

## 別添 4

厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業）  
平成 30 年度分担研究報告書

### HAM 診療ガイドライン策定のための患者の関心・価値観に関わる質問紙調査

- 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
- 研究分担者 氏名 : 高田礼子  
所属機関 : 聖マリアンナ医科大学 予防医学教室  
役職 : 教授
- 研究協力者 氏名 : 佐藤知雄  
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 : 准教授
- 研究協力者 氏名 : 山内淳司  
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 : 助教

#### 研究要旨

診療ガイドラインの質を評価するツールである AGREE II に「患者の視点や希望が考慮されたか」という項目が設定されていることに象徴されるように、GRADE システム、米国医学研究所、Minds による診療ガイドライン作成の方法のいずれにおいても、診療ガイドラインの作成には、患者の価値観や希望の多様性を尊重することを推奨している。

そこで HAM 診療ガイドラインを作成するにあたり、患者の関心や治療・検査に対する価値観を明らかにすることを目的とし、HAM 患者を対象とした質問紙調査を実施することとした。質問項目は、患者代表や HAM に関する各分野の専門家の意見をふまえて設定し、さらに HAM 患者会にて 20 名に対するプレテストを実施し意見反映させた。

2018 年 5 月 30 日までに HAM ねっとに登録された全国の HAM 患者 496 名に対し、約 1 ヶ月の調査期間で無記名自記式質問紙による調査を行った。質問紙を送付した HAM ねっとに登録された HAM 患者 496 名のうち、336 名からの回答を得た（回収率 67.7%）。うち調査協力同意欄にチェックのあった 271 名を有効回答とした。

本調査により、HAM 診療ガイドラインで取り上げた内容は、いずれも HAM 患者の関心度の高い内容であることが確認された。これらの結果は、HAM 診療ガイドラインの作成にあたり、設定した Clinical Question に対する推奨を決定するパネル会議における参考資料とし、患者の価値観や希望として反映させた。

また、その他の調査結果として、HAM の診療において重視する点では、85.1%の者が「症状の改善」を、43.3%の者が「専門性が高い医療」を挙げた。自由記載には専門医を受診するため数時間かけて通院している旨の記載が複数寄せられ、専門性が高く効果のある治療を求めて負担を余儀なくされている現状があることも明らかとなった。そのため、今回作成したガイドラインが HAM 診療の均てん化、HAM 診療の質の向上に果たす役割は大きいと考えられた。さらに、治療方針の決定や治療目標の設定については、現状と希望が一致していることで、診療満足度が高められることが明らかとなった。今回作成したガイドラインが、患者と医療者とのよりよい意思決定の助けになるよう、HAM 診療に携わる医療従事者に広く活用されることが期待される。

また、今回の調査対象となった HAM 患者のヘルスリテラシーは、比較的高いことが示唆され、スマートフォンやパソコンなどの端末、主治医や HAM ネット聞き取り担当者、HAM ネット通信などから HAM に関する情報を収集していることが明らかになった。今後も患者に対して適切な情報発信を続けると共に、HAM ネット登録者対象に発信される情報を患者に有効活用してもらうため、レジストリ登録者数を増やすよう努めることが有用であると考えられる。

## A. 緒言

近年、患者の価値観や意向を踏まえた診療ガイドライン作成が求められている。診療ガイドラインの質を評価するツールである AGREE II に「患者の視点や希望が考慮されたか」という項目が設定されていることに象徴されるように、GRADE システム、米国医学研究所、Minds による診療ガイドライン作成の方法のいずれにおいても、診療ガイドラインを作成するにあたり、患者の価値観や希望の多様性を尊重することを推奨している<sup>1-4)</sup>。患者の意見を反映したガイドライン作成のためには、当事者を制作メンバーに含める、患者へのインタビューを実施する、などが推奨される<sup>5,6)</sup>。

また、HAM 患者が HAM に関する情報を収集する方法やリテラシーは十分明らかにされていない。患者の価値観や意向と同時に、患者の情報収集行動についても調査することにより、患者への効果的な情報提供方法を検討できる可能性がある。

そこで HAM 診療ガイドラインを策定するにあたり、患者の関心や治療・検査に対する価値観および情報収集の状況を明らかにす

ることを目的とし、HAM 患者を対象とした質問紙調査を実施することとした。

## B. 研究方法

2018年5月30日までに HAM ネットに登録された全国の HAM 患者 496 名に対し、無記名自記式質問紙を送付した。調査期間は 2018年5月30日から7月5日とした。鑑文および調査票を資料1、資料2として掲載する。

質問項目の検討に際しては、専門家と患者の意見を反映するため、以下の手順にて作業を進めた。2018年2月27日、ガイドライン班班会議にて、患者代表や HAM の専門家に意見を募った。ガイドライン班班会議内で提示された調査票案について、意味がわかりにくい項目、優先度が低いと考えられる項目、患者の現状や価値観を知るために追加することが望ましい項目についての意見があった。また、設問案の選択肢についても、わかりやすさや調査の必要性の観点から、修正の意見があった。それらの意見を集約して、質問項目案を修正した。2018年4月7日の HAM 患者会にて、HAM 患者・家族 20 名に

対して質問項目案を用いたプレテストを実施し、回答のしやすさ、項目の重要性、他に取入れたい項目などについて意見を集め、再度調査票案に反映した。研究者により項目や質問の配置順などを検討し、ガイドライン班会議のメンバーの確認を得て、調査票を確定した。調査項目は下記の通りであった。

患者属性について、性別、年齢、初発年齢、診断年齢、就労状況、現在居住地域を尋ねた。年齢と初発年齢の差を「罹患期間」、診断年齢と初発年齢の差を「診断前期間」とした。以下、調査項目を分類別に示す。

#### ア. 患者の関心のある項目

HAM およびその関連疾患とその検査方法への関心 9 項目について、「非常に関心がある」「関心がある」「あまり関心がない」「全く関心がない」「質問がわからない」の 5 選択肢で尋ねた。

