

V シンポジウム・研究発表会

1. 神経変性班との合同ワークショップ

厚生科学研究費補助金特定疾患対策研究事業神経変性疾患に関する研究班
2001年度 班 会 議 合同ワークショップ
日 時：平成14年1月11日(金)
場 所：全共連ビル 大会議室

神経変性疾患に関する研究班・

特定疾患患者の生活の質(QOL)の判定手法の開発に関する研究班

合同ワークショップ (10:05~12:05)

座長

福原 俊一

1 特定疾患臨床調査個人票の問題点と利用のしかた

川井 充

国立精神神経センター武蔵病院神経内科

2 神経疾患の QOL 評価

大生定義

横浜市立市民病院神経内科

3 神経難病の介護負担度測定について

武藤香織

慶応義塾大学医学部医療政策・管理学

特定疾患臨床調査個人票の問題点と利用のしかた

川井 充

平成13年4月に難病患者認定適正化事業がスタートし、全国统一した書式による特定疾患臨床調査個人票（以下個人票）が用いられるとともに、特定疾患医療費公費負担の認定の仕方が変更になった。また、個人票に記載された情報は、個人を同定できる内容を除いて、特定疾患対策研究事業の研究班で研究に利用されることとなった。本稿では、特定疾患治療研究事業と特定疾患認定適正化事業の背景について説明し、個人票の問題点と利用のしかたについて私見を述べる。

1 特定疾患臨床調査個人票の背景

1) 特定疾患治療研究事業はどのようにはじめたか。

特定疾患対策研究事業は特定疾患調査研究事業と特定疾患治療研究事業から成っている。前者は通常の意味での疫学、病態、病因、治療法開発に関する研究である。一方、後者は医療費の自己負担を軽減することによって、希少疾患の患者の受療を促進し、治療法の確立を図るものであるが、現在では患者救済すなわち福祉であると理解されている。

我国の難病対策の成立はスモン対策の経緯と切り離すことができない。昭和45年9月、新潟大学椿教授によってキノホルム服用との関連の示唆され、キノホルム禁止とその後の疫学的調査により47年3月スモン調査研究協議会がキノホルムが原因であると最終的に結論するに至った。このスモン研究班の成果がその後の厚生省の現在の特定疾患治療研究事業につながるその後のプロジェクト研究のモデルとなったことはしばしば強調されている。一方、昭和45年10月、社会保険審議会「医療保険制度の根本的改正について」という答申において「原因不明でかつ社会的にその対策を必要とする特定疾患については、全額公費負担とすべきである」と述べられている。これを受けて昭和46年4月、厚生省内に難病対策プロジェクトチームが設置され、昭和47年10月、難病対策要綱が制定されに至った。

難病対策要綱では、難病として取り上げる疾病の範囲は（1）原因不明、治療方法未確立であり、かつ、後遺症を残す恐れが少なくない疾病、（2）経過が慢性にわ

り、単に経済的のみならず介護等に著しく人手を要するために、家庭の負担が重く、また精神的にも負担の大きい疾患であるとされている。また、対策の進め方は（1）調査研究の推進、（2）医療施設の整備、（3）医療費の自己負担の解消が3本柱として挙げられている。

医療費の自己負担解消としては、すでに昭和46年度、スモンの入院患者に対して月額1万円を治療研究費の枠から支給（各都道府県もほぼこれと同額を上乗せして支給）されていたが、47年4月、「特定疾患研究費補助金」により、あらたに次の事業を開始した。

1) 調査研究として、スモン、ベーチェット病、重症筋無力症、多発性硬化症など8疾患の研究班を設置。

2) 治療研究として、スモン、ベーチェット病、重症筋無力症、全身性エリテマトーデスの4疾患につき受療者に協力謝金を支給。1ヶ月のうち20日以上入院し、かつ自己負担が1万円以上ある者に対して国が1万円支給。都道府県もほぼ同額支給。翌年には自己負担分全額支給。

以上の経過で重要な点は、我国の難病患者の救済は治療研究費として研究と不可分の形で開始されたということである。

2) 現在何故見直しが迫られているのか

その後、特定疾患対策研究事業の対象疾患は増加し、現在調査研究118疾患、治療研究46疾患が定められている。治療研究事業による受給者数も当初の1万7千人から平成12年度の47万人に増加した。しかし、特定疾患治療研究事業は当初の研究に対する協力謝金という意味合いは現在全く意識されていない。

難病対策要綱が制定されて20年以上が経過し、難病患者のおかれた社会・経済状況は患者および家族のニーズが変化したことをふまえて、21世紀を目指した総合的な難病対策を検討するため、平成5年7月に公衆衛生審議会成人病難病対策部会難病対策専門委員会が設置され、平成7年12月27日に最終報告がとりまとめられた。その中で、対象疾患として取り上げる範囲として、（1）希少性、（2）原因不明、（3）効果的な治療法未確立、（4）生活面への長期にわたる支障の4要素に基づいて明確にした。また難病対策の進め方として従来の3本柱に「地域における保健医療福祉の充実」「生活の質の向

上を目指した福祉施策の推進」の2項目が追加された。今後の特定疾患対策の具体的な方向として、特定疾患治療研究事業に対しては(1)対象疾患選定の基準の明確化(対象疾患の取捨選択も行うべき)(2)診断基準、治療指針の適切な改定と周知に加えて(3)調査研究と治療研究の連携強化が求められた。平成9年3月の特定疾患治療研究事業に関する対象疾患検討部会報告では、対象疾患として取り上げる範囲における「希少性」の基準を5万人未満とするとされた。その根拠のひとつとして、オーファンドラッグの対象疾患が患者数5万人未満とされていることが挙げられている。

特定疾患治療研究事業に関しては調査研究事業との連携の強化すなわち医療費の公費負担申請のために診断書に記入された情報を研究に利用することが求められたが、これに加えて、受給者の認定方法にも問題があることが指摘された。すなわち、都道府県がそれぞれ独自の診断書に基づき独自の基準で認定しており、都道府県により受給率に大きな差がみられたのである。この指摘に基づいて、平成13年4月から、難病患者認定適正化事業が開始された。まず、研究班が明確な診断基準を定め、受給申請には研究班が作成した統一された個人票を使用することになった。また、各都道府県は個人票の記載内容を電子ファイル化し、厚生行政総合情報システム(WISH)を用いたデータ管理を行い、コンピュータプログラムによる統一的な一次判定を行うことになった。患者の同意の得られた個人票の記載データはデータベースとなり、特定疾患対策研究事業の研究班で研究に利用される予定である。平成13年度から新規の申請がこの事業に沿って行われ、平成14年度から更新の申請に適用されるようになる。

