厚生労働行政推進調査事業費補助金

医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス政策研究事業

サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態の把握及び支援基盤の構築に関する研究（23KC2017）

令和５年度～7 年度　総合研究報告書

研究代表者　田辺　晶代

令和８（2026）年３月

目　次

Ⅰ．はじめに　・・・

厚生労働行政推進調査事業費補助金
医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス総合研究事業
令和 5～7 年度　総合研究報告書

サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態の把握及び支援基盤の構築に関する研究

（23KC2017）

I. はじめに

研究代表者　　田辺　晶代　　国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長

サリドマイド胎芽症（以下、サ症）に関する研究班による本研究は、2011 年に厚生労働行政推進調査事業費により発足し、サリドマイド福祉センター「いしずえ」、厚生労働省の協力のもと、国立国際医療研究センターを研究代表施設とした多施設共同で活動を継続している。2020 年度から第 4 次研究班、2023 年度から第 5 次研究班に引き継がれた。本研究はサ症者の健康、生活実態の諸問題について、広く意見交換をし、親交を深めることを目的として遂行されており、第 2 次～3 次研究班で日ノ下文彦研究代表者により、サ症者の人間ドック健診の実施、「サリドマイド胎芽病診療 Q&A」「サリドマイド胎芽症診療ガイド」「サリドマイド胎芽症診断の手引き」など、診療の向上に資する成果を上げてきた。第 4 次の半ばから研究代表者が交代した。

サ症者は生下時から多くの身体機能的問題を抱えているが、心理的問題が加味され、さらに全員が 60 歳代となり、加齢に伴い罹患が増える各種疾患や運動機能障害に直面している。そのため、これまで以上に密で個々に対応するテーラーメード支援が必要である。

2020 年から 2023 年にかけて新型コロナウイルス感染症 (COVID-19) 流行により、支援の手が届きにくくなり、研究班とサ症者、さらにサ症者同士の連携が取りにくい状況になった。人間ドック健診も、サ症者が感染の懸念から健診受診を控えたこと、健診を実施している医療機関の診療が逼迫したことで、従来と比べて受診数が減ってしまった。薬禍者との交流会も開催できなかった。2023 年以降は日常生活が正常化し、2025 年度からはサ症者との交流会参加が再開され、人間ドック健診受診者数はコロナ前のレベルに回復しつつある。

II. 総合報告

サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態の把握及び支援基盤の構築に関する研究

研究代表者　　田辺　晶代　　国立国際医療研究センター病院糖尿病内分泌代謝科

１．日帰り人間ドック、健康診断

研究代表者	田辺　晶代	国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長
研究分担者	齋藤　貴徳	関西医科大学整形外科学講座　教授
研究分担者	長瀬　洋之	帝京大学医学部内科学講座呼吸器・アレルギー学　教授
研究協力者	二藤　隆春	国立国際医療センター耳鼻咽喉科　診療科長
研究協力者	丸岡　豊	国立国際医療センター歯科・口腔外科　診療科長
研究協力者	田山　道太	国立国際医療センター歯科・口腔外科　医師
研究協力者	永原　幸	国立国際医療センター眼科　診療科長
研究協力者	林　裕子	国立国際医療センター人間ドック科　医師
研究協力者	橋本　真紀子	国立国際医療センター人間ドック科　医師
研究協力者	藤谷　順子	国立国際医療センターリハビリテーション科　医長

研究要旨

国立健康危機管理研究機構国立国際医療センター、帝京大学医学部附属病院、関西医科大学附属病院において、サリドマイド胎芽症（以下、サ症）者 3 年間で計 47 名の人間ドック健診を実施した。複数の受診者で診療介入が必要な問題点が発見され、早期の受診に結びけることができた。

A. 研究の背景と目的

サリドマイド薬禍者（サ症者）を対象とする人間ドック健診は、第 1 次研究班で創始され、その後、18 年近くにわたって継続してきた研究班の臨床活動の柱である。サ症者の健康管理を重視して継続している。

対象者のリクルートは例年通り公益財団法人いしずえを通じて複数回行い、毎年 24 名、3 年間で計 72 名（初回以外の受診も容認）を目標とした。

B. 研究方法

国立国際医療センター（以下、当センター）、帝京大学医学部附属病院（以下、帝京大病院）、関西医科大学付属病院（以下、関西医大病院）において、希望したサ症者に人間ドックの形式で健診を行った。健診項目の内容は、原則、3 施設の人間ドックの内容に準ずるものである。それに加えて、サ症者に特的医学的問題や異常所見を検出するための検査、診察を追加した。主な健診項目を下に列挙する。

１）身長、体重、年齢、性別、障害区分
２）腹囲、BMI、血圧測定（上下肢）
３）生化学検査（T-chol, HDL-C, TG, LDL-C, FBS, HbA1c, UA, Cr, etc）
４）血算、検尿
５）胸部レントゲン、ECG、腹部超音波検査、上部消化管内視鏡検査、体組成測定
６）頚椎レントゲン、骨盤レントゲン
７）頭部 CT、胸腹骨盤 CT
８）眼科診察
９）耳鼻科診察
１０）婦人科診察
１１）歯科口腔外科診察
１２）リハビリ科診療

当センター病院における健診は、研究代表者の田辺が立ち会い、看護師が付き添い、数名の研究協力者、病院医師・スタッフの協力を得て実施されたほか、帝京大病院、関西医大病院でも病院医師・研究協力者により実施された。

C. 研究結果と考察

申し込みおよび実施状況：

2023 年度
当センターは 5 名、帝京大病院は 2 名、関西医大病院は 5 名の計 12 名に実施した

2024 年度
当センターは 5 名、帝京大病院は 4 名、関西医大病院は 6 名の計 15 名に実施した。

2025 年度
当センターは 8 名、帝京大病院は 6 名、関西医大病院は 6 名の計 20 名に実施した。

健診受診者は毎年異なるが、サ症者の集団（コホート）構成者は同一であるため、毎年年齢は1歳ずつ増加する。毎年受診者が異なるにもかかわらず、あるいは年齢にかかわらずBMIや腹囲、体脂肪率に比して内臓脂肪量が多く、脂肪肝の合併頻度が高い傾向が毎年保持されていた。この結果から、サ症者は心血管系疾患の発症リスクとなる内臓脂肪蓄積が生じやすいことが示唆された。対策として運動療法に加えて、食事療法の指導が必要であると考えられた。

今後も多くのサ症者が人間ドックを受診し、早期診断、早期治療が行われることが期待される。

E. 健康危険情報

なし

F. 研究発表

1. 論文発表

なし

2. 学会発表

１）Akiyo Tanabe. Metabolic disorders in thalidomide embryopathy. ENDO2023, Boston, 2023 年 6 月 17 日
２）Akiyo Tanabe. Metabolic disorders in congenital limb deficiencies. ENDO2025, SanFrancisco, 2025 年 7 月

G. 知的財産権の出願・登録状況

1.特許取得
2.実用新案登録
3.その他

なし

表１　受診者の男女別身体データ

	2023 年度	2024 年度	2025 年度
性別	女性 7、男性 5	女性 8、男性 7	女性 10、男性 10
年齢	61±0.3 歳	62.5±1.1 歳	63.2±0.7 歳
BMI			
女性	23.5±6.7	24.3±5.1	23.0±5.9
男性	22.6±1.5	23.8±1.7	19.7±3.4
腹囲			
女性	84.5±16.8 cm	91.6±15.5 cm	83.4±17.6 cm
男性	83.5±5.1 cm	86.3±10.3 cm	78.0±8.4 cm
体脂肪率			
女性	23.7±10.8%	39.7±12.9%	29.8±11.6%
男性	12.7%（n=1）	22.6±6.4%	19.2±2.6%
内臓脂肪量／皮下脂肪量比（V/S 比）			
女性	0.45±0.20	0.5±0.1	0.7±0.3
男性	0.75±0.11	0.8±0.3	1.5±0.5
脂肪肝あり			
女性	50%	38.0%	38.0%
男性	75%	71.4%	70.0%