#### イ. 治療や検査に対する経験と抵抗感、有効感

治療や検査の経験について、ステロイド内服、ステロイドパルス療法など 10 項目の治療、血液検査など 3 項目の検査のそれぞれについて、「現在受けている」「過去に受けたことがある」「一度も受けたことがない」「わからない」の 4 選択肢で尋ね、それぞれの治療、検査に対する抵抗感の有無と有効性を感じるかを尋ねた。

#### ウ. HAM 診療満足度と重視する点、治療方針/治療目標の決定の現状と希望

HAM の診療について下記の質問を行った。HAM の受診時に重視することを、症状の改善、副作用が少ないなど 11 の選択肢から 3 つ選択するよう尋ねた。

また、現在 HAM の診療を受けているかを尋ね、「受けている」と回答した者に対しては、HAM 診療の満足度を「満足」「やや満足」「やや不満」「不満」の 4 選択肢で尋ね、主治医の

診療科を、神経内科・脳神経内科、整形外科など 8 選択肢で尋ねた。

さらに、HAM の治療方針や治療目標について、どのように決めているかと、どのように決めるのが望ましいかについてそれぞれ「主治医が治療方針や治療目標を決定し、その治療を受ける」「主治医から治療方針や治療目標を聞き、話し合って治療法を決める」「主治医以外からも積極的に情報収集し、治療法を選択する」の 3 つの選択肢で尋ねた。図中においては、それぞれ「主治医が決定」「主治医と話し合い」「主治医以外からも情報収集」と表記した。

#### エ. HAM の症状及び EQ-5D-5L による健康状態と EQ-5D-5L スコア・健康状態の VAS

HAM の症状について、約 1 年前比べた全体的な体調、歩行の状態など 5 項目について、「非常に良い」「良い」「変わらない」「悪い」「非常に悪い」の 5 選択肢で尋ねた。また、健康状態の把握に EQ-5D-5L を用いた。EQ-5D-5L では、「移動の程度」「身の回りの管理」「ふだんの活動」「痛み/不快感」「不安/ふさぎ込み」の 5 項目の健康状態がそれぞれ 5 水準で表現される。図中においては、評価項目それぞれの回答選択肢を、問題ない/ないといった状態を 1、極度にできないもしくはできない状態を 5 と順に数字を割り当てて表記した。さらに、池田らの方法により EQ-5D-5L から算出した値（死亡=0, 完全な健康=1 とする比例尺度。以降、EQ-5D-5L スコア）を算出した。あわせて、今日の健康状態について VAS（0 から 100 までの目盛りのある線分に、今日の健康状態を示す尺度）で尋ねた。また、EQ-5D-5L スコアと健康状態の VAS の相関係数を算出した。

#### オ. 運動療法・リハビリテーション

運動療法・リハビリテーションについては、実際に受けている、あるいは受けたことのあ

る者に対して、その頻度を病院・診療所（外来）、病院・診療所（入院）など5つの実施場所それぞれについて尋ねた。運動療法・リハビリテーションを受けたいと希望する頻度についても、同様に尋ねた。また、自主トレーニングの実施の有無を尋ね、自主トレーニングの内容を自由記載で尋ねた。

#### カ. HAM の情報収集

HAM の情報収集について、スマートフォン・タブレット・パソコンのそれぞれを使っているかどうかを「使っている」「使っていない」「持っていない」の3選択肢で尋ね、「使っている」と回答した者には、HAM の情報を調べたことがあるかどうかを尋ねた。HAM についての情報を誰から手に入れているかを、主治医、主治医以外の医師など11選択肢から複数選択で尋ねた。HAM についての情報をどこから手に入れているかを、HAM ねっと通信、HAM 診療マニュアル、厚生労働省の HTLV-1 サイトなど、14 選択肢から複数回答で尋ねた。また、説明書やパンフレット、インターネットなどから情報を手に入れるときに誰かに助けてもらうことがどのくらいあるか、医師や薬局からもらう説明書やパンフレットなどの文書を読むときに誰かに助けてもらうことがどのくらいあるかについて、それぞれ「いつも」「しばしば」「ときどき」「たまに」「ない」の5選択肢で尋ねた。

#### キ. 臓器移植

HTLV-1 感染者の臓器提供の可否、臓器被提供の可否、臓器移植前の検査の必要性それぞれの関心について、「非常に関心がある」「関心がある」「あまり関心がない」「全く関心がない」「質問がわからない」の5選択肢で尋ねた。また、臓器提供と臓器移植を受けた経験を尋ねた。

#### ク. 関節リウマチと免疫抑制治療

関節リウマチの診断経験、現在の免疫抑制治療の有無を尋ねた。さらに、関節リウマチの診断経験がある、あるいは免疫抑制治療を受けている者に対して、免疫抑制治療の薬剤名を尋ね、免疫抑制治療前・治療中の注意事項と、HTLV-1 感染が治療の効果に影響するかそれぞれの関心について、「非常に関心がある」「関心がある」「あまり関心がない」「全く関心がない」「質問がわからない」の5選択肢で尋ねた。

#### ケ. 受診時に迷ったこと、疑問、希望

自由記載にて、HAM の受診時に迷ったことや疑問に思ったこと、HAM の診療に望んでいることを尋ねた。

#### コ. 診療満足度を従属変数とした重回帰分析

治療方針や治療目標の決定方針が診療満足度に与える影響を探索的に検討するため、診療満足度を従属変数とした重回帰分析を行った。

#### サ. 治療・検査の抵抗感の有無に影響する要因のロジスティック回帰分析

各治療・検査の抵抗感に関連する要因を探索的に検討するため、各治療・検査の抵抗感を従属変数とし、各治療・検査の経験、有効感、診療時に重視する項目を独立変数としたロジスティック回帰分析を行った。

