

測定尺度の開発が望まれる。ただし、本研究での限界は電話での聞き取りによって調査していることが挙げられる。医療者が対面で調査する場合には視覚的情報も得られ、より測定尺度の一致度が上がる可能性が高いと考えられる。医療者が運動障害の重症度について診療時に着目している点を測定尺度にも応用することが望ましい。

E. 結論

本研究では、HAM 患者登録システム (HAM ねっと) において、全国の登録患者から様々な臨床情報の収集を円滑に行うためのデータシステムの整備を行った。さらに本データシステムの活用により、1年ごとの電話聞き取り調査における効率的なデータの取得ならびに集積データの精度の向上が実現でき、HAM の病態の理解や治療研究の推進に貢献することが大いに期待できる。

登録患者のうち、288名における2年間の前向き調査結果から、HAM の運動障害及びADL が経年的に悪化していることが明らかとなった。さらに、OMDS の評価に基づく運動障害重症度が2年間で改善することなく悪化した患者の割合は2割を超えていた。このことから、HAM 患者の長期予後改善には、早期診断・早期治療介入により運動障害の進行を抑制することが重要であり、そのためには有効な治療法の確立が急務である。

また、HAM の服薬治療状況に関する調査結果から、ステロイド内服治療継続患者では、ステロイド内服の未治療者に比べて運動障害の進行が抑制される傾向が認められ、ステロイド内服治療はHAM の長期予後改善に有効である可能性が示唆された。しかし、ステロイド内服治療継続患者においても運動障害重症度が悪化している者も認められることから、ステロイド内服治療を補完する新薬開発研究の推進も必要である。

このように、HAM ねっとを利用した疫学

調査は、HAM の病態を理解し、有効な治療法を開発する上で有用である。今後も登録患者の長期追跡調査を行い、精度の高いデータを集積し、新薬開発等の治療研究に資することが望まれる。

F. 健康危惧情報

該当なし

G. 研究発表

1. 論文発表

(発表誌名巻号・頁・発行年等も記入)
なし

2. 学会発表

- 1) 八木下尚子, 鈴木弘子, 石川美穂, 小池美佳子, 齊藤祐美, 新谷奈津美, 佐藤知雄, 木村美也子, 山野嘉久, 高田礼子. HAM 患者レジストリ「HAM ねっと」を活用した経年的前向き調査の概要報告. 平成 26 年度厚生労働科学研究費難病政策および実用化研究班合同班会議, 2015 年 1 月 21 日～22 日, 東京都 (千代田区) .
- 2) 山野嘉久, 木村美也子, 八木下尚子, 鈴木弘子, 石川美穂, 小池美佳子, 齊藤祐美, 新谷奈津美, 佐藤知雄, 高田礼子. HAM 患者登録システム「HAM ねっと」を用いた疫学的解析. 第 1 回日本 HTLV-1 学会学術集会, 2014 年 8 月 22 日～24 日, 東京都 (港区) .
- 3) 八木下尚子, 有福厚孝, 菊池崇之, 木村未祐奈, 佐藤健太郎, 石川美穂, 鈴木弘子, 小池美佳子, 齊藤祐美, 新谷奈津美, 佐藤知雄, 木村美也子, 高田礼子, 山野嘉久. HTLV-1 関連脊髄症(HAM)患者登録システム「HAM ねっと」の患者満足度調査. 第 1 回日本 HTLV-1 学会学術集会, 2014 年 8 月 22 日～24 日, 東京都 (港区) .

- 4) 菊池崇之, 有福厚孝, 木村未祐奈, 佐藤健太郎, 本橋隆子, 木村美也子, 網中雅仁, 高田礼子, 八木下尚子, 山野嘉久. 患者 QOL の改善に向けた患者レジストリの満足度調査. 第 55 回日本神経学会学術大会, 2014 年 5 月 21 日~5 月 24 日, 福岡県 (福岡市) .
- H. 知的財産権の出願・登録状況 (予定を含む)
該当なし
- I. 文献
- 1) Martin F, et al, Cyclosporin A proof of concept study in patients with active, progressive HTLV-1 associated myelopathy/tropical spastic paraparesis. PLoS Negl Trop Dis. 6:e1675, 2012.
 - 2) 山野嘉久ら. HTLV-1 関連脊髄症 (HAM) の治療法を確立していくために—その現状と展望—. 日本臨牀. 70: 705-713, 2012.
 - 3) 山口脩ら, 過活動膀胱診療ガイドライン作成委員会. 過活動膀胱診療ガイドライン. 日排尿会誌 16: 225-252, 2005.
 - 4) 後藤百万ら, 尿失禁の症状・QOL 質問票: スコア化 ICIQ-SF. 日神因膀会誌 12: 227-231, 2001.
 - 5) 本間之夫ら, International Prostate Symptom Score と BPH Impact Index の日本語訳の言語的妥当性に関する研究. 日泌尿会誌 93: 669-680, 2002.
 - 6) 吉田正貴ら, Nocturia Quality of Life Questionnaire(N-QOL)の日本語版の作成と言語的妥当性の検討. 日排尿会誌 20: 317-324, 2009.
 - 7) Wolfe F, et al., The clinical value of the Stanford Health Assessment Questionnaire Functional Disability Index in patients with rheumatoid arthritis. J Rheumatol. 15: 1480, 1988.
 - 8) Brazier J, et al, Estimating a preference-based index from the Japanese SF-36. J Clin Epidemiol. 62: 1323-1331, 2009.
 - 9) Osame M, Nationwide survey of HTLV-1-associated myelopathy in Japan: association with blood transfusion. Ann Neurol. 28: 50-56, 1990.
 - 10) Nakagawa M, et al, HTLV-1- associated myelopathy: analysis of 213 patients on clinical features and laboratory findings. J Neurovirol 1: 50-61, 1995.
 - 11) Olindo S, et al, Natural History of Human T-lymphotropic virus 1-associated myelopathy A 14-year follow-up study. Arch Neurol. 63: 1560-1566, 2006.
 - 12) Osame M et al, HTLV-I-associated myelopathy (HAM) Treatment trials, Retrospective survey and clinical and laboratory findings. Hematol Rev. 3: 271-284, 1990.
 - 13) Nakagawa M et al, Therapeutic trials in 200 patients with HTLV-I-associated myelopathy/tropical spastic paraparesis. J Neurovirol. 2: 345-355, 1996.

