

難病患者の地域ベース・コーホート研究

——ベースライン調査結果（QOLと保健福祉サービス）——

カワミナミ カツヒコ ミノワ マスミ シンジョウ マサキ サカタ キヨミ ナガイ マサキ
川南 勝彦*1 箕輪 眞澄*2 新城 正紀*3 坂田 清美*4 永井 正規*5

目的 本研究では、永井らにより検討された特定疾患情報システムを基本とし、全国レベルで難病患者個人の臨床情報、疫学・保健・福祉情報、予後情報を収集しデータベース化及びコーホート研究を行っている。今回は、平成11年に実施したベースライン調査結果を基に、今後の保健福祉サービスの在り方について検討するための基礎資料を得るとともに、QOL評価指標として Short Form 36 Health Survey (SF-36) と、難病患者に共通の主観的QOL尺度（主観的QOL尺度）を使用して、各難病疾患別比較及び国民標準値（地域社会で通常の生活を送っている国民の平均値）との比較を行うことを目的とした。

対象 全国の保健所のうち、本研究に調査協力可能であった35保健所管内における新規・継続特定疾患医療受給者（平成11年7月1日時点において受給資格を得ている者）とした。

方法 特定疾患治療研究事業医療受給申請書、臨床調査個人票、疫学・福祉情報調査、QOL（主観的QOL尺度、SF-36）、保健福祉サービスへのディマンドを対象者に対して調査し、共分散分析を使って、性別、年齢階級、日常生活動作（または重症度）、医療機関への受診状況、保健福祉（公的）サービス利用状況、疾患分類を調整したQOL（主観的QOL尺度、SF-36各サブスケール：日常役割機能・身体、社会生活機能）得点を各疾患別に比較するとともに、国民標準値とのSF-36各サブスケールスコアについて比較を行った。

結果 1. 調査データを得られたのは30保健所であり、回収率は57.7%（=2,059人：調査実施数／3,571人：調査予定者数）であった。そのうち、疫学・福祉情報調査、QOLと保健福祉サービスへのディマンド調査に協力を同意しなかった者または回答拒否者497人（24.1%）であった。

2. 主観的QOL尺度得点では、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病が、他の疾患と比較して有意に低く、SF-36尺度各サブスケールにおける国民標準値との比較においても同疾患及び重症筋無力症において、各サブスケールで有意に国民標準値より低く、その中で最も低いサブスケールは社会生活機能であり、筋萎縮性側索硬化症で顕著な結果であった。

考察及び結論 神経・筋疾患といわれる重症筋無力症、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病において、症状としてのADL低下や寝たきり等の身体問題により、仕事や普段の活動の制限や家族・友人・他人とのつきあいが制限され、病気の受容及び志気にも影響したと考えられた。さらに、これら疾患患者の保健福祉（公的）サービス利用割合が高いにもかかわらず、現在受けているサービスへの満足度は、ほとんどの疾患で約4割で、寝たきり患者においても同様で変化がみられないことから、保健福祉サービスの在り方を検討する必要があると考えられた。

キーワード 難病、保健福祉（公的）サービス、QOL、比較

* 1 国立公衆衛生院疫学部主任研究官 * 2 同部長 * 3 沖縄県立看護大学講師

* 4 和歌山県立医科大学公衆衛生学助教授 * 5 埼玉医科大学公衆衛生学教授

I 目 的

われわれは、1999年以来、永井らにより検討された特定疾患情報システム¹⁾を基本とし、全国レベルで難病（厚生労働省特定疾患治療研究事業で対象となっている疾患）患者個人の臨床情報、疫学・保健・福祉情報、予後情報を収集しデータベース化を行い、保健所における情報システム構築の一助となるとともに、併せてquality of life（難病患者に共通の主観的QOL尺度²⁾：主観的QOL尺度，Short Form 36 Health Survey：SF-36³⁾），保健福祉サービスへのディマンドを調査することで、患者の多様なディマンドに対応したきめ細やかな在宅ケア・相談サービス、サービスの質の向上・効率化といった評価の一助となることを目指している。

難病は現在まで原因・治療方法が確立されていない疾患である。また、長期慢性的な経過をたどる。歩行、食事、排泄、コミュニケーション、呼吸障害などの多様な障害を生じ、そのため、日常生活が大きく制約されると同時に精神的苦痛も極めて強く家族にとっても大きな負担となっている。したがって、これらの患者及び家族の苦しみを緩和するための公的サービスの充実が必要であるとともに、QOLを向上させる必要性があるとされている。しかし、難病患者のQOL評価や保健福祉（公的）サービスの利用状況に関する研究は少なく、その実態は明らかではない。本研究は、今後の公的サービスの在り方について検討するための基礎資料を得るとともに、QOL評価指標としてSF-36と主観的QOL尺度を使用して、各難病疾患別比較および国民標準値（地域社会で通常の生活を送っている国民の平均値）との比較を行うことを目的とした。

