

図5. OMDS 悪化群における HAQ 下位尺度 「歩行」 の変化

※1回から2回目の調査でOMDSが悪化した53ケースを対象とした。なお、OMDSが1から2、または2から1に変化した場合は「悪化」とは見なさなかった。

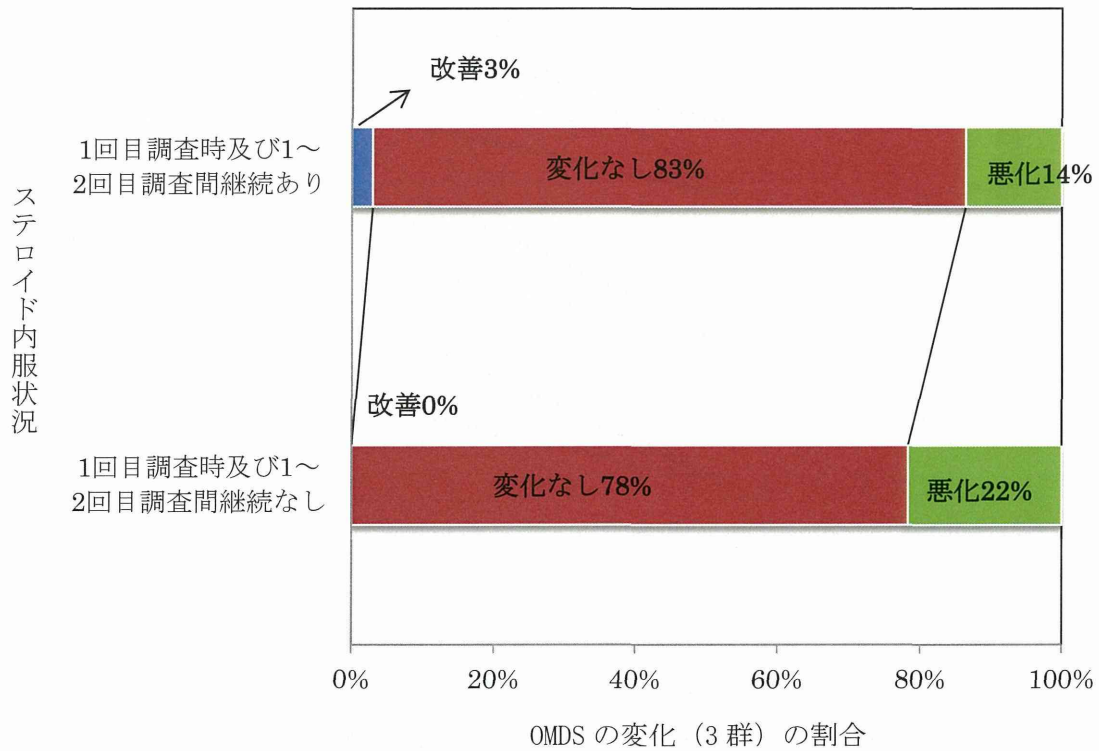


図6. HAM患者のステロイド内服状況（2群）とOMDSの変化

表 1. HAM 登録患者の属性

			※有効回答数
性別 (N)	男性	77 ( 25.9 %)	
	女性	220 ( 74.1 %)	
年齢 (平均±SD)		63.2 ± 10.6	297
発症年齢 (平均±SD)		44.2 ± 14.8	296
診断年齢 (平均±SD)		51.3 ± 13.0	297
発症から診断までの年数 (平均±SD)		7.1 ± 7.2	296
罹病期間 (年) (平均±SD)		18.9 ± 10.7	296
初発症状 (N)	歩行障害	242 ( 81.5 %)	297
	排尿障害	107 ( 36.0 %)	297
	下肢の感覚障害	41 ( 13.8 %)	297
	その他	90 ( 30.3 %)	297
HAM 家族歴 (N)		28 ( 9.4 %)	297
うち第2度近親者以内 (N)		27 ( 9.1 %)	297
ATL 家族歴 (N)		19 ( 6.4 %)	297
うち第2度近親者以内 (N)		17 ( 5.7 %)	297
輸血歴 (N)	あり	64 ( 21.7 %)	295
	うち 1986 年以前	56 ( 87.5 %)	64
排尿障害 (N)	なし	19 ( 6.4 %)	297
	投薬	179 ( 60.3 %)	
	導尿	92 ( 31.0 %)	
	他者管理	7 ( 2.4 %)	
排便障害 (N)	なし	59 ( 19.9 %)	297
	投薬	210 ( 70.7 %)	
	浣腸	25 ( 8.4 %)	
	他者管理	3 ( 1.0 %)	
足のしびれ (N)	なし	88 ( 29.6 %)	297
	ときどきある	59 ( 19.9 %)	
	常にある	150 ( 50.5 %)	
足の痛み (N)	なし	163 ( 54.9 %)	297
	ときどきある	62 ( 20.9 %)	
	常にある	72 ( 24.2 %)	

表2. HAM登録患者の居住都道府県 (N=297)

地域	都道府県	N	%	地域	都道府県	N	%	
北海道 東北地方	北海道	13	4.4	関西地方	三重県	3	1.0	
	青森県	0	0.0		滋賀県	2	0.7	
	岩手県	1	0.3		京都府	2	0.7	
	宮城県	7	2.4		大阪府	15	5.1	
	秋田県	0	0.0		兵庫県	11	3.7	
	山形県	0	0.0		奈良県	5	1.7	
	福島県	2	0.7		和歌山県	5	1.7	
関東地方	茨城県	1	0.3	中国地方	鳥取県	3	1.0	
	栃木県	0	0.0		島根県	0	0.0	
	群馬県	0	0.0		岡山県	0	0.0	
	埼玉県	5	1.7		広島県	3	1.0	
	千葉県	9	3.0		山口県	1	0.3	
	東京都	14	4.7		四国地方	徳島県	0	0.0
	神奈川県	27	9.1			香川県	0	0.0
中部地方	新潟県	2	0.7	愛媛県		5	1.7	
	富山県	0	0.0	高知県		1	0.3	
	石川県	1	0.3	九州・沖縄地方		福岡県	31	10.4
	福井県	1	0.3			佐賀県	4	1.3
	山梨県	0	0.0			長崎県	22	7.4
	長野県	1	0.3		熊本県	9	3.0	
	岐阜県	1	0.3		大分県	18	6.1	
	静岡県	4	1.3		宮崎県	10	3.4	
	愛知県	10	3.4		鹿児島県	41	13.8	
					沖縄県	7	2.4	