表 1. HAM 登録患者の属性、特性 (n=383)

		全体		男性		女性	
性別		383	(100.0%)	99	(25.8%)	284	(74.2%)
年齢 (平均±SD)		62.2	±10.7	62.8	±10.6	61.9	±10.7
発症年齢 (平均±SD)		44.2	±14.9	44.9	±15.3	43.9	±14.8
診断年齢 (平均±SD)		51.8	±13.1	52.3	±14.0	51.6	±12.8
発症から診断までの年数 (平均±SD)		7.6	± 8.3	7.4	± 8.8	7.7	± 8.2
罹病期間 (年) (平均±SD)		17.9	±11.3	18.0	±11.9	17.9	±11.1
初発症状	歩行障害	313	(81.9%)	85	(85.9%)	228	(80.6%)
	排尿障害	147	(38.5%)	24	(24.2%)	123	(43.5%)
	下肢の感覚障害	53	(13.9%)	11	(11.1%)	42	(14.8%)
	その他	115	(30.0%)	31	(31.3%)	84	(29.6%)
輸血歴	あり	73	(19.1%)	15	(15.2%)	58	(20.4%)
	うち 1986 年以前	57	(14.9%)	11	(11.1%)	46	(16.2%)
	不明	3	(0.8%)	1	(1.0%)	2	(0.7%)
排尿障害	なし	29	(7.6%)	9	(9.1%)	20	(7.1%)
	投薬	234	(61.3%)	68	(68.7%)	166	(58.7%)
	導尿	108	(28.3%)	20	(20.2%)	88	(31.1%)
	他者管理	11	(2.9%)	2	(2.0%)	9	(3.2%)
排便障害	なし	87	(22.8%)	32	(32.3%)	55	(19.4%)
	投薬	256	(67.0%)	60	(60.6%)	196	(69.3%)
	浣腸	33	(8.6%)	6	(6.1%)	27	(9.5%)
	他者管理	6	(1.6%)	1	(100.0%)	5	(1.8%)
足のしびれ	なし	125	(32.7%)	34	(34.3%)	91	(32.2%)
	ときどきある	73	(19.1%)	18	(18.2%)	55	(19.4%)
	常にある	184	(48.2%)	47	(47.5%)	137	(48.4%)
足の痛み	なし	215	(56.3%)	64	(64.6%)	151	(53.4%)
	ときどきある	78	(20.4%)	18	(18.2%)	60	(21.2%)
	常にある	89	(23.3%)	17	(17.2%)	72	(25.4%)

**： p<0.01

	本人1年目居住地		本人出身地			本人1年目居住地		本人出身地			
	人数	(%)	人数	(%)		人数	(%)	人数	(%)		
北海道	15	(3.9%)	12	(3.1%)	京都府	4	(1.0%)	1	(0.3%)		
東北地方	青森県	0	(0.0%)	1	(0.3%)	大阪府	24	(6.3%)	15	(3.9%)	
	岩手県	2	(0.5%)	3	(0.8%)	兵庫県	15	(3.9%)	8	(2.1%)	
	宮城県	12	(3.1%)	13	(3.4%)	奈良県	5	(1.3%)	3	(0.8%)	
	秋田県	0	(0.0%)	1	(0.3%)	和歌山県	6	(1.6%)	8	(2.1%)	
	山形県	1	(0.3%)	1	(0.3%)	中国地方	鳥取県	3	(0.8%)	3	(0.8%)
関東地方	福島県	3	(0.8%)	4	(1.0%)	島根県	0	(0.0%)	4	(1.0%)	
	茨城県	1	(0.3%)	3	(0.8%)	岡山県	0	(0.0%)	0	(0.0%)	
	栃木県	1	(0.3%)	2	(0.5%)	広島県	4	(1.0%)	4	(1.0%)	
	群馬県	1	(0.3%)	1	(0.3%)	山口県	1	(0.3%)	4	(1.0%)	
	埼玉県	8	(2.1%)	1	(0.3%)	四国地方	徳島県	2	(0.5%)	2	(0.5%)
中部地方	千葉県	14	(3.7%)	4	(1.0%)	香川県	0	(0.0%)	0	(0.0%)	
	東京都	20	(5.2%)	16	(4.2%)	愛媛県	6	(1.6%)	8	(2.1%)	
	神奈川県	34	(8.9%)	13	(3.4%)	高知県	1	(0.3%)	2	(0.5%)	
	新潟県	2	(0.5%)	2	(0.5%)	九州・沖縄地方	福岡県	37	(9.7%)	23	(6.0%)
	富山県	2	(0.5%)	1	(0.3%)	佐賀県	4	(1.0%)	7	(1.8%)	
	石川県	1	(0.3%)	2	(0.5%)	長崎県	25	(6.5%)	36	(9.4%)	
	福井県	1	(0.3%)	2	(0.5%)	熊本県	12	(3.1%)	22	(5.7%)	
	山梨県	0	(0.0%)	3	(0.8%)	大分県	19	(5.0%)	19	(5.0%)	
	長野県	1	(0.3%)	2	(0.5%)	宮崎県	13	(3.4%)	15	(3.9%)	
	岐阜県	2	(0.5%)	1	(0.3%)	鹿児島県	52	(13.6%)	80	(20.9%)	
関西地方	静岡県	4	(1.0%)	6	(1.6%)	沖縄県	8	(2.1%)	10	(2.6%)	
	愛知県	12	(3.1%)	10	(2.6%)	外国	韓国	0	(0.0%)	1	(0.3%)
	三重県	3	(0.8%)	2	(0.5%)	不明		0	(0.0%)	1	(0.3%)
	滋賀県	2	(0.5%)	1	(0.3%)	合計	383	(100.0%)	383	(100.0%)	

表 3. 納の運動障害重症度 (OMDS)

	1 年目 (n=382)	2 年目 (n=328)	3 年目 (n=289)
平均 ± SD	5.91 ± 2.36	6.14 ± 2.37	6.31 ± 2.40
0 歩行、走行ともに異常を認めない	3 (0.8%)	3 (0.9%)	1 (0.3%)
1 歩くスピードが遅い	5 (1.3%)	2 (0.6%)	2 (0.7%)
2 歩行異常(つまづき、膝のこわばり)	13 (3.4%)	7 (2.1%)	7 (2.4%)
3 かけ足不能	11 (2.9%)	13 (4.0%)	9 (3.1%)
4 階段昇降に手すりが必要	47 (12.0%)	35 (10.7%)	31 (10.7%)
5 片手によるつたい歩き	130 (34.0%)	100 (30.5%)	82 (28.4%)
6 片手によるつたい歩き不能:両手なら10m 以上可能	65 (17.0%)	60 (18.3%)	49 (17.0%)
7 両手によるつたい歩き5m 以上、10m 以内可	29 (7.4%)	27 (8.2%)	29 (10.0%)
8 両手によるつたい歩き5m 以内可	25 (6.5%)	27 (8.2%)	30 (10.4%)
9 両手によるつたい歩き不能、四つばい移動可	19 (5.0%)	18 (5.5%)	14 (4.8%)
10 四つばい移動不能、いざり等移動可	19 (5.0%)	22 (6.7%)	20 (6.9%)
11 自力では移動不能、寝返り可	3 (0.8%)	3 (0.9%)	2 (0.7%)
12 寝返り不可能	3 (0.8%)	3 (0.9%)	3 (1.0%)
13 足の指も動かせない	10 (2.6%)	8 (2.4%)	10 (3.5%)