＊脂肪肝：腹部超音波検査、CT による評価　＊V/S 比：CT による内臓脂肪評

２．サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態調査のアンケート結果集計

研究協力者　　小林　　毅　　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究代表者　　田辺　晶代　　国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長
研究分担者　　芳賀　信彦　　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究協力者　　藤原　清香　　東京大学医学部附属病院リハビリテーション部　准教授
研究協力者　　藤谷　順子　　国立国際医療センターリハビリテーション科　医長

サリドマイド被害（サ症）者は 60 歳代前半の中年者となり、従来からの整形外科的問題やリハビリ上の課題、聴覚障害、外貌等の問題に加えて、加齢に伴う様々な身体的、社会的障害を抱えるようになった。2012 年に前々研究班、2017 年に前研究班が国民生活基礎調査に準じたサ症の生活実態調査を実施した。その結果、サ症者では国民生活基礎調査結果に比べて、健康上の問題が日常生活や普段の活動に対して与える影響が有意に大きいこと、上肢形成不全による体幹・下肢の過用性障害のため腰痛、肩こり、手足の関節痛の症状が多いこと、就労に苦労をしていること、生活に関する悩み・ストレスを抱えている頻度が高いことなどが明らかになった。サ症者に対して的確な生活サポートや医療・福祉支援を行うためには、サ症者のニーズを把握することが重要である。前回の「健康・生活実態調査」以降、加齢や社会情勢の変化に伴いサ症者の健康・生活の状況も変化していることが予想され、2022 年にアンケートによる「サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態調査－2022」（以下、サ症調査 2022）を実施し、2023 年にアンケート調査票（別添資料 F）に記入された結果をデータベースに入力し集計する作業を行った。本年度はデータベースを元に、結果の集計、解析作業を行った。

本アンケートでは以下の項目について調査を行った。

１．自身と世帯のことについて

２．日常生活の状況について
３．医療・保健サービスの利用状況について
４．福祉•介護サービスの利用状況について
５．その他公的支援等の状況について
６．仕事の状況について
７．家族の状況について
８．生活上の悩みや困っていることについて
９．現在かかえている痛みについて
このうち、厚生労働省が実施する「令和 4 年度国民生活基礎調査」（以下、R4 国民調査）と同様の内容の質問を抽出し、同年代の一般国民と比較できるように設定した。

アンケートは 94 名から回収された（回収率 35.9%）。

「自身と世帯のことについて」の集計では障害の部位は主に上肢が 77%、主に聴覚が 15%、主に上肢と聴覚の混合が 3%、その他が 5 名で内訳は下肢（脳性麻痺）、心臓病（手術 2 回）、消化器系、眼疾患・視覚障害であった。本人を含む世帯数は 2 名が最も多く 47%、1 人暮らしが 24%、3 名が 12%、4 名が 7.7%であった。2 名以上の内訳は、配偶者 53 名、子ども（成人）2 名、兄弟姉妹 19 名、子ども（未成年）16 名、父母 5 名、その他 2 名であった。

「日常生活の状況について」健康上の問題による日常生活への影響は、影響ありが 40.4%で、2022 年度国民生活基礎調査（60～64 歳）の影響あり 12.9%を大きく上回っていた。影響を受ける日常生活の内容は、日常生活動作（起床、衣服着脱、食事、入浴、洗面、トイレなど）23 名、外出（時間や作業量などが制限される）6 名、家事（調理、洗濯、掃除等。時間や作業量などが制限される）14 名、仕事（時間や作業量などが制限される） 9 名、運動（スポーツを含む）6 名、その他 4 名という結果であった。おおむねこの 5 年の間に、日常生活上の影響の度合いは変化しているかとの問いでは、悪化している 32%、変化なし 20%、一定ではない 15%、改善している 0%であり、影響の原因は何かとの問いでは、サリドマイド被害 38%、加齢 38%、不明 10%、その他 10%であった。その他の項目については解析を継続している。これらの結果の一部は公益財団法人いしずえ（サリドマイド福祉センター）設立 50 周年式典においてサ症者および支援者に紹介した。

F. 研究発表

1. 論文発表

なし

2. 学会発表

小林毅、藤原清香、藤谷順子、芳賀信彦、田辺晶代: サリドマイド胎芽症者のいまー生活実態調査 (2022 年) からー. 第 16 回日本プライマリ・ケア連合学会学術大会、2025.6.20-22、札幌

G. 知的財産権の出願・登録状況

1.特許取得

2.実用新案登録

3.その他

なし

３．新規のサ症疑い者の診断審査のための手続きおよび申請書等の書類作成のための検討

研究代表者　田辺　晶代　国立国際医療研究センター病院糖尿病内分泌代謝科　医長
研究分担者　芳賀　信彦　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究協力者　日ノ下　文彦　帝京平成大学健康医療スポーツ学部看護学科　教授
研究協力者　栢森　良二　帝京平成大学健康メディカル学部理学療法科

これまでの研究班において、新規のサ症疑い者の診断審査に関する「診断の手引き」を作成した。2023 年度に、実際に診断審査を行うための手順、診断審査のための申請書の整備のために必要事項の最終検討を行った。

診断の手引きによると、新規にサ症と診断されるための診断審査を希望する者は、公益財団法人いしずえを通じて、もしくはサ症研究班に直接、審査の申請を行う。申請を受けたサ症研究班は必要な情報を収集した上でサ症被疑者に対する診断委員会（以下、診断委）を設置し、診断委において被疑者の診断を行う。診断委は研究班長を座長にして数名の研究班員および有識者により適宜構成され、本書別項にある診断の手引きに基づきサ症の診断について審査する。診断委は、必要に応じてさらに臨床情報（検査データも含む）を収集し、慎重に討議を重ねてサ症と診断するかサ症を除外できるか、診断不能かを決定するとされている。2024 年度はいしずえ、厚労省担当部署と協議を行い、審査の申請書および必要なデータを収集する調査票および関連の書類

の内容の修正を行い、最終版を完成させた。

４．サ症者に適した生活自助具、福祉用具の選定・活用、活用法に関する検討

研究協力者　藤谷　順子　国立国際医療センターリハビリテーション科　医長
研究協力者　木下　雄介　国立国際医療センターリハビリテーション科　副作業療法士長
研究協力者　石田　千晴　国立国際医療センターリハビリテーション科　作業療法士
研究協力者　守山　有由美　国立国際医療センターリハビリテーション科　作業療法士
研究協力者　小林　毅　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究分担者　芳賀　信彦　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究代表者　田辺　晶代　国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長

サ症者は 50 歳代後半から 60 歳代前半の中年者となり、長年にわたる筋骨格、聴覚等の機能障害や外貌等の問題に起因する慢性的運動能低下のために、生活習慣病、過用症候群、腰痛などを健常人以上に抱えるようになった。サ症の上肢障害は個別性が高く、更に加齢に伴う要素が加わり、ADL の困難とそれへの対応は多様である。サ症者が後半生を自立してより良く生きるために、市販の生活自助具を活用する必要がある。そのため、サ症者の障害に適した自助具の選定や改良が必要である。

サ症者が必要としている自助具の種類を把握するため、市販の自助具として活用できる可能性がある市販の生活便利グッズを多岐にわたり多種類を購入した。公益財団法人いしずえ（サリドマイド福祉センター）設立 50 周年式典においてこれらの自助具を見本として展示し、サ症者の意見を収集した。さらに日頃からサ症者と接している地域相談員、いしずえの理事らと WEB での意見交換会を開催した。これらの活動は国立国際医療研究センター病院リハビリテーション科の作業療法士 3 名（木下雄介作業療法副士長、石田千晴作業療法士、守山有由美作業療法士）の協力を得て行った。収集した意見や要望をもとに、今後、市販品の改良や新規自助具の開発を進める。

５．サリドマイド胎芽症者の生活支援のための動画作成、ホームページへの掲載

研究協力者　藤谷　順子　国立国際医療センターリハビリテーション科　医長
研究協力者　木下　雄介　国立国際医療センターリハビリテーション科　副作業療法士長
研究協力者　石田　千晴　国立国際医療センターリハビリテーション科　作業療法士
研究協力者　守山　有由子　国立国際医療センターリハビリテーション科　作業療法士
研究協力者　白星　伸一　佛教大学保健医療技術学部　准教授
研究協力者　小林　毅　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究分担者　芳賀　信彦　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究代表者　田辺　晶代　国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長