表 3. HAM 登録患者及びその実父、実母の出身都道府県 (N=297)

地域	都道府県	本人		実父		実母		地域	都道府県	本人		実父		実母		
		N	%	N	%	N	%			N	%	N	%	N	%	
北海道	北海道	9	3.0	7	2.4	8	2.7	関西地方	三重県	2	0.7	3	1.0	3	1.0	
東北地方	青森県	1	0.3	1	0.3	1	0.3		滋賀県	1	0.3	2	0.7	2	0.7	
	岩手県	2	0.7	5	1.7	3	1.0		京都府	1	0.3	1	0.3	1	0.3	
	宮城県	7	2.4	5	1.7	8	2.7		大阪府	12	4.0	4	1.3	3	1.0	
	秋田県	1	0.3	3	1.0	3	1.0		兵庫県	6	2.0	4	1.3	6	2.0	
	山形県	0	0	1	0.3	2	0.7		奈良県	3	1.0	2	0.7	1	0.3	
	福島県	2	0.7	3	1.0	0	0		和歌山県	6	2.0	7	2.4	7	2.4	
関東地方	茨城県	3	1.0	5	1.7	3	1.0	中国地方	鳥取県	3	1.0	2	0.7	2	0.7	
	栃木県	0	0	0	0	0	0		島根県	4	1.3	5	1.7	6	2.0	
	群馬県	0	0	1	0.3	0	0		岡山県	0	0	0	0	0	0	
	埼玉県	1	0.3	1	0.3	0	0		広島県	3	1.0	4	1.3	4	1.3	
	千葉県	3	1.0	2	0.7	3	1.0		山口県	3	1.0	3	1.0	3	1.0	
	東京都	11	3.7	5	1.7	4	1.3		四国地方	徳島県	1	0.3	0	0	0	0
	神奈川県	11	3.7	7	2.4	9	3.0			香川県	0	0	1	0.3	0	0
中部地方	新潟県	2	0.7	4	1.3	4	1.3	愛媛県		5	1.7	6	2.0	5	1.7	
	富山県	0	0	2	0.7	0	0	高知県	2	0.7	4	1.3	3	1.0		
	石川県	1	0.3	0	0	0	0	九州・沖縄地方	福岡県	17	5.7	10	3.4	16	5.4	
	福井県	2	0.7	3	1.0	2	0.7		佐賀県	7	2.4	12	4.0	7	2.4	
	山梨県	2	0.7	3	1.0	2	0.7		長崎県	32	10.8	30	10.1	35	11.8	
	長野県	2	0.7	2	0.7	2	0.7		熊本県	17	5.7	20	6.7	19	6.4	
	岐阜県	1	0.3	1	0.3	1	0.3		大分県	19	6.4	16	5.4	17	5.7	
	静岡県	5	1.7	5	1.7	5	1.7		宮崎県	12	4.0	16	5.4	16	5.4	
	愛知県	7	2.4	6	2.0	5	1.7		鹿児島県	59	19.9	62	20.9	62	20.9	
								沖縄県	9	3.0	10	3.4	11	3.7		

表 4. 第 1 回調査から第 2 回調査の間に亡くなった HAM 登録患者の属性 (N=5)

性別 (N)	男	2	
	女	3	
第一回調査時年齢 (平均±SD)		72.0±11.0	(range60-85)
発症年齢 (平均±SD)		44.4±22.1	(range18-68)
罹患機関 (平均±SD)		27.6±18.1	(range12-52)
死因 (N)	膀胱癌	1	
	肺炎	1	
	大腸癌	1	
	食道癌	1	
	老衰	1	

表 5. HAM 患者の輸血歴の有無と属性

		輸血歴あり (N=64, 21.7%)	輸血歴なし (N=231, 78.3%)	p 値
性 別	女性 (N)	51 (79.7%)	168 (72.7%)	N. S.
	男性 (N)	13 (20.3%)	63 (27.3%)	
年 齢	(平均±SD)	66.4±10.8	62.3±10.4	<0.01
運動障害発現年齢	(平均±SD)	50.0±13.9	44.0±14.3	<0.01
診断年齢	(平均±SD)	55.5±11.5	50.3±13.2	<0.01
発症から診断までの年数	(平均±SD)	6.1±6.2	7.3±7.4	N. S.
罹病期間 (年)	(平均±SD)	17.0±9.9	19.4±10.9	N. S.
初発症状	歩行障害あり (N)	55 (85.9%)	185 (80.1%)	N. S.
	歩行障害なし (N)	9 (14.1%)	46 (19.9%)	
	排尿障害あり (N)	26 (40.6%)	81 (35.1%)	N. S.
	排尿障害なし (N)	38 (59.4%)	150 (64.9%)	
	下肢の感覚障害あり (N)	11 (17.2%)	30 (13.0%)	N. S.
	下肢の感覚障害なし (N)	53 (82.8%)	201 (87.0%)	
現在の OMDS	(平均±SD)	6.7±2.6	6.0±2.3	N. S.
HAQ-DI	(平均±SD)	1.4±0.7	1.2±0.7	<0.05

表 6. 急速進行性 HAM 患者の属性 (運動障害発現年齢から現在の OMDS グレード 6 までの移行年数が 2 年以下)

		急速進行群 (N=15, 5.1%)	非急速進行群 (N=281, 94.9%)	p 値
性 別	女性 (N)	9 (60.0%)	210 (74.7%)	N. S.
	男性 (N)	6 (40.0%)	71 (25.3%)	
年 齢 (平均±SD)		68.0±6.9	62.9±10.7	N. S.
運動障害発現年齢 (平均±SD)		60.3±8.7	44.5±14.2	<0.001
診断年齢 (平均±SD)		61.1±9.0	50.8±13.0	<0.01
発症から診断までの年数 (平均±SD)		1.1±2.0	7.4±7.2	<0.001
罹病期間 (年) (平均±SD)		8.0±5.6	19.5±10.6	<0.001
初発症状	歩行障害あり (N)	13 (86.7%)	229 (81.5%)	N. S.
	歩行障害なし (N)	2 (13.3%)	52 (18.5%)	
	排尿障害 (N) あり	5 (33.3%)	101 (35.9%)	N. S.
	排尿障害 (N) なし	10 (66.7%)	180 (64.1%)	
	下肢の感覚障害あり (N)	3 (20.0%)	38 (13.5%)	N. S.
	下肢の感覚障害なし (N)	12 (80.0%)	243 (86.5%)	
輸血歴	あり (N)	4 (26.7%)	59 (21.0%)	N. S.
	なし (N)	11 (73.3%)	220 (78.3%)	
	不明 (N)	0 (0.0%)	2 (0.7%)	
現在の OMDS (平均±SD)		8.1±2.8	6.1±2.3	<0.01
HAQ-DI (平均±SD)		1.8±0.7	1.2±0.7	<0.01

