別紙３

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究研究事業）
分担研究報告書

# コロナ禍での先天性無痛無汗症の患者家族の生活実態調査に関する研究

研究分担者　久保田雅也　島田療育センター　副院長
芳賀信彦　東京大学医学部附属病院　教授

研究要旨
新型コロナウィルス感染症の増大から、国の緊急事態宣言、休校、在宅ワークへのシフトを経て、日常生活に大きな変更を迫られている中で、先天性無痛無汗症の患者家族の抱える固有の問題とニーズを洗い出すことを目的にアンケート調査を行った。56家族中38家族（回収率67.9%, CIPA35家族、CIP3家族）から回答を得た。現在の家族の困りごととしては①全く先の予定が立たないこと19例、②家計や仕事について8例、③自分が感染しないかどうか25例が挙がった。患者の新たな睡眠障害は約２割に認めた。患者の新たな行動変容は約5割に認めた。「Stay home」中の家族の関係をpositiveにとらえる群(stress-)10名とnegativeにとらえる群(stress+)15名がいたのでその違いの要因を各質問で解析してみたが、単一な有意な要因は見出せなかった。患者および家族の病理とレジリエンスが共存していることが、これらの理由のひとつであろう。

## Ａ．研究目的

先天性無痛無汗症(CIPA)は温痛覚低下、発汗低下を主症状とし、高率に知的発達症、神経発達症を合併する。このうち温痛覚低下のみの群を先天性無痛症(CIP)という。新型コロナウィルス感染症の増大から、国の緊急事態宣言、休校、在宅ワークへのシフトを経て、日常生活に大きな変更を迫られている中で、CIPA, CIPの患者家族の抱える固有の問題とニーズを洗い出すことを目的にアンケート調査を行った。

## Ｂ．研究方法

CIPA患者家族会に属する56家族に調査票による無記名式のアンケート（もしくは同封のQRコードからWebアンケート）を実施した。38家族（回収率67.9%, CIPA35家族、CIP3家族）から回答を得た。調査期間は2021.10.1～11.31であり、わが国における新型コロナウィルス感染症の増大第３波の開始前後に相当する。

（倫理面への配慮）
本研究は島田療育センター倫理委員会の承認を得た。

## Ｃ．研究結果

患者家族で新型コロナウィルス感染症罹患は0であった。

現在の家族の困りごととしては①全く先の予定が立たないこと19例、②家計や仕事について8例、③自分が感染しないかどうか25例が挙がった（複数回答あり）。

先行研究により新型コロナウィルス感染症の増大期間中、神経発達症の小児において睡眠リズムの乱れが顕著になることから、半年間の睡眠リズムの実際を尋ねたところ寝付きの悪さ5例、寝起きの悪さ1例、夜間中途覚醒3例を認めた。9例は元々睡眠リズムの乱れがあるが変わらず（図１）。

この期間中の行動変容につき尋ねたところ、いらつきやかんしゃくが増えた13例、集中力低下1例、多動4例、情緒不安定3例であった（複数回答あり）（図２）。

昨年の同時期と異なることを尋ねたところ、一緒の時間が増えてストレスだった15例（stress+群）、一緒の時間が増えて理解が増した10例(stress-群)であった（図3）。この２つはstay home中の相反する見解を示しており、注目して睡眠リズムや症状などの要因を解析したが、特に有意なものは見出せなかった。有意差はないが、漠然とした不安、家計、自らの感染の心配などがstress+群に多い傾向はあった。

自由記述として①コロナ禍の日常として

- 全てが家庭内（母親）でやるよう押し付けられ、仕事を抱えながら全てをこなさなければならないということに心が壊れそうになった。
- どこでも検温がある状況。病院入口でも検温でいつもヒヤヒヤしていた。本人も体温が高かったらどうしようと心配していた。
- 不眠、ストレス、自傷が出て大変だった。
- 私自身はコロナ中仕事が増えたので、収入に対する不安もなかった。むしろ、いつも忙しくこどもたちとの時間が全くとれていなかったので、今回は本当にいい時間が過ごせた。
- 母親の仕事が在宅になり、仕事も減ったので家族でいる時間が増えた。