### C. 分析方法

集計にあたっては、無回答や不正回答を除外した割合を算出した。

自由記載について、項目の列挙など短文であれば、記載を繰返し読み同一項目をまとめて集計した。回答者が複数項目を記載していた場合は項目別に集計を行った。そのため、項目数の合計と回答者数が一致しない場合がある。長文の自由記載については、記載そのままを資料としてまとめた。なお、自由記

載内に個人を特定しうる情報があった場合は、個人情報保護のため当該部分を削除した。

統計解析には IBM SPSS statistics 22 を用い、有意水準は 5%とした。

### (倫理面への配慮)

本研究は、聖マリアンナ医科大学の生命倫理委員会で承認された（承認番号：第 2044 号）。

調査は無記名で行い、調査票に設けた調査協力への同意欄に同意のチェックが得られたケースのみ解析を行った。

## D. 研究結果

### 1) 対象集団像

496 名に対して調査票を配布し、336 件が返送された（回収率 67.7%）。調査協力同意欄にチェックのなかった 65 名を除外し、271 名を有効回答とした。調査対象者の性別は女性が 203 名（75.7%）であり、平均年齢は 64.81 歳、平均罹患期間は 19.76 年、平均診断前期間は 6.11 年であった（表 A-1）。

また、年代は上位 3 つが 60 代 103 名（38.4%）、70 代 75 名（28.0%）、50 代 47 名（17.5%）であった（表 A-2）。

就労状況は「無職」204 名（76.1%）、「就労中」59 名（22.0%）、「休職中」3 名（1.1%）、「無職で、仕事を探している」2 名（0.7%）であった（表 A-3）。

現在の居住地は上位 3 つが「九州地方」109 名（40.7%）、「関東地方」76 名（28.4%）、「近畿地方」35 名（13.1%）であった（表 A-4）。

### 2) 集計分析結果

#### ア. 患者の関心のある項目

HAM およびその関連疾患と検査方法についての患者の関心度を表 B-1 および図 B-1 に示した。「HAM」と「HAM の発症検査方法」には、それぞれ 263 名（98.5%）、242 名（95.7%）

の者が、「HU/HAU」と「HU/HAU の発症検査方法」には、それぞれ 209 名（82.6%）、197 名（79.2%）の者が「非常に興味がある」「興味がある」と回答した。「ATL」と「ATL の発症検査方法」には、それぞれ 232 名（90.6%）、227 名（88.7%）の者が「非常に興味がある」「興味がある」と回答した。

特に関心のあることや気になることについての自由記載欄への回答を資料 3 に示した。

#### イ. 治療や検査に対する経験と抵抗感、有効感

各種治療や検査の経験を表 C-1 に示した。治療では、ステロイド錠内服を「現在受けている」者は 145 名（56.2%）、「過去に受けたことがある」者は 62 名（24.0%）であった。運動療法・リハビリテーションを「現在受けている」者は 141 名（56.9%）、「過去に受けたことがある」者は 61 名（24.6%）であった。そのほかに、排尿障害の治療薬（飲み薬）を「現在受けている」者は 129 名（50.4%）、便秘薬を「現在受けている」者は 174 名（67.4%）であった。

各種治療や検査の抵抗感を表 C-2 に示した。「抵抗感あり」と回答した者の割合が高かった治療は、尿道留置カテーテル 163 名（76.2%）、ステロイドパルス療法 164 名（72.6%）、インターフェロン α 145 名（66.5%）、自己導尿 151 名（64.3%）などであった。「抵抗感なし」と回答した者の割合が高かったのは、運動療法・リハビリテーション 213 名（89.9%）などであった。検査では、髄液検査に「抵抗感あり」と回答した者が 132 名（52.2%）であった。

各種治療や検査の有効感を表 C-3 に示した。「有効感あり」と回答した者の割合が高かった治療は、運動療法・リハビリテーション 200 名（80.3%）、便秘薬 192 名（76.2%）などであった。

各種治療や検査の経験と抵抗感の関係を表 C-4 に示した。ステロイド内服について、治療を現在受けている者のうち「抵抗感あり」と回答したのは 72 名 (50.7%) であり、治療を一度も受けていない者のうち「抵抗感あり」と回答したのは 36 名 (90.0%) であった。運動療法・リハビリテーションでは、治療を現在受けている者、過去に受けたことがある者、一度も受けたことがない者で「抵抗感あり」と回答したのはそれぞれ 12 名 (9.3%)、6 名 (10.3%)、3 名 (8.1%) であった。

各種治療や検査の経験と有効感の関係を表 C-5 に示した。治療では、現在受けている者は過去に受けたことがある者よりも「有効感あり」と回答する割合が高く、「有効感なし」と回答する割合が低かった。運動療法・リハビリテーションにおいては、現在受けている者、過去に受けたことがある者で「有効感なし」と回答したのはそれぞれ 2 名 (1.5%)、1 名 (1.8%) であった。

#### ウ. HAM 診療満足度と重視する点、治療方針/治療目標の決定の現状と希望

HAM の診療において重視する点の上位 3 つは、「症状の改善」228 名 (85.1%)、「医師に相談しやすい」117 名 (43.7%)、「専門性が高い医療」116 名 (43.3%) であった (図 D-1)。

また、「現在 HAM の診療を受けている」と回答した者は 251 名 (93.7%) であった (表 D-1)。以下、現在 HAM の診療を受けている 251 名に対して集計を行った。診療満足度は、「満足」60 名 (24.3%)、「やや満足」99 名 (40.1%)、「やや不満」68 名 (27.5%)、「不満」20 名 (8.1%) であった (表 D-2)。主治医の診療科は「神経内科・脳神経内科」が 231 名 (95.9%) であった (表 D-3)。その他として挙げられた主治医の診療科を表 D-4 に示した。

