

令和 6 年 5 月 11 日現在

機関番号：82612

研究種目：基盤研究(B) (一般)

研究期間：2020～2023

課題番号：20H01665

研究課題名(和文)患者・家族が望む「よりよい子どもの最期」とは何か

研究課題名(英文)End-of-life care desired by children and family

研究代表者

余谷 暢之(Yotani, Nobuyuki)

国立研究開発法人国立成育医療研究センター・総合診療部・診療部長

研究者番号：70593127

交付決定額(研究期間全体):(直接経費) 9,800,000円

研究成果の概要(和文):本研究の目的は、患者・家族が望む「よりよい子どもの最期」とは何かを明らかにすることである。小児終末期医療・ケアの実態を明らかにするために、DPCデータや人口動態統計を用いて、小児がん、PICU、NICU、小児神経疾患の終末期治療と療養場所の実態について明らかにした。また、看護師による子どもの症状評価の実態についてPICU及びがん領域の実態を明らかにした。遺族調査については実装まで至らなかった。代わりにオランダのグループが作成した小児アドバンス・ケア・プランニングのガイドブックの翻訳を行い広く配布した。

研究成果の学術的意義や社会的意義

これまで明らかでなかった小児患者の終末期の実態について、ビッグデータを用いて疾患別に明らかにすることができた。これを基盤として、小児終末期医療の在り方について検討することができる。遺族調査については、実現可能性を検討し課題が明らかになった。また、小児アドバンス・ケア・プランニングの冊子作製は、今後これを用いて研修会を実施し広く普及啓発を行っていく。

研究成果の概要(英文):The aim of this study is to clarify what children and families desire as a "better end-of-life care for children". To clarify the status of pediatric end-of-life care, we used DPC data and demographic statistics to clarify the actual status of end-of-life treatment and place of care for children with pediatric oncology, PICU, NICU, and pediatric neurological diseases. In addition, we clarified the actual situation of evaluation of children's symptoms by nurses in PICU and oncology. The survey of bereaved families was not carried out. Instead, we translated and widely distributed a guidebook on pediatric advance care planning prepared by a group in the Netherlands.

研究分野：小児緩和ケア

キーワード：終末期治療 PICU NICU 神経疾患 小児がん アドバンス・ケア・プランニング

1. 研究開始当初の背景

終末期の医療の質を評価するためには、終末期において過剰な医療介入が行われているか患者・家族が望む終末期医療・ケアはどのようなものかを明らかにし、経年的に評価することが重要とされている。国際的には二次データ解析と遺族調査の2つの手法が用いられている。

1点目は、日常業務の中で作成される保険請求情報(レセプト情報)などの構造化データを二次利用し、終末期における積極的治療の頻度、緩和ケアの実施状況を算出し、終末期医療の質を評価する方法である。終末期においては過剰な医療介入がかえって患者の尊厳を侵害する可能性がある。成人領域では緩和ケアの適切な介入により、望まない不必要な積極的治療を10-40%回避でき、それがQuality of life (QOL)の向上と生存期間の延長につながる事が報告されている(Temel, et al NEJM 2010など)。カナダでの研究では、小児がん患者に対しては成人と比較して2倍近くの積極的治療が終末期に行われていると報告され(Kassam A, et al. JCO 2017)。小児終末期医療が大きく見直されるきっかけとなっている。わが国においても過剰な積極的治療が行われている可能性があるが、現状は明らかになっていない。実態を明らかにすることで、現状を把握し、今後緩和ケア整備する上での重要な基礎資料となる。