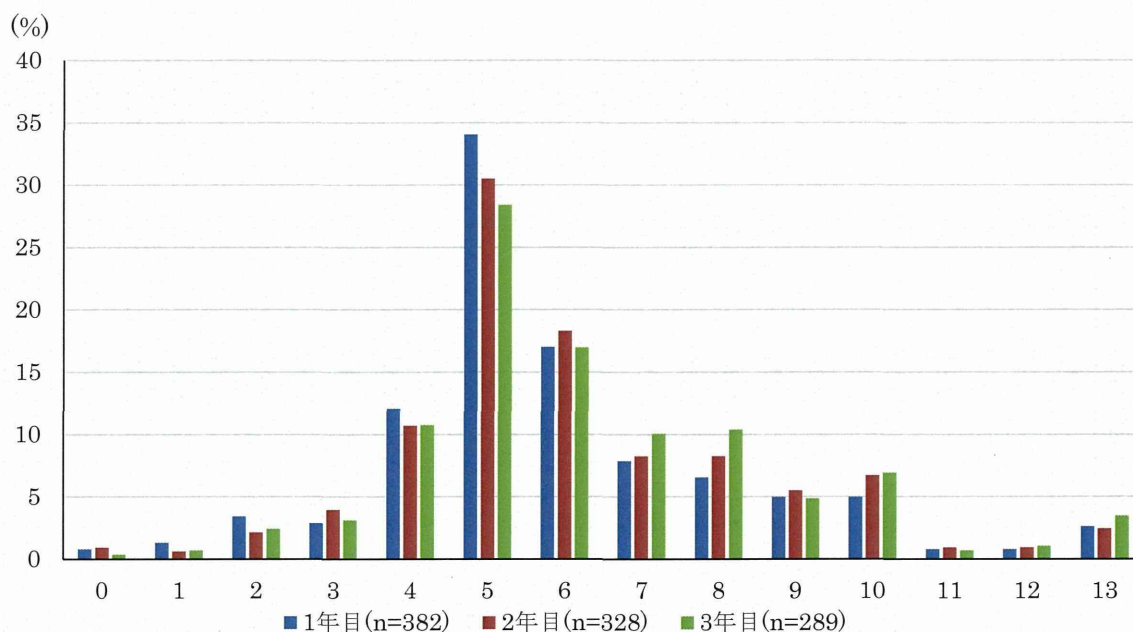


図 1. 納の運動障害重症度 3 年分の分布(%)

表 4. HAQ による ADL の 3 年分の得点分布

	1 年目 (n=382)		2 年目 (n=328)		3 年目 (n=289)	
	平均値	SD	平均値	SD	平均値	SD
HAQ-DI	1.16	0.70	1.25	0.68	1.23	0.67
着衣	0.77	0.69	0.84	0.66	0.82	0.66
起立	1.08	0.76	1.13	0.73	1.17	0.75
食事	0.26	0.64	0.28	0.62	0.32	0.67
歩行	1.65	1.14	1.74	1.11	1.74	1.11
衛生	1.17	0.88	1.25	0.83	1.27	0.84
動作	1.72	1.05	1.81	1.04	1.56	1.01
握力	0.90	0.87	1.06	0.83	1.05	0.83
その他	1.77	0.96	1.88	0.89	1.89	0.88

表 5. 排尿障害関連指標の 3 年分の分布

	1 年目			2 年目			3 年目		
	n	平均値	SD	n	平均値	SD	n	平均値	SD
OABSS 合計点	368	6.24	4.23	311	6.44	4.05	262	6.02	4.04
ICIQ-SF 合計点	375	6.15	6.09	321	6.19	6.19	278	5.94	5.97
I-PSS 合計点	370	14.3	9.5	319	13.5	10.0	265	13.4	9.6
N-QOL 総得点	382	84.3	18.3	326	85.5	16.5	289	83.5	18.7

表 6. 投薬治療状況 3 年分

		1 年目 (n=321)		2 年目 (n=320)		3 年目 (n=289)	
		n	(%)	n	(%)	n	(%)
ステロイド内服	有	141	(43.9%)	150	(46.9%)	139	(48.1%)
	無	172	(53.6%)	170	(53.1%)	150	(51.9%)
	不明	8	(2.5%)	0	(0%)	0	(0%)
ステロイドパルス投与	有	7	(2.2%)	25	(7.8%)	16	(5.5%)
	無	304	(94.7%)	295	(92.2%)	273	(94.5%)
	不明	10	(3.1%)	0	(0%)	0	(0%)
インターフェロン投与	有	11	(3.4%)	13	(4.1%)	11	(3.8%)
	無	305	(95.0%)	307	(95.9%)	278	(96.2%)
	不明	5	(1.6%)	0	(0%)	0	(0%)

表 7. HAM 患者の輸血歴の有無と属性

		輸血歴あり (n=73, 19.2%)	輸血歴なし (n=307, 80.8%)	p 値
性別	男性	15 (20.5%)	83 (27.0%)	0.255
	女性	58 (79.5%)	224 (73.0%)	
1 年目調査時の年齢 (平均±SD)		65.7 ±11.2	61.3 ±10.4	0.002 **
発症年齢 (平均±SD)		48.7 ±14.8	43.1 ±14.8	0.004 **
診断年齢 (平均±SD)		55.9 ±11.7	50.8 ±13.2	0.003 **
発症から診断までの年数 (平均±SD) ^{※1}		7.1 ± 7.1	7.7 ± 8.6	0.557
1 年目調査時の罹病期間 (平均±SD) ^{※2}		16.7 ±10.4	18.2 ±11.5	0.337
初発症状	歩行障害あり	63 (86.3%)	248 (80.8%)	0.272
	歩行障害なし	10 (13.7%)	59 (19.2%)	
	排尿障害あり	31 (42.5%)	116 (37.8%)	0.460
	排尿障害なし	42 (57.5%)	191 (62.2%)	
	下肢の感覚障害あり	11 (15.1%)	42 (13.7%)	0.758
	下肢の感覚障害なし	62 (84.9%)	265 (86.3%)	
1 年目調査時の OMDS (平均±SD)		6.40 ± 2.67	5.79 ± 2.28	0.049 *
1 年目調査時の HAQ-DI (平均±SD)		1.35 ± 0.75	1.12 ± 0.68	0.014 *