表7. 急速進行性HAM患者の属性 (運動障害発現年齢からOMDSグレード5までの移行年数が2年以下)

		急速進行群 (N=54, 18.2%)	非急速進行群 (N=242, 82.8%)	p値
性別	女性 (N)	42 (77.8%)	177 (73.1%)	N. S.
	男性 (N)	12 (22.2%)	65 (26.9%)	
年齢 (平均±SD)		66.6±8.7	62.4±10.8	<0.01
運動障害発現年齢 (平均±SD)		56.8±10.1	42.7±14.0	<0.001
診断年齢 (平均±SD)		57.9±10.2	49.8±13.1	<0.001
発症から診断までの年数 (平均±SD)		1.9±3.2	8.2±7.3	<0.001
罹病期間 (年) (平均±SD)		10.6±6.5	20.8±10.6	<0.001
初発症状	歩行障害あり (N)	46 (85.2%)	196 (81.0%)	N. S.
	歩行障害なし (N)	8 (14.8%)	46 (19.0%)	
	排尿障害 (N)あり	18 (33.3%)	88 (36.4%)	N. S.
	排尿障害 (N)なし	36 (66.7%)	154 (63.6%)	
	下肢の感覚障害あり (N)	8 (14.8%)	33 (13.6%)	N. S.
	下肢の感覚障害なし (N)	46 (85.2%)	209 (86.4%)	
輸血歴	あり (N)	20 (37.0%)	43 (17.8%)	<0.01
	なし (N)	34 (63.0%)	197 (81.4%)	
	不明 (N)	0 (0.0%)	2 (0.8%)	
現在のOMDS (平均±SD)		6.8±2.3	6.0±2.4	<0.05
HAQ-DI (平均±SD)		1.4±0.6	1.2±0.7	<0.05

表8. HAM患者におけるOMDSの経年比較

	N	平均値	SD	p値
1回目調査	297	5.9	2.3	<0.001
2回目調査	297	6.2	2.4	

表9. HAM患者のOMDS悪化の有無と属性

		悪化あり (N=53, 17.8%)	悪化なし (N=244, 82.2%)	p値
性別	女性 (N)	39 (73.6%)	181 (74.2%)	N.S.
	男性 (N)	14 (26.4%)	63 (25.8%)	
年齢 (平均±SD)		65.7±10.4	62.6±10.6	N.S.
運動障害発現年齢 (平均±SD)		46.5±14.4	45.0±14.4	N.S.
診断年齢 (平均±SD)		52.8±12.6	51.0±13.1	N.S.
発症から診断までの年数 (平均±SD)		7.6±6.4	7.0±7.4	N.S.
罹病期間 (年) (平均±SD)		20.6±10.3	18.5±10.8	N.S.
初発症状	歩行障害あり (N)	44 (83.0%)	198 (81.1%)	N.S.
	歩行障害なし (N)	9 (17.0%)	46 (18.9%)	
	排尿障害あり (N)	24 (45.3%)	83 (34.0%)	N.S.
	排尿障害なし (N)	29 (54.7%)	161 (66.0%)	
	下肢の感覚障害あり (N)	10 (18.9%)	31 (12.7%)	N.S.
	下肢の感覚障害なし (N)	43 (81.1%)	213 (87.3%)	
現在のOMDS (平均±SD)		7.4±2.3	5.9±2.3	<0.001
HAQ-DI (平均±SD)		1.5±0.6	1.2±0.7	<0.01



表 10. HAM 患者における 2 回目調査時の OMDs と HAQ との相関 (N=297)

HAQ 下位尺度	Spearman の順位相関係数	
着衣と身繕い	0.602	***
起立	0.730	***
食事	0.298	***
歩行	0.844	***
衛生	0.689	***
動作	0.750	***
握力	0.625	***
その他 (近所の商店街に買い物に行く等)	0.732	***
HAQ-DI	0.844	***

\*\*\*  $p < 0.001$

表 11. HAM 患者の HAQ スコア (HAQ-DI) の経年比較

	N	1 回目調査	SD	2 回目調査	SD	p 値
HAQ-DI	297	1.2	0.7	1.3	0.7	<0.001

表 12-1. HAM 患者 (全体) の排尿障害関連スコアの経年比較

	1 回目調査	SD	2 回目調査	SD	N	p 値
OABSS 合計点	6.52	4.28	6.57	3.98	281	0.820
I-PSS 合計点	14.9	9.78	13.9	9.96	281	0.020 *
ICIQ-SF 合計点	6.27	6.12	6.26	6.18	279	0.979
N-QOL 総得点	85.0	17.4	86.5	15.3	281	0.110

表 12-2. HAM 患者 (女性) の排尿障害関連スコアの経年比較

	1 回目調査	SD	2 回目調査	SD	N	p 値
OABSS 合計点	6.66	4.45	6.60	4.08	207	0.791
I-PSS 合計点	13.8	9.26	12.9	9.66	207	0.067
ICIQ-SF 合計点	6.79	6.27	6.88	6.46	206	0.788
N-QOL 総得点	84.7	17.5	86.5	16.1	207	0.098

表 12-3. HAM 患者 (男性) の排尿障害関連スコアの経年比較

	1 回目調査	SD	2 回目調査	SD	N	p 値
OABSS 合計点	6.14	3.77	6.46	3.73	74	0.378
I-PSS 合計点	18.0	10.6	16.6	10.3	74	0.149
ICIQ-SF 合計点	4.79	5.47	4.52	4.94	73	0.555
N-QOL 総得点	85.9	17.1	86.5	13.2	74	0.739

表 13. HAM 患者の調査時における投薬状況

	1 回目調査時内服あり	1 回目～2 回目調査間の内服 継続あり
ステロイド内服 (N)	123 (41.4%) (有効回答 297 名)	122 (45.7%) (有効回答 267 名)
	1 回目調査時までに投与歴 あり	1 回目～2 回目調査間に 投与歴あり
ステロイドパルス投与 (N)	103 (36.0%) (有効回答 286 名)	20 (7.5%) (有効回答 267 名)
インターフェロン投与 (N)	120 (40.5%) (有効回答 296 名)	10 (3.7%) (有効回答 269 名)