治療方針や治療目標の決定方法は、「主治

医から治療方針や治療目標を聞き、話し合っ  
て治療法を決める」と回答したのが 141 名  
(58.5%)、「主治医が治療方針や治療目標を  
決定し、その治療を受ける」と回答したのが  
72 名 (29.9%)、「主治医以外からも積極的に  
情報収集し、治療法を選択する」と回答した  
のが 28 名 (11.6%) であった (表 D-5)。ま  
た、治療方針や治療目標の望ましい決定方法  
で最も回答が多かったのは「主治医から治療  
方針や治療目標を聞き、話し合っ  
て治療法を決める」の 142 名 (58.2%)、二番目に回答が  
多かったのは「主治医以外からも積極的に情  
報収集し、治療法を選択する」の 66 名 (27.0%)  
であった (表 D-6)。

治療方針や治療目標の決定方法と望まし  
い決定方法との関係は、「主治医が治療方針  
や治療目標を決定し、その治療を受ける」と  
回答した者のうち希望と一致したのが 32 名  
(45.7%)、「主治医から治療方針や治療目標  
を聞き、話し合っ  
て治療法を決める」と回答  
した者のうち希望と一致したのが 105 名  
(74.5%)、「主治医以外からも積極的に情報  
収集し、治療法を選択する」と回答した者の  
うち希望と一致したのが 19 名 (67.9%) であ  
った (表 D-7, 図 D-2)。

#### エ. HAM の症状及び EQ-5D-5L による健康状態と EQ-5D-5L スコア・健康状態の VAS

約 1 年前と比較した HAM の症状について、全体的な体調が「悪い」「非常に悪い」と回答したのは 114 名 (43.8%)、歩行の状態が「悪い」「非常に悪い」と回答したのは 174 名 (67.1%) であった (表 E-1, 図 E-1)。

EQ-5D-5L において、移動の程度について、「歩き回るのに問題がない」者は 11 名 (4.2%)、「歩き回ることができない」者は 80 名 (30.4%) であった。身の回りの整理について「問題ない」者は 99 名 (37.4%)、ふだんの活動について「問題ない」者は 22 名

(8.3%)、痛み／不快感について、「痛みや不快感はない」者は42名(15.8%)、不安／ふさぎ込みについて、「不安でもふさぎ込んでもいない」者は109名(41.1%)であった(表E-2)。EQ-5D-5Lの結果から算出したEQ-5D-5Lスコアの平均値は0.50、標準偏差は0.20であり、健康状態のVASの平均値は51.74、標準偏差は21.54、EQ-5D-5Lスコアと健康状態のVASの相関係数は $r=0.512$ ( $p<0.001$ )であった(表E-3)。

#### オ. 運動療法・リハビリテーション

運動療法・リハビリテーションを受けた経験について、受けている、あるいは受けた経験のある者の割合が多かったのは、「病院・診療所(外来)」138名(62.2%)、「病院・診療所(入院)」95名(53.1%)であった(表F-1)。その他として挙げられた受けた経験のある施設を表F-2に示した。

運動療法・リハビリテーションを受けたい者の割合が多かったのは、「病院・診療所(外来)」157名(75.5%)、「自宅(訪問看護や訪問リハビリテーションなど)」112名(60.5%)であった(表F-3)。その他として挙げられた受けたい希望のある施設を表F-4に示した。

運動療法・リハビリテーションを実際に受けている、あるいは受けたことのある頻度と、受けたいと希望する頻度について、施設別に集計した結果を図F-1に示した。「病院・診療所(外来)」、「介護施設(デイサービス、デイケア、ショートステイなど)」、「自宅(訪問看護や訪問リハビリテーションなど)」では、受けている、あるいは受けたことのある者の割合よりも、希望する者の割合の方が高く、特に「病院・診療所(外来)」では受けている、あるいは受けたことのある者が138名(62.2%)、希望する者が157名(75.5%)であった。一方で、「病院・診療所(入院)」では、受けている、あるいは受けたことのある者の割合が、希望する者の割合を下回った。

自主トレーニングを「行っている」と回答した者は152名(62.6%)であった(表F-5)。自主トレーニングの内容について自由記載で回答を得た。内容別に集計したものを表F-6に示す。回答が最も多かったのは「ストレッチ」38名(26.2%)であり、「下肢の運動(屈伸、立ち上がり、アキレス腱伸ばしなど)」35名(24.1%)、「歩行(ウォーキング、散歩、歩くことを心がけるなど)」33名(22.8%)、「スクワット」24名(16.6%)が続いた。

#### カ. HAMの情報収集

スマートフォン・タブレット・パソコンの使用状況と、それぞれHAMの情報を調べたことがあるかどうかについて、表G-1に示した。スマートフォンを「使っている」者は150名(57.7%)であり、うち「HAMの情報を調べたことのある」者は100名(67.6%)であった。タブレットを「使っている」者は62名(23.7%)であり、うち「HAMの情報を調べたことのある」者は44名(71.0%)であった。パソコンを「使っている」者は126名(47.5%)であり、うち「HAMの情報を調べたことのある」者は113名(89.7%)であった。

HAMの情報入手元となっている人として多く挙げられたのは、「主治医」201名(75.0%)、「HAMねっとの聞き取り担当者」140名(52.2%)、「患者会の方」102名(38.1%)であった(表G-2)。その他として挙げられたHAMの情報入手元となっている人を表G-3に示した。ただし、人物以外の記載についても、そのまま集計した。

また、HAMの情報入手元となっているものとして多く挙げられたのは、「HAMねっと通信」231名(89.2%)、「HAM患者会からの資料」136名(52.5%)などであった(表G-4)。その他として挙げられたHAMの情報入手元を表G-5にした。

説明書やパンフレット、インターネットなどから情報を手に入れるときに誰かに助け

てもらうことについて、「ない(助けてもらうことはない)」と回答した者は185名(74.0%)、「たまに(10回に1回くらい)」と回答した者は27名(10.8%)、「いつも(常に誰かに助けてもらっている)」と回答した者は20名(8.0%)であった(表G-6)。また、医師や薬局からもらう説明書やパンフレットなどの文書を読むとき誰かに助けてもらうことについて、「ない(助けてもらうことはない)」と回答した者は232名(88.9%)、「たまに(10回に1回くらい)」と回答した者は13名(5.0%)、「いつも(常に誰かに助けてもらっている)」と回答した者は7名(2.7%)であった(表G-7)。