サリドマイド胎芽症者（サ症者）の生活支援のため、サ症者、医療者、支援者のための情報サイトとしてホームページを整備し、サ症者へは健康維持、医療者・支援者へは診療に必要な情報や医療へのアクセスに関する情報を提供することを目指している。本年度はサ症者に生じる二次障がいの予防、サ症者に適した生活自助具の活用を提示する動画を作成して、ホームページに掲載した。

１．サリドマイド胎芽症者の二次障がい予防

「二次障がい」とは、生来の障がいに関連し、時間の経過に伴って二次的に発現してくる障がいである。「二次障がい」が生じる要因として、加齢に加え、座位姿勢不良（座り方の問題）、運動習慣（運動不足）、精神的ストレスなどの生活習慣などがある。サ症者は上肢の低形成に伴う骨格筋の萎縮により、筋力低下や痛みを伴った「二次障がい」を生じやすい。この動画では「二次障がい」の予防方法について解説した。

２．生活自助具の活用方法

各種の生活自助具について、その活用法の動画を作

成した。

６．サリドマイド福祉センター「いしずえ」の地域交流会への参加

研究協力者　　藤谷　順子　　国立国際医療センターリハビリテーション科　医長
研究協力者　　小林　　毅　　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究協力者　　木下　雄介　　国立国際医療センターリハビリテーション科　副作業療法士長
研究協力者　　石田　千晴　　国立国際医療センターリハビリテーション科　作業療法士
研究代表者　　田辺　晶代　　国立国際医療センター糖尿病内分泌代謝科　医長

サリドマイド福祉センター「いしずえ」では、サリドマイド胎芽症者（サ症者）の交流のため、地域毎に交流会を開催している。コロナ禍以降開催されていなかった交流会が、2025 年度から再開された。2025 年度は２つの交流会に研究班員が参加し、地域相談員とともに、サ症者の身体的、心理的問題点の聞き取り、それに対するアドバイスを行った。

１．東北関東甲信越北陸 地域交流会

開催日： 2025 年 10 月 4 日（土）
開催場所： 栃木県那須郡那須町
主催： いしずえ／地域交流会実行委員会
参加者：サ症者 7 名、専任相談員 1 名、地域相談員 1 名、事務局員 1 名
その他：研究班より、藤谷医師、小林、木下作業療法士の 2 名が参加

２．近畿・中国四国・九州沖縄合同地域交流会

開催日： 2025 年 11 月 8 日（土）～9 日（日）
開催場所： 滋賀県彦根市・近江八幡市
主催： いしずえ／地域交流会実行委員会
参加者：
1 日目：サ症者 22 名、ご家族 4 名、専任・地域相談員 5 名、事務局 1 名　計 32 名
2 日目：サ症者 18 名、家族 3 名、専任・地域相談員 5 名、事務局 1 名　計 28 名
その他：研究班より、藤谷医師および木下作業療法士の 2 名が参加

３．北海道合同地域交流会

開催日： 2025 年 12 月 13 日（土）～14 日（日）
開催場所：北海道札幌市内（北海道クリスチャンセンター）
主催： いしずえ／地域交流会実行委員会
参加者：サ症者 4 名、ボランティアのご夫婦とその娘、計 3 名、専任・地域相談員 2 名、
その他　研究班より、藤谷医師および石田作業療法士の 2 名が参加

３．まとめ

本交流会への参加により、実際に対面し生活上の困りごとを聴取することで、支援者側も有益な情報を得ることができる。サ症者やその支援者双方に有益な交流や情報交換を行うことができると考えられた。

７．その他の活動

研究協力者　　藤谷　順子　　国立国際医療センターリハビリテーション科　医長
研究協力者　　小林　　毅　　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究分担者　　芳賀　信彦　　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究代表者　　田辺　晶代　　国立国際医療研究センター病院糖尿病内分泌代謝科　医長

１．医療従事者向けサリドマイド解説パンフレット作成

サリドマイド福祉センター「いしずえ」の地域交流会および「いしずえ」理事会におけるサ症者からの聞き取り調査で、医療機関受診時にサリドマイド胎芽症（サ症）を知る医療者が少なく、サ症および症状、合併症に関する説明に苦慮するとの意見を聴取した。そのため、サ症者が医療機関を受診する際に医療従事者へ提示するサ症の診察に関する医学的注意点に関するパンフレットを作成した。パンフレットは障害のタイプ別に「四肢短縮・上肢低形成型用」「聴覚低下顔面神経麻痺型用」の 2 種を作成した。これらは「いしずえ」を通じてサ症者に配布した。

２．サ症に伴う下肢障害の評価法の検討の準備

多くのサ症者は先天性の上肢の関節・骨格異常を

伴うが、稀に先天性の骨盤下肢の関節・骨格異常を伴う。また、上肢障害の代償として小児期から下肢を酷使するため、二次障害としての下肢異常が出現する可能性が高く、加齢に伴う下肢の関節・骨格障害が一般人と比べて重度であることが推測される。

これらを踏まえて、サ症者の骨盤・下肢の関節・骨格障害を評価し、予防的リハビリ等を検討することが必要であると考えられる。本年度は今後の検討に向けて人間ドック時の X 線画像、CT 画像を用いた骨盤・下肢骨格評価の可能性や評価基準関する検討を行った。

３．ホーム―ページの維持、管理

サ症者および研究者に、疾病の知識、生活や診療に役立つ情報を広く発信するために、ホームページの効果的な活用が重要である。研究分担者である日ノ下らが構築した「サリドマイド胎芽症研究会」のホームページの維持、管理を行った。また、サリドマイド薬禍者が容易にホームページを閲覧し、人間ドック健診の案内等を確認できるように、いしずえ（サリドマイド福祉センター）が発刊する定期刊行誌に掲示するホームページの QR コードを作成した。

Ⅲ. 分担研究報告 1

厚生労働行政推進調査事業費補助金
医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス政策研究事業
令和 5～7 年度　分担研究総合報告書

健診及び結果説明、形態学的評価

研究分担者　　齋藤　貴徳　　関西医科大学整形外科学講座　教授

研究要旨
令和 5～7 年度の健診について報告する。令和 5 年 5 名、令和 6 年 6 名、令和 7 年 6 名、3 年間で計 17 名（男性 8 名、女性 9 名）の健診を実施した。

研究結果

１．上部消化管内視鏡検査を 14 名に実施した。検査に伴う合併症は認めなかった。胃がんをはじめとする悪性腫瘍は認めなかった。胃ポリープ、びらん性胃炎、食道裂肛ヘルニア、食道胃逆流が高頻度に認められた。

２．頭部・体幹部 CT を 15 名で実施した。5 名に耳介形成不全、耳小骨低形成、蝸牛・三半規管低形成、内耳低形成、中耳炎、などの外耳・内耳異常を認めた。1 名に子宮筋腫が確認され産婦人科受診を勧めた。1 名に肺の小結節および肝腫瘤（血管腫疑い）が見られ、呼吸器科、消化器科での精査を推奨した。1 名に両側鼠径ヘルニアを認め、外科受診を勧めた。1 名に脂肪肝および婦人科で経過観察中の膣腫瘍を認めた。1 名に甲状腺腫瘍が確認され精査を推奨した。1 名に冠動脈石灰化を認めた。

３．頚椎・胸椎 MRI を 15 名に施行した。1 名は MRI で頚椎融合椎を認めた。1 名は MRI で C6/7 左側に軽度椎間板の膨隆、L3/4 で硬膜管圧迫を認めた。1 名は MRI で軽度脊柱管狭窄、Th11/12 後縦靭帯肥厚を認めた。1 名は頚椎後縦靭帯骨化病変、腰椎ヘルニアを認め、整形外科受診を勧めた。1 名に頚部脊柱管内軽度狭窄、腰椎椎間板突出による神経根圧迫所見を認めた。1 名に頚椎・腰椎の軽度脊柱管狭窄を認めた。1 名に脊椎分離すべり症を認めた。いずれも重度の神経症状等は伴っていなかった。