II 方 法

1. 対象者は、全国の保健所のうち、本研究に調査協力可能であった35保健所管内における新規・継続特定疾患医療受給者（平成11年7月1

日時点において受給資格を得ている者）とした。ただし、各保健所で調査可能な対象者を決定する場合、疾患別、地区別、新規／継続者別により、対象者を限定するものとした。限定の内訳としては、複数選択であるが疾患別に限定（24施設，69%），地区別に限定（6施設，17%），新規／継続別に限定（4施設，11%），その他（5施設，14%）であった。その他の理由だけで限定した保健所は2施設で、理由は「重症患者と認定された者」，「限定せずすべて」であった。そして、急性経過をたどる疾患または、原因が同定され新規発生患者のない疾患を除外疾患とし、劇症肝炎、重症急性膵炎、クロイツフェルト・ヤコブ病、スモンとした。

2. 調査項目

基本属性：特定疾患治療研究事業医療受給申請書，臨床情報：臨床調査個人票，疫学・福祉情報調査（日常生活動作，保健・医療・福祉サービスの利用状況など），QOL（主観的QOL尺度，SF-36），保健福祉サービスへのディマンド調査の各項目を調査するとともに、調査協力への同意書を得た。ただし、SF-36を使用するにあたっては日本語版SF-36開発者である福原の許可を得た。

3. 調査方法⁴⁾について、各協力保健所が調査対象とした難病患者に対して、新規・更新申請時に調査項目に関する面接調査を原則的に行った。ただし、面接調査が不可能な場合にのみ郵送調査を行った。

4. 解析方法として、はじめに本研究対象患者の性別・疾患別・年代別構成割合を、1997年度の全国特定疾患医療受給者調査と比較（適合度検定： χ^2 検定）した。

次に、基礎情報として、疾患別の日常生活動作状況，疾患別及びに日常生活動作別にみた公的サービス利用状況（疫学・福祉情報調査内で、保健福祉サービスに関する「この1年間に医療機関への受診以外に公的サービスを受けましたか」という質問に対して、「ホームヘルパーによるサービス」，「看護婦によるサービス」，「保健婦によるサービス」の回答のうち1つでも「受けた」と回答した者を公的サービス利用者とし

た), 公的サービスを受けた患者について, 現在受けているサービスへの日常生活動作別にみた満足度(やや満足～満足している割合), 疾患別及び日常生活動作別にみた医療機関への受診状況を解析した。ただし, 疾患により解析数の少ない疾患(解析数<50)については除外し解析を行った。

さらに, 共分散分析を使って, 性別, 年齢階級のほか日常生活動作といった変数を含めた分析モデル(目的変数=QOL(主観的QOL尺度, SF-36各サブスケール: 日常役割機能・身体, 社会生活機能)得点, 説明変数=性別, 年齢階級, 日常生活動作(または重症度), 医療機関への受診状況, 公的サービス利用状況, 疾患分類)により調整したQOL(主観的QOL尺度, SF-36各サブスケール: 日常役割機能・身体, 社会生活機能)得点の平均値及び95%信頼区間を算出し

各疾患別に比較した⁵⁾。各疾患の比較は, 多重比較の調整: Bonferroniによる方法を取り, 有意水準を0.05とした。

ただし, SF-36の点数化はInternational Quality of Life Associationの規定したガイドライン³⁾に従い, 主観的QOL尺度については, 所定の方法で合計得点を算出した²⁾。SF-36各サブスケールスコアの最低点0, 最高点100, 主観的QOL尺度スコアについては最低点0, 最高点18である。重症度については, 全身性エリテマトーデス及び潰瘍性大腸炎の臨床調査個人票に記載のある臨床基準を参照した。

次に, 各疾患患者と国民標準値(地域社会で通常の生活を送っている国民の平均値)⁶⁾とのSF-36各サブスケールスコア(日常役割機能・身体, 社会生活機能)について比較を行った。各サブスケールについてのスコアは, 国民標準値

(単位: 人, ()内%)