これまで述べたように、我国の難病対策は研究と福祉が一体となって発展してきたものである。患者救済を研究費で導入するというやり方は当時斬新で受け入れられやすかったものと思われる。また研究者の立場からは希少疾患を全国規模で把握できるメリットがあり(平成12年度の受給者数は筋萎縮性側索硬化症5,738人、パーキンソン病55,798人)、我国の難病研究の発展はこの独特な方式に負うところが大きいといえよう。しかし一方では、一定の治療法がすでに確立した治療研究対象疾患があるという指摘がなされている。またこの事業は法律に基づくものではなく、非制度的補助金に分類されているため、現在、財政構造改革法に沿って削減の対象になっている。このような現状に即して特定疾患治療研究事業のあり方を見直し安定化をはかるため、平成13年9月19日、厚生科学審議会疾病対策部会難病対策委員会が

設置され、平成13年度末をめどに結論とりまとめることになっている。そこでは、患者団体や特定疾患研究班からの情報を聴取しながら、研究と福祉の分離、法制化の是非、難病の定義、対象疾患の基準と入れ替え、難病研究のあり方などの特定疾患治療研究事業の問題点について議論されている。

2 特定疾患臨床調査個人票の問題点と利用のしかた

現在、都道府県による多少の修正はあるが全国でほぼ統一的使用されている個人票と新しい特定疾患認定適正化事業に基づく認定作業には、現在なお多くの問題点が存在する。いくつかの要素にわけて述べてみたい。

1) 特定疾患治療研究事業による研究の問題点

特定疾患治療研究事業は研究といいながら実態は福祉である。ここでいう「治療研究」の意味が不明であるし、この事業によって治療法を確立することはほとんど無理な話である。また、調査票に記載された内容の信頼性にも疑問があるといわざるをえない。なぜなら、専門医は自分の患者ができるだけ認定されるように記載するであろう。一方専門医でない一般の医師による記載も許されており、記載内容や診断にかなりの疑問がある。診断書から調査票へ名称が変更されたことも記載の正確さの点で心配である。このような正確さに欠ける情報を研究に用いるとすると、精度はともかく数で勝負ということにならざるをえない。個々のデータの精度があまり問題にならない研究にどのようなものがあるだろうか。

2) 認定プロセスの問題点

研究班が現在認定に用いられている診断基準を作成したわけであるが、この診断基準は本事業の目的に適切かどうかは全く検討されていない。診断基準は目的によって異なるわけで、研究のための診断基準と行政で用いられる医療費給付認定基準はおのずと異なると思われる。各研究班は診断基準を作るときこの点に注意をはらうように求められなかったと思われる。

コンピュータプログラムによる一次判定が有効に機能しているかについても検証されなければならない。一部の疾患における「疑い」症例の多さは、判断のアルゴリズムの作成に研究班が意見を求めなかったことにも起因していると思われる。

都道府県の認定審査基準が同一レベルかも検証されなければならない。仮に調査票が正しく記入されていたとしても、これを有病率などの疫学研究に用いるためには、都道府県ごとの申請率や認定率、認定基準について確認しなければならないであろう。

3) 特定疾患臨床調査個人票作成過程の問題点

現在使われている個人票には、疾患間の著しいアンバランスが認められる。各研究班に個人票作成が依頼されたとき、統一的にその目的と作成指針が示されなかったことに起因する。各研究班はこれまでの調査票（診断書）の単なる改訂と理解したものと思われる。疾患によっては記入に時間がかかりすぎるといふ医師からの苦情がある。時間がかかると記載の信頼性が低下することは十分予想される。疾患によっては、作成にあたって実際に記入してみて何分かかるかを確認したかどうかが問われるような、あまりにも細かいデータを求める個人票も存在する。当然のことながら、記入や入力にかかる労力に見合う研究結果が期待できるのか、という厳しい批判も予想されよう。

個人票は、診断基準にもとづく認定に不可欠な最小限の事項と研究目的の調査項目からなるはずである。本来研究目的の情報収集は事前に周到な計画をたてるべきであり、個人票を作ったあと事後的にどのようにデータを利用するか議論するというのはおかしな話である。

出生地や発症時の職業、入院や通院の期間などの記入はすべての疾患に等しく求められているが、これらの内容は患者に直接尋ねて記載する内容であり、むしろ病状報告書を充実して患者あるいは家族が記入するようにした方が正確な情報が得られ、また医師の負担をへらすことができるだろう。

実際に個人票をどのように研究に利用するのかは、いつどのような形で研究班に個人票のデータが提供されるのが未確定であるので、現在のところ確定的なことはいえない。例えば、特定の患者を経時的に追跡するためには、その患者を標識する番号などが必要であるが、これが提供されるかどうかわからない。コンピュータプログラムを用いた一次判定の結果や、都道府県の最終的な判定結果の提供の有無についても現在のところ不明である。性比、発症年齢、病型など基本的な統計、発症年齢や経過年数などの点から非典型的症例の抽出、都道府県の認定傾向の把握、筋萎縮性側索硬化症の呼吸管理の実態の把握などに用いることは可能であろうが、具体的なデータ解析の方法については今後班員から意見を求める必要があるものとする。

将来的に、特定疾患治療研究事業がどのような形になるのかの議論がなされているところなので、特定疾患治療研究事業の将来はあまりにも不透明であるが、調査票の形で集められたデータは、多くの患者と医療関係者、行政担当者の努力や協力により積み上げられる膨大な情報であり、メリットとデメリットを理解した上で、有意