４．腹部超音波検査では 17 名中 13 名に脂肪肝を認めた。その他、腎のう胞、肝のう胞、胆のうポリープ、肝内結石、軽度脾腫を認めた。

５．骨密度検査は 14 名に施行し、女性 2 名で大腿骨頸部 YAM 値が 77%および 76%と標準より低値であった。

６．生活習慣病関連の検査では、10 名で BMI が 23%以上、うち 6 名で BMI が 25%以上であった。男性 4 名、女性 6 名で腹囲が基準値以上であった。中性脂肪は 5 名で 150 mg/dL 以上、LDL コレステロールは 2 名で 140 mg/dL 以上であった。HDL コレステロールは 1 名が 40 mg/dL 未満であった。1 名が糖尿病で治療を受けていたが管理目標に達していなかった。4 名が空腹時血糖 110 以上であった。。

７．整形外科的診察では、1 名で先天性の両上肢の変形、欠損、伸展障害があり、さらに頚椎症性神経根症、右変形性股関節症、腰部脊柱管狭窄症、胸椎黄色靭帯骨化を認め経過観察が必要であった。1 名で頚椎融合椎と軽度側弯を認めたが臨床症状はなかった。1 名に頚椎由来の軽度の四肢感覚障害を認めた。1 名に膝関節、腰部の変形性関節症を認めた。1 名に手指形成異常を認めたが、関節症状は乏しく大きな問題はなかった。1 名に右人工股関節置換術の既往があり、左股関節痛の悪化が見られたた

め、整形外科での精査を勧めた。さらに 1 名に頚椎疾患の疑い、1 名に坐骨神経症状を認め、精査および整形外科受診を勧めた。

考察

サリドマイド患者では脂肪肝の頻度が高いと考えられた。脊椎の加齢性変化を含む整形外科的所見が見られる症例が多い。四肢の慢性的しびれや疼痛などの症状の原因となりうるため、経過観察およびリハビリ等による保存的治療が必要であると考えられた。

Ⅲ.　分担研究報告２

厚生労働行政推進調査事業費補助金
医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス政策研究事業
令和５～7 年度　分担研究総合報告書

サリドマイド胎芽症患者の健診事業からみた健康実態に関する考察

研究分担者　長瀬 洋之　帝京大学医学部内科学講座呼吸器・アレルギー学

研究要旨
2023～2025 年度に当院で健診を施行したサリドマイド胎芽症患者 12 例を対象に健康実態を検討した。多くの症例で高血圧、糖尿病、脂肪肝、高尿酸血症などの生活習慣病関連所見を認めたほか、筋骨格系症状や歯科・口腔領域の問題も認められた。加齢に伴い健康課題は多様化しており、多職種連携による継続的な健診・健康管理の重要性が示唆された。

A. 研究目的

サリドマイド胎芽症患者の年齢は、2023～2025 年度の研究期間中に 61～64 才に達し、一般人口と同様に生活習慣関連疾患を高頻度に併存する年代となった。本研究班では 2010 年代より健診事業を継続しており、サリドマイド胎芽症患者の全身的健康管理に貢献してきた。

2020 年からは COVID-19 流行の影響により、感染対策や生活指導を中心とした支援も行われてきたが、流行収束後は、生活習慣病、筋骨格系疾患、歯科・口腔領域の問題など、加齢に伴う健康課題への対応がより重要となっている。

本総合報告書では、2023～2025 年度に当院で健診を施行した計 12 例（2023 年度 2 例、2024 年度 4 例、2025 年度 6 例）について、その健診結果を総括し、サリドマイド胎芽症患者における健康管理上の課題について検討した。

B. 研究方法

2023～2025 年度の当院での健診事業において、計 12 例に健診を施行した。対象者は 1961 年から 1963 年に出生した 61～64 才のサリドマイド胎芽症患者であった。

健診では、既往歴、現在治療中の疾患、困っている症状、生活習慣等について詳細に

聴取した。検査として、生活習慣病関連を中心とした血液検査、心電図検査、聴力検査、胸腹部 CT、腹部超音波検査、上部消化管内視鏡検査を施行した。さらに、希望者には歯科検診を追加し、女性では乳腺・婦人科領域を含む検査を行った。

健診は午前 8 時 30 分頃から開始し、16 時頃までに終了する 1 日コースとして施行した。

C. 研究結果

1. 生活習慣病関連所見

12 例中、多くの症例で生活習慣病関連の所見を認めた。主な異常として、高血圧、糖尿病、脂肪肝、高尿酸血症、脂質異常症、BMI 高値などがみられた。

高血圧症については、複数症例で治療継続の必要性が確認された。糖尿病症例では HbA1c 高値が認められ、継続加療の重要性について指導を行った。また、高尿酸血症や脂肪肝も複数例で認められた。

心血管関連では、虚血性心疾患既往例、陰性 T 波、前壁中隔梗塞疑い、左房拡大疑い等が認められ、循環器的評価や継続的管理の必要性が示唆された。

2. 消化器・腹部画像所見

上部消化管内視鏡検査では、食道裂孔ヘルニア、バレット食道、GERD、慢性非活動性胃炎、びらん性胃炎、十二指腸潰瘍瘢痕、胃底腺ポリープ等を認めた。

腹部超音波・CT では、脂肪肝、肝嚢胞、胆石、胆嚢低形成疑い、総胆管拡張、脾血管腫疑い、腎結石等が認められた。繰り返し受診例では、過去所見との比較により著変がないことを確認できた。

3. 筋骨格系・整形外科的所見

頚部から肩にかけての疼痛、違和感、変形性股関節症、腰椎前方すべり、潜在性二分脊椎等の筋骨格系所見が認められた。日常生活動作や加齢に伴う身体負荷の蓄積が背景にある可能性が考えられ、整形外科・リハビリテーション領域との連携の重要性が示唆された。

4. 歯科・口腔領域所見

歯科検診では、歯周炎、歯肉炎、顎関節症、義歯調整の必要性などが認められた。上

肢障害型患者では、セルフケアの困難さから口腔衛生管理が不十分となる可能性があり、継続的歯科介入の有用性が示唆された。

5. 喫煙・生活習慣

現喫煙者が含まれており、禁煙指導を行った。また、歩行習慣や運動習慣を維持し、食事管理にも留意している症例も認められた。

過去の研究班検討では、健診受診者の喫煙率が全国平均を上回っていたことが報告されており、加熱式タバコを含めた喫煙対策や呼吸機能評価の重要性が再認識された。

D. 考察

サリドマイド胎芽症患者は 60 才代に達し、生活習慣病への対応が重要な課題となっている。本総合検討においても、高血圧、糖尿病、脂質異常症、高尿酸血症、脂肪肝など、一般人口と同様の生活習慣病関連所見が多数認められた。

2017 年に発刊されたサリドマイド胎芽症診療ガイドでは、患者年齢が 50 才代半ばであった時点ですでに、脂肪肝、高血圧、脂質異常症、高尿酸血症等の高頻度併存が報告されている (表 1)。現在はさらに加齢が進んでおり、これらの疾患頻度が上昇している可能性が高い。

表 1　サリドマイド胎芽症における生活習慣病の頻度 (文献(1))

因 子	全体(%)	男性(%)	女性(%)
中心性肥満	20/82 (24.4)	14/33 (42.4)	6/49 (12.2)
脂質異常症	26/73 (26.3)	18/44 (40.9)	8/55 (14.5)
高血圧	42/85 (49.4)	26/39 (66.7)	16/46 (34.8)
耐糖能異常	16/98 (16.3)	12/43 (27.9)	4/55 (7.3)
高尿酸血症	22/99 (22.2)	19/44 (43.2)	3/55 (5.5)
中心性肥満と脂質異常症	3/94 (3.2)	3/40 (7.5)	0/54 (0.0)
中心性肥満と高血圧	5/85 (5.9)	2/34 (5.9)	3/51 (5.9)
中心性肥満と糖代謝異常	1/ 91 (1.1)	0/37 (0.0)	1/54 (1.9)
メタボリックシンドローム	7/87 (8.0)	7/34 (20.6)	0/53 (0.0)
脂肪肝	43/84 (51.2)	25/37 (67.6)	18/47 (38.3)
非アルコール性脂肪性肝疾患	16/48 (33.3)	13/24 (54.2)	3/24 (12.5)
骨粗鬆症	8/64 (12.5)	3/27 (11.1)	5/37 (13.5)

特に高尿酸血症は慢性腎臓病の発症に関連し、上肢障害型患者では透析導入時の血管アクセス確保が困難となる可能性がある。そのため、腎機能保護を念頭に置いた長期的管理が重要である。