②社会の支援の仕方について

- 患者の苦しい気持ちを受け入れて共有してくれる、客観的な知識をもった第三者がいてくれたらと思う。親では距離が近すぎて、難しさを感じる。
- 相談やアドバイスを気軽に聞ける場所がほしい。

## Ｄ．考察

今回の調査はわが国の新型コロナウィルス感染症の増大第３波の開始前後(2021.10.1～11.31)に行われた。

今回患者の新たな睡眠障害は約２割に認めた。詳細な保護者の勤務状況は聞いていないが、２割以上が家

計や仕事を気にかけていた。睡眠障害がパンデミックの中で神経発達症の患者家族のQOL悪化に多大な影響を与えることは既に報告されている（1)。またその中では母親が柔軟に勤務形態を変更できないことも関連していた（1)。

患者の新たな行動変容は約5割に認めた。CIPAは高率に神経発達症を合併する。このような中で「Stay home」中の家族の関係をpositiveにとらえる群(stress-)10名とnegativeにとらえる群(stress+)15名がいたのでその違いの要因を各質問で解析してみたが、単一な有意な要因は見出せなかった。

今回のような状態でストレスを感じない者は少ないと考えられるが、今回有意なストレス要因が出なかった理由はまずnが小さく、統計的な解析には適しなかったことが挙げられる。また、ストレスには多因子が関与すること、生活の困難度を規定する因子は家族により異なること、第3波であったため初期よりも対処法に慣れていた可能性、もともと睡眠障害を有する場合は、悪化しない限り対処の方法を心得ており、それほどストレスと感じなかった可能性、先行きの不安はあるものの、1人も感染者は出ておらず、日々の生活を微修正する中で既に疾患に対する中で培われたレジリエンスが発揮されたことなどがある。上海の小中高生のアンケートではパンデミックで「Stay home」になっても必ずしもnegativeにはとらえていない者も多く、親子での会話が精神症状と負の相関があり、生活満足度と正の相関があった（2)。結論としてパンデミックでは、子どもや青年の精神的健康問題とレジリエンスが共存しており、親子間の話し合いが重要な役割を果たしているとしていた。今回の患者家族で家族内のコミュニケーションを同様に考えることはできないが、患者および家族の病理とレジリエンスが共存していることが、パンデミックで「stay home」の捉え方がnegativeになったりpositiveになったりする理由であろう。家族で処理しきれない問題の一部は家族同士のピアサポート（家族会）が有効となる。また、自由記述にあるように医療関係者による迅速に対応できるプラットフォームの構築も有用となる。コロナ禍の状況で至る所で入館に際して体温チェックがあり、うつ熱になりやすい本症では高体温になりやすく、疾患の特性についての文章なども必要である。

E．結論

CIPAの生活実態調査はわが国の新型コロナウィルス感染症の増大第3波の開始前後(2021.10.1～11.31)に行われた。現在の家族の困りごととしては①全く先の予定が立たないこと19例、②家計や仕事について8例、③自分が感染しないかどうか25例が挙がった。患者の新たな睡眠障害は約2割に認めた。患者の新たな行動変容は約5割に認めた。「Stay home」中の家族の関係をpositiveにとらえる群(stress-)10名とnegativeにとらえる群(stress+)15名がいたのでその違いの要因を各質問で解析してみたが、単一な有意な要因は見出せなかった。患者家族のQOLは多因子が関与することと、患者および家族の病理とレジリエンスが共存していることが、これらの理由のひとつであろう。

文献

(1). Ueda R, Okada T, Kita Y, Ozawa Y, Inoue H, Shioda M, Kono Y, Kono C, Nakamura Y, Amemiya K, Ito A, Sugiura N, Matsuoka Y, Kaiga C, Kubota M, Ozawa H. The quality of life of children with neurodevelopmental disorders and their parents during the Coronavirus disease 19 emergency in Japan. Sci Rep. 2021;11:3042.

(2). Tang S, Xiang M, Cheung T, Xiang YT. Mental health and its correlates among children and adolescents during COVID-19 school closure: The importance of parent-child discussion. J Affect Disord. 2021;279:353-360.