義に活用されることを願ってやまない。

神経疾患の QOL 評価

大 生 定 義¹

はじめに

私は、サリン事件の余波がようやく収まった 95 年夏に聖路加国際病院を辞し、産業医として働きながら、豪州の通信制臨床疫学大学院に入学、以前から感じていた、臨床でやっていることは本当に患者のためになっているのかという疑問の解答を得るために臨床疫学・医学判断学を学んできた。その過程で、アウトカムリサーチ・QOL に出会い、片頭痛・パーキンソン病・筋萎縮性側索硬化症など神経疾患の QOL を取り扱うことになった。この機会に自分の学んできた歩みをなぞりながら、私の QOL についての理解をお話してご批判を仰ぎたい。質問表の項目など具体的な記述は紙面の都合で省略している。引用した参考文献や拙著(1, 2)を参照していただければ幸甚である。

QOL (Quality of Life)とは、評価の目的は

QOL は、患者のこうありたいという expectation と実際の状況とのギャップとも表現できる。「疾患と治療の影響についての本人の自覚であり、身体と精神の健康、自立の程度、社会生活に関する、本人の希望と現実の解離の反映である。」と言う表現を使うものもある(3)。また、WHO の定義では individuals' perceptions of their position in life in the context of the culture and value systems in which they live, and in relation to their goals, expectations, standards, and concerns(自分の人生の状況についての認識であり、個人が生活している文化・価値体系の中、あるいは人生の目標・期待・基準・関心との関係において認識されるものである。)としている。QOL は、単なる満足度とも違うし、症状の重症度とも違う。人生観と同じように、人さまざまかも知れない。しかし、QOL の評価は、Fitzpatrick ら(4)は、①個々の患者のケアにあたっての心理社会的な問題の把握、②実際に感じている健康問題の集団的調査、③医療監査医療サービスや評価研究での成果の測定、④臨床試験、⑤費用効用分析の場面で重要と述べ、また萬代(5)は QOL が有効な場面として、①有効性に差がない、②効果があっても副作用が強い、③長期におよぶ治療、④ターミナルケア、⑤健常者の健康増進、⑥障害者のノーマライゼーションなどを挙げている。いずれにしても、どの立場で測定するかについて十分に明らかにすることや、指標として QOL が必ずしも適切で

ない場合もあるので、QOL を指標として使用する場合にはその役割の範囲を押さえておく必要がある。

QOL 評価にあたって

まず最初に何を QOL と認識するか、評価の目的は何か、対象となる疾患や状況で何が重要か、どんな目的で、QOL を問題にするのかなどをはっきりさせておくことが最も肝要である。治療の効果をみるのか、資源の分配を考えるのか、疾患による個人のレベルのインパクトをみるのか、社会のインパクトを見るのかなどである。これによって、何が大切な観察項目かがはっきりしてくる。WHO の提案でいえば、身体的健康、精神的健康、自立の程度、社会関係、環境、精神的尊厳・宗教・信仰など、どの領域(ドメイン)を目的にあわせて調整しておくかを明らかにすべきである。

さらに調査を具体的にを行う前に、今までの研究成果はどのようなものか、先人の成果を参考にするために十分な文献検討を行い、できれば社会科学や統計学の専門家の協力を得ることが大切で、決して自己流にならないことである。また、調査集団の内的妥当性だけでよいか、さらに一般化が必要かによるが、一般には妥当性など検査特性が検討ずみの全般的尺度(たとえば SF-36 など)と疾患に特有な事情を考慮した疾患特異的尺度の両方を使用するほうが良い。もちろん、定量化に努めることも重要だが、QOL の多様性から自ずと限界もある。以前から、言われている批判である「リンゴとミカンの足し算」は意味があるかも十分考慮してデータを採らなくてはならない。測定は全般的なスケールと疾患特異的なスケールを用いて健康状態のプロファイルをみていくことが多いが、効用値などの包括的な指数の使用をすることも、社会的視野にたつて大まかな把握をしたり、同質な集団のなかでの介入の違いをみる際に用いることがある。

効用値の求め方は、完全な健康を1とし、死を0として該当する健康あるいは疾病の状況について数字で表してもらう。これを暦年に乗して、質で調整された年を求めるのに用いることがある。温度計の目盛りのように 0.5 など VAS(visual analog scale)で求めたり、あるいは命を懸けて魔法の薬を飲むかなどの掛け率(standard gamble)から求めたり、不健康な状況のこれから先何十年と健康な何年と交換してもよいかなどの架空の取り引き(time tradeoff)から求めたりする。例えば、「片眼の失

¹ 横浜市立市民病院神経内科(E mail: sadaohbu.246.ne.jp)

明を何点とするか」「喘息で苦しむことから、逃れられるのであればどれくらいの危険を冒すか。死んでしまう危険が何パーセントであれば魔法の薬を飲むか」「喘息で苦しむ30年と、完全な健康何年と取り替えるか」などである。

QOL スケールの特性

尺度の妥当性(測りたいものを測っているか)、信頼性(同じものを測っているか)、反応性(変化に連動してスコアが変化するか: 変化に対する鋭敏度)、スコアの Ceiling(頭打ち)、Floor(底打ち) 効果の有無、実用性(実際に実施できるか)などを考慮する。温度を測っているつもりが明るさだったり、日によって、使う人によって違ったりしないものであることの確認が重要である。

QOLには、ゴールドスタンダードがないので、妥当性といってもいろいろなものがある。例えば、表面妥当性(尺度が測定したい設問を含んでいるという専門家の主観的判定)、内容妥当性(尺度が測定したい領域を適切に抽出しているかの専門家の判定)、構造妥当性(その尺度と他の検査法が関連しているか: 収束妥当性(関連する) 分岐的妥当性(関連しない))などさまざまある。使っている著者により言葉の意味が違うこともある。

信頼性には、検査一再検査、観察者間の一致率(カッパ統計)や潜在的にグループ化された項目群(下位尺度)が、同じような分散(ばらつき)を示すかをみる内的整合性(そのいわば相関係数であるCronbach α は再現性の最低値をも推定するため頻用されている)などがチェックされる。

神経疾患の QOL 評価の実際

さて、神経疾患の特徴は、「多岐であること(ALS から片頭痛まで)」、「パーキンソン病のように症状の変動が著しいものがあること」、「痴呆のように患者自身の認知機能の問題があり、明らかに存在する主観的評価と客観的評価の相違の折り合わせも必要なこと」、「脳機能の多様性から、症状・障害の多様性があること」、「病期や重症度、加齢、合併症(Co-morbidity)のなどの関与にも考慮が必要なこと」などがあげられよう。