表 14. HAM 患者の投薬状況と 2 回目調査時の OMDS

	1 回目調査時	1 回目～2 回目調査 間の内服の継続	N (%)	2 回目調査時 OMDS	p 値
	なし	なし	138 (51.7%)	6.2 (±2.5)	N. S.
ステロイド内服 (N=267)	あり	なし	7 (2.6%)	7.0 (±2.9)	
	なし	あり	19 (7.1%)	6.2 (±2.3)	
	あり	あり	103 (38.6%)	5.9 (±2.2)	
	1 回目調査時 までの投与歴	1 回目～2 回目調査 間の投与歴	N (%)	2 回目調査時 OMDS	p 値
	なし	なし	157 (61.1%)	6.3 (±2.4)	N. S.
ステロイドパルス 投与 (N=257)	あり	なし	80 (31.1%)	6.0 (±2.4)	
	なし	あり	7 (2.7%)	6.1 (±2.3)	
	あり	あり	13 (5.1%)	5.8 (±2.2)	
インターフェロン 投与 (N=268)	なし	なし	162 (60.4%)	5.9 (±2.4)	<0.05
	あり	なし	96 (35.8%)	6.6 (±2.4)	
	なし	あり	0 (0%)	—	
	あり	あり	10 (3.7%)	6.5 (±1.7)	

表 15. HAM 患者のステロイド内服の継続状況と OMDS の変化 (N=267)

			1 回目調査時から 2 回目調査時の OMDS の変化			p 値
			改善	変化なし	悪化	
ステロイド内服						
		1~2 回目調査間				
1 回目調査時なし	—	継続なし	0 (0%)	108 (78.3%)	30 (21.7%)	N. S.
		1~2 回目調査間				
1 回目調査時あり	—	継続なし	0 (0%)	4 (57.1%)	3 (42.9%)	
		1~2 回目調査間				
1 回目調査時なし	—	継続あり	0 (0%)	17 (89.5%)	2 (10.5%)	
		1~2 回目調査間				
1 回目調査時あり	—	継続あり	3 (2.9%)	86 (83.5%)	14 (13.6%)	

表 16. HAM 患者のステロイドパルス投与歴と OMDS の変化 (N=257)

			1 回目調査時から 2 回目調査時の OMDS の変化			p 値
			改善	変化なし	悪化	
ステロイドパルス投薬歴						
		1 回目~2 回目調査間				
1 回目調査時までの 投与歴なし	—	の投与歴なし	0 (0%)	125 (79.6%)	32 (20.4%)	N. S.
		1 回目~2 回目調査間				
1 回目調査時までの 投与歴あり	—	の投与歴なし	2 (2.5%)	65 (81.3%)	13 (16.3%)	
		1 回目~2 回目調査間				
1 回目調査時までの 投与歴なし	—	の投与歴あり	0 (0%)	6 (85.7%)	1 (14.3%)	
		1 回目~2 回目調査間				
1 回目調査時までの 投与歴あり	—	の投与歴あり	1 (7.7%)	11 (84.6%)	1 (7.7%)	

表 17. HAM 患者のインターフェロン投与歴と OMDS の変化 (N=268)

		1 回目調査時から 2 回目調査時の OMDS の変化			p 値
		改善	変化なし	悪化	
インターフェロン投薬					
1 回目調査時までの 投与歴なし	1 回目～2 回目調査間 の投与歴なし	2 (1.2%)	131 (80.9%)	29 (17.9%)	N. S.
1 回目調査時までの 投与歴あり	1 回目～2 回目調査間 の投与歴なし	1 (1.0%)	79 (82.3%)	16 (16.7%)	
1 回目調査時までの 投与歴なし	1 回目～2 回目調査間 の投与歴あり	0 (0%)	6 (60.0%)	4 (40.0%)	
1 回目調査時までの 投与歴あり	1 回目～2 回目調査間 の投与歴あり	1 (7.7%)	11 (84.6%)	1 (7.7%)	

表 18. HAM 患者のステロイド内服継続状況 (2 時点における継続内服あり、  
継続内服なしの 2 群) と OMDS の変化 (N=241)

		1 回目調査時から 2 回目調査時の OMDS の変化			p 値
		改善	変化なし	悪化	
ステロイド内服					
1 回目調査時及び 1～2 回目調査間継続なし		0 (0%)	108 (78.3%)	30 (21.7%)	0.041
1 回目調査時及び 1～2 回目調査間継続あり		3 (2.9%)	86 (83.5%)	14 (13.6%)	

## HAM 患者登録システム「HAM ねっと」のデータシステム構築と患者満足度調査

研究協力者 八木下 尚子

聖マリアンナ医科大学 難病治療研究センター 講師

**研究要旨:** HTLV-1 関連脊髄症(HAM)は、進行性の歩行障害や膀胱直腸障害を来す稀な難治性疾患である。HAMの治療ははまだ確立されていないのが現状で、これはHAM患者が様々な医療機関に点在し、その情報が集約されないことが原因となっている。この問題を解決するためにHAM患者登録システム「HAM ねっと」を構築し、症例集積性を高めた前向き研究を開始した。HAM ねっと開設より2年が経過した現在、扱うデータ数も開設当初に比べると膨大となってきたため、聞き取り調査結果の入力作業等の人為的なミスの軽減、作業の効率化などによる円滑な運営体制を整備する必要性が生じてきた。また一方で、HAM ねっと登録患者の継続的な協力を得るために、「HAM ねっと」に対する満足度を明らかにする必要があるといえる。

そこで本研究では、これらの課題を解決する目的で、HAM ねっとのデータシステム化を行うとともに、「HAM ねっと」登録患者を対象とした満足度とニーズ把握調査を実施した。その結果、HAM ねっとデータシステム化の大枠が完成し、次年度以降の運用の目途がたった。また、満足度とニーズ把握調査では 68.3%という高い回答率を得ることができ、登録患者の関心の深さを示唆するものとなった。この調査のなかで、病気や治療、研究や治験、国の対応、特定疾患に関する情報についての新しい情報や研究の進捗状況を知りたいと思っている登録患者が多いことがわかり、またインターネットを利用できる登録患者は少なく、依然として紙面による情報提供を望んでいることがわかった。今後は、これらの要望に答えるよう広報誌により最新情報を開示していくことで、登録患者の満足度が向上し、長期にわたる協力が得られるものと期待される。