※1: 輸血歴あり n=72、輸血歴なし n=306 ※2: 輸血歴あり n=72

*: p<0.05, **: p<0.01

表 8. 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=74, 19.7%)	非急速進行群 (n=302, 80.3%)	p 値
性別	男性	16 (21.6%)	81 (26.8%)	0.36
	女性	58 (78.4%)	221 (73.2%)	
1 年目調査時の年齢		65.5 ± 9.4	61.2 ± 10.8	0.002 **
運動障害発現年齢 (平均±SD)		55.9 ± 11.2	42.6 ± 14.2	<0.001 ***
診断年齢 (平均±SD)		57.7 ± 11.2	50.2 ± 13.1	<0.001 ***
発症から診断までの年数 (平均±SD)		2.3 ± 3.7	8.8 ± 8.4 ※1	<0.001 ***
1 年目調査時の罹病期間(年) (平均±SD)		10.1 ± 7.4	19.7 ± 11.2	<0.001 ***
初発症状	歩行障害	64 (86.5%)	245 (81.1%)	0.28
	排尿障害	27 (36.5%)	116 (38.4%)	0.76
	下肢の感覚障害	11 (14.9%)	42 (13.9%)	0.83
1 年目調査時の OMDS (平均±SD)		6.70 ± 2.36	5.73 ± 2.33	0.001 **
1 年目調査時の HAQ-DI (平均±SD)		1.42 ± 0.65	1.11 ± 0.70	<0.001 ***
輸血歴	あり	23 (31.1%)	48 (16.0%) ※1	0.003 **
	うち 1986 年以前	18 (24.3%)	38 (12.7%) ※1	0.012 *
ステロイド内服治療(n=257)	治療継続群	29 (63.0%)	89 (42.2%)	0.010 *
	未治療群	17 (37.0%)	122 (57.8%)	

※1: 非急速進行群の n について、n=300

*: p<0.05, **: p<0.01, ***: p<0.001

表 9. ステロイド服薬治療の 3 年分の状況

		3 年目ステロイド治療		合計
		治療無し	治療有り	
1 年目治療有り 2 年目治療有り	n	2	118	120
	%	0.7%	42.1%	42.9%
1 年目治療有り 2 年目治療無し	n	0	2	2
	%	0%	0.7%	0.7%
1 年目治療無し 2 年目治療有り	n	1	10	11
	%	0.4%	3.6%	3.9%
1 年目治療無し 2 年目治療無し	n	140	7	147
	%	50.0%	2.5%	52.5%
合計	n	143	137	280
	%	51.1%	48.9%	100%

表 10. ステロイド内服治療の継続状況と属性・特性との関連

	未治療群		治療継続群		p 値
	n	平均 ±SD (%)	n	平均 ±SD (%)	
1 年目調査時の年齢	140	63.2 ±10.5	118	61.8 ± 9.9	0.275
性別					0.893
	男性	40 (26.1%)	30 (25.4%)		
	女性	113 (73.9%)	88 (74.6%)		
運動障害発現年齢	139	43.7 ±14.1	118	47.3 ±13.7	0.040 *
診断年齢	140	51.1 ±12.7	118	52.2 ±12.7	0.474
発症年齢	139	42.1 ±14.2	118	47.0 ±14.2	0.006 **
発症から診断までの年数	139	8.9 ± 8.0	117	5.2 ± 5.4	<0.001 ***
1 年目調査時の罹病期間(年)	139	20.9 ±10.8	118	14.8 ± 9.9	<0.001 ***
1 年目調査時の OMDS	140	6.03 ± 2.44	118	5.78 ± 2.11	0.386
急速進行性					0.010 *
	非該当	122 (87.8%)	89 (75.4%)		
	該当	17 (12.2%)	29 (24.6%)		
1 年目調査時の HAQ-DI	140	1.20 ± 0.71	118	1.11 ± 0.64	0.298
1 年目調査時の OABSS	137	6.61 ± 4.33	115	6.25 ± 4.18	0.504
1 年目調査時の ICIQ-SF	137	6.53 ± 6.29	118	5.86 ± 6.03	0.394
1 年目調査時の I-PSS	137	14.5 ±10.4	115	15.0 ± 9.4	0.707
1 年目調査時の N-QOL	140	83.6 ±18.3	118	83.5 ±18.3	0.975

*:p<0.05, **:p<0.01, ***:p<0.001

表 11. OMDS, HAQ-DI, 排尿障害関連指標の経年比較

	n	1 年目		2 年目		3 年目			
		平均値	SD	平均値	SD	平均値	SD		
OMDS	288	5.91	2.29	6.15	2.41	**	6.30	2.40	** ^{††}
HAQ-DI	288	1.16	0.68	1.24	0.69	***	1.22	0.67	***
OABSS 合計点	262	6.39	4.34	6.41	4.02		6.02	4.04	†
ICIQ-SF 合計点	277	6.22	6.12	6.07	6.12		5.93	5.98	
I-PSS 合計点	264	15.0	9.8	13.8	10.0	*	13.5	9.5	**
N-QOL 総得点	286	83.7	18.5	85.4	16.1		83.3	18.7	†

*:p < 0.05, **:p < 0.01, ***:p < 0.001 (vs. 1 年目)

†:p < 0.05, ††:p < 0.01 (2 年目 vs. 3 年目)

表 12. OMDS グレードの 1 年目から 2 年目への変化と 2 年目から 3 年目への変化との関連

		2 年目から 3 年目			合計	
		改善	変化なし	悪化		
1 年目から 2 年目	改善	n	1	2	0	3
		%	33.3%	66.7%	0%	100%
	変化なし	n	1	203	29	233
		%	0.4%	87.1%	12.4%	100%
	悪化	n	4	41	7	52
		%	7.7%	78.8%	13.5%	100%
合計		n	6	246	36	288
		%	2.1%	85.1%	12.8%	100%