2点目は、患者の遺族を対象に質問紙調査を行い、家族が望む「終末期医療・ケアのあり方」および「よりよい最期に関連する項目」を評価する遺族調査である。終末期医療の対象者は全身状態が不良であるため、最も信頼できる方法(ゴールドスタンダード)である医療・ケアを実際に受けた患者から直接評価を得ることが方法論的に困難な場合が多い。そこで終末期医療の質は、遺族のケアの体験や遺族から見た本人のQOLやケアプロセスを間接的に測定することで評価されている。わが国では成人領域においてがんの遺族によるホスピス・緩和ケアの質の評価に関する研究(J-HOPE)が2006年から実施され、遺族から見た患者へのケアに対する評価尺度(CES=Care Evaluation Scale)や遺族の評価によるがん患者の「よりよい死」の評価尺度(GDI=Good Death Inventory)が開発され、定期的に全国的な遺族調査が実施されている。経年的に評価を行うことで、終末期の医療・ケアのあり方を定期的に見直し、その質の向上に寄与している。しかしながら、小児領域においては大規模な遺族研究は世界的にも行われておらず、標準的な評価尺度もない。そのため、患者・家族が望む「よりよい子どもの最期」に寄与するための医療・ケアの実践と体制整備のための情報が不足し、適切な緩和ケアの代わりに終末期においても積極的治療が続けられている可能性がある。

2. 研究の目的

本研究の目的は、患者・家族が望む「よりよい子どもの最期」とは何かを明らかにすることである。

小児終末期医療・ケアの実態と患者・家族が望む「小児終末期医療・ケアのあり方」について検討し、当事者が望む小児終末期医療と実態のギャップを明らかにすることで小児終末期医療の診療レベルの底上げや、治癒が望めない病気を持つ子どもと家族のQOLの向上に貢献する。

3. 研究の方法

【小児終末期医療・ケアの実態調査】

研究計画・方法

小児終末期の積極的治療のQuality Indicator (QIs)の作成

成人領域で検討されているがん領域の終末期の積極的治療の指標:Quality Indicator (QIs)(死亡前2週間以内の抗腫瘍薬投与や死亡前4週間以内の新規抗腫瘍薬投与、心肺蘇生、人工呼吸管理、ICU利用など)を参考に、文献レビューおよび専門科討議を行い、小児がん領域および新生児領域におけるQIsリストを作成する。

DPCデータを用いた小児終末期の積極的治療及び緩和ケアの実態調査

DPCデータを用いて、一定期間(2012年4月から2018年3月)の19歳以下の全死亡症例について、各疾患における終末期の積極的治療のQuality Indicator (QIs)の記述統計を算出し、経時的変化や疾患別、死亡場所別などの比較を、背景要因を調整して統計的に検討する。また、終末期におけるオピオイド投与の現状や鎮静の実施、緩和ケアチームの介入など、現在小児領域で行われている緩和ケアの実態について明らかにする。

【遺族評価による家族が望む小児終末期医療・ケアのあり方の検討】

研究計画・方法

遺族から見た終末期のケア・患者のQOLに関する小児版評価尺度の作成

成人領域で検討されている「遺族から見た患者へのケアに対する評価尺度(CES=Care Evaluation Scale)」、「遺族の評価によるがん患者のQOL評価尺度(GDI=Good Death Inventory)」をもとに、名古屋が作成した看護師による代理評価での小児版終末期QOL評価尺度(J Palliat Med. 2017)や、吉田らが行った小児における遺族調査の結果(Jpn J Clin Oncol. 2014)を踏まえて、小児版の遺族から見た終末期のケア・患者のQOLに関する評価尺度(小児版CES、GDI)を作成する。

遺族から見た終末期の患者に関する自記式質問紙の作成と遺族インタビュー

STEP1 で作成した小児 CES、GDI に加えて、遺族の抑うつ、複雑性悲嘆、きょうだいの生活の質の評価についての項目を加えて、専門科討議を行い遺族調査の自記式質問紙を作成する。質問紙調査を実施する前に、患者団体を中心とした患者家族（10 人程度）にフォーカスグループインタビューを行い、遺族調査の実施や質問紙の内容に関して意見を聞き、調査による心理的負担の評価、質問紙の内容妥当性の検討を行う。