### A. 研究目的

ヒト T 細胞白血病ウイルス(HTLV-1)の感染者は全国で約 108 万人存在し、そのうち約 0.3%に難治性の HTLV-1 関連脊髄症(HAM)を発症する。これまで歴史的に本邦の研究者がHAMの発見、病態研究などに貢献してきたが、HAMの治療に関するエビデンスは未だ乏しく混乱しているのが現状である。そのため、

有効な治療法の確立と新規治療薬の開発が急務であるといえるが、これを阻む大きな問題としてHAMが希少疾患であるがゆえに、患者が様々な医療機関に点在し、情報が効率的に集約されず、病態形成過程や既存の治療薬の適切な投与方法およびその効果すら総合的に評価できていないことがあげられる。

そこでこの問題を解決するために、平成 24

年3月よりHAM患者登録システム「HAMねっと」を構築し、症例集積性を高めた前向き研究を開始した。「HAMねっと」では患者情報やHAMの症状などを1人の登録患者につき10年間継続して電話聞き取り調査することを計画し、すでに実施している。また新規登録患者も随時追加されていくため、登録に伴う事務作業や聞き取り調査に伴う作業、扱うデータ数は年々増加し、より複雑となってくる。そのため、集積したデータの迅速かつ有効な活用には、「HAMねっと」の円滑な運営が不可欠であり、年々その重要度が増すといえる。

一方で登録患者に対しては、電話聞き取り調査を実施するほかに、広報誌「HAMねっと通信」およびウェブサイト「HAMねっと」を通じてHAMの知識やHAMに関わる治療薬開発等の最新情報の提供を行っている。すなわち患者にとっては、「HAMねっと」に登録することで、自身の情報を提供する対価として、我々医療関係者がいち早く入手できる情報を得られるしくみとなっているが、我々が提供している情報が果たして対価として見合う情報と登録患者が感じているのか、さらには「HAMねっと」の電話聞き取り調査自体をどのように感じているのかは不明である。

そこで本研究では、「HAMねっと」の長期運用のための(1)円滑な運営体制を整備するためのデータシステムを構築すること、(2)登録患者に対して「HAMねっと」に対する満足度とニーズ把握の調査を行うことを目的とする。

## B. 研究方法

### (1)HAMねっとのデータシステム構築

「HAMねっと」により登録患者から取得した情報の、データクリーニング、データバリデーションを実施し、さらに、データベース化をはかって、データを一元管理できるデータシステムの構築を進めた(アクセライト(株)に一部委託)。

### (2)HAMねっと登録患者の満足度調査

「HAMねっと」登録患者を対象とした満足度調査とニーズ把握のために、①属性、②登録の動機、③電話での聞き取り調査、④広報誌「HAMねっと通信」、⑤ウェブサイト「HAMねっと」、⑥「HAMねっと」全体について、の大きく6項目に分けて調査票を作成した(添付資料1「HAMねっとに関するアンケート」参照)。開設より1年が経過した平成25年7月時点のHAMねっと申込者372名に対して回答期間を約1.5ヶ月と設定して発送し、返送があったものについて結果を集計した。

### <人権への配慮(プライバシーの保護)>

本研究の実施については、聖マリアンナ医科大学の生命倫理委員会で承認されている(承認番号:第2044号)。「HAMねっと患者登録センター」事務局に送付された患者情報は、個人情報管理者により連結可能匿名化の方法によって検体番号が付与される。データ類は、個人情報管理者が「本研究専用のコンピュータ」において管理し、同意書は鍵付の書棚で管理する。データ解析においては番号化された検体情報を用いることによって個人を特定できないようにし、被験者の秘密保護に十分配慮する。試験の結果を公表する際は、被験者を特定できる情報を含まれないようにし、また試験の目的以外に、試験で得られた被験者のデータを使用しない。これらの方法によってプライバシーの保護に十分な配慮を尽くす。

登録状況は、平成24年3月1日から申し込み受け付けを開始し、平成26年3月末日時点で、申込み433名、同意書に基づいた登録359名、電話聞き取り調査完了325名。

## C. 研究結果

### (1)HAMねっとのデータシステム構築

平成24年3月1日より「HAMねっと」申し込み受付を開始し、平成26年3月末日時点で

433 名の申し込みがあり、うち 359 名が登録、325 名の電話聞き取り調査を完了した。この「HAM ネット」登録患者から取得した情報のうち、個人情報管理者により連結可能匿名化の方法によって検体番号が付与された情報をデータベースに取り込む対象情報とした。はじめに、データ取得手順を再度確認し、経年変化する項目、経年で比較すべき項目、新規に取得すべき項目の整理を行った。さらにそれぞれの情報の特性に応じて必須入力か否か、択一選択か複数選択か、数値データかテキストデータか、などを考慮した入力インターフェースを構築し、入力時の単純ミスや形式的な論理チェックを行えるようにデータベースを設計した。またデータの出力は、調査ごと、対象年月ごと、対象者 ID ごとなど、複数の切り口で出力できるように設計した。

以上のように設計したデータベースは、すべての通信が SSL により暗号化され、かつログイン ID に応じて操作可能な権限がコントロールされる環境下でウェブサーバ上に構築した(添付資料 4 「HAM ネットデータ登録システム」参照)。

## (2) HAM ネット登録患者の満足度調査

### ①属性について

平成 25 年 7 月時点の HAM ネット申込者 372 名に対して発送したうち、254 名より返送、回答率は 68.3%であった。このうち男性は全体の 27%、女性は全体の 72%で、男女比は 1 : 2.7 であった(図 1)。年代別にみると 60 歳代、70 歳代、50 歳代の順に多く、50~70 歳代の方が全体の 8 割以上を占めた(図 2)。平均年齢は 63 歳であった。男女別にみても、この傾向は変わらなかった。また、アンケート回答者の居住地を地域別にみると九州地方が最も多く、全体の約半数を占め、次いで関東地方、近畿地方の順に多くなっていた(図 3)。

### ②登録の動機について

複数回答可として、HAM ネットに登録したきっかけを調査した結果、「患者会からすすめられて」が最も多く、「主治医の先生からすすめられて」が次に多かった(図 4)。全回答者 254 名のうち、複数回答者は 16 名であった。HAM ネットに登録したきっかけに性別による大きな違いはなかった。