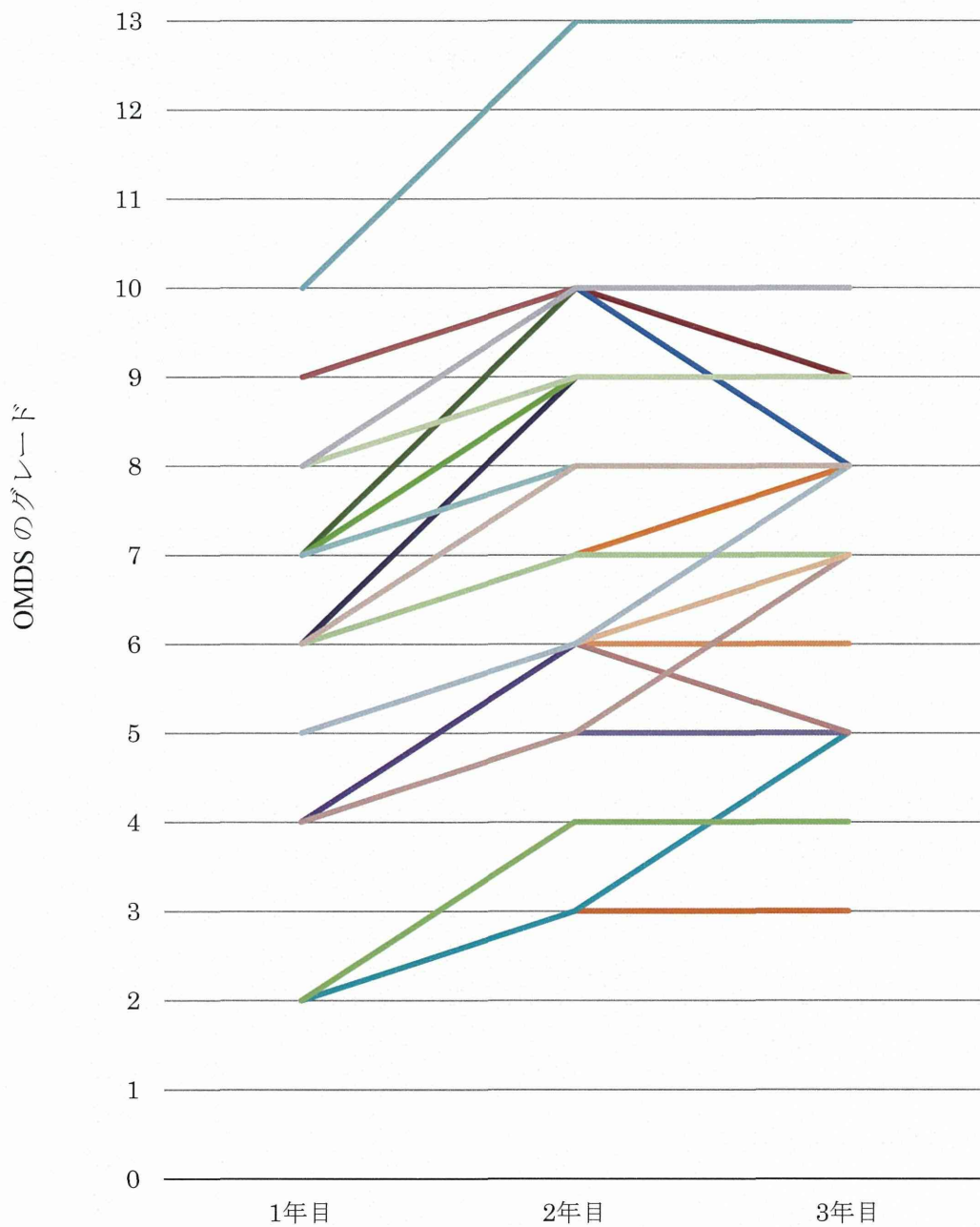


図 2. 1 年目から 2 年目にかけての OMDS 悪化群の経年変化 (n=51*)

*1 年目から 2 年目にかけての OMDS 悪化群 52 名のうち、1 名は腰椎の圧迫骨折が原因で OMDS のグレードが変化しているため除外した。

		3年目調査時のOMDSグレード														合計
		0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	
1年目調査時の OMDSグレード	0	n	1			1	1									3
	%	33.3%			33.3%	33.3%										100%
	1	n	2													2
	%	100%														100%
	2	n		6	3	1	1									11
	%		54.5%	27.3%	9.1%	9.1%										100%
	3	n			4	2										6
	%				66.7%	33.3%										100%
	4	n			1	27	5	1	1							35
	%				2.9%	77.1%	14.3%	2.9%	2.9%							100%
	5	n		1			76	12	2	1						92
	%		1.1%				82.6%	13.0%	2.2%	1.1%						100%
	6	n						35	10	9	1	1				56
	%							62.5%	17.9%	16.1%	1.8%	1.8%				100%
	7	n							16	7	2	1				26
	%								61.5%	26.9%	7.7%	3.8%				100%
	8	n						1		12	5	1				19
	%							5.3%		63.2%	26.3%	5.3%				100%
	9	n								1	6	8				15
	%									6.7%	40.0%	53.3%				100%
	10	n										9			3	12
	%											75.0%		25.0%		100%
	11	n											2			2
	%												100%			100%
	12	n												3		3
	%													100%		100%
	13	n													6	6
	%														100%	100%
合計	n	1	2	7	9	31	82	49	29	30	14	20	2	3	9	288
	%	0.3%	0.7%	2.4%	3.1%	10.8%	28.5%	17.0%	10.1%	10.4%	4.9%	6.9%	0.7%	1.0%	3.1%	100%

凡例
悪化群
変化無し
改善

表 14. ステロイド内服治療継続状況と OMDS の 1 年目から 3 年目への変化との関連

		OMDS1 年目から 3 年目への変化			合計	
		改善	変化なし	悪化		
ステロイド内服	治療継続群	n	3	87	28	118
		%	2.5%	73.7%	23.7%	100%
	未治療群	n	0	97	43	140
		%	0%	69.3%	30.7%	100%
合計		n	3	184	71	258
		%	1.2%	71.3%	27.5%	100%

$X^2=4.872, p=0.088$

表 15. OMDS の各グレード間の移行期間 (年)

OMDS のグレード	n	平均値	SD	中央値
運動障害発現→1	374	1.2	2.4	1
1→2	373	0.3	1.6	0
2→3	358	2.2	4.0	1
3→4	347	3.5	5.2	1
4→5	302	3.4	4.5	2
5→6	174	4.4	4.9	3
6→7	108	2.8	3.7	2
7→8	79	1.3	1.9	1
8→9	52	1.3	2.1	1
9→10	33	0.9	1.6	0
10→11	14	0.7	1.4	0
11→12	12	1.8	3.3	0
12→13	10	0.1	0.3	0

表 16. 運動障害発現年齢から各 OMDS グレードまでの移行期間 (年)

OMDS のグレード	n	平均値	SD	中央値
運動障害発現→1	374	1.2	2.4	1
運動障害発現→2	370	1.5	2.7	1
運動障害発現→3	354	3.7	4.8	2
運動障害発現→4	345	7.0	6.6	5
運動障害発現→5	299	10.4	8.1	9
運動障害発現→6	172	14.3	8.6	13.5
運動障害発現→7	108	15.8	9.4	14
運動障害発現→8	79	17.3	10.0	17
運動障害発現→9	52	18.2	10.9	18.5
運動障害発現→10	33	16.0	10.1	18
運動障害発現→11	15	12.3	9.8	12
運動障害発現→12	13	13.5	11.2	13
運動障害発現→13	10	13.6	12.7	12

