

### 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)  
分担研究報告書

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  
サリドマイド薬禍者の疼痛や肩こりに対する対策、リハビリテーションやマッサージの  
あり方に関する検討

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自立支援局  
自立支援局長  
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 講師  
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学科 教授  
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 助教  
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マッサージを含むリハビリテーション診療について検討する目的で、①令和2年度に日本のサリドマイド胎芽症者を対象に行ったアンケート調査の集計、解析、②障害を克服する為の人間工学的な技術の検討、を行った。その結果、①「部位や範囲が特定できる痛みや凝り」を「しばしば」以上の頻度で訴えるサリドマイド薬禍者の約半数が自費でマッサージ等を受け、それにより疼痛およびそれに関する生活障害が改善していることが分かった。また②二次的運動器障害を克服する為の人間工学的な技術について、その評価法を研究者間で検討した。

#### A. 研究目的

50 歳以上に達してい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治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。一方、サリ

ドマイド胎芽症者の中には症状軽減を目的としてマッサージ等の補完代替医療を受けているものがあることが、われわれが2017年度に日本国内5か所で行われた交流会に参加して行った健康ミーティングと個人面談の中でのヒアリングから明らかになっている。

そこで今年度は、サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害に対するマッサージ等の

効果の検証を目的に、マッサージを含むリハビリテーション診療について検討する目的で、①令和2年度に日本のサリドマイド胎芽症者を対象に行ったアンケート調査の集計、解析、②障害を克服する為の人間工学的な技術の検討、を行った。

## B. 研究方法

### 【アンケート調査の集計、解析】

令和2年度に日本のサリドマイド胎芽症者267名を対象に行ったGoogleフォームを用いたアンケート調査の結果を集計し解析を行った。

### 【人間工学的な技術の検討】

サリドマイド胎芽症の二次的運動器障害を克服する為の人間工学的な技術について、その評価法を検討した。

## C. 研究結果

### 【アンケート調査の集計、解析】

対象267名のうち94名(35.1%)から有効回答を得た。このうち、「部位や範囲が特定できる痛みや凝り」を「しばしば」以上の頻度で訴えるものは64名(68.1%)であった。これに対し、内服処方薬をもらう：31名(17.8%)、自費でマッサージ等を受ける：30名(17.2%)、処方湿布・塗り薬をもらう：28名(16.1%)であった(複数回答可：n=174)。64名中42名(65.6%)が「維持するのがやっと」と回答していた。

自費でマッサージ等を受けた32名(男性13名、女性18名、不明1名)から、マッサージ等を受けた前後の痛みの変化に関する回答を得た。FRS (Face rating scale：表情尺度スケール)では、マッサージ等の「前」 $3.66 \pm 1.05$ から「後」 $2.55 \pm 1.21$ と

改善していた。疼痛生活障害評価尺度(Pain Disability Assessment Scale：PDAS)の20項目の中では、「車のドアを開けたり閉めたりする」を除く19項目で有意な改善がみられた。

### 【人間工学的な技術の検討】

令和3年度はコロナ禍でもありリハビリテーション科医によるサリドマイド薬禍者の診察はごく少数に限られ、また薬禍者を対象に運動器障害に関する工学的な計測を行うことができなかった。そこで令和2年度までに検討したサリドマイド薬禍者における二次的運動器障害発生のメカニズムに基づき、これを克服する為の人間工学的な技術について、その評価法を研究者間で検討した。その結果、特に座位姿勢におけるADLの運動学的解析が必要となり、座位で用いることのできる圧センサーマットを準備し、更にビデオ画像を用いた動作解析を行うための適切なソフトウェアについて検討した。また人間工学的な介入に加えてマッサージの効果を判定するためには特に上肢末梢の皮膚温変化を計測する必要があると考え、サーモグラフィを準備した。

## D. 考察

令和2年度の研究では、サリドマイド胎芽症の成人以降の二次的運動器障害に対するアプローチとして、マッサージを含むリハビリテーション診療の介入はほとんど報告されていないことが明らかになっており、同年度に日本のサリドマイド薬禍者を対象としてアンケート調査を行った。

本アンケートより、サリドマイド薬禍者の約3分の2は「部位や範囲が特定できる痛みや凝り」を「しばしば」以上の頻度で

訴え、その約半数が自費でマッサージ等を受けていることが分かった。またマッサージ等により疼痛およびそれに関する生活障害が改善していることが分かった。しかし以前のヒアリングでは、マッサージによる症状改善が一過性であるとの意見もあり、効果の継続時間や適切な頻度に関しては今後の検討が必要である。