遺族から見た終末期の患者に関する全国調査

小児専門施設 2 施設の遺族対象に pilot study を実施し、試験・再試験法を用いて信頼性の検討を行った後に、以下の方法で全国調査を実施する。

4．研究成果

【小児終末期医療・ケアの実態調査】

小児がん

成人領域で用いられる終末期の積極的治療の Quality Indicator (QIs) を参考に、小児がん領域における小児版終末期積極的治療の QIs を作成し、それをもとに DPC データから小児がんにおける終末期の実態について検討を行った。その結果、小児血液がん患者はその他の固形がん患者と比較しより積極的治療を受けやすい傾向があり、特に年少児では終末期により積極的治療を受けやすいことが明らかになった。こ

PICU

成人領域で用いられる終末期の積極的治療の Quality Indicator (QIs) を参考に、PICU における小児版終末期積極的治療の QIs を作成し、それをもとに DPC データから小児がんにおける終末期の実態について検討を行った。その結果、ICU に 8 日以上長期滞在した患者群では死亡当日まで積極的治療（人工呼吸 89%、昇圧剤の使用 85%、透析 42%、ECMO34%）が行われる傾向があることが分かった。また、死亡当日の CPR の実施には背景疾患が大きな関連があり、循環器疾患が他の疾患と比較し実施率が有意に高いことが明らかになった。

NICU

成人領域で用いられる終末期の積極的治療の Quality Indicator (QIs) を参考に、NICU における小児版終末期積極的治療の QIs を作成し、それをもとに DPC データから小児がんにおける終末期の実態について検討を行った。その結果、死亡当日の CPR の実施割合は 15.9% であり、特に生後 15～60 日目に死亡した患者で最も実施率が高かった。また疾患別では心疾患の実施率は高いが、それ以外は基礎疾患の有無で実施率に大きな差はみられなかった。

【遺族評価による家族が望む小児終末期医療・ケアのあり方の検討】

成人領域で検討されている「遺族から見た患者へのケアに対する評価尺度（CES=Care Evaluation Scale）」、「遺族の評価によるがん患者の QOL 評価尺度（GDI=Good Death Inventory）」をもとに、小児版 CES、GDI を作成した（Nagoya Y, Yotani N, et al. J Palliat Med. 2020, 名古屋、余谷、他、Palliative Care Research 2020）。これらを基に、遺族調査用の質問紙を作成し、遺族 10 人にオンラインを用いてフォーカスグループインタビューを行い、遺族調査の実施や質問紙の内容に関して意見を聞き、調査による心理的負担の評価、質問紙の内容妥当性の検討を行った。その結果、遺族調査には様々な障壁があることが明らかとなり、最終的に実施まで至らなかった。そこで、医療者と患者家族のコミュニケーションを円滑にするツールとして、オランダのグループが作成した小児アドバンス・ケア・プランニングのガイドブックを許諾を得て翻訳し、冊子化し配布した。今後、この冊子を用いた研修会を小児科学会主催で実装する予定である。

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計12件（うち査読付論文 8件 / うち国際共著 0件 / うちオープンアクセス 2件）