「なぜ HAM ネットに登録しようと思ったのですか(5 つまで)」という問いに対して最も多かった答えは「治療に関する最新の情報がほしかったから」で、次いで「病気に関する正しい情報がほしかったから」「研究の推進に役立ちたかったから」が多かった(図 5)。この問いの有効回答者数は 245 名であった。このうち多くの回答者が複数回答しており、1 人あたりの平均回答個数は 4.5 個であった。「5 つでは足りません」という意見もあった。HAM ネットの登録動機に性別による大きな違いはなかった。

### ③電話での聞き取り調査について

回答者 254 名のうち、(ア)9 割を超える 234 名が電話での聞き取り調査を受けていた(図 6)。(イ)そのうちの 65%が電話での聞き取り調査を受けたことに「とても満足している」「満足している」、1%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 6)。(ウ)電話調査担当者の対応については、83%が「とても満足している」「満足している」と回答し、「不満である」「とても不満である」の回答者はいなかった(図 6)。(エ)電話調査を行う時間帯については、67%が「とても満足している」「満足している」、3%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 6)。(オ)調査の所要時間については、46%が「とても満足している」「満足している」、3%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 6)。

(カ)電話での聞き取り調査では聞かれなかったので答えなかったが、話したかったこと、話せばよかったと思ったことはありますか、(キ)その他、電話での聞き取り調査について、ご意

見・ご要望がありましたらご自由にお書きくださいという 2 つの問いに対しては、「満足している」といった内容の回答のほかに、全般に関する内容として、「HAM の治療、治療薬、治療薬の開発状況が知りたい」「自身の症状や自身が受けている治療に対する不安や疑問がある」などの回答があった。また、聞き取り調査自体に関する内容としては、「声が小さく聞き取りづらかった」「他人に聞かれない内容を電話で話すことに抵抗を感じた」「一方的に返答するのではなく質問できる時間をとってほしかった」「即答できないような質問は事前にヒアリングシートなどを配布してほしかった」「後から話せばよかった、聞けばよかったと思うことがあった」「障害の程度や排尿の状態など数値化して答えることが難しいと感じた」などの回答があった。また、聞き取り調査の結果に関する内容としては、「聞き取り調査の結果をタイムリーに報告してほしい」「他の人はどのような症状(経過)をたどっているのか知りたい」「今後はもっと掘り下げた聞き取り調査をすることで、HAM の実態が明確になると思う」などの回答があった。それ以外には、「初めて電話を受けたときは夕方夕食の準備を始める時間だった。1 時間は長すぎると思った」「代理で聞き取り調査を受けている。負担なので登録しなければよかったと思うことがある」「代理で何回も同じような調査を受けている。調査を受けても本人の苦しみが減るわけではないし、質問しても答えがないので、一生懸命記入しても何の役に立つのかとむなしくなる」などの意見があった。

#### ④ 広報誌「HAM ねっと通信」について

回答者のうち、(ア)9 割を超える 234 名が「HAM ねっと通信」を読んだことがあると回答した(図 7)。(イ)そのうちの 56%が発行回数に「とても満足している」「満足している」、4%が「不満である」「とても不満である」と回答し、a) 34%の 80 名が発行回数を増やしてほしいと回答した(図 7)。(ウ)読みやすさについては、

77%が「とても満足している」「満足している」と回答し、「不満である」との回答者は 1 名であった。さらに a) 95%が文字の大きさがちょうどよい、b) 73%が記事の配置がちょうどよい、c) 80%が記事の量がちょうどよいと回答した(図 7)。(エ)記事の内容については、82%が「とても満足している」「満足している」、2%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 7)。(オ)これまでに取り上げた記事の内容については、61%が「とても満足している」「満足している」、3%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 7)。

(カ)特にどんな記事に興味がありましたか、または印象に残っていますか(複数回答)の問いに対して、最も多かった答えは「難病対策や特定疾患に関する記事」、次いで「HAM や HTLV-1 に関する小冊子」「HAM ねっと調査の進捗状況」「HAM 手帳」が多かった(図 8)。この問いに対しては多くの回答者が複数回答しており、1 人あたりの平均回答個数は 2.9 個、最も多い回答者は 11 個であった。一方で「興味があった記事、印象に残っている記事はない」「あまりに情報が少なく、なんと答えたらよいかわからない」という理由で無回答とした回答者もあった。

(キ)今後取り上げてほしい記事がありましたらお聞かせください(複数回答)の問いに対して、最も多かった答えは「HAM に関する最新の研究成果」、次いで「治験の情報」「リハビリの情報」が多かった(図 9)。この問いに対しても多くの回答者が複数回答しており、1 人あたりの平均回答個数は 3.8 個、最も多い回答者は 10 個であった。「その他」の回答としては、「HAM の新薬開発情報」「HAM 治療薬完成の見通し」など薬に関するもの、また「病気の進み具合によって毎日気を付けたらよいと思われること」「患者の生活や仕事などの日常と、生活で工夫していること」「患者同士で交流できるもの」など日々の生活に関するものがあった。



(ク)「HAM ネット通信」について、ご意見・ご要望がありましたらご自由にお書きくださいの問いに対しては、「満足している」といった内容の回答のほかに、情報の提供に関するものとして、「HAM の情報が少なすぎるので、情報が入り次第臨時で発行してほしい」「もっと情報を開示して、溢れるような文字に埋められた HAM ネット通信を期待する」などの回答があった。また HAM ネット通信とウェブサイト HAM ネットの関係に関するものとして、「インターネット利用者にとっては、HAM ネット通信はなくてもいいと思う。インターネット利用者でない方向けに特化したらいいと思う」「インターネットはしていません。情報がインターネット重視にならないことを願います」「パソコンがないので仕方がないが、インターネットで公開している情報をもっと知りたい」「パソコンを持っていないので、インターネットの記事をピックアップして HAM ネット通信に載せてほしい」「インターネットを使っていないので情報がない。HAM ネット通信の回数を増やしてほしい」などの回答があった。それ以外には、「文章はあまり長くない方が読み易く分かりやすい。専門用語、医学用語は説明があるとうれしい」「封書の表書き「HAM ネット」「難病治療研究センター」を見えないようにしてほしい」といった意見があった。