また、本検討では筋骨格系症状や歯科・口腔領域の問題も多く認められた。上肢障害による身体負荷やセルフケア困難が背景にある可能性があり、整形外科、リハビリテーション科、歯科との多職種連携が重要である。

さらに、喫煙者も認められた。胎芽症患者では身体活動性低下リスクが高い可能性があり、COPD 発症予防の観点からも、禁煙支援や呼吸機能評価を継続的に行う必要がある。

一方で、定期的な運動習慣や食事管理を実践している症例も認められ、健康意識の高い受診者では比較的良好な健康状態が維持されていた。繰り返し受診例では、経年的変化を評価できる点も健診事業の大きな利点であった。

COVID-19 流行期には受診者減少がみられたが、近年は再び増加傾向にある。今後も健診事業の結果をわかりやすく発信し、事業の意義を周知することが重要と考えられた。

E. 結論

60 才代に達したサリドマイド胎芽症患者において、生活習慣病管理は極めて重要な課題である。また、筋骨格系症状や歯科・口腔領域の問題など、加齢と障害特性が重なった健康問題への対応も必要である。

健診事業は、生活習慣病や加齢関連疾患を早期に把握し、患者個々への助言や医療介入につなげる有用な機会であるとともに、胎芽症患者特有の健康課題を抽出する上でも極めて重要である。今後も継続的な健診事業と長期的フォローアップが望まれる。

文献

1. サリドマイド胎芽症診療ガイド 2017. 厚生労働科学研究費補助金 平成 28 年度 医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス総合研究事業 サリドマイド胎芽病患者の健康生活実態の諸問題に関する研究. 2017.

Ⅲ. 分担研究報告３

厚生労働行政推進調査事業費補助金
医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス政策研究事業
令和５～７年度　分担研究総合報告書

サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態の把握及び支援基盤の構築

研究分担者 芳賀　信彦　国立障害者リハビリテーションセンター　総長
研究協力者 藤谷　順子　国立国際医療研究センター病院リハビリテーション科　医長
研究協力者 小林　　毅　日本医療科学大学作業療法学専攻　教授
研究協力者 前原　康宏　国立国際医療研究センター病院ペインクリニック内科　医長
研究協力者 藤原　清香　東京大学医学部附属病院リハビリテーション部　准教授
研究協力者 栢森　良二　新潟リハビリテーション大学　講師
研究協力者 辻村　裕次　滋賀医科大学社会医学講座衛生学部門　講師（学内）
研究協力者 白星　伸一　佛教大学保健医療技術学部　准教授

研究要旨　サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対する適切なリハビリテーション診療を確立する目的で、①上肢大関節および股関節に対する画像検査、②リハビリテーション介入に関するアンケート調査、③二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー、を行った。①では、上肢大関節については遠位関節を中心に多様な所見を認め、股関節については初期評価にとどまるが、一部に臼蓋形成不全の所見を認め、また骨嚢胞や骨硬化を認める症例もあった。②では、マッサージ等の前後で疼痛生活障害評価尺度、Face Rating Scale ともに有意差を認め、マッサージ等の疼痛およびそれに伴う ADL に対する主観的な効果が確認された。③では、サリドマイド胎芽症の二次性運動器障害に関する 25 論文と研究者らの経験に基づき、英文総説論文を執筆し、世界のサリドマイド胎芽症者およびその診療に携わる医療従事者や支援者に役立ちうる成果物となった。

A.　研究目的

多くが 60 歳を超え 70 歳に近づきつつあるサリドマイド胎芽症者では、四肢や体幹の可動域制限や痛みを生じ、日常生活活動（Activities of Daily Living: ADL）に困難を生じることが多くなってきている。このような二次的な運動器障害に対するアプローチとしてリハビリテーション診療が有効である可能性があるが、学術的な報告は極めて少ない。この理由の一つとして、サリドマイド胎芽症者に生じる二次的運動器障害の病態が明らかになっていないことがある。芳賀らはこれまでの経験から、サリドマイド胎芽症における上肢低形成から運動器障害を生じる機序として、加齢に伴って ADL における四肢・体幹の過用や誤用という要素に、先天的な形態異常の要素が加わるという仮説を提示している（サリドマイド胎芽症診療ガイド 2020）。本研究の目的は、この仮説を検証するとともに、サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対する適切なリハビリテーション診療を確立することである。

Ｂ．研究方法

本研究期間中に、サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対する適切なリハビリテーション診療を確立する目的で、①上肢大関節および股関節に対する画像検査、②リハビリテーション介入に関するアンケート調査、③二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー、を行った。各研究の方法は以下の通りである。

【研究①：上肢大関節および股関節に対する画像検査】

上肢大関節に関しては、サリドマイド胎芽症の健康診断を受けた中で、頚部・背部・肩の疼痛を訴えた 5 名を対象とした。健康診断の中で撮影された CT 像から、体幹・上肢骨格の三次元 CT および多断面再構成像（MPR 像）を作成し、上肢関節の構造を観察した。

股関節に関しては、健康診断を受けたサリドマイド胎芽症者 18 名分の体幹部 CT 像から両股関節の多断面再構成像（MPR 像）を作成し、検討を開始した。

（倫理面への配慮）

本研究は、国立国際医療研究センター倫理委員会の承認を得て行われた。

【研究②：リハビリテーション介入に関するアンケート調査】

2021 年 1 月～2 月に公益財団法人いしずえ（サリドマイド福祉センター）を通じてサリドマイド胎芽症 268 名に、調査への協力を呼び掛けた。94 名（回答率 35.1%）より回答があり、このうちマッサージを受けた前後の主観的な効果として疼痛生活障害評価尺度（Pain Disability Assessment Scale: PDAS）に回答のあった 33 名（男性 13 名、女性 19 名、記載なし 1 名、平均年齢 58.3±0.9 歳、調査総数に対する回答率 12.4%、全回答者数に対する回答率 35.1%）を対象とした。受けたマッサージの主観的な効果について Face Rating Scale（FRS）と PDAS の回答を解析した。

（倫理面への配慮）

本研究は、日本医療科学大学の研究・倫理委員会の承認を得て行われた。

【研究③：二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー】

PubMed を用いて 1980 年～2024 年に出版された英文論文の検索を、以下の検索式により行った。

“thalidomide AND musculoskeletal,” “thalidomide AND pain,” “thalidomide AND quality of life,” and “thalidomide AND rehabilitation”

検出された 1,106 論文からレビューの趣旨に合うとして抽出された 20 論文に、引用検索（citation searching）による 5 論文を加えた 25 論文に基づき、レビュー論文を執筆し、投稿した。レビュー論文には、研究者らの経験を含めて記述した。

（倫理面への配慮）

本研究のうち研究者らの経験の記述に関しては、国立障害者リハビリテーションセンター、東京大学医学部、滋賀医科大学の倫理委員会の承認を得て。研究参加者の書面またはオプトアウトによる同意を得て行われた。

Ｃ．研究結果

【研究①：上肢大関節および股関節に対する画像検査】

上肢大関節に関しては、5 名 10 肢の各関節を観察することができた。手関節周囲では、10 肢中 9 肢に手根骨の低形成や癒合があり、2 肢に橈骨・手根骨間癒合、1 肢に尺骨・手根骨間癒合を認めた。肘関節では 10 肢中 8 肢に、上腕骨滑車や小頭、鈎突窩、肘頭、鈎状突起の低形成を認めた。肩関節では 10 肢中 5 肢に、脱臼や亜脱臼、変形性関節症の所見を認めた。この結果は、Intractable & Rare Diseases Research 誌に掲載された(Kamimura C, et al: *Intractable Rare Dis Res* 2024)。

股関節に関しては、18 名分の両股関節 MPR 像の初期評価を行ったところ、明らかな股関節の先天性形態異常を伴うものはなかったが、一部に臼蓋形成不全を認めた。また、骨嚢胞や骨硬化を認める症例があり、変形性股関節症を示唆する所見と考えた。

【研究②：リハビリテーション介入に関するアンケート調査】

FRS による「マッサージ等に行こうと思うときの気持ち：前」と「マッサージに行った後の気持ち：後」の比較では、「前」は 3.18±1.55、「後」1.91±1.23 と有意差を認めた。