#### キ. 臓器移植

臓器移植の関心度について尋ねたところ、「HTLV-1感染者の臓器提供の可否」には123名(46.6%)、「HTLV-1感染者が臓器移植を受けられること」には112名(42.6%)、「臓器移植前のHTLV-1関連検査の必要性」には149名(56.9%)の者が「非常に関心がある」「関心がある」と回答した(表H-1)。

また、臓器を提供した経験のあるものではなく(表H-2)、臓器移植を受けた経験が「ある」者は2名(0.7%)であり(表H-3)、該当者はいずれも腎臓の移植を受けていた(表H-4)。

#### ク. 関節リウマチと免疫抑制治療

「関節リウマチと診断されたことがある」者は26名(9.9%)であり(表I-1)、うち「関節リウマチの治療をHAMの治療を同じ病院で受けている」者は13名(52.0%)であった(表I-2)。

また、「現在ステロイド治療以外の免疫抑制治療を受けている」者は19名(7.3%)であった(表I-3)。免疫抑制治療の薬剤名として挙げられたものを表I-4に示した。ただし、免疫抑制剤でない記載についても、そのまま集計した。

以下、関節リウマチと診断されたことがある、あるいは免疫抑制治療を受けていると回答した37名について、免疫抑制療法についての関心度を尋ねたところ、「免疫抑制療法を受ける前や治療中に注意すべきこと」には28名(84.8%)、「HTLV-1感染が治療の効果に影響するか」には27名(84.4%)の者が「非常に関心がある」「関心がある」と回答した(表I-5)。

#### ケ. 受診時に迷ったこと、疑問、希望

自由記載「HAMの診療を受けた際に迷ったことや疑問に思ったこと、また、HAMの診療に望んでいること」について、資料4に示した。

#### コ. 治療方針や治療目標の決定方針が診療満足度に与える影響の探索的分析

治療方針や治療目標の決定方針が診療満足度に影響を与えるのかを検討するため、診療満足度を従属変数とした重回帰分析を行った(表J-1)。EQ-5D-5Lスコア、治療方針や治療目標の決定方針の希望、治療方針の現状と希望の一致を独立変数に投入し、年齢、性別を調整変数として投入した。その結果、EQ-5D-5Lスコアが高いほど( $\beta=0.344$ ,  $p<0.001$ )、治療方針決定方法の現状と希望が一致している( $\beta=0.225$ ,  $p<0.001$ )場合に、有意に診療満足度が高められた。主治医以外からも積極的に情報収集し、治療方法を選択したいと希望している場合に、有意に診療満足度が低められる傾向が見られた( $\beta=0.205$ ,  $p<0.05$ )。

#### サ. 治療・検査の抵抗感に関連する要因の探索的分析

各治療・検査の抵抗感を従属変数としたロジスティック回帰分析を行った(表K-1)。独立変数には各治療・検査の経験、有効感、診療時に重視する項目を投入した。ステロイド内服、尿道留置カテーテルでは、現在受けて

いる・過去に受けた経験がある場合、抵抗感が有意に低くなる傾向が見られた。ステロイドパルス療法、インターフェロン $\alpha$ では、過去に受けた経験がある場合、抵抗感が有意に低くなる傾向が見られた。ステロイド内服、抗癌縮薬、排尿障害の治療薬（飲み薬）、自己導尿、便秘薬、髄液検査、画像診断では、有効と感じている場合に抵抗感が有意に低くなる傾向が見られた。インターフェロン $\alpha$ 、抗癌縮薬、排尿障害の治療薬（飲み薬）、髄液検査については、「副作用が少ない」を診療時に重視すると抵抗感が有意に高くなる傾向が見られた。便秘薬では、「専門性が高い医療」を診療時に重視すると抵抗感が有意に低くなる傾向が見られた。運動療法・リハビリテーションおよび血液検査については、どの項目とも抵抗感への有意な関連は見られなかった。

## E. 考案

対象集団像について、女性 75.7%、平均年齢 64.81 歳であり（表 A-1）、HAM ねっとに登録されている患者は女性 74.7%、平均年齢 62.0 歳であった<sup>8)</sup>。回答者の居住地は九州地方 40.7%、関東地方 28.4%、近畿地方 13.1% の順に多く分布しており（表 A-4）、HAM ねっと登録者の居住地は九州地方 43.7%、関東地方 22.3%、近畿地方 13.7% であった<sup>8)</sup>。性別、年齢、居住地の調査結果から、本調査では HAM ねっとの登録患者から偏りなく回答が得られたと考えられる。

就労状況につき無職が多いのは（表 A-3）、対象者が高齢であることが原因の一つと推察されるが、HAM の症状が原因で働けない者が存在する可能性もある。

患者の関心のある項目については、HAM に関心が高いことが示されると同時に、ATL や HTLV-1 関連の肺の病気にも関心があるという結果であった（表 B-1）。

HAM の症状について、1 年前と比較して

改善した者は全体的に少なかった（表 E-1）。特に 1 年前と比較した歩行の状態について、67.1%が悪化していると回答した（表 E-1）。診療にあたっては、症状の変化に注意し、適宜対応していくことが望ましい。

対象者の EQ-5D-5L スコアについては、平均点が 0.50 であった（表 E-2）。日本の一般健康集団において、60~69 歳女性の EQ-5D-5L スコアの平均値は 0.899、脳卒中患者群では 0.52 と報告されていることから<sup>9, 10)</sup>、HAM 患者の健康状態は、一般健康集団よりも低いことが示された。