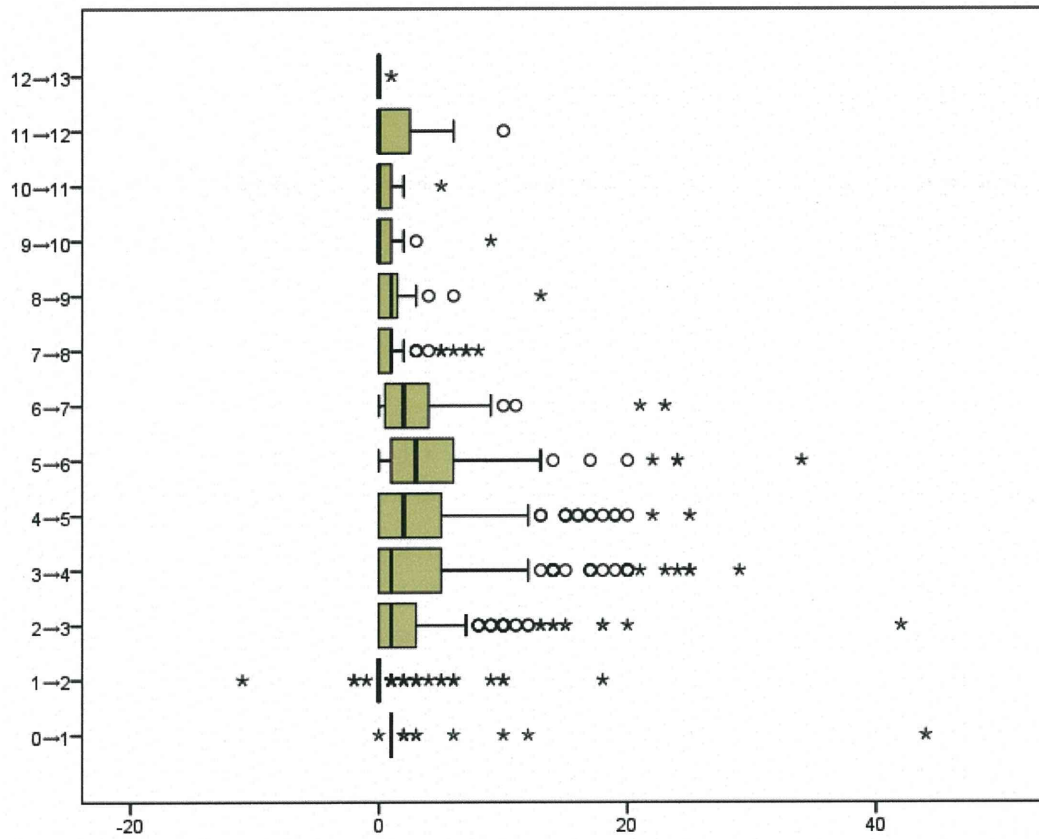


図 3. OMDS : 各グレード間の移行期間 (年)

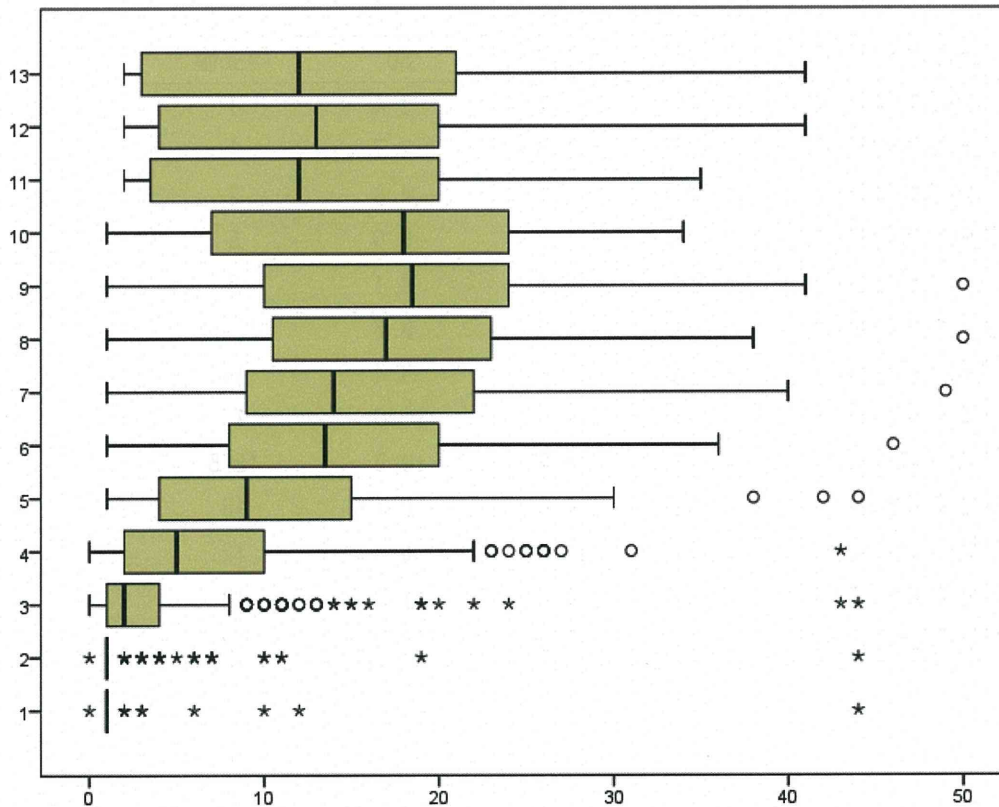


図 4. OMDS : 運動障害発現年齢からの移行期間 (年)