私はまず、聖路加国際病院の岡安裕之先生、北里大学の五十嵐久佳先生、坂井文彦先生のご協力を得て、片頭痛患者の QOL の測定を2ヶ所で70名以上に行った。MSQOL の妥当性の検証ができた(6)、さらに SF-36 で標準集団のとの比較を行い、片頭痛の患者の QOL スコアは他の慢性疾患と同様に低下していることを報告した。SF-36(MOS 36 items Short Form Health Survey)は、主要な全般的健康関連 QOL の一つで、環境や経済、満足度の項目はない。自己記入式で、8 つの下位尺度、すなわち PF(physical functioning), MH(mental health), RP (role-physical), RE(role-emotional),

SF(social functioning), BP(bodily pain), GH(general health), VT(vitality) でなっており、それぞれに100点満点でスコア化される。疾患・言語を越えて汎用されており、日本人の標準値も福原より報告されている。MSQOL(片頭痛特異的 QOL スケール)は Patrick DL が主宰(7)し、Avoidance Behaviour(10項目)、Relationship(6項目)Feeling(4項目)3つの下位尺度で測定(計20項目)され、米・英・仏・伊・西・独・スウェーデン・デンマークで validation が済んでいる。今回私達は、逆翻訳済みの日本語版を作成して適用した。しかし、片頭痛には MIDAS(8)や Headache impact test(9)などの disability scale があり、これらは QOL のスケールとは違うが、簡単で治療の必要性や効果判定に役立っている。

この後、私は和歌山医科大学近藤智善先生、河本純子先生らのご協力を得て、パーキンソン病疾患特異的スケールに取り組んだ。パーキンソン病には、the Parkinson's Disease Questionnaire-39 (PDQ-39)と the Parkinson's Disease Quality-of-Life (PDQL)の2つの疾患特異的スケールが代表的であった。Damiano ら(10)がパーキンソン病に主に取り上げられている領域をまとめている。それらは physical function, mental health/emotional being, selfimage, social function, health-related distress, cognitive function, communication, sleep and rest, eating, role function, energy/fatigue, sexual function であるが、PDQ-39 は8つのドメイン: Mobility(10), Activities of daily living(6), Emotional well-being(6), Stigma(4), Social support(3), Cognitions(4), Communication(3), Bodily discomfort(3)の39項目からなる。これらについても妥当性を検証しており(11)、一部文言を変更し、Ver1.1 を昨年確定した。今後の使用にあたっては学問研究目的であれば、和歌山医大へ登録していただければ無料で提供できる。現在の PDQ39 の課題は、薬物の効果があるとの医師や患者の評価にもかかわらず、反応性は検証されなかったことをどう解釈するかである。スケールが鈍感であるのか、天井効果や床効果があるいは患者の判断基準が時と共に変動していく Response shift なのかはさらに再調査を組んでいる。

再び QOL とは、ALS に向けて

QOL はいろいろな要素で左右されるのはいうまでもないが、特に難病を持った患者さんの QOL は、その疾患の重症度だけではなく、患者さんの社会生活や人生観、病気に対する構えなどにも影響される。重病患者では、介護負担など家族総体での観点もいるのではないかと考えていた時期に私は ALS の QOL 評価を神経学会小委員会で行わせていただくことになった。今のところ、「臨

床試験にあたっては、QOL がその Outcome の一つ、あるいは最終的なものとの認識は重要である。そのスケールをどうするかについてのまだ検討途上ではある。世界的な基準になるスケールの日本語版の検証と日本独自の項目の発掘、定量スケールの限界を知った上での利用と個々の QOL の差違を認めての質的評価の導入が考慮されねばならない。具体的には、Sickness Impact Profile を使用することもよいが、その適用は時間もとり、現実的ではない。妥当性などの検証は現状では不十分であるが、SIP/ALS19 か ALSAQ40 (あるいは ALSAQ5) を使用することを勧める。」という草案を作成したが、この作業と平行する形で筋萎縮性側索硬化症 (ALS) 疾患特異的 QOL 測定スケール(12) (ALSAQ40 日本語版) の妥当性検証及び ALS データベース項目選択の予備調査 (特に患者の NAS-J と家族の介護負担度を中心に) を開始させてもらった。これには田代先生、森若先生をはじめ、ALS ガイドライン小委員会構成メンバーの諸先生、変性班構成員の諸先生の絶大なご協力を頂いた。日本の場合、重症者 (呼吸器をつけての在宅、全介助) の患者が多くいる。これらの人々の QOL 評価には、家族を中心にした介護者の質的研究も欠かせないと考えて、看護職専門家の協力を得て行っている。NAS-J は The Nottingham Adjustment Scale Japanese Version で視覚障害者について開発・検討された。不安・うつ12項目・自尊感情9項目・同病者に対する態度7項目・ローカスオブコントロール4項目・障害の受容9項目・自己効力感8項目・掃属スタイル6項目からなっている。疾患に対する態度や自己の評価などをモニターできる。

最後に

ここで述べた3疾患について表にまとめる。

表
神経疾患と測定すべき「QOL」

疾患	性質	治療法	QOLスケールのあり方特徴
片頭痛	間歇的	効果的治療あり。	患者の拾い出し Disabilityの定量化 個人のレベル
パーキンソン病	緩徐進行	やや効果的治療あり。	定量性と個別性病期によって濃淡 家族の関わり
筋萎縮性側索硬化症	やや急速致死性	対症治療のみ	定量性には限界 個別性が特に重要 家族との総体

時間や紙面の関係で多くは述べられないが、難病とくに

ALS などの超難病では、こころの持ちよう (心理的な側面、病気や人生に対する構え) が QOL に大きくかかわってくる。この面の考慮なしでは QOL は語れないし、介入についても単に QOL の評価だけではなく、心理的な尺度 (Locus of Control や Sence of Coherence などのような) の考慮も重要である。本日は、QOL 評価にあたっては、何を QOL とするか、身体的健康、精神的健康、自立の程度、社会関係・環境、精神的尊厳・宗教・信仰など、どの領域を測定するか目的にあわせて調整すること。QOL スケールを使用するにあたっては、妥当性、信頼性などの特性を考慮していく必要があること。質問表の適用は、単なるアンケートではなく、手順を経た、科学性が必要であることを具体例を示して述べた。最後に疾患により、定量的側面と質的側面の濃淡をつけるべきであり、心理的尺度の併用も重要であることも述べた。