治療方針の決定方法については、患者によって希望が異なることが示された（表 D-5）。また、治療方針の決定方法の希望と現状が必ずしも一致していない可能性が示された（表 D-6、図 D-3）。特に、現状で主治医が決定していると回答した者のうち、主治医が決定することを望ましいと考えている者は 45.7% であった（表 D-6、図 D-3）。患者の中には、現状よりも医師と話し合いたいと考えている者がいることが示唆された。診療の中で患者の価値観や意向を考慮することが重要と考えられる。

診療満足度に関して、HAM の診療を受けている者のうち、64.4%が満足、35.6%が不満と回答した（表 D-2）。厚生労働省による平成 26 年受療行動調査では、外来患者の病院に対する全体的な満足度で 58.3%が「満足」、31.5%が「ふつう」、4.8%が「不満」と回答している<sup>11)</sup>。満足度についての単純な比較は慎重にされるべきであるが、HAM の診療に不満をもつ患者が多く存在することが示唆された。

HAM の診療満足度に関連する要因の検討において、EQ-5D-5L スコアが高い、治療方針決定方法の現状と希望が一致している場合に有意に診療満足度が高められた（表 J-1）。体調（EQ-5D-5L スコア）を制御しても、治療目標や治療方針の決定方針が患者と医師

とで一致することで診療満足度が向上する。患者の希望や価値観を踏まえた診療を行う事で、診療満足度を向上できる可能性がある。また、「主治医以外からも積極的に情報収集し、治療方法を選択したい」と希望している場合に診療満足度が低められるという結果については、現在の診療に満足していないため情報収集欲求が高まるという状況を反映していると考えられる。信頼できる情報提供を行い、患者と協働して治療目標や治療方針の検討・決定を行う事で診療満足度を改善できる可能性を補強する結果であると考えられる。

治療や検査の経験として、ステロイド錠内服治療の経験がある者は 80.2%にのぼった(表 C-1)。ステロイド錠内服は、現在 HAM 治療としての保険適用外であるが、処方されている者が一定数存在することが明らかになった。その他、排尿障害治療薬(飲み薬)や便秘薬による治療経験がある者も多く(表 C-1)、HAM の症状への対処療法が広く行われていることが推察された。

臓器移植の経験をもつ者は少なく(表 H-2, 3)、関心をもつ者の割合も半数程度であった(表 H-1)。臓器移植については身近に感じられていない可能性が考えられる。

関節リウマチについては、9.9%が診断経験ありと回答した(表 I-1)。なお、我が国における関節リウマチの罹患率は 0.6~1.0%といわれている<sup>12)</sup>。診断されている者のうち、HAM の治療を受けている病院で関節リウマチの治療を受けている者は半数程度であった(表 I-2)。免疫抑制治療などにあたっては、双方の連携が必要であると考えられる。

治療や検査の経験と抵抗感については、全般的に、治療を現在受けている者は一度も受けたことがない者に比べて抵抗感が下がる傾向がみられた(表 C-2)。しかしながら、運動療法・リハビリテーションについては、経験の有無にかかわらず、90%前後の者が「抵

抗感なし」と回答していた(表 C-2)。運動療法・リハビリテーションは患者にとって受け入れやすい治療であると考えられる。また、現在受けている者に比べて過去に受けたことがある者の抵抗感が高い治療は、抗癌縮薬、排尿障害の治療薬(飲み薬)、自己導尿、便秘薬であった(表 C-2)。過去治療を受けていた者が治療をしなくなった原因としては、十分な効果を得られなかったこと、副作用による障害が大きかったこと、患者の負担が大きかったことなどが要因として考えられる。効果的な治療を継続していくためには、治療効果や副作用に注意を払うとともに、患者の受け止め方についても適切に確認を行うことが必要と考えられる。

治療や検査の経験と有効感については、運動療法・リハビリテーションが、現在受けている者・過去に受けたことがある者のみならず、一度も受けたことがない者においても、半数以上が有効感ありと回答した(表 C-3)。リハビリに対する患者の期待が高いことが推察される。

運動療法・リハビリテーションを受けた経験と受けた希望については、病院・診療所(入院)を除いて、受けたいと希望する者の割合が、受けた経験のある者の割合を上回った(図 F-1)。また、自主トレーニングを行っている者は 6 割にのぼり(表 F-5)、患者のリハビリに対する意欲が高いことが示唆された。自主トレーニングとしては、ストレッチや下肢の運動、歩行、スクワットなど、自宅内や日常生活の範囲で継続可能な内容が多くみられ、普段から自主トレーニングに取り組む様子がかがわれた(表 F-6)。また、リハビリテーションの場で教わった動作を日常の自主トレーニングに取り入れているとする自由記載も見られた。リハビリテーションの場において、患者が自ら実施可能なメニューの指導をすることで、リハビリテーションの効果がより高く得られる可能性が考え

られる。

HAM の診療において重視する点に対し、85.1%の者が「症状の改善」を、43.3%の者が「専門性が高い医療」を挙げた（図 D-1）。自由記載においても、HAM の症状を劇的に改善する、あるいは、HAM を根治させる新薬を求める声が多く寄せられた。「交通の便がよい」「待ち時間が短い」を挙げた者の割合は低かったものの（図 D-1）、自由記載には専門医を受診するため数時間かけて通院している旨の記載が複数寄せられ、専門性が高く効果のある治療を求めて負担を余儀なくされている現状が見受けられた。HAM の専門的な診療の実施による症状の改善がまずは望まれていると考えられるが、同時に HAM の専門的な診療へのアクセスの整備も課題である。また、「医師に相談しやすい」と回答した者が 43.7%であり、「医師の説明が丁寧」「医師が話を聞いてくれる」を選択した患者がそれぞれ 28.4%、28.0%存在したことから（図 D-1）、HAM 患者は医師とのコミュニケーションを重視していることが示された。患者の価値観は多様化しており、選択肢のある中での治療方針の決定のあり方は、医師と患者双方の期待や価値観を反映すると考えられる<sup>13,14</sup>。本調査において治療や検査についての抵抗感が治療内容や検査内容ごとに異なり、その経験によっても左右されることが明らかになったことを踏まえ、丁寧なコミュニケーションを取ることで患者の診療満足度を高められることが示唆された。