PDAS の総合計は「前」22.59±14.31、「後」11.78±10.41 と有意差を認めた。マッサージの前後の比較では、「『掃除機をかけ、庭仕事などの家の中の雑用をする』のはどのように感じますか。」の問に対して、「前」1.42±1.00、「後」0.73±0.72 と有意差を認めた。同様に、「『ゆっくり走る』のはどのように感じますか。」の問では「前」1.10±0.58、「後」0.74±0.87 と有意差を認めた。その他の問では、「『車のドアを開けたり、閉めたりする』のはどのように感じますか。」の問を除き有意差を認めた。

これらの結果は、総合リハビリテーション誌に掲載された(小林ほか: *総合リハ* 2023)。

【研究③：二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー】

抽出された 25 論文を、サリドマイド胎芽症成人における加齢と運動器障害、サリドマイド胎芽症成人の運動器障害と QOL、サリドマイド胎芽症における二次的運動器障害へのリハビリテーションアプローチ、の３項目に分けレビューを行い、研究者らの経験を含めて英文総説を執筆した。この総説は、Intractable & Rare Diseases Research 誌に掲載された(Haga N et al.: *Intractable Rare Dis Res* 2025)。

D．考察

中年期以降のサリドマイド胎芽症者では、四肢や体幹の可動域制限や痛みを生じ、日常生活活動に困難を生じることが多い。このような二次的な運動器障害の機序として、われわれは加齢に伴って ADL における四肢・体幹の過用や誤用に、先天的な形態異常の要素が加わるという仮説を提示してきた。この仮説を検証しつつ、サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対する適切なリハビリテーション診療を確立する目的で 3 つの研究を行った。

「研究①：上肢大関節および股関節に対する画像検査」のうち上肢大関節については、遠位関節を中心に多様な所見を認め、関節不安定性や早発性変形性関節症を通じて疼痛や ADL 低下につながってることが

示唆された。股関節については初期評価にとどまるが、一部に臼蓋形成不全の所見を認め、また骨嚢胞や骨硬化を認める症例もあった。今後全対象症例に対し定量化を含めた詳細な解析を行う予定である。上肢大関節や股関節に対する画像評価は、サリドマイド胎芽症における疼痛や変形性関節症発症の詳細な経過やメカニズム解明につながる可能性があり、今後症例の蓄積、膝関節など多関節の評価を行っていきたい。

「研究②：リハビリテーション介入に関するアンケート調査」では、PDAS の総合計が、主な対処方法をする前の状態（平均 22.59）から後の状態（平均 11.78）で有意に改善した。一方で有村らは PDAS の信頼性や妥当性を検討し、「PDAS の総得点 10 点未満を健常、それ以上は慢性疼痛とした」と報告している（有村: 疼痛生活障害評価尺度の開発. *行動療法研究* 1997 ）。これを考えると、主な対処方法を実施した後でも依然として慢性疼痛を感じている胎芽症者が多いことがうかがえる。また PDAS の個別の質問では、1 つの問を除きそれぞれの問について主な対処方法の実施前後の得点に差があった。このように PDAS は慢性疼痛が日常生活へ及ぼす影響を設問個々の内容で反映でき、有用である。

「研究③：二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー」では、サリドマイド胎芽症の二次性運動器障害に関する 25 論文と研究者らの経験に基づき、英文総説論文を執筆した。過去に類似した内容の総説が 2018 年発表の 1 つしかなかったこと、二次性運動器障害が加齢に伴い徐々に進行することを考慮すると、本総説の公表は世界のサリドマイド胎芽症者およびその診療に携わる医療従事者や支援者に役立つものと考える。

これら 3 つの研究は、それぞれ異なる面からサリドマイド胎芽症の二次的運動器障害を捉え、中年期以降の四肢や体幹の可動域制限や痛み、ADL の低下のメカニズム解明や適切なリハビリテーション診療の確立につながりうると考える。サリドマイド胎芽症者の多くが 60 歳を超え 70 歳に近づく状況下で、しっかりと本研究を継続し、超高齢社会におけるサリドマイド胎芽症者の健康維持につなげていきたい。

E．結論

サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対する適切なリハビリテーション診療を確立する目的で、①上肢大関節および股関節に対する画像検査、②：リハビリテーション介入に関するアンケート調査、③二次的運動器障害とリハビリテーション介入に関するレビュー、を行った。①では、上肢大関節については遠位関節を中心に多様な所見を認め、股関節については初期評価にとどまるが、一部に臼蓋形成不全の所見を認め、また骨嚢胞や骨硬化を認める症例もあった。②では、マッサージ等の前後で PDAS と FRS ともに有意差を認め、マッサージ等の疼痛およびそれに伴う ADL に対する主観的な効果が確認された。③では、サリドマイド胎芽症の二次性運動器障害に関する 25 論文と研究者らの経験に基づき、英文総説論文を執筆し、世界のサリドマイド胎芽症者およびその診療に携わる医療従事者や支援者に役立ちうる成果物となった。

F．健康危険情報

該当なし

Ｇ．研究発表

1.論文発表

1) 小林毅、藤谷順子、前原康宏、藤原清香、芳賀信彦：日本のサリドマイド胎芽症者の現状－主観的な「痛み」とその対処方法の実態調査－．総合リハ 51(9)：1005-1010, 2023

2) Nishizaka C, Fujiwara S, Mano H, Haga N: Difference between affected and unaffected sides of forearm bone length in children with congenital terminal transverse deficiencies at the level of carpal bone. J Pediatr Orthop B 33(1): 76-82, 2024

3) Kamimura C, Fujitani J, Aizawa I, Saotome I, Fujiwara S, Haga N: Skeletal computed tomography findings of upper extremities in middle-aged persons with thalidomide embryopathy. Intractable Rare Dis Res 13(3): 185-189, 2024

4) Nishizaka C, Mano H, Shibata T, Noguchi S, Kobayashi M, Haga N, Ohnishi K, Fujiwara S: Operability of the Southampton Hand Assessment Procedure (SHAP) tasks using voluntary closing and voluntary opening body-powered prosthesis simulator. J Prosthet Orthot 36(3): 185-192, 2024

5) 藤原清香、野口智子、柴田晃希：小児義手のリハビリテーション診療における多職種連携とその意義．日本義肢装具学会誌 40(3)：178-188, 2024

6) Haga N, Fujitani J, Kobayashi T, Fujiwara S, Tsujimura H, Shirahoshi S, Tanabe A: Secondary musculoskeletal disability and rehabilitation aspects in adults with thalidomide embryopathy: A narrative review. Intractable Rare Dis Res, 14(3): 175-182, 2025

2.学会発表

1) Haga N: Functioning and assistive technology for people with disabilities in Japan. International Symposium on Rehabilitation Research 2023, 2023.9.22, Seoul

2) 小林毅：我が国のサリドマイド胎芽症者のいま－研究で見えてきたことと当事者たちの困りごと－（教育講演）．第 60 回日本リハビリテーション医学会学術集会、2023.7.2、福岡

3) 藤原清香、真野浩志、梅崎成子、西坂智佳、小林美香、芳賀信彦、緒方徹：遠方在住の先天性上肢形成不全児の当院における義手診療の特徴．第 60 回日本リハビリテーション医学会学術集会、2023.6.29-7.2、福岡

4) 木村麻美、矢野綾子、芳賀信彦：装飾用義手の手先具に能動フックを用いピアノ演奏が可能になった先天性左前腕形成不全児の１例．第 39 回日本義肢装具学会学術大会、2023.10.28-29、岡山

5) 矢野綾子、中川雅樹、田中靖紘、中村康二、中村隆、大熊雄祐、芳賀信彦：先天性片側上肢形成不全（フォコメリア）児に対する義手のリハビリテーションの経験．第 39 回日本義肢装具学会学術大会、2023.10.28-29、岡山