参考文献

- (1) 大生定義：臨床成人病 31:45-50 2001
- (2) 大生定義：臨床のための QOL 評価ハンドブック (池上直己ら編集) 112-116 頁 医学書院 2001
- (3) 久郷敏明監訳 てんかんと QOL (Epilepsy and Quality of Life Edited by Trimble MR and Dodson WE) 星和書店 1998 東京
- (4) Fitzpatrick R, et al: BMJ 305:1047-7 1992
- (5) 萬代隆：臨床成人病 31:51-57 2001
- (6) Ohbu S et al: Validity of the Japanese version of the MS-QOL. Quality of life research (submitted)
- (7) Patrick DL, et al: A Quality-of-life Measure for Persons with Migraine: User's Manual and Scoring Diskette for United States Version. Seattle, Washington: Health research associates, Inc. 1997
- (8) Stewart WF, et al: Cephalalgia :19:107-14 1997
- (9) Ware, JE Jr., et al: Medical Care 2000; 38(Suppl 2): 73-82.
- (10) Damiano AM, et al: Quality of Life Research 8: 235-243 1999
- (11) 河本純子ら：日本人における PDQ-39 の Validation (第一報)。臨床神経 (投稿中)
- (12) Jenkinson C et al: J neurol 246 (suppl 3) III/16-21

神経難病の介護者負担を考える —ハンチントン病を事例として—

武藤香織¹⁾ 池田俊也¹⁾ 阿久津撰²⁾
福原俊一³⁾

はじめに

我が国の難病対策は、「難病対策要綱」に基づいて、(1) 調査研究の推進、(2) 医療施設の整備、(3) 医療費の自己負担の軽減、(4) 地域における保健医療福祉の充実・連携を柱として実施されてきたが、平成8年度より第5本目の柱として「QOLの向上を目指した福祉施策の推進」が加わり、難病患者等居宅生活推進事業が開始されている。この事業は、これまで老人福祉法と身体障害者福祉法の狭間に置かれて、福祉による支援が向けられてこなかった中高年の難病患者のためにとられた初めての福祉施策である。

しかしながら、居宅生活支援事業をはじめ、難病患者に適用される福祉施策は、すべて障害者福祉施策をもとにして提供されており、医療依存度の高い難病患者に特有のニーズには応えていない可能性がある。そのため、本稿では居宅生活支援事業を出発点としながら、神経難病患者の介護者負担感尺度を検討することの政策的な意義について考えたい。

難病患者への福祉施策の現状

難病患者等居宅生活支援事業の背景は、平成7年12月に総理府障害者対策推進本部で策定された「障害者プラン～ノーマライゼーション7か年戦略～」と、同年同月の公衆衛生審議会成人病難病対策部会難病対策専門委員会報告に遡る。従来福祉施策の対象外となっていた難病患者にも施策を提供することが障害者プランのなかで定められ、また難病対策専門委員会報告のなかでは、難病患者の生活の質(QOL)の向上を目指した福祉施策の導入が提言された。そのため、平成9年より特別区を含む市町村が実施する事業として事業として導入されている¹⁾。その内容は、以下のとおりである。

- (1) 難病患者等ホームヘルプサービス事業
- (2) 難病患者等短期入所事業(7日以内)
- (3) 難病患者等日常生活用具給付事業(6品目)
- (4) 難病患者等ホームヘルパー養成研修事業(これのみ都道府県・指定市事業)

また、対象は調査研究対象118疾患に慢性リウマチを加えた119疾患で、障害者手帳1,2級以外、65歳未満の患者となっている。

しかしながら、2000年に東京難病団体連絡協議会が行った調査では、調査時点において、12市区町村が事業化することどまっていた。また、アンケート調査に応じた574名の回答者のうち、78.6%がこの事業を「知らない」と回答している²⁾。居宅生活支援事業を受ける資格のある者のみ、あるいは事業を実施している市町村在住者のみで見ても、88%の人々が「知らない」と回答しており、実際の事業実績も低いことが予想される³⁾。このような現状の詳しいデータは明らかになっていないが、同様の状況が全国的に散見され、新しく参入した事業が十分に行き渡っていない可能性があることから、難病当事者団体が制度の改善を求めて運動を行ってきた経緯がある。

だが、医療依存度の高い難病患者にとっては、障害者福祉施策をもとに提供される福祉サービスが適切であるかどうか定かでない。また、一言で難病といっても、疾病特異性によって様々な福祉ニーズが発生することが考えられる。障害者手帳の等級によらず、家庭環境や疾病特異性によって介護負担の重い人々にはそれを軽減するサービスを、なんとか自立生活ができる人々にはその生活を持続的に支援するサービスが必要であろう。

そこで、患者とその介護者を支える福祉ニーズや介護負担、QOL把握を行うために、以下の二つの調査を計画した。

- (1) ハンチントン病の患者・介護者に対する聞き取り調査
- (2) 大阪、和歌山、滋賀の疾病団体会員(患者・介護者)に対する質問紙調査

本稿では、実施の終了した(1)の調査について報告し、今後の研究課題について言及する。

1) 慶應義塾大学医学部医療政策・管理学教室

2) 日本児童教育専門学校

3) 京都大学大学院医学研究科理論疫学分野

対象者と方法

ハンチントン病は、国の特定疾患であり、平成12年度末で526名の受給者がいる。不随意運動と精神症状を特徴とした常染色体優性遺伝の神経難病であり、ALSと並んで臥床率が高く、また遺伝性であることから家系内に複数の患者がいることも予想され、介護者負担の重い疾患の一つと考えられる。しかしながら、ハンチントン病の介護負担を検討した研究はほとんどなく、Zaritらによる介護負担感尺度⁴⁾を利用したCheshireらによる報告しかない⁵⁾。

そこで、介護の人手を要する神経難病患者の療養環境を明らかにし、医療・保健・福祉の連携の状況がどのようになっているかを検討することを目的として、介護者への聞き取り調査を行った。