表1 本研究対象者と全国データとの比較

	本研究対象者			1997年度の全国特定疾患医療受給者調査		
	総数	男性	女性	総数	男性	女性
総数	2 059(100.0)	891(43.3)	1 168(56.7)	394 099(100.0)	156 032(39.6)	238 067(60.4)
ベ ー チ ャ ッ ト 病	37(1.8)	16(43.2)	21(56.8)	16 287(4.1)	6 904(42.4)	9 383(57.6)
多 発 性 硬 化 症	69(3.4)	22(31.9)	47(68.1)	6 959(1.8)	2 198(31.6)	4 761(68.4)
重 症 筋 無 力 症	91(4.4)	27(29.7)	64(70.3)	11 218(2.8)	3 491(31.1)	7 727(68.9)
全身性エリテマトーデス	69(3.4)	9(13.0)	60(87.0)	45 109(11.4)	4 271(9.5)	40 838(90.5)
再 生 不 良 性 貧 血	10(0.5)	3(30.0)	7(70.0)	9 508(2.4)	3 905(41.1)	5 603(58.9)
サルコイドーシス	7(0.3)	3(42.9)	4(57.1)	16 039(4.1)	5 087(31.7)	10 952(68.3)
筋萎縮性側索硬化症	91(4.4)	55(60.4)	36(39.6)	4 784(1.2)	2 958(61.8)	1 826(38.2)
強皮症, 皮膚(多発性)筋炎	82(4.0)	15(18.3)	67(81.7)	24 558(6.2)	4 592(18.7)	19 966(81.3)
特発性血小板減少性紫斑病	13(0.6)	5(38.5)	8(61.5)	28 804(7.3)	8 732(30.3)	20 072(69.7)
結節性動脈周囲炎	5(0.2)	3(60.0)	2(40.0)	2 522(0.6)	1 106(43.9)	1 416(56.1)
潰瘍性大腸炎	71(3.4)	34(47.9)	37(52.1)	52 261(13.3)	26 365(50.4)	25 896(49.6)
大動脈炎症候群	19(0.9)	2(10.5)	17(89.5)	4 990(1.3)	389(7.8)	4 601(92.2)
ビュルガー病	20(1.0)	20(100.0)		10 363(2.6)	9 174(88.5)	1 189(11.5)
天 疱 瘡	3(0.1)	1(33.3)	2(66.7)	2 842(0.7)	1 125(39.6)	1 717(60.4)
脊髄小脳変性症	371(18.0)	196(52.8)	175(47.2)	16 145(4.1)	8 279(51.3)	7 866(48.7)
ク ロ ー ン 病	16(0.8)	9(56.3)	7(43.8)	15 576(4.0)	10 675(68.5)	4 901(31.5)
悪性関節リウマチ	7(0.3)	1(14.3)	6(85.7)	5 326(1.4)	1 277(24.0)	4 049(76.0)
パーキンソン病	860(41.8)	358(41.6)	502(58.4)	47 231(12.0)	19 145(40.5)	28 086(59.5)
アミロイドーシス	1(0.0)		1(100.0)	769(0.2)	336(43.7)	433(56.3)
後縦靱帯骨化症	58(2.8)	42(72.4)	16(27.6)	16 465(4.2)	10 817(65.7)	5 648(34.3)
ハンチントン舞蹈病	8(0.4)	3(37.5)	5(62.5)	507(0.1)	243(47.9)	264(52.1)
ウイルス動脈輪閉塞症	45(2.2)	21(46.7)	24(53.3)	6 723(1.7)	2 440(36.3)	4 283(63.7)
ウェゲナー肉芽腫	2(0.1)		2(100.0)	720(0.2)	327(45.4)	393(54.6)
特発性拡張型心筋症	11(0.5)	11(100.0)		9 447(2.4)	6 809(72.1)	2 638(27.9)
シャイ・ドレーガー症候群	6(0.3)	5(83.3)	1(16.7)	584(0.1)	431(73.8)	153(26.2)
表皮水疱症	1(0.0)		1(100.0)	313(0.1)	150(47.9)	163(52.1)
膿 疱 性 乾 癬	1(0.0)	1(100.0)		995(0.3)	491(49.3)	504(50.7)
広範性脊柱管狭窄症	4(0.2)	2(50.0)	2(50.0)	1 176(0.3)	841(71.5)	335(28.5)
原発性胆汁性肝硬変	25(1.2)		25(100.0)	8 320(2.1)	912(11.0)	7 408(89.0)
特発性大腿骨頭壊死症	24(1.2)	15(62.5)	9(37.5)	6 555(1.7)	4 364(66.6)	2 191(33.4)
混合性結合組織病	5(0.2)	1(20.0)	4(80.0)	4 007(1.0)	318(7.9)	3 689(92.1)
特発性間質性肺炎	3(0.1)		3(100.0)	2 360(0.6)	1 511(64.0)	849(36.0)
網膜色素変性症	24(1.2)	11(45.8)	13(54.2)	14 636(3.7)	6 369(43.5)	8 267(56.5)