HAM の治療・検査に体する抵抗感に関連する要因について、インターフェロン $\alpha$ 、抗痙縮薬、排尿障害の治療薬（飲み薬）、髄液検査に対しては抵抗を感じる割合が高いことから（表 K-1）、これらの治療・検査に対する副作用や有害事象への懸念を反映している事が示唆される。一方、髄液検査においては、有効性を感じている場合に抵抗感が下がる傾向が認められたことから、患者が治療や検

査の有効性を理解できるよう丁寧に説明を行う事で、患者の抵抗感を低めることが可能になると考えられる。また、「専門性が高い医療」を重視する場合に便秘薬への抵抗感が下がることから、HAM 患者は便秘症状の改善がなかなか得られず、専門的な医療を受けて症状を改善したいというニーズと、HAM の診療において便秘症状にまで十分なケアが届いていないという可能性が示唆された。

運動療法・リハビリテーションについては、抵抗感に関連する要因が見出されなかった。運動療法・リハビリテーションに対しては経験の有無を問わず有効性を感じる患者が多く、期待が高いことが示された。運動療法・リハビリテーションの実施経験と希望には差があり、入院しての実施以外では受けたいと希望する割合が高く、自由記載でも効果的な自主トレーニングについて知りたいという声が複数あげられたことから、医療機関・介護施設などでのリハビリテーションの普及、自主リハビリテーションの指導や、利用しやすい制度整備を HAM 患者が求めていると考えられる。

HAM についての情報収集について、スマートフォン使用者 57.7%のうち 67.6%が、パソコン使用者 47.5%のうち 89.7%が HAM の情報を調べた経験があることから、インターネット上の情報を活用している者が一定数いることが明らかになった（表 G-4）。また、HAM に関する情報入手時や文書を読む際に「誰かに助けてもらうことはない」と回答した者はそれぞれ 74.0%、88.9%であった（表 G-6, 7）。以上のことから、調査対象者のヘルスリテラシーは比較的高い可能性が示唆された。

HAM の情報入手元の人として多く挙げられたのは「医師」75.0%が最多で、「HAM ねっとの聞き取り担当者」52.2%が続いた（表 G-2）。1年に1度の定期的な聞き取りの機会を活用し、必要な情報を聞いていることが推

察される。また、情報入手元は、「HAM ねっと通信」を挙げた者が 89.2%で最多であった(表 G-4)。HAM ねっと通信は HAM ねっと登録者に配布される情報冊子であり、今回の調査は HAM ねっと登録者を対象に行われていることに注意が必要であるが、HAM ねっと通信での情報発信は患者の情報収集に有用であることが示唆された。今後も HAM ねっと通信などを通じて有用で正確な情報を患者に提供していくこととあわせ、引き続きレジストリ登録患者数を増加させるよう努めていくことが望ましいであろう。

治療方針の確立が強く求められる中で、患者に満足度の高い医療を提供するため、薬物療法や運動療法のエビデンスを十分に蓄積した上で患者に還元していく必要がある。同時に、治療目標や治療方針の決定に際し、患者の意向や価値観・希望を踏まえた決定を行い、HAM の診療を行うことの重要性が示された結果であった。

## F. 結論

本調査では、HAM 診療ガイドラインを策定するにあたり、患者の関心や治療・検査に対する価値観および情報収集の状況を明らかにするため、HAM ねっと登録者に対して質問紙調査を実施した。

本調査により、HAM 診療ガイドラインで取り上げた内容は、いずれも HAM 患者の関心度の高い内容であることが確認された。これらの結果を、HAM 診療ガイドラインの作成にあたって設定した **Clinical Question** に対する推奨を決定するパネル会議における参考資料とし、患者の価値観や希望として反映させることができた。今回作成したガイドラインが、患者と医療者とのよりよい意思決定の助けになるよう、HAM 診療に携わる医療従事者に広く活用されることが期待される。

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

(発表誌名巻号・頁・発行年等も記入)

Sato T, Yagishita N, Tamaki K, Inoue E, Hasegawa D, Nagasaka M, Suzuki H, Araya N, Coler-Reilly AL, Hasegawa Y, Tsuboi Y, Takata A, Yamano Y. Proposal of Classification Criteria for HTLV-1-Associated Myelopathy/Tropical Spastic Paraparesis Disease Activity. **Front Microbiol**, 9:1651, Published online 2018. doi:10.3389/fmicb.2018.01651

山野嘉久, 山内淳司, 新谷奈津美, 八木下尚子, 佐藤知雄. HTLV-1 関連脊髄症 (HAM) の病態・診断・治療. **神経内科**, 89(3):297-303, 2018.

八木下尚子, 山野嘉久. 希少難病 HAM の患者レジストリを活用した治療薬開発への取り組みと展望. **Jpn Pharmacol Ther (薬理と治療)**, 46(7):1113-1116, 2018.

### 2. 学会発表

佐藤知雄, 八木下尚子, 新谷奈津美, 井上永介, 古田梨愛, 渡邊俊樹, 内丸薫, 松岡雅雄, 松本直樹, 長谷川泰弘, 山野嘉久. HAM 患者に対する抗 CCR4 抗体製剤(モガムリズマブ)の安全性と有効性. 第 5 回日本 HTLV-1 学会学術集会, 2018/8/31-9/2.

八木下尚子, 高橋克典, 山内淳司, 佐藤知雄, 山野嘉久. HAM 患者レジストリ「HAM ねっと」の運営. 第 5 回日本 HTLV-1 学会学術集会, 2018/8/31-9/2.