IPEC-1グレード		OMDS グレード													合計		
		0	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12		13	
0. 正常	n	2															2
	IPEC-1(%)	100%															100%
	OMDS(%)	66.7%															0.5%
1. 何らかの異常があるが、特に 支えは必要ない	n	1	5	13	9	43	7										78
	IPEC-1(%)	1.3%	6.4%	16.7%	11.5%	55.1%	9.0%										100%
	OMDS(%)	33.3%	100%	100%	81.8%	91.5%	5.4%										20.4%
2. ときどき、片手の支えが必要	n				2	4	3										9
	IPEC-1(%)				22.2%	44.4%	33.3%										100%
	OMDS(%)				18.2%	8.5%	2.3%										2.4%
3. 常に、片手の支えが必要	n						80										80
	IPEC-1(%)						100%										100%
	OMDS(%)						61.5%										20.9%
4. ときどき、両手の支えが必要	n						30	2	1								33
	IPEC-1(%)						90.9%	6.1%	3.0%								100%
	OMDS(%)						23.1%	3.1%	3.4%								8.6%
5. 常に、両手の支えが必要	n						6	25	4	1							36
	IPEC-1(%)						16.7%	69.4%	11.1%	2.8%							100%
	OMDS(%)						4.6%	38.5%	13.8%	4.0%							9.4%
6. 常に両手の支えが必要で、と きどき車いすが必要	n						3	20	6	2		1					32
	IPEC-1(%)						9.4%	62.5%	18.8%	6.3%		3.1%					100%
	OMDS(%)						2.3%	30.8%	20.7%	8.0%		5.3%					8.4%
7. 常に車いすが必要、支え無し で立ち上がり、支え無しで立 位保持	n							4		2							6
	IPEC-1(%)							66.7%		33.3%							100%
	OMDS(%)							6.2%		8.0%							1.6%
8. 常に車いすが必要、立ち上が りに支えが必要、支え無しで 立位保持	n						1	9	14	12	1	4					41
	IPEC-1(%)						2.4%	22.0%	34.1%	29.3%	2.4%	9.8%					100%
	OMDS(%)						0.8%	13.8%	48.3%	48.0%	5.3%	21.1%					10.7%
9. 常に車いすが必要、立ち上が りに他人の補助が必要、支え にて体位保持	n							5	4	8	9	4		1			31
	IPEC-1(%)							16.1%	12.9%	25.8%	29.0%	12.9%		3.2%			100%
	OMDS(%)							7.7%	13.8%	32.0%	47.4%	21.1%		33.3%			8.1%
10. 常に車いすが必要、立ち上が り不可、下肢は自分で動かす ことは出来る	n										9	3	3	1			16
	IPEC-1(%)										56.3%	18.8%	18.8%	6.3%			100%
	OMDS(%)										47.4%	15.8%	100%	33.3%			4.2%
11. 常に車いすが必要、立ち上が り不可、下肢は自力で動かさ ない	n											7		1	10		18
	IPEC-1(%)											38.9%		5.6%	55.6%		100%
	OMDS(%)											36.8%		33.3%	100%		4.7%
合計	n	3	5	13	11	47	130	65	29	25	19	19	3	3	10		382
	IPEC-1(%)	0.8%	1.3%	3.4%	2.9%	12.3%	34.0%	17.0%	7.6%	6.5%	5.0%	5.0%	0.8%	0.8%	2.6%		100%
	OMDS(%)	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%	100%		100%

表 18. 健康関連 QOL : SF-36v2 8つの下位尺度の国民標準値に基づいたスコアリング得点

	全体 (N=363)		男性 (N=95)		女性 (N=268)		p 値
	平均	SD	平均	SD	平均	SD	
PF (身体機能)	4.5	18.9	7.3	20.7	3.5	18.2	0.11
RP (日常役割機能 (身体))	41.9	15.7	44.1	15.5	41.2	15.8	0.12
BP (体の痛み)	42.6	12.7	46.6	13.2	41.2	12.2	<0.001 ***
GH (全体的健康感)	39.0	10.4	38.7	9.1	39.1	10.8	0.74
VT (活力)	42.2	11.1	43.0	10.8	42.0	11.3	0.45
SF (社会生活機能)	45.3	13.2	44.8	13.3	45.5	13.2	0.65
RE (日常役割機能 (精神))	47.6	12.3	48.6	11.5	47.2	12.6	0.36
MH (こころの健康)	46.3	10.8	46.9	10.7	46.1	10.8	0.54

***: p<0.001

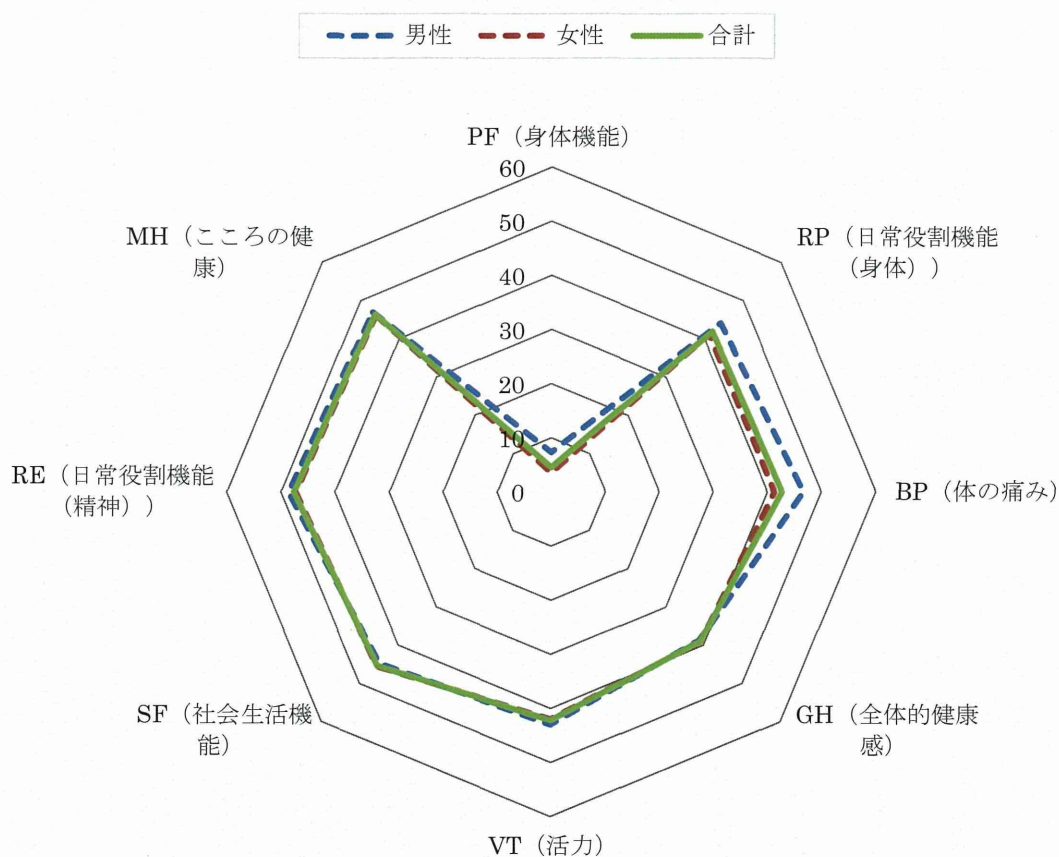


図 5. 健康関連 QOL : SF-36v2 8つの下位尺度の国民標準値に基づいたスコアリング得点の平均値

厚生労働科学研究委託費 難治性疾患等克服研究事業
(難治性疾患等実用化研究事業) 難治性疾患実用化研究事業)
委託業務成果報告 (業務項目: 多施設共同前向き臨床研究)

HAM 患者レジストリ「HAM ねっと」の患者満足度調査

研究協力者 氏名 : 八木下尚子
所属機関: 聖マリアンナ医科大学 難病治療研究センター
役職 : 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。そこで我々は、この問題を解決するために HAM 患者レジストリ「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 ねっとの長期運用を成功させるためには、登録者の満足度を高め継続的な協力や関心を維持することが必須であるといえるため、昨年度我々は登録者を対象とした満足度とニーズ把握調査を実施した。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。これらの結果から、登録者の要望に答えるよう広報誌の記事の増量、広報誌による情報の積極的な発信、ウェブサイトの更新頻度の増加など多局面からの介入を行った。