研究参加を依頼した対象者は、当事者団体である日本ハンチントン病ネットワーク(JHDN)参加者のうち、東京、神奈川、京都、大阪、兵庫在住の8家系10世帯の14名であり、全員が研究参加の意思を表明した。参加者に対して、12名の患者(死亡患者3名を含む)の介護について尋ねた。参加者の匿名性に配慮し、研究参加に関する説明と同意は、そのプロセスを録音することによって同意書の取得に代え、ハンドルネームを使ってもらった。また参加者の同意を得て、インタビューの模様を録音した。

インタビューの方法は半構造化面接とし、参加者が希望する場所で、1回あたり2時間から3時間のインタビューを2回程度実施した。インタビューの模様は逐語録を作成した。グラウンデッド・セオリー・アプローチ(Glazer & Strauss, 1967)の継続的比較分析を用いてコード化を行い、現在も解析中である。

結 果

参加者が介護を行った患者の自立状態は、一部介助から全介助まで及んだ。介護者の属性は、表1のとおりであり、親の介護を経験した後に自らも患者となった者、また配偶者の介護を終えた後に子どもの介護を担っている者や、親の介護を終えたあとに発病した者など、遺伝性疾患ならではの継続的で過重な介護負担が認められた。

以下では、「医療」、「保健」、「福祉」に分けて、参加者の介護生活とのかかわりをまとめる。

表1 介護者の属性

- ・患者である介護者：1名【M, 40代】
- ・配偶者である介護者：7名【M:F=2:5, 64±4】
- ・at-riskの介護者：6名【M:F=1:5, 31±10】
- このうち、2世代2名以上の介護を担ってきた者：3名【M:F=0:3】

(1)「医療」について

患者は、8名が在宅療養中、4名が入院中であった。全員が特定疾患を申請しており、医療費自己負担の一部免除、あるいは重症度が重くなつてからの全額免除は、経済的な支援として喜ばれていた。通院頻度は1ヶ月から2ヶ月に1度というペースで、臨床経験が少ない主治医が相次いで交代し、「この病気のことは知らない」と言い放たれている。そのため、医療とのかかわりは、「薬を出してもらおう」程度のものであった。参加者全員から治療法の確立を望む発言があったものの、医療費公費負担が「治療研究事業」であるという実感はなかった。主治医との関係は淡白なものにとどまっており、参加者の発話中、主治医の存在感は薄く、医療に対する不満もなければ、期待もなかった。

また、どこの診療科にかかるかによって、現在の投薬メニューが異なっている。神経内科にかかる患者よりも精神科にかかる患者のほうが服薬量も種類も多い。

在宅での療養が難しい人は、長期入院施設の確保に苦勞し、定期的に病院との交渉を続けている。精神症状が理由となって神経内科病棟への入院を拒否された経験や、不随意運動が理由となって精神科病棟への入院を拒否された例があった。

(2)「保健」について

全ての参加者は遺伝相談の存在を知らず、受けた人がいなかった。子ども世代は、発病不安を抱えたままの介護生活で、「親の姿をみると、将来発病するのではないか」という不安に陥り、しばしば抑鬱に苦しんでいる。

介護者の健康状態については、2名以上の介護経験がある、高齢・女性の介護者が、自分の健康に対して不安感を訴えていた。一人は原爆手帳保持者であり、もう一人は大腸ガンを患っていた。

また、家族のなかに筋無力症、大腸ガン、精神分裂病、アルコール中毒、不眠症などを患う者がいた。

保健所による訪問を受けている人はおらず、特定疾患の申請以外に交流を持っていなかった。ただ一例だけ、医療制度と福祉制度のつなぎ手としての役割を果たす保健婦もおり、介護保険の特殊疾病認定に協力したことから、介護者にとっては心理的にも支えとなり、「介護生活に見通しが立った」と安堵させていた。

(3)「福祉」について

居宅生活支援事業対象患者の介護者は、実施状況やメニューを知らなかった。既に症状が進んで事業の対象でない介護者にとっても、早い時期

から福祉サービスがあれば助かったという発言がみられた。特にショートステイの必要性が述べられた。

ホームヘルプサービスについての評価は二分されており、男性介護者からは、利用する必要がないと感じられていた。

通所／訪問入浴、ショートステイ、ガイドヘルパー、障害年金、障害者手帳などの参加者にも好評で、活用されている。特に入浴サービスについては、患者が寝たきりになってしまうと、介護者にとっては非常にありがたいという意見が多かった。

参加者全員が日常生活用具給付として依頼していたのは、車椅子であった。手すり設置などの住宅改造は、「設置が症状の進行に間に合わずに使えないまま終わってしまった」という発言もみられた。

しかし、福祉サービスの申請手続きがサービス内容によって窓口が異なり、事前に手続きが必要であるなど煩雑であることについては、在宅で療養経験をもつ全員が指摘していた。また、市町村に申し出るにあたり、「周囲に病名が知られるのが怖くて利用を手控えた」という発言もみられた。

考 察

参加者の発言を総合すると、介護生活における「医療」や「保健」の比重は相対的に低く、「福祉」の比重が高かった。介護負担の軽減のために社会資源を利用する決断には、以下のような感情が鍵となっていることが考えられる。

- * 「見られたくない」：不随意運動と精神症状により、患者の外見がより目立つ（激怒、暴言・暴力など）
- * 「知られたくない」：煩雑な手続きをもつ各種社会資源の活用を妨げる要因
- * 「知らせない」：子どもへ病名を説明しない方針
- * 「見たくない」：子ども世代は、親の進行を見て落ち込み、自宅を離れる人も（「自分もあんなかと思うと…見なけりゃ元気なのだが」）
- * 「知りたくない」：発症前診断の受診希望者は少ない
- * 「話したくない」：相談相手が家系内外になし。当事者団体での交流に救いがあると考えている。

これらを配慮事項として、医療・福祉関係者が留意しなければならないだろう。こうした感情には、ハンチントン病に特有のものもあれば、他の疾患の介護者にも共通の感情である可能性もある。また、こうした感情は、介護時間の長さや介護量とともに介護負担感を増幅する要素になるものと

考えられ、介護者の確保そのものにも影響を与えている可能性も示唆される。今後より詳しく検討していく必要がある。

介護者の健康管理に関しては、2名以上の介護を行っている者の健康状態や、発病リスクを持つ介護者の精神的な健康に対する配慮の必要性が示唆された。このことから、要介護者が複数いる家族への優先的な支援施策の必要性も示唆される。