6) 小林毅、藤谷順子、前原康宏、藤原清香、芳賀信彦：我が国のサリドマイド胎芽症者の痛みが日常生活に及ぼす影響．第 57 回

日本作業療法学会、2023.11.10-12、沖縄
7) 芳賀信彦:リハビリテーション医療における多職種連携、第25回日本ロービジョン学会学術総会（特別講演)、2024.5.25、浦和
8) Haga N: Continuous Rehabilitation for Persons with Disabilities -Current Situation and Future Perspective in Japan-. International Symposium on Rehabilitation Practice and Research 2024, 2024.11.22, Tokorozawa
9) 加藤壯、藤原清香、児玉弘泰、野間未知多、熊埜御堂雄大、宮原潤也、中嶋香児、中元秀樹、谷口優樹、緒方徹、田中栄、大島寧: 上肢欠損症患者における脊柱変形の特徴. 第 53 回日本脊椎脊髄病学会、2024.4.18-20、横浜
10) 木村麻美、矢野綾子、芳賀信彦: 中学入学後に筋電義手の使用を再開した先天性上肢形成不全の１例. 第 40 回日本義肢装具学会学術大会、2024.11.9-10、福岡
11) 小林毅、藤原清香、藤谷順子、芳賀信彦、田辺晶代: サリドマイド胎芽症者のいまー生活実態調査（2022 年）からー. 第16回日本プライマリ・ケア連合学会学術大会、2025.6.20-22、札幌
12) 矢野綾子、中村隆、三ツ本敦子、山崎伸也、三田友記、今井大樹、大熊雄祐、芳賀信彦: 先天性片側上肢形成不全児の断端における長軸方向の成長に関する調査. 第 41 回日本義肢装具学会学術大会、2025.11.8-9、新潟

H. 知的財産権の出願・登録状況
（予定を含む）
該当なし

Ⅲ. 分担研究報告４

厚生労働行政推進調査事業費補助金
医薬品・医療機器等レギュラトリーサイエンス政策研究事業
令和５～７年度　分担研究総合報告書

サリドマイド胎芽症患者の健康、生活実態の把握及び支援基盤の構築に関する研究

研究分担者　曽根　英恵　国立国際医療センター　心理療法室
研究協力者　加藤　温　　国立国際医療センター　精神科
研究協力者　田辺　晶代　国立国際医療センター　糖尿病内分泌代謝科

研究要旨

本研究では、サリドマイド胎芽症者における生活の質（QOL）および精神的健康の特徴について、既存の調査結果を基に検討を行った。その結果、身体的および精神的 QOL は平均としては一般ノルムと同程度であったものの、身体的 QOL が低い者や精神的健康上のリスクを有する者が一定数存在することが示唆された。身体的な痛みそのものは QOL と直接的な関連を示さなかった一方で、痛みに対する破滅思考などの心理的要因が精神的 QOL の低下と関連しており、心理的側面の重要性が示された。また、自己理解といったレジリエンスや社会参加のあり方が QOL や精神的健康に関与している可能性が示唆された。本研究の結果は、諸外国におけるサリドマイド胎芽症者を対象とした研究で指摘されている慢性疼痛や心理的要因の重要性と概ね整合している。

以上より、サリドマイド胎芽症者への支援においては、身体的問題への対応に加え、心理的側面や相談しやすい関係性を含めた包括的な関わりの重要性が示唆された。

A. 研究計画

本邦におけるサリドマイド胎芽症者の多くは60歳を超え、中年期から晩年期への移行期にある。先行研究では、加齢に伴う二次的後遺症や慢性的な痛み、身体機能の低下に加え、健康問題や経済的・生活上の不安を抱えていることが指摘されている[4)5)]。またドイツの報告[3)]では、サリドマイド胎芽症者が抱える問題や特有の支援ニーズ、支援の不足を把握するため、反復的な調査の重要性が指摘されている。本研究では、英国[4)]、ドイツ[5)]、スウェーデン[1)]における QOL 研究を踏まえ、2018 年までに協力が得られた 67 名を対象に、痛みおよび QOL に関する質問紙調査を実施した[2)]。その結果、身体的 QOL・精神的 QOL(SF-36)はいずれも平均としては一般ノルムと同程度であったが、精神的健康度（GHQ-28、以下 GHQ）では 41.2%が精神的健康上のリスクを有していた。また、痛みそのものは QOL と直接的に関連しなかった一方で、痛みに対する破滅思考が精神的 QOL の低下と関連していることが示唆された。

前回調査[2)]が健康診断受診者に限られていたため、2022 年 11 月から 2023 年 5 月にかけて郵送によるアンケート調査を実施した。その結果、QOL の平均は国民基準値と同程度であったものの、身体的 QOL が著しく低い者も一部に認められ、GHQ のカットオフを超える者は 36.9%にのぼった。就労状況との関連では、社会参加のあり方が QOL に影響している可能性が示唆され、特に自営業は精神的 QOL と正の関連を示した。さらに、レジリエンスの下位因子である自己理解は、精神的健康および身体的 QOL と正に関連していた。一方で、痛みに対する有効な介入は確立されておらず、痛みを医療者に相談しづらいと感じている人の存在も明らかとなった。

これらの知見を踏まえ、今後はサリドマイド胎芽症者の QOL や精神的健康を支える支援の在り方や、

心理的・社会的要因を含めた検討が必要である。

B. 研究方法

これまでに実施した研究結果および関連する先行研究を再検討し、得られた知見を整理・検討した。それらを踏まえ、対象者が抱えやすい心理的課題や支援ニーズについて考察を行った。

C. 研究結果

これまでに実施した調査結果および先行研究を再検討した結果、対象者に認められるいくつかの特徴が整理された。以下に主な点を示す。

① QOL および精神的健康

対象者全体として身体的 QOL・精神的 QOL は一般ノルムの範囲内にある一方で、一定割合に精神的健康上の課題やリスクが認められること、身体的 QOL の分布が非常に低い値を示す者もいたことが明らかとなった。

②痛みと心理的要因の関係

痛みそのものよりも、痛みに対する認知的反応やコーピングが精神的 QOL に影響を与える可能性が示唆された。

③就労および社会参加と QOL

就労状況は QOL と関連しており、身体機能よりも社会参加の機会が QOL に影響している可能性が示唆された。

④諸外国の先行研究との共通点・相違点

本研究の結果は、諸外国で報告されているサリドマイド胎芽症者における慢性疼痛や心理的要因の重要性と概ね整合的であった。特に、痛みそのものよりも心理的要因が精神的健康や QOL と関連する点は、先行研究の指摘と概ね一致している。一方で、本研究では QOL が平均としては一般ノルム内に保たれている点や、就労形態と精神的 QOL との関連が示唆された点において、諸外国の研究とは異なる側面も認められた。

D. 考察

本研究では、サリドマイド胎芽症者における QOL および精神的健康の特徴について、既存の調査結果を基に検討した。その結果、身体的 QOL・精神的 QOL は全体として一般ノルムの範囲内にある一方で、精神的健康上のリスクを有する者が一定割合存在することが示された。また、身体的な痛みそのものは QOL と直接的な関連を示さなかったが、痛みに対する破滅思考が精神的 QOL の低下と関連しており、痛みの経験が心理的な捉え方によって左右される可能性が示唆された。さらに、自己理解といったレジリエンスの側面が精神的健康や身体的 QOL と正に関連していたことから、自身の状態を把握し、現実的に調整する力が QOL 維持に寄与している可能性が考えられる。就労状況との関連についても、身体機能そのものより、社会参加のあり方や生活における裁量性が QOL に影響を及ぼしている可能性が示唆された。

これらの知見は、諸外国における研究で報告されている、慢性疼痛と心理的要因の関連や、支援ニーズの多様性を指摘する知見とも概ね整合的であり、本研究の結果を理解する上で有用な視点を提供していると考えられる。

E. 結論

本研究では、サリドマイド胎芽症者における QOL および精神的健康の特徴についての調査結果を踏まえて検討を行った。その結果、身体的 QOL・精神的 QOL は平均としては一般ノルムと同程度であったものの、身体的 QOL が低い者や精神的健康上のリスクを有する者が一定数存在することが示唆された。また、痛みそのものよりも心理的要因が精神的 QOL と関連しており、自己理解や社会参加のあり方といった心理的・社会的側面の重要性が示された。これらの結果から、サリドマイド胎芽症者への支援においては、身体的問題への対応に加え、心理的側面や相談しやすい関係性を含めた関わりが重要であることが示唆された。