との標準化した差得点とした。国民標準値は1995年に調査され性・年齢階級別に12カテゴリーに区分されている。年齢階級は6カテゴリーで29歳以下, 30～39歳, 40～49歳, 50～59歳, 60～69歳, 70歳以上である。各患者の性・年齢を考慮して、各患者のデータと、患者と同じ性・年齢階級に属する国民標準値との比較を行った。各性・年齢階級別に国民標準値が各患者得点から差し引かれ、この差が国民標準値の標準偏差によって割られ標準化⁷⁾⁸⁾(計算式は下記*1参照)

されている。各患者得点と国民標準値との差は、Wilcoxonの符号付き順位和検定によって検定された。全ての統計処理はSPSS 9.0.1J for Windowsによってなされた。

*1 国民標準値の標準偏差で標準化した差得点 = { }内の平均値 {(患者個人のスコア値 - 患者個人に一致した性・年齢階級別の国民標準値) / 患者個人に一致した性・年齢階級別国民標準値の標準偏差}

表2 疾患別、日常生活動作別の公的サービスの利用状況と医療機関への受診状況

(単位 人, ()内%)

	調査数	公的サービスの利用状況		医療機関への受診状況		
		受けていない	受けた	主に通院	主に往診	主に入院
重症筋無力症						
総数	68(100.0)	47(69.1)	12(17.6)	45(66.2)	1(1.5)	1(1.5)
作業ができる	45(66.2)	36(80.0)	4(8.9)	30(66.7)		1(2.2)
歩行ができる	19(27.9)	11(57.9)	6(31.6)	14(73.7)		
座ることができる	1(1.5)		1(100.0)			
寝たきり	1(1.5)		1(100.0)		1(100.0)	
全身性エリテマトーデス						
総数	54(100.0)	42(77.8)	9(16.7)	49(90.7)	1(1.9)	1(1.9)
作業ができる	41(75.9)	32(78.0)	6(14.6)	37(90.2)	1(2.4)	1(2.4)
歩行ができる	11(20.4)	8(72.7)	3(27.3)	10(90.9)		
座ることができる	2(3.7)	2(100.0)		2(100.0)		
(再掲)重症度別						
総数	45(100.0)	35(77.8)	8(17.8)	41(91.1)	1(2.2)	
軽症	31(68.9)	25(80.6)	4(12.9)	29(93.5)	1(3.2)	
中等症	3(6.7)	2(66.7)	1(33.3)	3(100.0)		
重症	11(24.4)	8(72.7)	3(27.3)	9(81.8)		
筋萎縮性側索硬化症						
総数	69(100.0)	27(39.1)	37(53.6)	27(39.1)	17(24.6)	17(24.6)
作業ができる	3(4.3)	2(66.7)	1(33.3)	3(100.0)		
歩行ができる	14(20.3)	8(57.1)	6(42.9)	11(78.6)		1(7.1)
座ることができる	17(24.6)	6(35.3)	10(58.8)	11(64.7)	3(17.6)	2(11.8)
寝たきり	29(42.0)	8(27.6)	19(65.5)		13(44.8)	13(44.8)
潰瘍性大腸炎						
総数	60(100.0)	49(81.7)	3(5.0)	46(76.7)		1(1.7)
作業ができる	52(86.7)	45(86.5)	2(3.8)	42(80.8)		1(1.9)
歩行ができる	5(8.3)	3(60.0)		4(80.0)		
座ることができる	2(3.3)	1(50.0)	1(50.0)			
(再掲)重症度別						
総数	41(100.0)	34(82.9)	2(4.9)	34(82.9)		1(2.4)
軽症	16(39.0)	15(93.8)		13(81.3)		
中等症	21(51.2)	16(76.2)	1(4.8)	19(90.5)		
重症	4(9.8)	3(75.0)	1(25.0)	2(50.0)		1(25.0)
脊髄小脳変性症						
総数	303(100.0)	151(49.8)	119(39.3)	198(65.3)	24(7.9)	39(12.9)
作業ができる	60(19.8)	34(56.7)	19(31.7)	48(80.0)	1(1.7)	2(3.3)
歩行ができる	90(29.7)	54(60.0)	29(32.2)	71(78.9)	1(1.1)	5(5.6)
座ることができる	105(34.7)	41(39.0)	54(51.4)	72(68.6)	14(13.3)	7(6.7)
寝たきり	35(11.6)	18(51.4)	12(34.3)	1(2.9)	6(17.1)	25(71.4)
パーキンソン病						
総数	657(100.0)	255(38.8)	315(47.9)	406(61.8)	42(6.4)	68(10.4)
作業ができる	121(18.4)	63(52.1)	45(37.2)	100(82.6)	1(0.8)	
歩行ができる	266(40.5)	110(41.4)	122(45.9)	199(74.8)	11(4.1)	14(5.3)
座ることができる	119(18.1)	38(31.9)	67(56.3)	55(46.2)	11(9.2)	19(16.0)
寝たきり	78(11.9)	20(25.6)	46(59.0)	18(23.1)	17(21.8)	30(38.5)