以上のような調査結果を踏まえて、比較的軽症の難病患者が求める福祉施策のありかたを検討することを目的として、より幅広い患者層の意向も把握する必要があると考え、本調査の結果を踏まえて設問項目を検討した。その後、大阪、滋賀、和歌山の15疾病団体に所属する18歳以上64歳以下の特定疾患患者（119疾患）とその介護者を対象に、質問紙調査を実施し、現在回収中である。このなかには、筋無力症やパーキンソン病といった神経難病が含まれており、ハンチントン病への調査結果と比較してどのような違いがあるのかを継続的に検討していく所存である。

文 献

- 1) 厚生労働省健康局疾病対策課、『難病対策提要』：17, 2001.
- 2) 東京難病団体連絡協議会、「難病患者実態調査報告」：東難連 12, 2001.
- 3) 武藤香織、「居宅生活支援事業の対象者についての分析：難病患者実態調査アンケートより」，東難連 12: 20-29, 2001.
- 4) Zarit SH, et al: Gerontologist 20: 649-655, 1980.
- 5) Chesire AM, et al: oral presentation at the 14th WFN/IHA Biennial Meeting, Copenhagen, August 26th, 2001.

川合充氏は特定疾患研究事業の歴史的な経緯を概観し、本事業の特殊性（調査研究事業と治療研究事業）、診断基準の作成上の問題や基準適用における地域間、施設間、医師間のばらつきなどの問題点を指摘した。しかし、本研究事業は、患者数や疾患の自然歴の把握、医療・福祉サービスの利用状況等に関して悉皆的なデータを得ることができるという画期的な特徴を有しているのも事実であり、目的を明確にした上での研究事業の適正な継続の必要性和重要性を強調した。

大生定義氏は、生命予後と同等あるいはそれ以上に重要な主観的アウトカムとしての QOL の重要性を指摘した。主観的アウトカムの測定にあたっては、信頼性や妥当性のある尺度の開発や検証など科学的な手続きが必要であることも強調した。同時に、神経難病、特に ALS など、短期間における死亡への恐怖感など特殊な状態を生じる疾患も少なくないことから、個々の疾患や個人の特殊性を尊重して QOL を考える必要性も指摘した。さらに QOL を測定するだけではなく、QOL に影響を与える要因、また QOL を向上させる介入の評価などこそが QOL 研究にとって重要である点であるとした。

武藤香織氏は患者の主観的なアウトカムだけではなく、患者を介護する者の負担感や満足度を評価することも重要であることを指摘した。またこれらの介護負担を軽減するため種々の公的な支援事業も重要であるが、これに対するニーズ評価を適切に行わないと、せっかくの公的な事業が利用されないという事態も起こりかねない。また行った事業に対する評価を行うことも重要であると結んだ。

まとめ：

疾患特異的な臨床班と、横断的な研究班が合同でワークショップを開催する試みは今回が初めてと思われる。今回のワークショップから以下の3点が導き出された。

1. 事業目的の明確化：厚生科学研究では、個々の研究班の評価が毎年行なわれているが、川合氏が指摘したように、特定疾患研究事業は、研究のみではなく、特定疾患患者の医療補助や種々の支援事業によって成り立っている。したがって個々の研究班だけではなく、この研究事業全体を評価する必要もある。そのためにはこの研究事業の主な目的（ミッション）を明確に作成する必要がある。このミッションを作成ことなくして、適正な評価を行うことはほとんど不可能であると考ええる。
2. 指標の標準化：1の事業全体の評価にせよ、疾患の認定基準作成、QOL 評価、介護

負担感測定、医療経済評価そして介護支援事業の評価にせよ、必要であるのは評価指標の標準化という点である。評価指標の標準化なしには、異なるアプローチや手法の比較や評価も困難である。またあまりにも複雑で、時間のかかる評価指標はいくら信頼性や妥当性が高いとしても、実施可能性に乏しい。これらの点を考慮して、使いやすく一定の信頼性と妥当性を有する、しかも標準的な指標の確立が重要である。これらの一連の作業において、横断的研究班の役割は大きい。

3. 評価指標の個別化：2と矛盾するようであるが、疾患や患者はそれぞれの特殊性や価値観を有しており、共通の指標による評価で事足りるというわけではない。これに対応するのがまさに日々の臨床実践であり、介護の実践であるといえる。これらの点で臨床の現場において疾患や患者を理解している専門医や介護担当者の経験と、そこから生じる疑問やニーズは、研究の推進に不可欠のものである。

以上より、特定疾患に関する臨床研究および事業の評価にあたっては、横断班と臨床班の密な連帯が必須であるということが理解された。

2. 平成 13 年度研究発表会

厚生科学研究特定疾患対策研究事業

特定疾患患者の生活の質（Quality of Life、QOL）の
判定手法の開発に関する研究班

平成13年度研究発表会
プログラム

主任研究者 福原 俊一

日時 : 平成14年1月26日 (土) 10時～16時

場所 : 東京大学弥生講堂1条ホール
東京都文京区弥生1-1-1

< プ ロ グ ラ ム >

開会挨拶 主任研究者 福原俊一 10:00-10:05

厚生労働省挨拶 健康局課長 麦谷真里 10:05-10:15

演題発表

I 特別調査報告： 座長：福原俊一

1. 難病患者居宅支援事業の利用実態調査 10:15-10:30
広島女子大学生活科学人間福祉学科
○藤本真一、福原俊一

II 基礎的・技術的研究グループ 座長：橋本英樹 10:30-11:20

2. 3年間の研究成果のまとめ 10:30-10:40
東京大学大学院医学系研究科生物統計学
○大橋靖雄、山口拓洋、伊藤陽一

3. パーキンソン病患者の対する QOL 尺度 PDQ-39 の反応性に関する
介入試験－試験計画の概要と中間結果－ 10:40-10:55
東京大学大学院医学系研究科生物統計学
○山口拓洋、大生定義、近藤智善、河本純子、大橋靖雄、伊藤陽一

4. response shift phenomenon の検出とその心理的要因に関する分析 10:55-11:10
帝京大学医学部衛生・公衆衛生学
○橋本英樹、岩男泰、杉田昭、櫻井俊弘