そこで本研究では、昨年度の満足度調査から1年が経過した時点で、登録者の満足度や「HAM ねっと」への期待がどのように推移したかを明らかにするため、昨年度同様の満足度とニーズ把握調査を実施した。その結果、「HAM ねっと」に対する満足度は昨年度に比べて有意に上昇しており、その内訳をみると特に広報誌の満足度が上昇していることが明らかとなった。この結果から、昨年度満足度調査以降に広報誌に対して実施した介入が、登録者のニーズに沿ったもので適切な介入であったことが示唆された。一方で、ウェブサイトについても同様に介入を行ったものの満足度は上昇しておらず、登録者のニーズを満たさきれていないことが明らかとなった。今後は、このような課題を克服し登録者のニーズに沿った介入を行っていくことで「HAM ねっと」が継続的に運営されるものと考えられる。

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。これまで歴史的にわが国の研究者が 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、既存の治療薬の適切な投与方法や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 ネット」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実施している。また、登録患者に対しては、広報誌「HAM ネット通信」およびウェブサイト「HAM ネット」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 ネット」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。

この「HAM ネット」を継続的に運用していくためには、登録者のニーズに沿った運営を行い、常に満足度を維持することが重要であるといえるため、昨年度登録者のニーズ把握を目的とした満足度調査を実施した。調査では「HAM ネット」の活動内容を「HAM ネット」全体、電話聞き取り調査、広報誌、Web サイトの項目にわけ、各項目についての満足度を調査した。この調査結果に基づき、「HAM ネット」の活動とその意義の丁寧な説明、広報誌の記事の増量、治験の情報の積極的な発信、Web サイトの更新頻度の増加など多局面からの介入を行った。

そこで本研究では、初回調査後の介入により満足度がどのように変動したかを昨年度と同様の手法で調査し比較することで、その介入が適切であったかを明らかとするとともに、介入後、新たなニーズが発生しているか探ることを目的とする。

B. 研究方法

調査実施時点の「HAM ネット」登録者 368 名を対象に、郵送でのアンケート方式による満足度調査を実施した。アンケートは昨年度同様、属性、「HAM ネット」全体、電話聞き取り調査、広報誌、Web サイトの 4 項目にわけ、「とても満足」「満足」「どちらでもない」「不満」「とても不満」のいずれかを選択する設問と、今後

の期待等を回答する多肢選択式および自由記載式の設問を設定した(添付資料 4 「HAM ネットの質の向上に関するアンケート」参照)。アンケートは平成 26 年 6 月 3 日に発送し、約 1 ヶ月の回答期間を設け、結果を集計した。昨年度との比較解析は、昨年度から引き続き回答している登録者のデータを抽出し、「とても満足」から順に 5 段階で 5 点、4 点、3 点、2 点、1 点と点数化し、Wilcoxon 符号順位和検定による有意差検定を行った。

(倫理面への配慮)

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 ネット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めないようにし、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。

HAM ネットへの登録状況は、平成 24 年 3 月 1 日から申し込み受け付けを開始し、平成 27 年 3 月 17 日時点で、申込み 516 名、同意書に基づいた登録 419 名。

C. 研究結果

①属性について

平成 26 年 6 月 3 日時点の HAM ネット登録者 368 名に対してアンケートを発送したうち、275 名より返送があり、回答率は 74.7%であった。このうち男性は全体の 25.8%、女性は全体

の71.6%で、男女比は1:2.8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)。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「HAM ねっと」全体について

回答者275名のうち、(ア)「HAM ねっと」に登録したことについて75.3%が「とても満足している」「満足している」、21.8%が「どちらともいえない」、0.4%が「不満である」「とても不満である」と回答した(図4)。そのように回答した理由としては、「登録したことで現在の情報が知ることが出来て、心のゆとりがもつことが出来た」「HAMに関する最新の情報を得る事ができる」「HAMに関する正しい情報を得る事ができる」「情報を共有できる」「定期的に情報が送られてくる」「病気に関する情報が入ってくるので安心する。仲間が居ると心のつながりができたようだ」「情報が活字で早く伝わる」「難病についての知識を得たいという思いもあるが、又、何らかの形で役立ちたい思いもある」「自分の病気に対して素直にむきあえ向上にむかって努力出来る」「HAM患者のひとりとしての苦しみや不安など相談の寄り処であり、自分が研究の推進に少しでも役立っていることと信じている」(以上、「とても満足している」「満足している」回答者)、「登録したばかりなのでわからない」「目的がはっきりしない」「アンケートに答えるくらいで他に何もなく登録してよかったと思った事はない」「自分の病状に対してこうしたら少し楽になるのではという回答がない」「もう少し情報がほしい」「新薬の開発などの朗報が聞かれない。治験に関する情報が乏しい」(以上、「どちらともいえない」回答者)、「現在の患者数とHAM ねっとに登録している人の数、年代、性別のグラフ、亡くなった方の年、合併した病気など随

時明記して欲しい。現在の治療方法の最新情報を更新して欲しい」(以上、「不満である」「とても不満である」回答者)などがあった。

回答者のうち、(イ)56.4%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」、32.0%が「どちらともいえない」、8.4%が「実感していない」「まったく実感していない」と回答した(図4)。そのように回答した理由としては、「治療法が思ったより早くできたように思う」「治験も協力者を得て始まったようだし、今後の成果に大いに期待している」「とても実感しているが、未だ薬が研究段階で少し悲観している」「患者の細かい身体的状態等をリサーチし研究に提供されていると感じている」「患者の病状だけでなく心情も聞き取っていただく事で研究をされる先生方に患者が求めている事をより知ってもらえていると思う」「HAMの病状は個人的に異なった差、違いが多いため研究の推進に役立っていると思う」「患者への聞き取り調査・アンケートなどに参加させていただくことによって、それらの実態を患者自身も知ることができ、研究が進む中で革新的な治療法の実用化へ向けた開発が、現在一步一步進んでいることと思うから」「一部地域の風土病とされてきたが世界的な広がりを実証した事」「登録することで患者の実態調査をまとめてもらえるので、そのことが研究の推進に役立つと思う」(以上、「とても実感している」「実感している」回答者)、「研究の現況がよくわからない」「何をどのように活用されているのか不明」「アンケートや電話の聞き取り調査だけです」「良く分からない」「今のところは特に感じていない」(以上、「どちらともいえない」回答者)、「役立っているかどうかわからない」「排尿、排便障害の改善法がない。対症療法しかない」「何も思わない」(以上、「実感していない」「まったく実感していない」回答者)などがあった。

(ア)(イ)の調査結果を平成25年度調査結果とそれぞれ比較すると、(ア)「HAM ねっと」に登録したことをどのように感じていますかの