1. 著者名 Yotani Nobuyuki	4. 巻 54
2. 論文標題 Current status of pediatric palliative care and decision making in Japan	5. 発行年 2024年
3. 雑誌名 Current Problems in Pediatric and Adolescent Health Care	6. 最初と最後の頁 101557 ~ 101557
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.cppeds.2024.101557	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Yotani Nobuyuki, Isayama Tetsuya, Ito Yushi	4. 巻 65
2. 論文標題 Gabapentin for treatment of apnea in infants with trisomy 13 and 18	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 e15646
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.15646	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 余谷暢之	4. 巻 43
2. 論文標題 これからの小児緩和ケアについて考える 10年先を見据えて	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 日本臨床麻酔学会誌	6. 最初と最後の頁 258-263
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 余谷暢之	4. 巻 82
2. 論文標題 重篤な疾患をもつ子ども・家族とこれからの未来について話し合う 小児領域におけるアドバンス・ケア・プランニングの実践	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 小児保健研究	6. 最初と最後の頁 255-257
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Fukui Kana, Amari Shoichiro, Yotani Nobuyuki, Kosaki Rika, Hata Kenichiro, Kosuga Motomichi, Sago Haruhiko, Isayama Tetsuya, Ito Yushi	4. 巻 13
2. 論文標題 A Neonate with Mucopolysaccharidosis Type VII with Intractable Ascites	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 American Journal of Perinatology Reports	6. 最初と最後の頁 e25 ~ e28
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1055/a-2028-7784	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Tsuboi Kaoru, Tsuboi Norihiko, Yamashita Kana, Nakagawa Satoshi, Yotani Nobuyuki	4. 巻 65
2. 論文標題 Nurses' perception of pediatric pain and pain assessment in the Japanese <sc>PICU</sc>	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.15499	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Yotani N, Shinjo D, Kato M, Matsumoto K, Fushimi K, Kizawa Y	4. 巻 20
2. 論文標題 Current status of intensive end-of-life care in children with hematologic malignancy: a population-based study	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 BMC Palliat Care	6. 最初と最後の頁 82
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Fuyuki M, Yotani N, Kondo M, Iijima Y, Wada H, Takemoto K, Funato M, Ito K, Shintaku H, Hamazaki T.	4. 巻 43
2. 論文標題 Factors associated with high care burden of primary caregivers of children with medical complexity after completing a discharge-support program in a recovery center.	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Brain Dev.	6. 最初と最後の頁 988-996
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Nagoya Yuko, Miyashita Mitsunori, Irie Wataru, Yotani Nobuyuki, Shiwaku Hitoshi	4. 巻 23
2. 論文標題 Development of a Proxy Quality-of-Life Rating Scale for the End-of-Life Care of Pediatric Cancer Patients Evaluated from a Nurse's Perspective	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Journal of Palliative Medicine	6. 最初と最後の頁 82 ~ 89
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1089/jpm.2018.0598	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Yotani Nobuyuki, Nabetani Makoto, Feudtner Chris, Honda Junko, Kizawa Yoshiyuki, Iijima Kazumoto	4. 巻 141
2. 論文標題 Withholding and withdrawal of life-sustaining treatments for neonate in Japan: Are hospital practices associated with physicians' beliefs, practices, or perceived barriers?	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Early Human Development	6. 最初と最後の頁 104931 ~ 104931
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.earlhumdev.2019.104931	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 名古屋 祐子, 宮下 光令, 入江 亘, 余谷 暢之, 塩飽 仁	4. 巻 15
2. 論文標題 終末期にある小児がん患者のQOLと関連要因 看護師によるQOL代理評価尺度を用いて	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Palliat Care Res	6. 最初と最後の頁 53-64
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 小野寺 祐里香, 余谷 暢之, 歌野 智之, 牧山 稔, 山谷 明正	4. 巻 32
2. 論文標題 小児専門施設における医療用麻薬の使用実態と特徴	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 日本小児臨床薬理学会雑誌	6. 最初と最後の頁 109-113
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計13件（うち招待講演 7件 / うち国際学会 4件）

1. 発表者名 余谷暢之
2. 発表標題 こどもたちのLifeを支える～こどもたちに緩和ケアを届けるために大切にしたいこと～
3. 学会等名 第5回日本緩和医療学会北海道支部学術大会（招待講演）
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 余谷暢之
2. 発表標題 重症心身障害児者の医療における代理意思決定支援について考える～本人を主語に関わるために～
3. 学会等名 第48回日本重症心身障害学会学術集会（招待講演）
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 余谷暢之
2. 発表標題 周産期・新生児領域の緩和ケアの実践～家族になることを支えるために～
3. 学会等名 第36回京滋新生児成育研究会（招待講演）
4. 発表年 2024年