F．健康危険情報

なし

（分担研究報告書には記入せずに、総括研究報告書にまとめて記入）

G．研究発表

1.　論文発表

(1). Ueda R, Okada T, Kita Y, Ozawa Y, Inoue H, Shioda M, Kono Y, Kono C, Nakamura Y, Amemiya K, Ito A, Sugiura N, Matsuoka Y, Kaiga C, Kubota M, Ozawa H. The quality of life of children with neurodevelopmental disorders and their parents during the Coronavirus disease 19 emergency in Japan. Sci Rep. 2021;11:3042.

2.　学会発表

なし。

（発表誌名巻号・頁・発行年等も記入）

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

図１　患者さん（お子様）のこの半年間の睡眠リズムはどうですか（昨年と比べて）。（複数回答可）

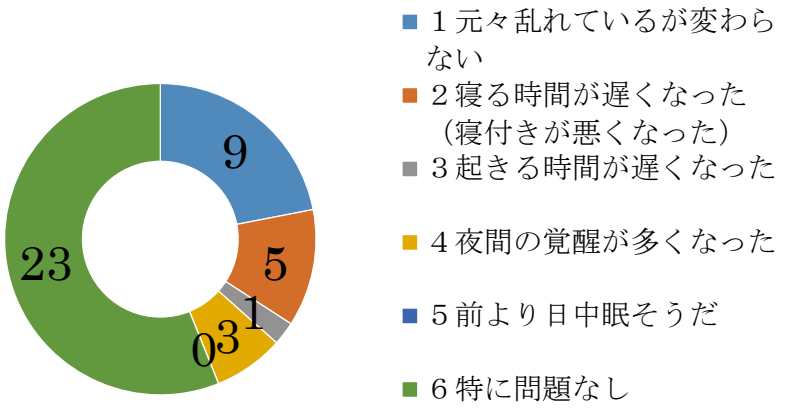



図２　お子様にこれまでにない、もしくは少なかった症状が出ましたか。当てはまるものを全て選んで下さい。（複数回答可）

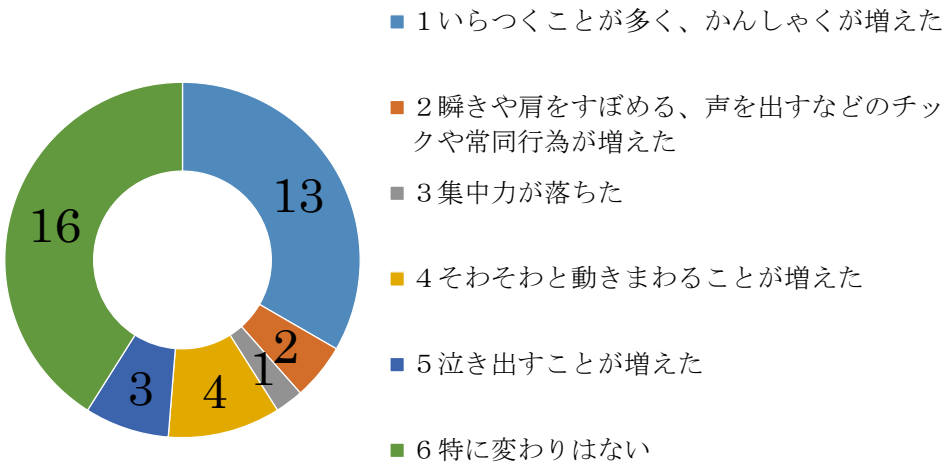



図３　今回のコロナ禍の中で昨年と違ったことは何ですか（複数回答可）

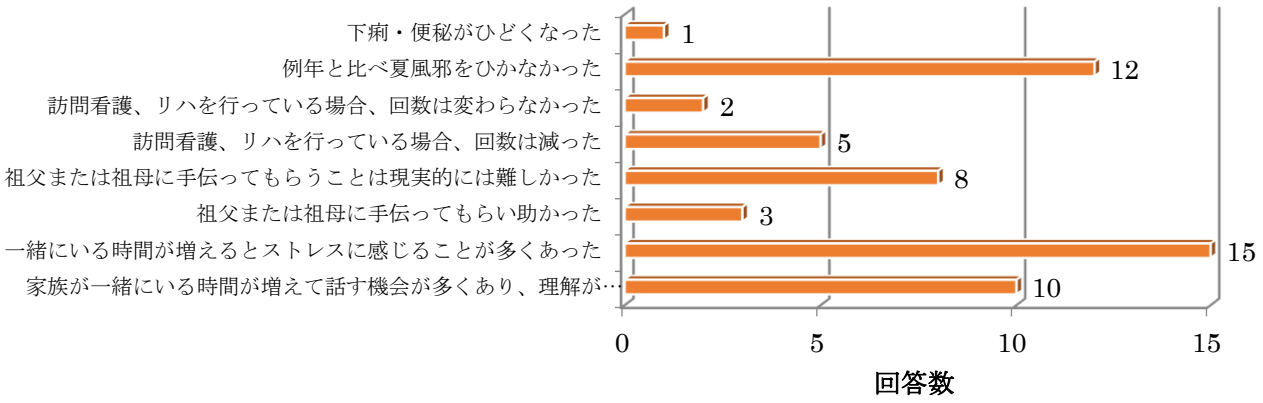
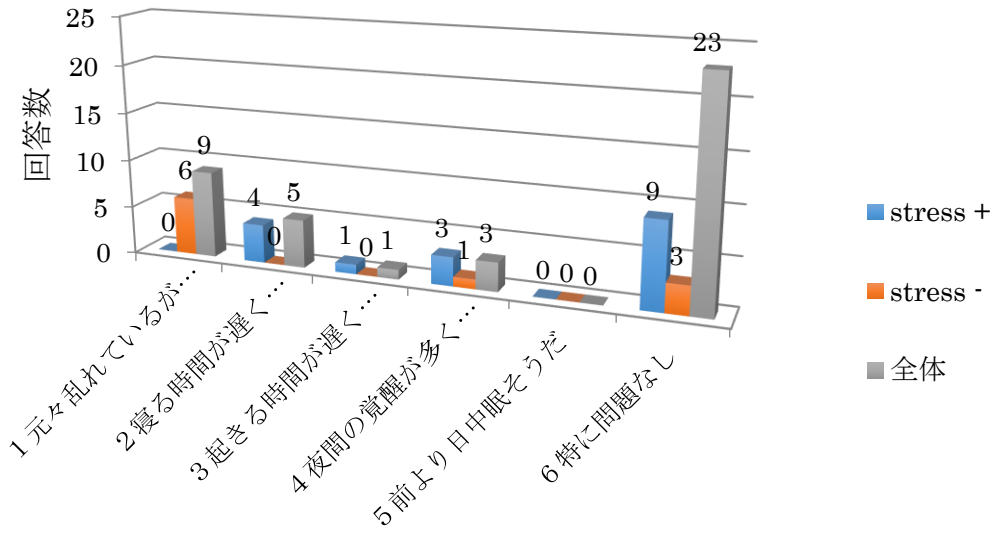