#### ⑤ウェブサイト「HAM ネット」について

回答者のうち、ウェブ上で(ア)「HAM ネット」を「見ている」と回答した者は 33%で、「見えない」「見られない」と回答した者は全体の 58%を占めることがわかった(図 10)。(イ)そのうち 15%が「週に 1~2 回」、55%が「月に 1~2 回程度」、22%が「年に数回以上」見ていると回答した(図 10)。(ウ)更新頻度については、31%が「とても満足している」「満足している」、9%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 10)。(エ)見やすさについては、72%が「とても満足している」「満足している」、2%

が「不満である」「とても不満である」と回答した。さらに a) 92%が文字の大きさがちょうどよい、b) 61%が色使いがよい、c) 56%がイラストがよい、d) 35%が記事の配置が見やすい、e) 80%が記事の量がちょうどよいと回答した(図 10)。(オ)操作のしやすさについては、85%が「とても満足している」「満足している」と回答し、「不満である」「とても不満である」の回答者はいなかった。さらに a) 94%がクリックするボタンの大きさがちょうどよい、b) 49%がページの移動がわかりやすいと回答した(図 10)。(カ)書かれている内容については、86%が「とても満足している」「満足している」と回答し、「不満である」「とても不満である」の回答者はいなかった(図 10)。(キ)提供しているサービス(HAM 手帳のダウンロードページ、HAM 関連のリンク集)については、56%が「とても満足している」「満足している」と回答し、1 名が「不満である」と回答した(図 10)。(ク)取り上げている項目については、66%が「とても満足している」「満足している」と答え、4%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図 10)。

(ケ)よく見る項目、情報の更新がないかチェックしている項目は何ですか(複数回答)の問いに対して、最も多かった回答は「HAM の病状や治療に関するお知らせや新着情報」で、次いで「治験や新薬に関する情報の有無」「iPS 細胞の活用や難病対策改革など研究事業に関するお知らせや新着情報」「この研究の経過報告や進捗状況」が多かった(図 11)。この問いに対しては多くの回答者が複数回答しており、1 人あたりの平均回答個数は 4.2 個、最も多い回答者は 11 個であった。「その他」としては「HAM ネットは見えていないがウェブ検索はしている」という回答があった。

(コ)今後取り上げてほしい項目がありましたらお聞かせください(複数回答)の問いに対して、最も多かった回答は「HAM に関する最新の研究成果」、次いで「治験の情報」「リハビリの情報」「国の難病対策の動向」という答えが

多かった(図 12)。この問いに対しても多くの回答者が複数回答しており、1 人あたりの平均回答個数は 4.3 個、最も多い回答者は 10 個であった。「その他」としては「HAM が診察できる全国の医療機関名の掲載」「聞き取り調査・アンケート調査の結果」「患者・家族からの質問コーナー」という回答があった。

(サ)ウェブサイト「HAM ねっと」について、ご意見・ご要望がありましたらご自由にお書きくださいの問いに対しては、内容に関するものとして、「髄液検査、血液検査の結果、数値や HAM に関する必要な内容の説明を詳しく知りたい」などの回答があった。また HAM ねっと通信とウェブサイト HAM ねっとの関係に関するものとして、「HAM ねっと通信とインターネットの HAM ねっとの役割は何なのか。お互いの役割分担が明確でない気がする。HAM ねっとの情報量が少ない」「インターネットで知識を得る、買い物をするのは現在の世の中では当たり前のことになっているが、PC ができない人や、したくても体の状態で不可能な人など様々な患者がいることを片隅にとめていただければ幸いです」などの回答があった。それ以外には、「英語コンテンツの充実」「インターネットの「HAM ねっと」は、思いついたときにしか見ないので、メールマガジンなどで定期的に情報発信してもらえると、最新の情報内容がわかりやすい」といった意見があった。

#### ⑥「HAM ねっと」全体について

回答者のうち、(ア)「HAM ねっと」に登録したことについて 63%が「とても満足している」「満足している」と回答し、「不満である」「とても不満である」の回答者はいなかった(図 13)。そのように回答した理由としては、「情報がほしいから」「情報が手に入りやすくなったから」「病気に関する知識が得られるから」「少しでも治療に役立つものがあると思うから」「HAM に関する情報が入り「自分だけじゃない」という気持ちになれるから」「希望をもって生活できるよう

になったから」「セカンドオピニオンを受けることができたから」「他の人に HAM を説明する際に、「HAM ねっと」は専門家(医師)のサイトで信頼が得やすいから」といった肯定的な意見が多い一方で、否定的な意見としては、「想定していたよりも情報量が少ないから」「先が見えない状況には変わりがないから」「進行していく症状に不安を感じ、アンケートに答えるばかりで面倒に思えるから」「1 回だけ手にした通信があまりにも希薄であったので拍子抜けしており、何と答えてよいか悩む」などがあった。

回答者のうち、(イ)35%が研究の推進に役立っていることを「とても実感している」「実感している」、13%が「実感していない」「まったく実感していない」と回答した。そのように回答した理由としては、「研究の推進が遅い」「何か変わったことがあるのでしょうか」「何がどこまで進んでいるのか実感としてない」「薬の研究ができていないのか実感できない」「研究の進み具合がわかりにくい」「目に見えてないが感じる」「薬の研究が少しずつ進んでいるんだと思う」「ある程度の人数がいないと国も動いてくれないと思う。難病指定にもなったし、研究推進には役立っていると思う」「情報が入りやすくなった。研究を身近に感じる事ができた」「一日も早く薬なり治療なりができることを待っています。このままでは病気が進行するばかりです」「一人でも多く HAM を知って、正しい治療が進むよう望みます」「HAM で苦しんでいる人達を助けてください。お願いします」「もっと早くいい薬ができるようお願いしたい。痛いのを我慢して書いているので、あまり長く書くことはできません」「圧迫骨折が痛く、足をつくこともできず生き地獄です。書く手も痛く思うように書けません」などがあった。

(ウ)講演会などの情報がメールで配信されることを希望しますかの問いに対しては、59%が「はい」、17%が「いいえ」と回答した。なかには、「インターネットは使用しないのでわからない。封書でお願いします」「インターネットはで

きない」「インターネットを使っていない人には見ることもできない。平等に配信してください」「車いすのため遠方の講演会出席は難しいが、内容等の情報は知りたい」「情報は欲しいが、家を空けることができない」といった意見もあった。