1. 発表者名 Kazuto Ueda, Saori Kuratani, Yusuke Seino, Daisuke Shinjo, Chisato Miyakoshi, Kiyohide Fushimi, Yoshiaki Sato, Yoshiyuki Takahashi, Nobuyuki Yotani
2. 発表標題 Influencing Factors for Cardiopulmonary Resuscitations Performance in Japan's Neonatal Intensive Care Units: A Population-based Study
3. 学会等名 15th Asia Pacific Hospice Palliative Care Conference 2023（国際学会）
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 余谷 暢之, 甘利 昭一郎, 杉林 里佳, 室本 仁, 小澤 克典, 和田 誠司, 和田 友香, 諫山 哲哉, 伊藤 裕司, 窪田 満, 左合 治彦
2. 発表標題 胎児期からの緩和ケアの実践
3. 学会等名 第125回日本小児科学会学術集会
4. 発表年 2022年～2023年

1. 発表者名 伊東 藍, 余谷 暢之, 生田 泰久, 甘利 昭一郎, 丸山 秀彦, 伊藤 裕司, 諫山 哲哉
2. 発表標題 NICUでの終末期の積極的治療の差し控え・中止 18年間の後方視的検討
3. 学会等名 第58回日本周産期・新生児医学会学術集会
4. 発表年 2022年～2023年

1. 発表者名 Yotani N
2. 発表標題 "Pediatric Palliative Care in Japan: Past and Future Prospects"
3. 学会等名 Korean Society of Hospice Palliative Care (招待講演) (国際学会)
4. 発表年 2022年～2023年

1. 発表者名 名古屋 祐子, 入江 亘, 高山 温子, 余谷 暢之
2. 発表標題 終末期にある小児がんの子ども親の希望 診療録を用いた後方視調査
3. 学会等名 第63回日本小児血液・がん学会学術集会
4. 発表年 2021年～2022年

1. 発表者名 木須 彩, 坂本 謙一, 江丸 由里子, 會田 麻里絵, 余谷 暢之
2. 発表標題 小児がん患者に対する痛みの看護についての知識、実践、困難感に関する調査 単施設での検討
3. 学会等名 第63回日本小児血液・がん学会学術集会
4. 発表年 2021年～2022年

1. 発表者名 Yotani N
2. 発表標題 Specialist palliative care service for children with life-threatening conditions in Japan
3. 学会等名 14th Asia Pacific Hospice Palliative Care Conference (招待講演) (国際学会)
4. 発表年 2021年～2022年

1. 発表者名 Yotani N
2. 発表標題 Advance care planning for children with life-limiting conditions
3. 学会等名 The 28th Annual Spring Meeting of Korean Society of Neonatology (招待講演) (国際学会)
4. 発表年 2021年～2022年

1. 発表者名 余谷 暢之, 鍋谷 まこと, 飯島 一誠
2. 発表標題 わが国の新生児医療における治療中止・差し控えの現状 全国調査の結果から
3. 学会等名 第123回日本小児科学会学術集会
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 余谷暢之
2. 発表標題 遺伝性・先天性の疾患を持つ子ども・家族とこれからについて話し合う
3. 学会等名 第43回日本小児遺伝子学会学術集会（招待講演）
4. 発表年 2021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	名古屋 祐子 (Nagoya Yuko) (00631087)	宮城大学・看護学群・准教授 (21301)	
研究分担者	新城 大輔 (Shinjo Daisuke) (10707285)	東京医科歯科大学・大学院医歯学総合研究科・准教授 (12602)	
研究分担者	加藤 元博 (Kato Motohiro) (40708690)	東京大学・医学部附属病院・教授 (12601)	
研究分担者	吉田 沙蘭 (Yoshida Saran) (70636331)	東北大学・教育学研究科・准教授 (11301)	
研究分担者	諫山 哲哉 (Isayama Tetsuya) (80818146)	国立研究開発法人国立成育医療研究センター・周産期・母性診療センター・医長 (82612)	

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
研究協力者	鞍谷 沙織 (Kuratani Saori)	国立研究開発法人国立成育医療研究センター・緩和ケア科・ 専門修練医	

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