山内淳司, 山野嘉久, 佐藤知雄, 八木下尚子, 新谷奈津美, 松岡雅雄, 市丸直嗣, 錦戸雅春, 柴垣有吾, 杉谷 篤, 中村信之, 三重野牧子, 湯沢賢治. 腎移植における

HTLV-1 感染症の危険性. 第 5 回日本 HTLV-1 学会学術集会, 2018/8/31-9/2.

佐藤知雄、八木下尚子、新谷奈津美、井上永介、古田梨愛、渡邊俊樹、内丸薫、松岡雅雄、松本直樹、長谷川泰弘、山野嘉久. HTLV-1 関連脊髄症に対する抗 CCR4 抗体製剤(モガムリズマブ)の医師主導治験. 第 30 回日本神経免疫学会, 2018/9/20-21.

八木下尚子、山内淳司、佐藤知雄、山野嘉久. 希少疾患 HAM に対する患者レジストリの活用. 第 30 回日本神経免疫学会, 2018/9/20-21.

山内淳司、山野嘉久、佐藤知雄、八木下尚子、新谷奈津美、松岡雅雄、市丸直嗣、錦戸雅春、柴垣有吾、杉谷 篤、中村信之、三重野牧子、湯沢賢治. 腎移植後 HTLV-1 関連疾患の発症に関する全国調査. 第 30 回日本神経免疫学会, 2018/9/20-21.

山内淳司、山野嘉久、佐藤知雄、八木下尚子、新谷奈津美、松岡雅雄、市丸直嗣、錦戸雅春、柴垣有吾、杉谷篤、中村信之、三重野牧子、湯沢賢治. HTLV-1 陽性臓器移植患者レジストリの構築. 第 54 回日本移植学会, 2018/10/3-5.

佐藤知雄、八木下尚子、新谷奈津美、井上永介、古田梨愛、渡邊俊樹、内丸薫、松岡雅雄、松本直樹、長谷川泰弘、山野嘉久. HAM 治療薬としての抗 CCR4 抗体製剤(モガムリズマブ). 第 23 回日本神経感染症学会総会・学術大会, 2018/10/19-20.

山内淳司、山野嘉久、佐藤知雄、八木下尚子、新谷奈津美、松岡雅雄、市丸直嗣、錦戸雅春、柴垣有吾、杉谷篤、中村信之、三重野牧子、湯沢賢治. 腎移植患者の HTLV-

1 関連疾患発症に関する全国調査. 第 23 回日本神経感染症学会総会・学術大会, 2018/10/19-20.

**H.** 知的財産権の出願・登録状況(予定を含む)

1. 特許取得  
なし

2. 実用新案登録  
なし

3. その他  
なし

**I.** 引用文献

1. Guyatt, G. H., Oxman, A. D., Kunz, R., Falck-Ytter, Y., Vist, G. E., Liberati, A., et al. (2008). Going from evidence to recommendations. *British Medical Journal*, 336(7652), 1049-1051.

2. Guyatt, G. H., Oxman, A. D., Vist, G. E., Kunz, R., Falck-Ytter, Y., Alonso-Coello, P., et al. (2008). GRADE: an emerging consensus on rating quality of evidence and strength of recommendations. *British Medical Journal*, 336(7650), 924-926.

3. 公益財団法人 日本医療機能評価機構 EBM 医療情報部. (2016 年 7 月). AGREE II 日本語訳. 参照日: 2018 年 10 月 10 日, 参照先: AGREE II (The Appraisal of Guidelines for Research and Evaluation II) : <http://minds4.jcqh.or.jp/minds/guideline/pdf/AGREE2jpn.pdf>

4. 相原守夫. (2015). 診療ガイドラインのための GRADE システム-第 2 版-. 凸版メディア株式会社.

5. Robin Graham, M. M. (2011). *Clinical*

- Practice Guidelines We Can Trust. The National Academies Press.
6. 公益財団法人 日本医療機能評価機構 EBM 普及推進事業 (Minds) 患者・市民専門部会. (2016年11月15日). 「診療ガイドライン作成への患者・市民の参加」の基本的な考え方. 参照日: 2018年10月4日, 参照先: <http://minds4.jcqh.or.jp/minds/guideline/pdf/Proposal3.pdf>
  7. 池田俊也ら. (2015). 日本語版 EQ-5D-5L におけるスコアリング法の開発. 保健医療科学, 64(1), 47-55.
  8. 高田礼子ら. (2018). HAM 患者登録システム (HAM ねっと) を用いた HAM の疫学的解析. 厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業.
  9. Shiroiwa, T., Fukuda, T., Ikeda, S., Igarashi, A., Noto, S., Saito, S., et al. (2016). Japanese population norms for preference-based measures: EQ-5D-3L, EQ-5D-5L, and SF-6D. Quality of Life Research, 25(3), 707-719.
  10. Izumi, R. (2013). Comparison of three utility measures in stroke patients using item response theory analysis. Niigata Journal of Health and Welfare, 13(1), 1-12.
  11. 厚生労働省. (2015年9月8日). 平成26年受療行動調査 (概数) の概況. 参照日: 2018年10月4日, 参照先: 厚生労働省: <https://www.mhlw.go.jp/toukei/saikin/hw/jyuryo/14/dl/gaikyo-all.pdf>
  12. Yamanaka Hisashi, et al. (2014). Estimates of the prevalence of and current treatment practices for rheumatoid arthritis in Japan using reimbursement data from health insurance societies and the IORRA cohort (I).
  13. Barry, M. J., & Edgman-Levitan, S. (2012, 3 1). Shared Decision Making — The Pinnacle of Patient-Centered Care. The New England Journal of Medicine, 366(9), 780-781.
  14. 吉川真祐子, 瀬戸山陽子, 戸ヶ里泰典, 中山和弘. 誰がどのように意思決定するのか. 参照日: 2018年10月4日, 参照先: Health Literacy 健康を決める力: [http://www.healthliteracy.jp/comm/post\\_8.html](http://www.healthliteracy.jp/comm/post_8.html)