注 総数は不明を含む

Ⅲ 結 果

1. 調査データを得られたのは30保健所であり、回収率は57.7%（=2,059人：調査実施数／3,571人：調査予定者数）であった。そのうち、疫学・福祉情報調査、QOLと保健福祉サービスへのディマンド調査に協力を同意しなかった者または回答拒否者497人（24.1%）であった。これらの患者は除いて4.以降の解析を行った。
2. 本研究対象患者の性別・疾患別構成割合を、1997年度の全国特定疾患医療受給者調査と比較すると、全国と比較してパーキンソン病と脊髄小脳変性症の割合が有意に高く、潰瘍性大腸炎と全身性エリテマトーデスの割合が有意に低い結果であった（表1）。ただし、1997年度の全国特定疾患医療受給者調査における疾患区分が、強皮症と皮膚筋炎・多発性筋炎とをまとめて集計しているの、それに準じて比較を行った。
3. 次に本研究対象患者の年代別構成割合を、1997年度の全国特定疾患医療受給者調査と比較

- すると、本研究対象患者：60歳代30.1%，70歳以上32.1%，1997年度全国：60歳代23.3%，70歳以上16.4%であり、本研究対象患者は全国と比較して高齢者割合が有意に高い結果であった。
4. 疾患別の日常生活動作については、筋萎縮性側索硬化症では寝たきりが最も多く約4割、続いてパーキンソン病、脊髄小脳変性症の順であった。脊髄小脳変性症では歩行はできないが座ることができるが最も多く約3割、パーキンソン病では作業はできないが歩行ができるが最も多く約4割という結果であった。作業及び歩行ができる割合の高い（>90%）疾患は、重症筋無力症、全身性エリテマトーデス、潰瘍性大腸炎であった（表2）。
5. 疾患別に公的サービス利用状況をみると、利用割合の最も高いのは筋萎縮性側索硬化症の約5割であり、続いてパーキンソン病、脊髄小脳変性症であった。

日常生活動作別にみると寝たきりで公的サービスの利用割合が高いが、筋萎縮性側索硬化症及びパーキンソン病では約6割であるのに対して、脊髄小脳変性症では約3割と低い結果であった（表2）。

疾患別の医療機関への受診状況は、ほとんどの疾患において主に通院割合が高かったが、筋萎縮性側索硬化症のみ往診・入院割合が高い結果であった。

また、日常生活動作別にみた医療機関への受診状況をみると、寝たきりで入院割合が高く、筋萎縮性側索硬化症及びパーキンソン病では約4割であるのに対して、脊髄小脳変性症では約7割と高い結果であった（表2）。

6. 公的サービスを受けた患者について、現在受けているサービスへの満足度を解析した結果、やや満足～満足している割合が、筋萎縮性側索硬化症で約4割、パーキンソン病と脊髄小脳変性症で約3割と筋萎縮性側索硬化症で満足度が高い結果であった。日常生活動作別に現在受けているサービスへの満足度を調査数の多い疾患でみる

