がある。そして、過去の治療とそれがどのような体験として残っているにも思いを巡らせ、つながりをもっていくことが肝要である。

<引用文献>

- 1)望月弘、甲状腺良性腫瘍・甲状腺悪性腫瘍、小児科、54(8)、2013、1147-1150
- 2)日本小児内分泌学会 CCS 委員会、小児がん経験者（CCS）のための内分泌合併症フォローアップガイド、<http://jspe.umin.jp/medical/files/CCS%20follow-up%20guide%20ver1.1.pdf>
- 3)JPLSG 長期フォローアップ委員会長期フォローアップガイドライン作成ワーキンググループ編、小児がん治療後の長期フォローアップガイドライン、医薬ジャーナル社、2013
- 4)日本内分泌外科学会・日本甲状腺病理学会編、甲状腺癌取扱い規約、(2019年12月23日第8版)、金原出版株式会社、2019
- 5)細谷亮太・真部淳、小児がん;チーム医療とトータルケア、中公新書、2008、175-182
- 6)野澤桂子・藤間勝子編、臨床で活かすがん患者のアピアランスケア、(2017年7月1日第1版)、南山堂、2017
- 7)石田也寸志、小児がん経験者の長期フォローアップに関する問題点、日本小児血液・がん学会雑誌、55(2)、2018、141-147

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計0件

〔学会発表〕 計2件（うち招待講演 0件 / うち国際学会 0件）

1. 発表者名 古橋知子, 鈴木眞一
2. 発表標題 甲状腺癌に罹患した小児・若年成人の治療をめぐる意思決定の実態
3. 学会等名 第17回日本小児がん看護学会学術集会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 古橋知子, 福島俊彦, 鈴木眞一
2. 発表標題 甲状腺癌で手術を受ける小児若年者が必要とする支援 - 提供した継続的支援内容の分析から -
3. 学会等名 第51回日本甲状腺外科学会学術集会
4. 発表年 2018年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	菊田 敦 (KIKUTA Atsushi) (40224894)	福島県立医科大学・医学部・教授 (21601)	
研究分担者	鈴木 眞一 (SUZUKI Shinichi) (70235951)	福島県立医科大学・医学部・教授 (21601)	

6. 研究組織（つづき）

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	鈴木 悟 (SUZUKI Satoru) (30222061)	福島県立医科大学・医学部・教授 (21601)	

7. 科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕 計0件

8. 本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関