図4　ストレスの有無における睡眠リズムの影響



別紙４

研究成果の刊行に関する一覧表レイアウト（参考）

書籍

| 著者氏名 | 論文タイトル名 | 書籍全体の編集者名 | 書　籍　名 | 出版社名 | 出版地 | 出版年 | ページ |
|---|---|---|---|---|---|---|---|
| 久保田雅也 | ① 一般診察　新生児<br>② 不随意運動<br>③ 小脳系<br>④ トリビア | 藤井克則 | 動画でわかる小児神経の診かた | 羊土社 | 東京 | 2020 | ① pp14-23<br>② pp47-73<br>③ pp164-191<br>④ pp202-218 |
| | | | | | | | |
| | | | | | | | |

雑誌

| 発表者氏名 | 論文タイトル名 | 発表誌名 | 巻号 | ページ | 出版年 |
|---|---|---|---|---|---|
| Ueda R, Okada T, Kita Y, Ozawa Y, Inoue H, Shioda M, Kono Y, Kono C, Nakamura Y, Amemiya K, Ito A, Sugiura N, Matsuoka Y, Kaiga C, Kubota M, Ozawa H | The quality of life of children with neurodevelopmental disorders and their parents during the Coronavirus disease 19 emergency in Japan. | Sci Rep | 11 | doi: 10.1038/s41598-021-82743-x. | 2021 |
| | | | | | |
| | | | | | |