表3 疾患別、日常生活動作別の現在受けている
公的サービスへの満足度（公的サービスを受けた患者）

（単位 人、（ ）内%）

	対象数	現在受けている公的サービスへの満足度		
		やや満足～満足	ふつう	やや不満～不満
重症筋無力症 総数	12	3(25.0)	7(58.3)	1(8.3)
全身性エリテマトーデス 総数	9	3(33.3)	1(11.1)	1(11.1)
筋萎縮性側索硬化症 総数	37	16(43.2)	11(29.7)	3(8.1)
作業ができる	1	1(100.0)		
歩行ができる	6	2(33.3)	2(33.3)	1(16.7)
座ることができる	10	3(30.0)	3(30.0)	
寝たきり	19	9(47.4)	6(31.6)	2(10.5)
潰瘍性大腸炎 総数	3	2(66.7)	1(33.3)	
脊髄小脳変性症 総数	119	35(29.4)	50(42.0)	14(11.8)
作業ができる	19	5(26.3)	11(57.9)	2(10.5)
歩行ができる	29	8(27.6)	13(44.8)	2(6.9)
座ることができる	54	17(31.5)	20(37.0)	7(13.0)
寝たきり	12	4(33.3)	4(33.3)	3(25.0)
パーキンソン病 総数	315	98(31.1)	151(47.9)	38(12.1)
作業ができる	45	13(28.9)	22(48.9)	4(8.9)
歩行ができる	122	40(32.8)	55(45.1)	14(11.5)
座ることができる	67	25(37.3)	26(38.8)	12(17.9)
寝たきり	46	13(28.3)	26(56.5)	3(6.5)

注 総数は不明を含む

表4 疾患別の各尺度別平均値（調整前・後）

	難病患者に共通の主観的QOL尺度 (min=0, max=18)				SF-36サブスケール (min=0, max=100)						
	調査数	調整前	調整後	95%信頼区間	調査数	日常役割機能・身体			社会生活機能		
						調整前	調整後	95%信頼区間	調整前	調整後	95%信頼区間
重症筋無力症	68	10.3	9.4	8.1-10.8	68	56.3	50.7	38.8-62.7	70.5	57.4	48.6-66.3
全身性エリテマトーデス	54	10.6	10.4	8.9-11.9	54	65.6	63.1	49.8-76.4	78.7	67.8	57.9-77.7
筋萎縮性側索硬化症	69	5.8	7.6	6.3-8.9	64	29.5	48.4	36.4-60.5	43.3	50.5	41.5-59.4
潰瘍性大腸炎	60	12.5	11.3	9.8-12.7	59	75.4	64.4	51.2-77.7	81.9	65.9	56.1-75.7
脊髄小脳変性症	303	6.8	7.8	6.8-8.7	295	32.2	46.8	38.3-55.4	56.0	59.3	52.9-65.6
パーキンソン病	654	6.9	7.9	7.0-8.9	624	27.9	45.6	37.3-53.8	54.2	56.5	50.3-62.6

注 調整後：共分散分析により、性・年齢階級・日常生活動作（または重症度）・医療機関への受診状況・公的サービスの利用状況を調整した値

と、寝たきりでは同様の結果であった（表3）。
7. SF-36尺度得点を疾患別に性別・年齢階級・日常生活動作（または重症度）・医療機関への受診状況・公的サービス利用状況・疾患分類を調整した平均値（表4）で比較すると、各サブスケール日常役割機能・身体、社会生活機能ともに疾患別に有意な違いは認められなかったが、比較的低いのはどちらも筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病であった。次に、難病患者に共通の主観的QOL尺度では、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病が、他の疾患、特に全身性エリテマトーデス、潰瘍性大腸炎と比較して有意に低い結果であった。

8. SF-36尺度各サブスケールにおける国民標準値との疾患別比較（表5）では、神経・筋疾患といわれる重症筋無力症、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病において、各サブスケールで有意に国民標準値より低い結果であった。その中で最も低いサブスケールは社会生活機能であり、筋萎縮性側索硬化症で顕著な結果であった。

IV 考 察

本研究の対象患者は全国と比較して、疾患別にはパーキンソン病と脊髄小脳変性症の割合が多く、潰瘍性大腸炎と全身性エリテマトーデスの割合が少なく、年代としては、60～70歳代が多く、疾患構成及び年代ともにある程度の偏りがあると考えられる。しかし、現実としては無作為抽出による調査対象者の選択の困難（日本

表5 SF-36尺度各サブスケールにおける国民標準値との疾患別比較

	SF-36サブスケール(min=0, max=100)	
	日常役割機能・身体	社会生活機能
重症筋無力症(n=68)	-0.57*	-0.64*
全身性エリテマトーデス(n=54)	-0.29	-0.26
筋萎縮性側索硬化症(n=64)	-1.06*	-1.67*
潰瘍性大腸炎(n=59)	-0.06	-0.12
脊髄小脳変性症(n=295)	-1.03*	-1.16*
パーキンソン病(n=624)	-0.94*	-1.05*