#### D. 考察

##### (1) HAM ネットのデータシステム構築

「HAM ネット」への登録状況は、平成25年3月末日時点での申込み391名、登録完了326名より、それぞれ42名、31名増加し、申込み433名、登録完了359名となった。以上のように初年度登録患者の経年的な調査のみならず、その母数も増加していることから、この「HAM ネット」が非常に強力なツールとなることが示された。また申込みがあったものの登録書類の返送がなく登録が完了していない76名については、再三登録の依頼をするとともに登録の意思確認を書面にて行なうことで、「HAM ネット」登録者数の増加に努めた。今後は、“登録書類の準備が面倒もしくはわからないので登録書類を返送しない”といった人数を減らすために、登録手続きを簡易化するように工夫が必要であると考えられる。

また「HAM ネット」の円滑な運営のためには取り組むべき様々な課題があるが、その中でも緊喫の課題としてあげられるのは、登録患者から取得された各種データの管理である。

現在は、担当看護師が登録患者に対して電話聞き取り調査し、所定の用紙に記入した調査結果を、別の担当者が個人名を特定できないIDを付与したうえでマイクロソフト社のエクセルファイルに入力し、さらに別の担当者が入力した情報に誤りがないかを確認するという手順をとっていた。このように入力ミスなどを極力減らす最大限の努力をしているものの、これにも限界があり、不正データ入力を完全に防ぐのはかなり困難である。このような体制で1人の登録患者につき10年間の情報を管理して

いくことは、「HAM ネット」の情報の信頼性そのものを揺るがすものになってしまうことが危惧されたため、データシステムの構築に着手した。

これにより情報入力時の不正データの減少、情報の標準化、情報の一元管理が可能となり、またデータアクセスの利便性も確保され、さらなる情報活用ができるものと期待される。次年度以降はこのデータシステムを実際に運用し、作業の効率化を図るとともに、集約させた情報を登録患者へ、グラフ作成や個人レポート作成などを通じてフィードバックするシステムを構築することを目指す。

##### (2) HAM ネット登録患者の満足度調査

患者レジストリは、患者の情報を登録することで研究者・患者間での円滑な情報伝達を可能にするシステムである。研究者は患者レジストリを通じて患者の情報を集約することで、新しい治療法や新薬開発、診療ガイドラインの作成などさまざまな方面に患者情報を活用できるというメリットがある。一方で患者にとっては、疾患についての知識や新しい治療法、新薬開発状況など有益な情報を得ることができ、QOL (Quality of life) の向上に貢献できるというメリットがある。しかしながら、実際に患者レジストリで医師・患者間での円滑な情報伝達が行われているのか、患者にとって患者レジストリが本当にQOLの向上に役立っているのかなどは明らかではなく、そのような観点から患者の満足度について検討されている調査はこれまでにない。患者レジストリを長期にわたり運用するためには、登録患者の研究に対する興味や関心を維持させ、安定した協力を得る必要がある。

本研究では、開設から約1年が経過した「HAM ネット」が患者にとってどのような位置づけとなっているのか、また長期的な運用のために、どのようにすれば満足度を高められるのかの実態を把握する目的で、HAM ネット登録

者を対象に満足度とニーズ調査を行った。調査の回答率は、回答期間約1.5ヶ月という短い期間であったにもかかわらず、68.3%と高い回答率であった。このことは「HAM ねっと」に寄せる登録患者の期待の高さがうかがえる結果であった。

#### ①属性について

男女比1:2.7で約4人に1人が女性という割合は(図1)、HAM ねっとに登録患者とほぼ同じ割合で、本調査には広く均等に回答者が得られたことが考えられた。これは、アンケート回答者の居住地の分布が、HAM ねっと登録患者の居住地の分布とほぼ一致していること(図3)によっても裏付けられた。

#### ③電話での聞き取り調査について

電話での聞き取り調査は、一回あたりの所要時間が約1時間と長く、登録患者にとって負担が大きくなっているものとこれまで考えていた。しかしながら図6に示すとおり、予想に反して65%が「とても満足している」「満足している」と回答していたことから、HAM 患者には、「話を聞いてもらいたい」という、潜在的なニーズが存在することが明らかとなった。また調査担当者の対応に「不満である」「とても不満である」を回答した者はいなかった。本調査実施時点での電話聞き取り調査担当看護師は1名であったことから、この回答結果は担当看護師のコミュニケーションスキルに依存するところが大いといえる。現在では、電話聞き取り調査担当看護師を2名に増員しており、今後も増員する可能性もあることから、この満足度を維持するためには、対応の質が大きく異なることがないようにノウハウを蓄積することとその指導が今後の重要な課題になるといえる。

電話聞き取り調査に対する意見・要望については、回答者によっては「他人に聞かれない内容を電話で話すことに抵抗を感じた」という意見があり、これに対しては回答を強要し

ているものではないことを伝えていくことを今まで以上に留意していく必要があると考えられた。また「障害の程度や排尿の状態など数値化して答えることが難しいと感じた」などの意見もあった。たとえば排尿障害の評価には、いくつかの国際的な指標があり、どの指標がHAM 患者の排尿障害を的確に示すかについては不明であるため、国際的に用いられているOABSS、ICIQ-SF、I-PSS、N-QOLによる調査を行っている。これが登録患者にとっては、同じような質問、答えにくい質問ととらえられているようである。今後はこのHAM ねっとの調査で、より患者の負担が少なくかつ排尿障害を的確に評価することのできる評価基準を確立することが期待される。また、「即答できないような質問は事前にヒアリングシートなどを配布してほしい」といった意見もあった。今後は(1)でのデータシステム構築により、登録患者個人の前年度調査結果をフィードバックすることも可能になるため、これを事前に送付し患者の負担を減らす工夫をする必要があると考えられた。さらに、「聞き取り調査の結果をタイムリーに報告してほしい」という意見もあり、これについては適宜「HAM ねっと通信」で情報を開示していく必要があることがわかった。

#### ④広報誌「HAM ねっと通信」について

「HAM ねっと通信」vol.1, 2を発行した時点での満足度について調査した結果、34%が発行回数を増やしてほしいと回答した(図7)。また80%が記事の量がちょうどよいと回答したものの、「あまりに情報が少なく、なんと答えたらいいかかわからない」という理由で印象に残っている記事が無回答とした者や、その他で「HAM の情報が少なすぎるので、情報が入り次第臨時で発行してほしい」「もっと情報を開示して、溢れるような文字に埋められたHAM ねっと通信を期待する」といった意見もあった。

また関心の高い記事、今後取り上げてほしい記事ともに、HAM の病気や治療、研究や治験、