質疑応答 11:10-11:25

III モデル疾患 I :炎症性腸疾患(IBD)グループ 座長：大橋靖雄 11:25-12:15

5. 3年間の研究成果のまとめ 11:25-11:30
帝京大学医学部衛生・公衆衛生学
○橋本英樹、岩男泰、杉田昭、櫻井俊弘、日比紀文

6. クローン病入院患者の縦断研究；QOL の変化と臨床状態について 11:30-11:40
福岡大学筑紫病院消化器科
○橋本英樹、櫻井俊弘、岩男泰、日比紀文

7. IBDQ の反応性 (responsiveness) についての検討 11:40-11:50
慶応義塾大学医学部消化器内科
○岩男泰、橋本英樹、櫻井俊弘、日比紀文

8. 術後 UC 患者の QOL 変化についての縦断研究 11:50-12:00
横浜市立大学医学部附属市民総合医療センター難病医療センター
○杉田昭、橋本英樹

質疑応答 12:00-12:15

< 昼 休 み (打ち合わせ会議) >

12:15-13:15

IV	モデル疾患Ⅱ：神経難病グループ(眼疾患含む)	座長：笠島茂	13:15-14:35
9.	パーキンソン病についての3年間の研究成果のまとめと 筋萎縮性側索硬化症(ALS)への取り組み 横浜市立市民病院神経内科 ○大生定義、近藤智善、河本純子、長岡正範、山口拓洋、伊藤陽一、 大橋靖雄、森若文雄、田代邦雄、福原俊一		13:15-13:30
10.	ALSの介護負担の質的研究 東京大学大学院医学系研究科精神看護学分野 ○萱間真美、大西美紀、箕宗一、河野由里、大生定義		13:30-13:45
11.	PDQ-39 version 1.1の確定についての報告と今後の普及について 和歌山県立医科大学神経内科 ○河本純子、近藤智善、大生定義		13:45-13:55
12.	PDQ-39とNAS-Jの関係について 京都大学医学研究科理論疫学分野 ○鈴嶋よしみ、大生定義、近藤智善、河本純子、福原俊一		13:55-14:10
13.	加齢性黄斑変性患者のQOLに関する研究 日本大学駿河台病院眼科 ○湯沢美都子、鈴嶋よしみ、福原俊一		14:10-14:20
	質疑応答		14:20-14:35
V	社会疫学・医療経済評価・医療倫理グループ	座長：福原俊一	14:35-15:55
14.	睡眠時無呼吸症候群患者のQOL 京都大学医学研究科理論疫学分野 ○笠島茂、山崎新、石丸伸司、渋谷英二、西村正治、福原俊一		14:35-14:50
15.	社会的要因とQuality of Life 京都大学医学研究科理論疫学分野 ○笠島茂、山崎新、福原俊一		14:50-15:05
16.	難病患者居宅支援事業のニーズ調査と介護者の負担度・ QOLに関する研究 慶應義塾大学医学部医療管理学 ○武藤香織、池田俊也、福原俊一		15:05-15:20
17.	QOL測定を含む調査研究に関する倫理的検討 京都大学大学院医学研究科医療倫理学、医療システム情報学 ○浅井篤、中山健夫、内藤真理子		15:20-15:40
	質疑応答		15:40-15:55
	閉会挨拶	主任研究者	15:55-16:00

VI 研究成果刊行に関する一覧表

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書籍名	出版社名	出版地	出版年	ページ
Asai A., Miura Y, Nagata S, Fukuhara S, Kurokawa K	Eithical issues in non-Western cultures. Japan	Levinsky G. N	Ethics and the Kidney.	Oxford	Oxford	2001	
福原俊一、鈴鴨よしみ、尾藤誠司、黒川清			SF-36 日本語版マニュアル (Version 2.0)	(財)パブリックヘルスリサーチセンター	東京	2001	
福原俊一	今なぜ QOL か?	池上直己、福原俊一他編	臨床のための QOL 評価ハンドブック	医学書院	東京	2001	
鈴鴨よしみ、福原俊一	SF-36 (MOS Short Form 36-Item Health Survey) 日本語版	漆崎一朗監修	新 QOL 調査書と評価の手引き	メディカルレビュー社	東京	2001	
大橋靖雄、森田智視	臨床比較試験における QOL データ解析	漆崎一朗、石原陽子	新 QOL 調査と評価の手引き	メディカルレビュー社	東京	2001	273-282
大橋靖雄	がん領域における QOL 把握の可能性とその意義	西條長宏	がんの化学療法 (前篇)	最新医学社	大阪	2001	178-186
大橋靖雄、森田智視	QOL の統計学的評価	池上直己、福原俊一、下妻晃二郎、池田俊也	臨床のための QOL 評価ハンドブック	医学書院	東京	2001	19-29
大生定義	第 3 部 疾病特異的尺度 8 神経内科。	池上直己・福原俊一・下妻晃二郎・池田俊也編	臨床のための QOL 評価ハンドブック	医学書院	東京	2001	112-116
杉田昭、山本雅由、小企井一隆、他	Crohn 病の消化器管大量出血と緊急外科手術のタイミング		消化器内視鏡	東京医学社	13(2)	2001	181-186
櫻井俊弘	炎症性腸疾患緩解維持と QOL		図説消化器病シリーズ	メジカルビュー社、東京		2001	117-125
長岡正範	リハビリテーション	水野美邦	EBM のコンセプトを取り入れたパーキンソン病ハンドブック	中外医学社	東京	2001	233-242
浅井篤、大西基喜、服部健司、大西香代子、赤林朗	医療倫理			勁草書房	東京	2002	
浅井篤	医の倫理と医師の義務		NEW 予防医学・公衆衛生学	南江堂	東京	2002	
浅井篤、大西基喜、福井次矢監著	臨床倫理学入門			医学書院	東京	2002	
鈴鴨よしみ、熊野宏昭	QOL 測定理論：計量心理学	池上直己、福原俊一、他	QOL 評価ハンドブック	医学書院	東京	2001	8-13
福原俊一、鈴鴨よしみ	健康プロファイル (SF-36 を中心に)	池上直己、福原俊一、他	QOL 評価ハンドブック	医学書院	東京	2001	32-42
鈴鴨よしみ	第 25 章 高齢者、慢性疾患患者の生活の質	田中農夫男編	障害者の心理と支援——教育・福祉・生活	福村出版	東京	2001	