注 各スコア＝国民標準値の標準偏差で標準化した差得点
* Wilcoxonの符号付き順位和検定で $p < 0.05$

全体で全疾患患者を登録しデータベース化を行っていない現状）があげられる。現在、厚生労働省特定疾患治療研究は、厚生労働省が特定する疾患、いわゆる難病対策のための研究を推進するため、難病患者医療費の個人負担分を公費から援助するためのシステムであり、患者本人の申請を必要としている。しかし、申請時資料は、全国一律にデータベース化されておらず、難病患者の属性（性、年齢、疾患名、住所地など）を把握することは非常に困難な現状にあるからである。このような現状をふまれば、本研究は、全国レベルで難病患者の実態を調査し、疾患別に比較を行った研究として意義ある研究と考えられる。しかし、本研究では回収率が低くある程度の偏りを生じる可能性があるので、今後追跡を経る間にデータの得られなかった患者についても調査を行えるよう検討していく必要がある。

次に、難病患者のQOL評価ということで、指標としてSF-36と主観的QOL尺度を使用した。健康関連QOLを測定する尺度は多数開発されており、その機能から一般的尺度と疾患特異

的尺度に2分される⁷⁹⁾。一般的尺度とは、特定の疾患をターゲットにしない包括的な尺度であり、疾患特異的尺度とはある疾患の患者を評価するために開発された尺度である。

SF-36は1990年代にアメリカにおいて開発された代表的な一般的尺度の一つであり、36の項目からなり、これらの質問項目は身体機能、日常役割機能・身体、体の痛み、全体的な健康観、活力、社会生活機能、日常役割機能・精神及び心の健康に関する質問項目の8つのサブスケールに分けられている。日本語版SF-36も開発され、その信頼性及び妥当性が確認されている。

SF-36をはじめとする一般的尺度は、国民標準値や他の疾患群との比較には適しているが、個々の疾患に特異的な問題点について評価することはできない。そのため、疾患特異的尺度が個々の疾患について開発されており、たとえば、難病患者に関する疾患特異的な尺度としては、難病患者の日常生活活動レベルを評価した研究¹⁰⁾や、疾患単位でQOLを測定し社会的要因や心理的要因との関連性を分析した研究¹¹⁾¹²⁾はみられる。一方、難病患者については、疾患特異的尺度を開発した欧米の先行研究¹³⁾¹⁴⁾はあるものの、日本人を対象に開発された、信頼性及び妥当性が確立した疾患特異的尺度は少ないというのが現状である。その中で、開発された「難病患者に共通の主観的QOL尺度」²⁾は、主観的QOLの概念を構成する下位次元として、受容及び志気を想定し9項目から構成される尺度であり、信頼性及び妥当性の検討をも行われており、構成概念妥当性と信頼性を有する尺度である。

評価結果としてSF-36より、日常役割機能・身体（身体問題による仕事や普段の活動の制限）、社会生活機能（家族・友人・他人とのつきあい）ともに、国民標準値との比較で神経・筋疾患といわれる重症筋無力症、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病において低い結果であった。また、腎移植患者における研究結果⁸⁾と比較して、日常役割機能・身体、社会生活機能どちらにおいても重症筋無力症、筋萎縮性側索硬化症、脊髄小脳変性症、パーキンソン病が低い結果であった。これらの疾患において

日常生活動作で寝たきり患者が多い結果より、症状としてのADL低下や身体問題により仕事や普段の活動の制限や、家族・友人・他人とのつきあいが制限されたと考えられる。

さらに主観的QOL尺度より、上記神経・筋疾患において志気及び受容が他の疾患と比較して有意に低く、これら疾患は運動障害を伴う特に歩行障害を伴う疾患であり、ADL低下をきたし病気の受容及び志気に影響したと考えられる。さらに、これら疾患患者の公的サービス利用割合が高いにもかかわらず、現在受けているサービスへの満足度は、ほとんどの疾患で約4割で、寝たきり患者においても同様で変化がみられないことから、保健福祉サービスの在り方を検討する必要があると考えられる。特定疾患の療養過程や罹患する臓器・組織、症状は多岐にわたり、同じ疾患群にまとめられる疾患同士でも、大きく異なることがあり、同一疾患の患者・家族でも、おかれている社会・家族状況が多様であるため¹⁵⁾、きめ細やかなサービスが必要となってきた。このような観点から、難病患者に関係する機関間の連絡・調整、カンファレンスなどによる支援チームの運営が望まれており¹⁵⁾、保健所と市町村とが連携を密にして、効果的な保健福祉サービスの提供を推進することが必要である。