二次的運動器障害に対するアプローチとして、マッサージ以外のリハビリテーション介入として人間工学的なアプローチが考えられる。われわれはサリドマイド胎芽症における上肢低形成は、その程度が比較的軽い場合には、ADLにおいて上肢を使うことが多いが、加齢に伴い過用や誤用による変化が蓄積し、上肢の関節障害や腱鞘炎、末梢神経障害が生じ、一方、程度が比較的重い場合には、ADLに下肢を用いることが多く、加齢に伴い過用や誤用による変化が蓄積し、脊椎の障害や下肢の関節障害が生じる、と考えている。この観点から、ADLにおける動作を人間工学的に解析し適切な介入法を見出す意義がある。

令和3年度はコロナ禍でもあり、サリドマイド薬禍者を対象に運動器障害に関する工学的な計測を行うことができなかった。そこで前述のサリドマイド薬禍者における二次的運動器障害発生のメカニズムに基づき、これを克服する為の人間工学的な技術について、その評価法を研究者間で検討した。その結果、座位で用いることのできる圧センサーマット、ビデオ画像を用いる動作解析ソフトウェアについて検討した。また人間工学的な介入に加えてマッサージの効果を判定するためには特に上肢末梢の皮膚温変化を計測する必要があると考え、サ

ーモグラフィを検討した。これらを用い次年度にはサリドマイド薬禍者を対象とした計測を開始する予定である。

## 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マッサージを含むリハビリテーション診療について、令和2年度に日本のサリドマイド胎芽症者を対象に行ったアンケート調査の集計、解析を行い、「部位や範囲が特定できる痛みや凝り」を「しばしば」以上の頻度で訴えるサリドマイド薬禍者の約半数が自費でマッサージ等を受け、それにより疼痛およびそれに関する生活障害が改善していることが分かった。また二次的運動器障害を克服する為の人間工学的な技術について、その評価法を研究者間で検討した。

## F. 健康危険情報 該当なし

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

1) Mano H, Fujiwara S, Takamura K, Kitoh H, Takayama S, Ogata T, Haga N: Treatment approaches for congenital transverse limb deficiency: Data analysis from an epidemiological nation survey in Japan. *J Orthop Sci* 26: 650-654, 2021

2) Mano H, Fujiwara S, Haga N: How children with congenital limb deficiencies visually attend to their limbs and prostheses: eye tracking of displayed still images and visuospatial body knowledge. *Dev Neurorehab* 24(8); 547-554, 2021

3) Mano H, Noguchi S, Fujiwara S, Haga N. Relationship between degree of disability, usefulness of assistive devices, and daily use duration: an investigation in children with congenital upper limb deficiencies who use upper limb prostheses. Assist Technol. 2021. Online ahead of print.

4) 芳賀信彦: 先天性四肢形成不全・小児切断と診療の考え方. 日本義肢装具学会誌 37 (3) (先天性四肢形成不全時及び小児切断に対する義肢(支援)): 176-180, 2021

5) 藤原清香、野口智子、柴田晃希、越前谷務、大西謙吾、西坂智佳、真野浩志、芳賀信彦: 先天性四肢形成不全児・者および小児切断に対するリハビリテーション診療の実践: 東京大学医学部附属病院の取り組み. 日本義肢装具学会誌 37 (3) (先天性四肢形成不全時及び小児切断に対する義肢(支援)): 194-199, 2021

6) 芳賀信彦、藤原清香、真野浩志: 小児の感覚認知機能と運動・移動. Monthly Book Medical Rehabilitation 263 (障害児の移動能力を考える): 70-74, 2021

7) 藤原清香、芳賀信彦: 四肢形成不全症児の姿勢制御と移動能力. Monthly Book Medical Rehabilitation 263 (障害児の移動能力を考える): 37-42, 2021

## 2. 学会発表

1) 芳賀信彦: 小児の希少難病診療を通じて学ぶこと, 第58回日本リハビリテーション医学会学術集会(特別講演), 2021. 6. 10、京都

2) 滑川可奈子、藤原清香、西坂智佳、芳賀信彦: 日常的な義手の使用に至った片側尺

骨形成不全の一例. 第58回日本リハビリテーション医学会学術集会, 2021. 6. 10-13、京都

4) 柴田晃希、藤原清香、真野浩志、西坂智佳、芳賀信彦: 先天性四肢形成不全児のリハビリテーション診療. 第5回日本リハビリテーション医学会秋季学術集会, 2021. 11. 12-14、名古屋

5) 藤原清香、西坂智佳、真野浩志、小林美香、緒方徹、梅崎成子、芳賀信彦: 先天性上肢形成不全乳幼児の筋電義手における超音波画像診断を活用した電極位置の設定. 第5回日本リハビリテーション医学会秋季学術集会, 2021. 11. 12-14、名古屋

6) 芳賀信彦: 四肢形成不全と多職種によるリハビリテーション診療, 令和3年度埼玉県リハビリテーション医会特別講演会, 2021. 12. 25、オンライン

## H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む)

該当なし