引用文献

1) Ghassemi Jahani, S.A., Karlsson, J., Brisby, H., & Danielsson A.J. (2016). Health-related quality of

life and function in middle-aged individuals with thalidomide embryopathy. Journal of Children's Orthopaedics, 10 (6): 691-703.
2) Imai, K., Sone, H., Otomo, K., Nakano, Y., & Hinoshita, F. (2020). Quality of life and pain in patients with thalidomide embryopathy in Japan. Molecular Genetics & Genomic Medicine. 8 (11): 1464.
3) Kruse A, Baiker D, Becker G, et al: THALIDOMIDE Inquires to be carried out repeatedly with regard to problems, specific needs and support deficits of thalidomide victims. pp52-59, Institute of Gerontology of the University of Heidelberg, Heidelberg, 2012.
4) Newbronner, L., Chamberlain, R., Borthwick, R., & Baxter, M. Looking to the future: Evaluation of the Health Grant to Thalidomide-Impaired People. Year 2 Final report. Cambridgeshire: The Thalidomide Trust, 2012.
5) Niecke, A., Ramesh, I., Albus, C., Lüngen, M., Pfaff, H., Samel, C., Klaus, M, P. (2021) Chronic Pain in People Impaired by Thalidomide Embryopathy: An Explorative Analysis of Prevalance, Pain Parameters and Biopsychosocial Factors. Psychother Psychosom Med Psychol. 71(9): 370-380. doi: 10.1055/a-1457-2846

F. 健康危険情報

特になし

Ⅳ. 研究成果の刊行に関する一覧表

1. 論文発表

1）小林毅、藤谷順子、前原康宏、藤原清香、芳賀信彦: 日本のサリドマイド胎芽症者の現状－主観的な「痛み」とその対処方法の実態調査－. 総合リハ 51(9): 1005-1010, 2023

2) Nishizaka C, Fujiwara S, Mano H, Haga N: Difference between affected and unaffected sides of forearm bone length in children with congenital terminal transverse deficiencies at the level of carpal bone. J Pediatr Orthop B 33(1): 76-82, 2024

3) Kamimura C, Fujitani J, Aizawa I, Saotome I, Fujiwara S, Haga N: Skeletal computed tomography findings of upper extremities in middle-aged persons with thalidomide embryopathy. Intractable Rare Dis Res 13(3): 185-189, 2024

4) Nishizaka C, Mano H, Shibata T, Noguchi S, Kobayashi M, Haga N, Ohnishi K, Fujiwara S: Operability of the Southampton Hand Assessment Procedure (SHAP) tasks using voluntary closing and voluntary opening body-powered prosthesis simulator. J Prosthet Orthot 36(3): 185-192, 2024

5）藤原清香、野口智子、柴田晃希: 小児義手のリハビリテーション診療における多職種連携とその意義. 日本義肢装具学会誌 40(3): 178-188, 2024

6) Haga N, Fujitani J, Kobayashi T, Fujiwara S, Tsujimura H, Shirahoshi S, Tanabe A: Secondary musculoskeletal disability and rehabilitation aspects in adults with thalidomide embryopathy: A narrative review. Intractable Rare Dis Res, 14(3): 175-182, 2025.8

2. 学会発表

1）Akiyo Tanabe. Metabolic disorders in thalidomide embryopathy. ENDO2023, Boston, 2023.6.17

2) Haga N: Functioning and assistive technology for people with disabilities in Japan. International Symposium on Rehabilitation Research 2023, 2023.9.22, Seoul

3）小林毅: 我が国のサリドマイド胎芽症者のいま－研究で見えてきたことと当事者たちの困りごと－（教育講演）. 第 60 回日本リハビリテーション医学会学術集会、2023.7.2、福岡

4）藤原清香、真野浩志、梅崎成子、西坂智佳、小林美香、芳賀信彦、緒方徹: 遠方在住の先天性上肢形成不全児の当院における義手診療の特徴. 第 60 回日本リハビリテーション医学会学術集会、2023.6.29-7.2、福岡

5）木村麻美、矢野綾子、芳賀信彦: 装飾用義手の手先具に能動フックを用いピアノ演奏が可能になった先天性左前腕形成不全児の 1 例. 第 39 回日本義肢装具学会学術大会、2023.10.28-29、岡山

6）矢野綾子、中川雅樹、田中靖紘、中村康二、中村隆、大熊雄祐、芳賀信彦: 先天性片側上肢形成不全（フォコメリア）児に対する義手のリハビリテーションの経験. 第 39 回日本義肢装具学会学術大会、2023.10.28-29、岡山

7）小林毅、藤谷順子、前原康宏、藤原清香、芳賀信彦: 我が国のサリドマイド胎芽症者の痛みが日常生活に及ぼす影響. 第 57 回日本作業療法学会、2023.11.10-12、沖縄

8）曽根英恵、大友健 、片岡真紀、中野友貴、岡本悠、日ノ下文彦、田辺晶代、加藤温: サリドマイド胎芽症者の精神的健康に影響する要因の検討． 第 36 回日本総合病院精神医学会(ポスター発表) 2023.11.17、宮城

9) Akiyo Tanabe. Metabolic disorders in thalidomide embryopathy. ENDO2024, Boston, 2024 年 6 月 2 日

10）芳賀信彦:リハビリテーション医療における多職種連携、第 25 回日本ロービジョン学会学術総会 (特別講演)、2024.5.25、浦和

11）Haga N: Continuous Rehabilitation for Persons with Disabilities -Current Situation and Future Perspective in Japan-. International Symposium on Rehabilitation Practice and Research 2024, 2024.11.22, Tokorozawa

12）加藤壯、藤原清香、児玉弘泰、野間未知多、熊埜御堂雄大、宮原潤也、中嶋香児、中元秀樹、谷口優樹、緒方徹、田中栄、大島寧: 上肢欠損症患者における脊柱変形の特徴.第 53 回日本脊椎脊髄病学会、2024.4.18-20、横浜

13）木村麻美、矢野綾子、芳賀信彦: 中学入学後に筋電義手の使用を再開した先天性上肢形成不全の 1 例. 第 40 回日本義肢装具学会学術大会、2024.11.9-10、福岡

14）Akiyo Tanabe. Metabolic disorders in congenital limb deficiencies. ENDO2025, SanFrancisco, 2025 年 7 月

15）小林毅、藤原清香、藤谷順子、芳賀信彦、田辺晶代: サリドマイド胎芽症者のいま－生活実態調査（2022 年）から－. 第 16 回日本プライマリ・ケア連合学会学術大会、2025.6.20-22、札幌（札幌コンベンションセンター、札幌市産業振興センター）

16）矢野綾子、中村隆、三ツ本敦子、山崎伸也、三田友記、今井大樹、大熊雄祐、芳賀信彦: 先天性片側上肢形成不全児の断端における長軸方向の成長に関する調査. 第 41 回日本義肢装具学会学術大会、2025.11.8-9、新潟（朱鷺メッセ新潟コンベンションセンター）

17) 藤谷順子.サリドマイドラえもん　四次元ポケットの中身.特別企画 4 アイディア善用手作りのリハビリテーション医療.第 62 回日本リハビリテーション医学会学術集会..京都.6 月 12 日-14 日.2025.

18）石田千晴.木下雄介.水口寛子.守山有由美.西原将太.神戸莉菜.藤谷順子.サリドマイド胎芽症者支援への作業療法士の参画～生活支援と個別対応への展開.第 79 回国立病院総合医学会.口演.石川.11 月 8 日.2025.

3. 著書

1）Hinoshita F. 3.4 Japan: Thalidomide-Embryopathy in Japan, **3** Zulassung von Thalidomide im Ausland. *In Basiswissen Contergan*, edited by Christina Ding-Greiner, pp. 58-70. Kohlhammer, Stuttgart, 2026

4. 総説

1）日ノ下文彦. 事件から 60 年 サリドマイド胎芽症と薬害 ― 過去の問題ではない 今知ってほしいこと, 京都を知ろう医史編 薬害研究に携わった医師. 京都保険医新聞 3200:2-3, 2025 ― 2025 年 8 月 25 日刊

5. 新聞掲載

1）日ノ下文彦. サリドマイド薬害和解 半世紀 ― 二次障害に追加補償を. 京都新聞朝刊, 8 面, 2025 年 10 月 24 日掲載