謝 辞

本研究を進めるにあたり、ご協力いただいた北海道岩見沢保健所(廣田洋子)、北海道帯広保健所(貞本晃一)、宮城県栗原保健所(佐藤節子)、福島県県南保健所(石下恭子)、千葉県茂原保健所(碧井猛)、千葉県船橋保健所(小倉敬一)、杉並区高円寺保健センター(北村暁子)、横浜市旭区旭保健所(母里啓子)、新潟県上越保健所(飯塚俊子)、富山県高岡保健所(飯田恭子)、福井県福井保健所(竹内駿男)、長野県木曽保健所(宮川幸昭)、長野県伊那保健所(白井祐二)、岐阜県伊奈波保健所(三徳和子)、静岡県北遠健康福祉センター(林敬)、愛知県西尾保健所(端谷毅)、愛知県稲沢保健所(澁谷いづみ)、愛知県一宮保健所(久間美智子)、滋賀県大津保健所(鳴村清志)、兵庫県社保健所(大島秀夫)、兵庫県加古川保健

所(安元兆), 島根県雲南保健所(中川昭生), 福岡県田川保健所(尾形由起子), 福岡県久留米・筑紫・糸島保健所(眞崎直子), 熊本県天草保健所(尾方克巳), 大分県宇佐高田保健所(大神貴史), 鹿児島県志布志保健所(福森順子), 鹿児島県鹿屋保健所(中俣和幸), 沖縄県南部保健所(小渡有明), 沖縄県宮古保健所(平良セツ子)の方々に謝意を表す。ただし, ベースライン調査時の協力保健所名及び協力者名を表記した。

本研究は, 厚生科学研究特定疾患対策研究事業「特定疾患の疫学に関する研究班」(主任研究者: 稲葉裕)の分担研究として実施されたものである。

文 献

- 1) 永井正規, 橋本修二, 能勢隆之, 他. 厚生省特定疾患(難病)情報システムの考案. 厚生指標 1998; 45(10): 3-7.
- 2) 川南勝彦, 古谷野亘, 簗輪眞澄, 他. 難病患者に共通の主観的QOL尺度の開発. 日本公衆衛生雑誌 2000; 47(12): 990-1003.
- 3) John E. Ware, Kristin K. Snow, Mark Kosinski, Barbara Gandek. Scoring the SF-36. SF-36 Health Survey Manual and Interpretation Guide. Quality Metric Inc 1997; 6: 1-6: 22.
- 4) 川南勝彦, 簗輪眞澄, 永井正規, 他. 地域ベースにおける難病患者コホート研究. 厚生省特定疾患調査研究事業特定疾患に関する疫学研究班平成10年度研究業績集1999; 40-8.
- 5) 尾藤誠司, 福原俊一. Short Form 36 Health Survey(SF-36)面接用バージョンの妥当性, 及び施設入所老人と一般在宅老人との比較を中心とした高齢者Health-Related Quality of Life測定の試み. 日本老年医学会雑誌 1998; 35(6): 458-63.
- 6) Shunichi Fukuhara, John E. Ware, Mark Kosinski, et al. Psychometric and Clinical Tests of Validity of the Japanese SF-36 Health Survey. J Clin Epidemiology 1998; 51(11): 1045-53.
- 7) 林洋子, 福原俊一. 腎移植患者のQOL腎と透析 1999; 46(3): 375-8.
- 8) Hayashi Y, Fukuhara S, Green J, et al. Health-related quality of life among renal-transplant recipients in Japan. Transplantation 1999; 68(9): 1331-5.
- 9) 福原俊一. QOL研究の意義と問題点. 腎と透析 1999; 46(3): 329-34.
- 10) 長野聖, 西岡千里, 中西範幸, 多田羅浩三. 在宅神経筋難病患者の日常生活活動評価の検討. 総合リハビリテーション 1999; 27(4): 359-66.
- 11) 山田孝子, 加知輝彦, 米山榮, 他. 高齢パーキンソン病患者における生活の質 日常生活と心理的要因について. 総合臨床 1997; 46(11): 2824-6.
- 12) 山田孝子, 加知輝彦, 米山榮, 他. 高齢パーキンソン病患者の生活の質(QOL)と社会的要因. Geriatric Medicine 1997; 35(10): 1413-5.
- 13) Rudick RA, Miller D, Clough JD, et al. Quality of life in multiple sclerosis. Comparison with inflammatory bowel disease and rheumatoid arthritis. Arch Neurol 1992; 49(12): 1237-42.
- 14) Schrag A, Selai C, Jahanshahi M, et al. The EO-5D--a generic quality of life measure--is a useful instrument to measure quality of life in patients with Parkinson's disease. J Neurol Neurosurg Psychiatry. 2000; 69(1): 67-73.
- 15) 澤田甚一. 介護保険時代の地域難病ケア 保健所難病事業をどのように進めていくか. 生活教育 2000; 44(7): 7-20.